

Leczenie operacyjne dysplazji włóknistej kości i ubytku włóknistego kości z zastosowaniem przeszczepów allogenicznych

Surgical Treatment of Dysplasia Fibrosa and Defectus Fibrosus with Bone Allografts

Patryk Tomasiak^{1(A,B,C,D,E,F)}, Jerzy Spindel^{1(A,D,E,F,G)}, Leszek Miszczyk^{2(A,C,D,E,F)}, Adam Chrobok^{1(C,E,F)}, Bogdan Koczy^{1(D,E,F,G)}, Jerzy Widuchowski^{1(D,E,F,G)}, Tomasz Mrozek^{1(C,E,F)}, Jacek Matysiakiewicz^{1(C,D,E,F)}, Bolesław Pilecki^{2(D,E,F)}

¹ Wojewódzki Szpital Chirurgii Urazowej im. J. Daaba, Piekary Śląskie

² Centrum Onkologii, Instytut im. M. Skłodowskiej-Curie, Gliwice

¹ Dr J. Daab Regional Hospital of Trauma Surgery, Piekary Śląskie

² Maria Skłodowska-Curie Memorial Cancer Center and Institute of Oncology, Gliwice

STRESZCZENIE

Wstęp. Dysplazja włóknista kości i ubytek włóknisty kości są chorobami, których wspólną cechą jest formowanie w obrębie kośćca ognisk tkanki włóknistej o nieuporządkowanej strukturze, wykazujących tendencję do zwiększania swojej objętości kosztem prawidłowej struktury kostnej. Celem pracy jest ocena efektywności leczenia operacyjnego dysplazji włóknistej kości i ubytku włóknistego kości przy użyciu przeszczepów allogenicznych w oparciu o własne doświadczenia.

Material i metody. Grupę badaną stanowiło 99 chorych w wieku od 9 do 58 lat (średnia 22), 56 mężczyzn i 43 kobiety, w latach 1999-2005 leczonych operacyjnie przez Zespół Guzów i Nowotworów Kości. Wykonano u tych chorych 145 zabiegów operacyjnych z użyciem przeszczepów allogenicznych kości. U wszystkich badanie histopatologiczne potwierdziło dysplazję włóknistą lub ubytek włóknisty kości. Wszyscy chorzy byli pod kontrolą ambulatoryjną, a okres obserwacji wynosił od 1 roku do 5 lat (średnio 2,5).

Wyniki. U 85 chorych nie stwierdzono wznowy. W grupie tej wykonano 96 zabiegów operacyjnych. Pozostałą grupę stanowiło 14 chorych, u których wystąpiły miejscowe wznowy i brak przebudowy przeszczepu. W tej grupie z powodu wielokrotnych wznów (od 2 do 6) wykonano 49 zabiegów operacyjnych.

Wnioski. 1. W przypadku dysplazji włóknistej kości i ubytku włóknistego kości zabieg operacyjny resekcji zmiany i uzupełnienia ubytku przeszczepem kostnym jest podstawowym sposobem leczenia i daje dobre wyniki. 2. Przeszczepy allogeniczne mrożone korowo-gąbczaste ulegają dobremu wżęciu i prawidłowej przebudowie kostnej bez powikłań procesem zapalnym, co umożliwia uzyskanie dobrych wyników leczenia operacyjnego.

Słowa kluczowe: dysplazja włóknista, ubytek włóknisty, przeszczep allogeniczny kości

SUMMARY

Background. A common feature of dysplasia fibrosa and defectus fibrosus is the development of foci of disordered fibrous tissue in bone that tend to grow and displace regular bone tissue. The objective of this study was to evaluate the efficacy of surgical treatment with bone allografts in patients with fibrous dysplasia and fibrous defect of bone.

Material and methods. The study group consisted of 99 patients aged from 9 to 58 years (mean age 22 years), including 56 men and 43 women. A total of 145 surgical procedures were performed in this group at the Bone Tumour and Neoplasm Unit between 1999 and 2005. In all cases histopathological verification confirmed fibrous dysplasia or fibrous defect of bone. The follow-up period was from 1 to 5 years (mean 2.5 years).

Results. In 85 patients there were no recurrences. A total of 96 surgical procedures were performed in this group. The other 14 patients experienced recurrences and no graft remodelling. Forty-nine surgical procedures were performed in this group because of multiple (from 2 to 6) relapses of the tumours.

Conclusions. 1. Resection surgery and filling the defect with bone graft is the basic type of treatment in fibrous dysplasia and fibrous defect of bone and leads to good outcomes. 2. Frozen cortico-cancellous allografts are well incorporated and bone remodelling is not associated with inflammatory complications, resulting in to good outcomes of the operative treatment.

Key words: dysplasia fibrosa, defectus fibrosus, bone allograft

WSTĘP

Dysplazja włóknista kości i ubytek włóknisty kości są chorobami, których wspólną cechą jest formowanie w obrębie kości ognisk tkanki włóknistej o nieuporządkowanej strukturze, wykazujących tendencję do zwiększania swojej objętości kosztem prawidłowej struktury kostnej. W okresie poprzedzającym prace Lichtensteina i Jaffego można było spotkać dużą liczbę najrozmaitszych nazw opisujących przypadki tych chorób, np.: włókniste zapalenie kości, włóknisto-torbielowata choroba kości itp [1,2]. Dysplazja włóknista kości i ubytek włóknisty kości należą w Klasyfikacji Histopatologicznej Pierwotnych Guzów Kości do grupy IX – zmian nowotworopodobnych kości [3,4].

Etiologia tych chorób do chwili obecnej nie jest znana. Podłożem jest zaburzenie rozwojowe mezenchymy tworzącej kość oraz wadliwe różnicowanie szpiku kostnego w szpik włóknisty i kość włóknistą. Korowa tkanka kostna zostaje wtórnie wciągnięta w proces chorobowy [3,5,6,7]. W przypadku dysplazji włóknistej, niektórzy autorzy tłumaczą ją zaburzeniami wewnątrzwydzielniczymi podwzgórza i występowaniem w głębokich zaburzeniach rozwojowych [8,9]. Nie udało się jak dotąd stwierdzić żadnych czynników rodzinnych czy dziedzicznych [8]. W większości przypadków dysplazja włóknista i ubytek włóknisty kości ujawniają się w dzieciństwie lub w wieku młodzieńczym.

Obraz radiologiczny dysplazji włóknistej i ubytku włóknistej kości jest bardzo zbliżony i podobny do siebie, a w wielu przypadkach wręcz identyczny i jest charakterystyczny dla zmiany o charakterze włóknistym. W kości występuje owalne lub nieregularne przejaśnienie ograniczone cienką sklerotyczną obwódką z przegrodami kostnymi i czasem powodujące rozdzienie kości. Zmianę porównuje się do wyglądu matowego szkła, przy czym może sąsiadować z obszarami o większej i mniejszej gęstości. Zmiany włókniste nie powodują reakcji okostnowej [3,5,10,11].

Obraz histopatologiczny dysplazji włóknistej kości oraz ubytku włóknistej kości jest także w wielu przypadkach bardzo zbliżony i podobny do siebie. W obrazie histopatologicznym spotyka się beleczki kostne zatopione w tkance łącznej włóknistej. Włókna kolagenowe są dość liczne, natomiast niewiele jest naczyń krwionośnych. Dość często widuje się drobne złogi hemosyderyny, a w ich sąsiedztwie niewielkie skupiska wielojądrowych komórek olbrzymich [3,6,12]. W dysplazji włóknistej kości i ubytku włóknistym kości w badaniach laboratoryjnych krwi w postaci dotyczącej jednej kości nie ma żadnych odchyleń od stanu prawidłowego. W postaci obejmującej

BACKGROUND

A common feature of dysplasia fibrosa and defectus fibrosus is the development of foci of disordered fibrous tissue in bone that tend to grow and displace regular bone tissue. In the period preceding the studies by Lichtenstein and Jaffe, a large number of various names to describe these conditions were in use, including fibrous osteomyelitis, fibro-cystic bone disease and others [1,2]. According to the Histopathological Classification of Primary Bone Tumours, fibrous dysplasia and fibrous defect of bone belong to the 9th group of tumour-like lesions of bone [3,4].

Up to now the aetiology of these diseases has not been elucidated. The underlying cause is a developmental disorder of the mesenchyma forming the bone and defective differentiation of bone marrow into fibrous bone marrow and fibrous bone. There is secondary involvement of cortical bone [3,5,6,7]. Some authors describe the cause of fibrous dysplasia as an endocrine disorder of the hypothalamus and note its occurrence in severe developmental disorders [8,9]. No family-related or hereditary factors have been determined so far [8]. Fibrous dysplasia and fibrous defect of bone most commonly occur in children and adolescents.

The radiographic presentations of fibrous dysplasia and fibrous defect of bone are similar and frequently even identical. The images are characteristic of fibrous lesions. In the affected bone, there is an oval or irregularly shaped translucence with a thin sclerotic rim with osseous septa which sometimes causes distension of the bone. The lesion can be compared to ground glass, with neighbouring areas of higher or lower density. Fibrous lesions do not induce a periosteal response [3, 5, 10, 11].

The histological presentations of fibrous dysplasia and fibrous defect are also frequently very similar. Findings include osseous trabeculae within fibrous connective tissue and numerous collagen fibres with few blood vessels. Minor haemosiderin deposits are frequently noticed accompanied by small accumulations of multinucleated giant cells [3,6,12]. Laboratory work-up reveals no abnormalities in the monostotic form of fibrous dysplasia and fibrous defect of bone. In the polyostotic form changes are non-specific. In most cases, serum calcium and phosphate are normal and alkaline phosphatase levels are often slightly elevated.

Complications of fibrous dysplasia and fibrous defect of bone include pathological fractures in the area of the tumour and local recurrences after treatment. The most dangerous complication of fibrous

liczne kości zmiany są niecharakterystyczne. W większości przypadków stwierdza się prawidłowe stężenie wapnia i fosforanów w surowicy krwi, a poziom fosfatazy alkalicznej często jest nieco podwyższony.

Powikłaniami dysplazji włóknistej kości i ubytku włóknistego kości są złamania patologiczne na podłożu guza oraz wznowy miejscowe po zastosowanym leczeniu. W przypadku dysplazji włóknistej najgroźniejszym powikłaniem jest jej przemiana złośliwa. Występuje częściej u chłopców od 0,5% do 1% przypadków. Na jej podłożu może rozwijać się zarówno mięsak kościopochodny (osteosarcoma), jak i włókniakomięsak (fibrosarcoma) [3,5,7,13,14].

Podstawowym sposobem leczenia operacyjnego dysplazji włóknistej i ubytku włóknistego kości jest resekcja guza i wypełnienie ubytku przeszczepem kostnym. Przeszczepy kostne, zarówno auto i allogeniczne, znajdują szerokie zastosowanie w leczeniu wielu chorób narządu ruchu. Przeszczepy allogeniczne mogą występować w postaci przeszczepów świeżych, mrożonych oraz liofilizowanych. Z praktycznego punktu widzenia oraz z powodów konfliktów immunologicznych między dawcą i biorcą przeszczepy allogeniczne świeże mają ograniczone zastosowanie. Dlatego najczęściej korzysta się z przeszczepów mrożonych i liofilizowanych [15].

Celem pracy jest ocena efektywności leczenia operacyjnego dysplazji włóknistej kości i ubytku włóknistego kości przy użyciu przeszczepów allogenicznych z banku tkanek w oparciu o własne doświadczenia.

MATERIAŁ I METODY

Analizie poddano 99 chorych, 56 mężczyzn i 43 kobiety. Wiek chorych zawierał się w przedziale od 9 do 58 lat (średnia 22). Wszyscy byli operowani w Wojewódzkim Szpitalu Chirurgii Urazowej im. dr. J. Daaba w Piekarach Śląskich w Zespole Guzów i Nowotworów Kości w latach 1999-2004. U wszystkich chorych stwierdzono na podstawie badania radiologicznego obecność guza śródkostnego, osteolitycznego lub wystąpienie złamania patologicznego na jego podłożu. W każdym przypadku wynik badania histopatologicznego po przeprowadzonym zabiegu operacyjnym potwierdzał dysplazję włóknistą kości lub ubytek włóknistej kości. Badania histopatologiczne wykonywał Zakład Diagnostyki Mikroskopowej „Histamed” w Gliwicach. Z grupy badanej wyłączono pacjentów, u których po resekcji niewielkiego, brzeżnie położonego ogniska nie zastosowano allospongiozoplastyki. W całej badanej grupie wykonano zabiegi operacyjne z zastosowaniem przeszczepu allogenicznego kości – mrożone wióry kostne – pochodzące z Banku Tkanek Regionalnego Cen-

dysplasia is malignant transformation. It occurs more commonly in boys (0.5-1% of cases) and can give rise to both osteosarcoma and fibrosarcoma [3,5,7,13,14].

The basic operative treatment of fibrous dysplasia and fibrous defect involves resecting the tumour and filling the defect with bone graft. Bone auto- and allografts are both widely used in the treatment of numerous musculoskeletal conditions. Allografts may be fresh, frozen or lyophilized. Fresh allografts are used to a limited degree because of practical aspects and immunological conflict between the donor and the recipient. Therefore, frozen and lyophilized grafts are most commonly used [15].

The objective of this study was to evaluate the efficacy of surgical treatment with bone allografts in patients with fibrous dysplasia and fibrous defect of bone.

MATERIAL AND METHODS

Ninety-nine patients (56 men and 43 women) were included into study. The age of the patients ranged from 9 to 58 years (mean 22). They were all operated at Dr J. Daab Regional Hospital of Trauma Surgery in Piekary Śląskie at the Bone Tumour and Neoplasm Unit between 1999 and 2004. On the basis radiographic evidence, all patients were diagnosed with an endosteal or osteolytic tumour or a tumour-related pathological fracture. In all patients, postoperative histopathological verification confirmed the diagnosis of fibrous dysplasia or fibrous defect of bone. Histological examinations were performed at the “Histamed” Microscopic Diagnosis Centre in Gliwice. Patients who did not receive a cancellous bone graft after the resection of a small and marginally located focus were excluded from the study. All patients received bone allografts (frozen bone chips) from the Tissue Bank of the Regional Blood Donation and Transfusion Medicine Centre in Katowice. The study group was selected to include only those patients who could be treated on an outpatient

trum Krwiodawstwa i Krwiolecznictwa w Katowicach. Wybierając grupę badaną wzięto pod uwagę tylko tych pacjentów, którzy po leczeniu operacyjnym pozostawali pod kontrolą ambulatoryjną, co umożliwiało ich obserwację i ocenę efektów leczenia. W trakcie każdej kontroli pacjent był badany fizykalnie, oceniano miejscowy stan kliniczny, dolegliwości bólowe, funkcję kończyny oraz wykonywano badanie radiologiczne, które pozwalało ocenić proces przebudowy przeszczepu kostnego. Pierwsza kontrola odbywała się po 4-5 tygodniach od zabiegu operacyjnego. W zależności od wyniku badania klinicznego i radiologicznego wyznaczany był kolejny termin kontroli. Okres obserwacji pacjentów wynosił od 1 roku do 5 lat (średnio 2,5).

Dobry wynik stwierdzano, gdy brak było dolegliwości bólowych, zachowana była pełna funkcja kończyny oraz wystąpiła pełna przebudowa przeszczepu kostnego.

Wynik dostateczny przy obecności resztkowych ubytków, w obrazie radiologicznym obecność małych, drobnych ognisk litycznych nie mających wpływu na wartość biomechaniczną kości z zachowaniem pełnej funkcji kończyn i bez dolegliwości bólowych.

Wynik zły w przypadku braku przebudowy przeszczepu kostnego, wznowy miejscowej z wyraźnym osłabieniem biomechanicznym kości.

Przyczyny wykonania pierwszej diagnostyki radiologicznej są przedstawione w Tabeli 1A. Najczęściej był to ból przeciążeniowy – u 54 pacjentów, trwający średnio 17,5 miesiąca. W grupie tej w 36 przypadkach bólowi przeciążeniowemu towarzyszył okresowy ból spoczynkowy, a w badaniu klinicznym bolesność uciskowa na wysokości guza (Tabela 1A).

W badanej grupie 79 chorych (80%) miało zdiagnozowane jedno ognisko osteolizy. U 15 pacjentów (15%) stwierdzono liczne ogniska w wielu kościach (od 2 do 4). U 5 chorych (5%) zdiagnozowano liczne ogniska osteolizy w jednej kości.

W badanej grupie dysplazja włóknista i ubytek włóknisty najczęściej lokalizowały się w kości piszczelowej oraz w kości udowej. Pojedyncze ognisko wystąpiło w obrębie łopatki i w obrębie żebra. Loka-

basis after the surgery, so that follow-up and assessment of therapeutic outcomes was possible. During each follow-up visit patients underwent a physical examination which assessed local clinical status, pain-related complaints and limb function. A radiograph was also obtained, which enabled assessment of graft remodelling. The first follow-up visit took place 4-5 weeks after the surgery. Depending on the result of the clinical and radiographic examination, the date of the next follow-up visit was scheduled. The follow-up period ranged from 1 to 5 years (mean 2.5).

A good outcome was defined as no pain, no impairment of limb function, and complete remodelling of the bone graft.

A satisfactory outcome was defined as the presence of residual defects, radiographic evidence of small, minor lytic foci that did not affect biomechanical quality of the bone, no impairment of limb function and no pain.

A poor outcome was defined as the absence of remodelling of the bone graft or local recurrence with noticeable biomechanical impairment of the bone.

The reasons for obtaining the initial radiograph are presented in Table 1A. The most common cause was pain on overloading the limb, which was reported by 54 patients and had been troubling them by a mean of 17.5 months. In 36 patients in this group the overload pain was accompanied by intermittent pain at rest, and the physical examination revealed tenderness at the site of tumour (Table 1A).

A solitary osteolytic focus was diagnosed in 79 patients (80%) in the study group. Multiple foci in a number of bones (2-4) were found in 15 patients (15%). Multiple osteolytic foci in one bone were diagnosed in 5 patients (5%).

The tibia and the femur were the most common locations of fibrous dysplasia and fibrous defect of bone in the study group. Solitary foci were found in a scapula and a rib. Table 2 presents the location of foci of fibrous dysplasia and fibrous defect.

A total of 145 surgeries were performed in the entire study group, of which 133 were performed at the Regional Hospital of Trauma Surgery in Piekary Śląskie. Five patients had been previously operated

Tab. 1A. Przyczyny wykonania zdjęcia rentgenowskiego potwierdzającego obecność guza w całej grupie badanej

Tab. 1A. Reasons for carrying out imaging studies that confirmed the presence of a tumour in the entire study group

Przyczyna wykonania zdjęcia RTG / Reason for carrying out imaging studies	Ból przeciążeniowy (średni okres trwania) / Overload pain (mean duration)	Ból spoczynkowy i palpacyjny towarzyszący bólowi przeciążeniowemu/Pain at rest and on palpation accompanying overload pain	Złamanie patologiczne na podłożu guza / Tumour-related pathological fracture	Przypadkowe zdjęcie RTG po urazie/ Random radiograph following an injury
Liczba pacjentów / Number of patients	54 (średnio 17,5 miesiąca)/ 54 (mean 17.5 months)	36	18	27

Tab. 2. Lokalizacja w kościach ognisk dysplazji włóknistej i ubytku włóknistego

Tab. 2. Location of foci of fibrous dysplasia and fibrous defect of bone

Lokalizacja / Location	Kość piszczelowa / Tibia	Kość udowa / Femur	Kość ramienna / Humerus	Kość strzałkowa / Fibula	Kość promieniowa / Radius	Kość biodrowa / Iliac bone	Kość łokciowa / Ulna
Liczba ognisk / Number of foci	52	38	12	10	5	4	2

lizacje w kościach dysplazji włóknistej i ubytku włóknistego są przedstawione w Tabeli 2.

W całej grupie badanej wykonano 145 zabiegów operacyjnych, z czego w Wojewódzkim Szpitalu Chirurgii Urazowej w Piekarach Śląskich wykonano 133 zabiegi operacyjne (5 pacjentów wcześniej było operowanych w innych ośrodkach). Nie brano pod uwagę i nie liczono zabiegów operacyjnych usunięcia metalu po stwierdzonym zroście kostnym i przebudowie przeszczepu kostnego. Były to 134 zabiegi resekcji guza i uzupełnienia ubytku przeszczepem kostnym allogenicznym, 11 zabiegów wymagało oprócz resekcji guza i allospongiozoplastyki zastosowania metalu zespalającego ze względu na wystąpienie złamania patologicznego lub zagrożenie jego wystąpieniem. W zabiegach wymagających stabilizacji w 5 przypadkach zastosowano gwóźdź śródszpikowy do kości ramiennej, w 2 śrubopłytki DHS w część bliższą kości udowej, w 2 płytki AO do kości piszczelowej i promieniowej, w 2 przypadkach maszynowy przeszczep kostny ustabilizowano przy pomocy śrub gąbczastych w obrębie kości piszczelowej i kości udowej.

W jednym przypadku zabieg operacyjny resekcji guza i allospongiozoplastyki powikłany był procesem zapalnym wymagającym operacyjnego usunięcia przeszczepu, implantacji gąbki garamycynowej i drenażu przepływowego.

WYNIKI

U chorych, u których stwierdzono liczne ogniska osteolizy w wielu kościach wynik badania histopatologicznego ze wszystkich zmian zawsze potwierdzał obecność dysplazji włóknistej kości. Była to grupa 15 chorych, u których zaznaczyła się tendencja do grupowania ognisk w obrębie kości jednej kończyny lub wyraźniejszego zajęcia kości jednej strony ciała.

Analizując radiogramy osteolitycznych zmian śródkostnych u pacjentów objętych badaniem stwierdzono, że obraz radiologiczny dysplazji włóknistej kości oraz ubytku włóknistej kości jest często bardzo zbliżony i podobny do siebie, a w niektórych przypadkach wręcz identyczny.

Uwzględniając kryteria oceny w 70 przypadkach uzyskano wynik dobry, w 15 przypadkach wynik dostateczny. Była to grupa 85 chorych, u których podczas obserwacji nie stwierdzono procesu wznowy

at other centres. Surgical procedures involving the removal of metal fixators in patients with confirmed bony union and remodelling of the graft were neither taken into account nor counted. Of the total, 134 procedures involved tumour resection and filling the defect with a bone allograft. Eleven procedures required the use of a metal fixator in addition to tumour resection and cancellous bone grafting due to the presence or risk of a pathological fracture. The fixation devices comprised humeral intramedullary nails (5 cases), dynamic hip screw (DHS) to the proximal femur (2 cases), AO plates to the tibia and radial bone (2 cases), and cancellous bone screws to stabilise massive bone grafts in the tibia and femur (2 cases).

In one case the tumour resection and cancellous bone grafting procedure was complicated by the development of inflammation necessitating operative removal of the graft, implanting a garamycin sponge and the use of irrigation drainage.

RESULTS

In patients with multiple osteolytic foci involving a number of bones, a histological examination of all lesions always confirmed fibrous dysplasia. In this group of 15 patients, the foci tended to occur in the bones of one limb or one side of the body.

An analysis of radiographs of endosteal osteolytic lesions in patients involved in the study revealed that the radiographic appearance of fibrous dysplasia and fibrous defect was often very similar and in some cases even identical.

Taking into consideration the assessment criteria presented above, the outcome was good in 70 cases and satisfactory in 15. In this group of 85 patients (86% of the entire study group), the lesion did not recur or regrow during the follow-up period. The remaining 14 patients (14% of the entire group) had a poor outcome, i.e. a local recurrence, no remo-

i odrastania zmiany, co stanowiło 86% wszystkich badanych. Pozostałą grupę stanowili chorzy z wynikiem złym. Było to 14 chorych (14% wszystkich badanych), u których wystąpiła miejscowa wznowa procesu, brak przebudowy przeszczepu lub złamanie patologiczne w miejscu wcześniejszej resekcji i allo-spongiozoplastyki.

Analizując przyczyny wykonania pierwszego zdjęcia rentgenowskiego stwierdzającego obecność guza na uwagę zasługuje fakt, że nigdy nie wystąpił proces wznowy guzów wykrytych przypadkowo na zdjęciu rentgenowskim zrobionym po urazie. Wynikało to z tego, że zmiany te najczęściej były jednokomorowe. U pacjentów, u których wystąpił proces wznowy bólowi przeciążeniowemu zawsze towarzyszył ból spoczynkowy oraz bolesność uciskowa na wysokości guza, a objawy trwały długo, średnio 48,5 miesiąca (Tabela 1B).

Biorąc pod uwagę powyższą analizę oraz analizę radiogramów wszystkich chorych można stwierdzić, że wznowie ulegały zmiany o długim wywiadzie chorobowym, długoczasowym procesie wzrostu oraz rozległym, wielokomorowym charakterze. Proces wznowy miejscowej i odrastania zmiany zawsze rozpoczął się i uwidaczniał się na obrzeżach obszaru wcześniejszej resekcji. Wynikało to z faktu zbyt wąskiego zakresu resekcji guza, niedokładnego wyłuszczenia, wyfrezowania i wyczyszczenia ścian zmiany, a tym samym niecałkowitego usunięcia patologicznej treści guza. Fakt ten powodował brak możliwości dokładnego uzupełnienia ubytku przeszczepami kostnymi. W radiogramach pooperacyjnych można stwierdzić obecność ubytków torbielowatych i ognisk litycznych w kości wokół jamy wypełnionej przeszczepem.

W przypadku zmian wielokomorowych podczas zabiegu operacyjnego bardzo potrzebna okazywała się śródoperacyjna kontrola radiologiczna z użyciem ramienia C. Umożliwiała to podczas operacji uwzględnienie wszystkich komór zmiany i chroniło przed zbyt wąskim obszarem resekcji.

delling of the graft or a pathological fracture at the site of the resection or cancellous bone graft.

When analysing the reasons for obtaining the initial radiograph which revealed the presence of a tumour, it needs to be noted that there were never any recurrences of tumours diagnosed from a random X-ray obtained following an injury, the reason being that the lesions were usually monolocular. In patients with recurrences, overload pain was always accompanied with pain at rest and tenderness in the area of the tumour. Moreover, the patients reported a long history of symptoms (mean 48.5 months) (Table 1B).

Regarding the above analysis and the analysis of radiographs of all patients, it can be noted that recurring lesions occurred in patients with a long history, long growth process and massive, multilocular character of the lesion. Local recurrence and lesion regrowth always began and was first visible at the edge of a previous resection. It was due to a too narrow resection margin, insufficient curettage, milling and cleaning the walls of the lesion. Therefore the tumour was not completely removed and the defect could not be precisely filled with bone grafts. Post-operative X-rays revealed cystic defects and lytic foci in the bone around the graft-filled cavity.

During surgery for multilocular lesions, intra-operative C-arm imaging proved indispensable. It enabled the surgeon to target all compartments of the lesion and helped to avoid narrowing the extent of the resection.

A total of 49 surgical procedures were performed in the group of 14 patients with recurrences. This high number of procedures was due to multiple local recurrences (2-6) in the same patient. 85 patients without recurrence underwent 96 procedures, the excess being due to multiple tumour locations.

Tab. 1B. Przyczyny wykonania zdjęcia rentgenowskiego potwierdzającego obecność guza u pacjentów bez wznowy i ze wznową
Tab. 1B. Reasons for carrying out imaging studies that confirmed the presence of the tumour in patients with an without recurrence

Przyczyna wykonania zdjęcia RTG / Reason for carrying out imaging studies	Ból przeciążeniowy (średni okres trwania) / Overload pain (mean duration)	Ból spoczynkowy i palpacyjny towarzyszący bólowi przeciążeniowemu/Pain at rest and tenderness accompanying the overload pain	Złamanie patologiczne na podłożu guza / Tumour-related pathological fracture	Przypadkowe zdjęcie RTG po urazie/ Random radiograph following an injury
Grupa 85 pacjentów bez wznowy / 85 patients without recurrence	46 (średnio 12,5 m-ca) / mean 12.5 months)	28	12	27
Grupa 14 pacjentów ze wznową / 14 patients with recurrence	8 (średnio 48,5 m -ca) / (mean 48.5 months)	8	6	0

W grupie 14-stu pacjentów ze wznowami wykonano 49 zabiegów operacyjnych. Tak duża liczba zabiegów związana jest z faktem wielokrotnych procesów wznowy miejscowej (od 2 do 6) u tych samych chorych. W grupie 85 chorych bez wznowy wykonano 96 zabiegów, co wynikało z mnogiej lokalizacji guzów.

DYSKUSJA

Istnieje wiele jednostek chorobowych powodujących zmiany osteolityczne w kościach. Niektóre zmiany łagodne wymagają jedynie obserwacji i mogą ulec samoistnemu wyleczeniu, inne wymagają leczenia operacyjnego. Aby zastosować prawidłowe leczenie należy zwrócić uwagę na wiek chorego w chwili stwierdzenia zmiany, okoliczności rozpoznania zmiany osteolitycznej, lokalizację zmiany w kości, obraz radiologiczny, liczbę ognisk [3,4,5,6,10,12,16]. Pewnym ułatwieniem w podjęciu decyzji odnośnie właściwego sposobu leczenia w przypadkach rozpoznanej zmiany osteolitycznej jest algorytm postępowania zaproponowany przez Springfieldda [17]. Na podstawie wieku chorego, objawów klinicznych oraz obrazu rentgenowskiego chory powinien być zakwalifikowany do jednej z 4 grup: podejrzenie zmiany łagodnej i nieaktywnej, podejrzenie zmiany pierwotnie złośliwej, podejrzenie szpiczaka lub guza przerzutowego.

Leczeniu operacyjnemu resekcji guza i uzupełnieniu ubytku przeszczepem kostnym powinny podlegać ogniska lityczne dysplazji włóknistej i ubytku włóknistego, które powodują ból, zniekształcenie kości i których obraz radiologiczny znacznie wykazywać przemianę w formę aktywną [3,5]. Istnieją zmiany, które spowodowały złamanie patologiczne lub które ze względu na wielkość ogniska osteolitycznego lub swoją lokalizację w obszarze podlegającym dużemu obciążeniu zagrażają złamaniem patologicznym. W tych przypadkach bardzo często oprócz resekcji guza i uzupełnienia ubytku przeszczepem kostnym wskazane jest zastosowanie stabilizacji materiałem zespalającym.

W najcięższych postaciach zmiany ujawniają się w dzieciństwie lub okresie niemowlęcym. Dotknięte zmianami kości bywają rozdęte, łukowato wygięte, skrócone i mają skłonność do samoistnych złamań. U dzieci starszych i u dorosłych najwięcej problemów leczniczych stwarza lokalizacja ogniska osteolitycznego w bliższym odcinku kości udowej. Niestety jest to częsta lokalizacja zmian. Destrukcja kości osłabiająca jej wytrzymałość doprowadza do złamania patologicznego w odcinku podkrętarzowym powodując dysfunkcję kończyny.

Przeszczepy kostne allogeniczne były i są stosowane w leczeniu operacyjnym wielu chorób narządu ruchu. Najczęstsze i najszersze zastosowanie miały

DISCUSSION

Numerous medical conditions are associated with osteolytic bone lesions. Some benign lesions only require monitoring and may heal spontaneously, while others require surgical resection. In order to implement appropriate treatment, several factors need to be taken into account, such as the patient's age at diagnosis, circumstances of diagnosis of the osteolytic lesion, its location in bone, radiographic findings and the number of foci [3,4,5,6,10,12,16]. Springfield's management algorithm [17] facilitates the choice of appropriate treatment in cases of diagnosed osteolytic lesions. On the basis of the patient's age, clinical presentation and radiographic evidence, patients are allocated to one of 4 groups: suspected benign and inactive lesion, suspected primarily malignant lesion, suspected myeloma or metastatic tumour.

Surgical resection of the tumour and filling the defect with a bone graft should be carried out in case of lytic foci of fibrous dysplasia and fibrous defect which cause pain and bone deformity and where radiographs indicate transformation into an active form [3,5]. There are lesions which cause pathological fractures or which, on account of the size of the osteolytic focus or its location in a highly weight-bearing area, pose a risk of a pathological fracture. Apart from tumour resection and filling the defect with bone graft, stabilisation with a fixating material is very often advisable.

The most severe forms of lesions appear in childhood or infancy. The affected bones are sometimes distended, arcuate, shortened and tend to fracture spontaneously. In older children and adults, most medical problems are caused by osteolytic foci located in the proximal femur. Unfortunately it is a frequent site of lesions. Bone destruction which impairs its strength leads to a pathological fracture in the subtrochanteric segment, causing limb dysfunction.

Bone allografts have been used in operative treatment of many musculoskeletal diseases with lyophilized grafts being the most commonly and widely used [15]. The availability and easy storage of lyophilized grafts led to their wide use. Some authors pointed out, however, that such grafts were brittle, less plastic than frozen grafts and their incorporation time was markedly prolonged [18, 19]. inflammatory

przeszczepy liofilizowane [15]. Łatwa dostępność i sposób przechowywania przeszczepów liofilizowanych spowodowały, że znalazły one duże zastosowanie. W piśmiennictwie zwracano jednak uwagę, że są one kruche, mniej plastyczne od przeszczepów mrożonych i ich okres wgajania bywa znacznie przedłużony [18,19]. Częściej niż w przypadkach zastosowania przeszczepów mrożonych występowały powikłania zapalne zmuszające do wykonania wtórnych zabiegów operacyjnych, polegających na oczyszczeniu ogniska procesu zapalnego w miejscu przeszczepu i założeniu drenażu ssąco-przepływowego [20]. To wszystko spowodowało, że przeszczepów liofilizowanych już się nie stosuje. W badanej grupie pacjentów wszystkie ogniska i ubytki po wyresekowanych guzach były wypełniane przeszczepami allogenicznymi w postaci mrożonych wiórów kostnych. W jednym przypadku wystąpiło powikłanie stanem zapalnym wymagające leczenia operacyjnego. Przeszczepy mrożone charakteryzują się szybszym wgajaniem i łatwiejszym procesem przebudowy kostnej, są plastyczne i bardziej wartościowe biomechanicznie [15,18,19,20]. W dostępnym piśmiennictwie nie spotkano doniesienia, w którym rodzaj zastosowanego allogenicznego przeszczepu kostnego miał wpływ na wznowę procesu patologicznego.

WNIOSKI

1. W przypadku dysplazji włóknistej kości i ubytku włóknistej kości zabieg operacyjny resekcji zmiany i uzupełnienia ubytku przeszczepem kostnym jest podstawowym sposobem leczenia i daje dobre wyniki.
2. Przeszczepy allogeniczne mrożone korowo-gąbczaste ulegają dobremu wgajaniu i prawidłowej przebudowie kostnej bez powikłań procesem zapalnym, co umożliwia uzyskanie dobrych wyników leczenia operacyjnego.
3. Procesowi miejscowej wznowy ulegają zmiany o długim wywiadzie chorobowym, długim czasie rozwoju i wzroście oraz rozległym i wielokomorowym charakterze.
4. Skuteczne leczenie operacyjne wymaga szerokiego zakresu resekcji ze zwiększonym marginesem. Resekcja i uzupełnienie przeszczepem powinno obejmować wszystkie torbielowate ubytki, które wchodzi w skład ogniska chorobowego.
5. W przypadku zmian wielokomorowych podczas zabiegu operacyjnego pomocna i wskazana jest śródoperacyjna kontrola radiologiczna, ponieważ napotkanie twardej sklerotycznej ścianki międzykomorowej w obrębie zmiany jest mylone z warstwą korową kości i często powoduje zakończenie resekcji.

complications were more common than with frozen grafts and necessitated repeat surgery consisting in cleaning the inflammatory focus at the site of the graft and suction-irrigation drainage [20]. For these reasons, lyophilized grafts have been abandoned. In this study, all foci and resection defects were filled with frozen bone chip allografts. One patient developed an inflammatory complication requiring operative treatment. Frozen grafts are incorporated faster and bone remodelling is easier. They are plastic and have superior biomechanical properties [15,18,19, 20]. The available literature does not contain reports indicating the influence of the type of bone allograft on lesion regrowth.

CONCLUSIONS

1. Resection surgery and filling the defect with bone graft is the basic type of treatment in fibrous dysplasia and fibrous defect of bone and leads to good outcomes.
2. Frozen cortico-cancellous allografts are well incorporated and bone remodelling is not associated with inflammatory complications, resulting in to good outcomes of the operative treatment.
3. Local recurrence involves lesions with a long history, a long period of development and growth and massive and multilocular nature.
4. Efficient surgery requires a large extent of resection with a larger margin. Resection and grafting should involve all cystic defects which are found in the focus of the disease.
5. In case of multilocular lesions it is helpful and advisable to use intraoperative imaging, as an indurated sclerotic intercompartmental wall within the lesion is mistaken for cortical bone and often prompts the surgeon to finish the resection.

PISMIENICTWO / REFERENCES

1. Lichtenstein L. Bone Tumors. Mosby, St. Louis, 1959.
2. Jaffe HL. Tumours and tumours conditional of the bones and joints. Lea and Febiger, Philadelphia, 1958.
3. Marciniak W, Szulc A, (redd). Wiktora Degi Ortopedia i Rehabilitacja. PZWL, Warszawa, 2003.
4. Leszczyński S. Radiologia, PZWL, Warszawa, 1993.
5. Dominok GW, Knoch HG. Nowotwory i guzopodobne choroby kości. PZWL, Warszawa, 1985.
6. Jaffy HL. Guzy i guzopodobne zmiany kości i stawów. PZWL, Warszawa, 1966.
7. Latham PD, Athananson NA, Woods CG. Fibrous dysplasia with locally aggressive malignant change. Arch Orthop 1992; 111: 183-186.
8. Schotland HM, Eldridge R, Sommer SS, Malawar M. Neurofibromatosis and osseous fibrous dysplasia in a family. America Med Gen 1992; 43: 815-822.
9. Xu DY, Zhan AL, Feng WH. Systemic fibrous dysplasia involving multiple bones in human body. Chires Med J 1993; 106: 871-875.
10. Borejko M, Dziak A. Badanie radiologiczne w ortopedii. PZWL, Warszawa 1979.
11. Adler CP, Kozłowski K. Fibrous bone dysplasia. Primary bone tumors and tumorous conditions in children. Springer Verlag, Londyn, 1993.
12. Groniowski J, Kruś S. (redd). Podstawy patomorfologii. PZWL, Warszawa, 1984.
13. Dziukowa J. Mikroradiograficzna symptomatologia przemiany złośliwej i proliferacji w osteosarcoma powstającej na tle dysplazji włóknistej kości. Nowotwory 1979; Supl 1: 85-89.
14. Ruggieri P, Sin FH, Bond JR, Unni KK. Malignancies in fibrous dysplasia. Cancer 1994; 73: 1411-1424.
15. Gazdag A, Lane J, Glaser D, Forster R. Alternatives to autogenous bone graft: Efficacy and indications. J Am Acad Orthop Surg 1995; 3(1): 1-8.
16. Simon M. Biopsy of musculoskeletal tumors. J Bone Joint Surg 1982; 64-A: 1253-1257.
17. Springfield D. Radiolucent lesions of the extremities. J Am Acad Orthop Surg 1994; 2: 306-316.
18. Leydo R, German R, Szablowski J, Szunke W. Zastosowanie przeszczepów kostnych mrożonych. Chir Narz Ruch Ortop Pol 1989; 54: 55-58.
19. Heiple K, Chase S, Herndon C. A comparative study of the healing process following different types of bone transplantation. J Bone Joint Surg 1963; 45-A: 1593-1616.
20. Kolarz K, Winiarek J, Maciej S. Ocena przydatności różnego rodzaju przeszczepów kostnych w leczeniu łagodnych zmian torbielowatych kości. Chir Narz Ruch Ortop Pol 1996; LXI (Supl. 4A): 23-27.

Liczba słów/Word count: 5091

Tabele/Tables: 2

Ryciny/Figures: 0

Piśmiennictwo/References: 20

Adres do korespondencji / Address for correspondence
dr Patryk Tomasik

Samodzielny Publiczny Wojewódzki Szpital Chirurgii Urazowej im. Dr. Janusza Daaba
41-940 Piekary Śląskie, ul. Bytomska 62, tel./fax: (0-32) 39-34-100, e-mail: oltom@onet.eu

Otrzymano / Received 12.01.2009 r.
Zaakceptowano / Accepted 16.11.2009 r.