

Endoproteza na wymiar – pierwotne leczenie guza olbrzymiokomórkowego kości udowej. Studium przypadku

Custom-made Endoprosthesis as a Primary Treatment for Giant Cell Tumor of Femur. Case Study

Marta Karpik^{1(B,E,F)}, Joanna Reszeć^{2(B,D)}, Jan Skowroński^{3(B,E,F)}

¹ Klinika Ortopedii i Traumatologii, Uniwersytecki Szpital Kliniczny, Białystok

² Zakład Patomorfologii Lekarskiej, Uniwersytet Medyczny, Białystok

³ Klinika Ortopedii i Traumatologii, Uniwersytecki Szpital Kliniczny, Białystok

¹ Department of Clinical Orthopaedics and Traumatology, Medical University Hospital, Białystok

² Division of Medical Pathomorphology, Medical University, Białystok

³ Department of Orthopaedics and Traumatology, Medical University Hospital, Białystok

STRESZCZENIE

W pracy opisano przypadek 41-letniego pacjenta z guzem 1/3 dalszej kości udowej lewej. Po przeprowadzeniu poszerzonej diagnostyki radiologicznej, MR, biopsji otwartej rozpoznano guz olbrzymiokomórkowy. Na podstawie stanu klinicznego, wykonanej diagnostyki, znacznych rozmiarów nowotworu, podjęto decyzję o resekcji guza i zastosowanie pierwotnie endoprotezy na wymiar. Uzyskano dobry wynik kliniczny. Trudnością diagnostyczną w przedstawionym przypadku, mimo wykonania poszerzonej diagnostyki, było określenie złośliwości guza.

Słowa kluczowe: guz olbrzymiokomórkowy, diagnostyka, endoproteza na wymiar

SUMMARY

The article presents the case of a 41-year-old patient with a tumor of the distal third of left femur. Following extended radiological diagnostic work-up, MR, and an open biopsy, the diagnosis of a giant cell tumor was made. In view of the patient's clinical status, diagnostic work-up, and considerable tumor size, the decision was made to resect the tumour and use a primary custom-made endoprosthesis. A good clinical outcome was achieved. Even with the extended diagnostic work-up, the determination of tumor malignancy still posed a diagnostic problem.

Key words: Giant Cell Tumor, diagnosis, custom made endoprosthesis

WSTĘP

Guz olbrzymiokomórkowy jest pierwotnym, łagodnym nowotworem kości. Charakteryzuje się miejscową agresywnością i wysoką skłonnością do wznowy. Stanowi 4-8% pierwotnych nowotworów kości i 20-23% łagodnych nowotworów kości. Sporadycznie powoduje przerzuty do płuc, mimo braku cech złośliwości w obrazie histologicznym [1,2,3,4]. Jednak w blisko 2% wykazuje cechy złośliwości (pierwotnie lub wtórnie) [5]. Najczęściej występuje między 20-40 r. ż., z przewagą u płci żeńskiej (1,5: 1) [6,7,8,1,9,10]. Guz olbrzymiokomórkowy rozwija się głównie w części nasadowo-przynasadowej kości długich. Najczęstszą lokalizacją guza olbrzymiokomórkowego jest: dalsza nasada kości udowej, bliższa nasada kości piszczelowej, dalsza nasada kości promieniowej, bliższa nasada kości ramiennej, kość krzyżowa [6,7,2,3,5,9,10]. Najczęściej zgłaszanym objawem jest stopniowo nasilający się ból w trakcie rozwoju choroby, obrzęk, zniekształcenie okolicy zajętej przez guz. W ok. 10% w momencie zgłoszenia się chorego do lekarza istnieje złamanie patologiczne [6,7]. Rozpoznanie guza olbrzymiokomórkowego nie stwarza trudności, ze względu na charakterystyczny obraz kliniczny i radiologiczny, ale wymaga potwierdzenia badaniem histopatologicznym. Problemem klinicznym jest ocena złośliwości guza, a niniejszy przypadek jest tego potwierdzeniem. Leczenie guzów olbrzymiokomórkowych polega na resekcji nowotworu z zachowaniem zasad aseptyki onkologicznej (właściwy margines resekcji), z uzupełnieniem ubytku kostnego przeszczepami kostnymi (autogennymi bądź allogennymi), substytutami kości (np. hydroksyapatyt), bądź cementem kostnym. Rozwiązanie operacyjne należy zaplanować tak, aby zapewnić jak najlepszą funkcję operowanej kończyny [8]. W arsenale procedur leczniczych stosowanych przy inwazji guza do stawu mamy rozmaite metody rekonstrukcji powierzchni stawowej jak przeszczepy chrzęstno-kostne (własne lub z banku kostnego), przeszczepy unaczynione [7,5]. W przypadku znacznego rozrostu guza olbrzymiokomórkowego lub jego wznowy, z towarzyszącym wewnątrzstawowym złamaniem patologicznym, należy rozważyć endoprotezoplastykę stawu.

OPIS PRZYPADKU

41-letni pacjent przyjęty po raz pierwszy do Kliniki w grudniu 2008 roku z powodu guza 1/3 dalszej kości udowej lewej – celem diagnostyki i leczenia. Przy przyjęciu zgłaszał dolegliwości bólowe o charakterze wysiłkowo-soczynkowym o umiarkowanym nasileniu (bez bólów nocnych), z towarzyszącym znacznym ograniczeniem ruchomości w stawie kola-

BACKGROUND

The Giant Cell Tumour is a primary benign tumour of bone characterised by local aggressiveness and a high recurrence rate. It accounts for 4-8% of primary bone tumours and 20-23% of benign bone tumours. It sporadically metastasises to the lungs even if histology does not reveal malignant characteristics [1,2,3,4]. However, approximately 2% of GCTs have primary or secondary malignant characteristics [5]. This type of tumour occurs most frequently in adults aged 20 to 40 years and female predominance is noted (1.5:1) [6,7,8,1,9,10]. The tumour is most commonly located in the epiphyses or metaphyses of long bones, developing mainly in the distal femur, proximal tibia, distal radius, proximal humerus, and sacral bone [6,7,2,3,5,9,10]. The most frequent symptoms include gradually increasing pain as the tumour develops, oedema and deformity of the affected site. Pathologic fractures are seen in approximately 10% of patients at presentation [6, 7]. GCT is not difficult to diagnose due to its characteristic clinical and radiological features but the diagnosis requires histopathological confirmation. Nevertheless, the determination whether the tumour is malignant is a challenge, as illustrated by this case report. The mainstay of GCT treatment is tumour resection in compliance with the principles of oncologic asepsis (appropriate resection margin) and filling the resultant bone cavity with bone grafts (autografts or allografts), bone substitutes (e.g. hydroxapatite) or bone cement. Surgery should be planned so as to ensure the best possible function of the operated limb [8]. Treatment procedures employed in the presence of intraarticular invasion include various methods of articular surface reconstruction, such as osteoarticular grafts (autogenic or from a bone bank) or vascularised grafts [7, 5]. Endoprosthesis of the joint should be considered if the tumour has grown large or has recurred and an intra-articular pathologic fracture has been found.

CASE REPORT

A 41-year-old patient first presented with a tumor of the distal third of left femur and was admitted to the Medical University Hospital for diagnosis and treatment in December 2008. At presentation he reported moderate exercise and rest pain (no nocturnal pain) accompanied by a markedly limited range of motion in the knee joint (flexion – ca. 60°, full

nowym (zgięcie – ok. 60°, wyprost pełny, ruchomość w stawie bolesna). W wywiadzie pacjent podaje upadek w 2002 roku, w wyniku, którego doznał wieloodłamowego złamania nasady 1/3 dalszej kości udowej lewej, leczony operacyjnie poza Kliniką (otwarta repozycja złamania – stabilizacja śrubami), z rozpoznaniem złamania patologicznego (badanie histopat.: fragment błony maziowej stawu kolanowego – ogniskowy, przewlekły odczyn zapalny z włóknieniem). Z powodu znacznego ograniczenia ruchomości oraz dolegliwości bólowych stawu kolanowego, chory rehabilitowany kilkakrotnie w warunkach szpitalnych – uzyskując poprawę zakresu ruchomości. W roku 2004 – usunięto śruby, a w roku 2008 – doznał kolejnego urazu stawu kolanowego, od tego momentu nastąpiło stopniowe bólowe ograniczenie ruchomości oraz postępujące zwiększenie obwodu stawu kolanowego. Wykonane we własnym zakresie przez pacjenta badanie TK wykazało obecność guza w obrębie 1/3 dalszej kości udowej. Pacjent z wynikiem badania TK zgłosił się do naszego ośrodka. W badaniu klinicznym – staw kolanowy znacznie zmniejszony o poszerzonych obrysach (obwód 56 cm, w porównaniu do strony prawej – 42 cm), widoczny znaczny zanik mięśnia czworogłowego, skóra okolicy stawu kolanowego – barwy cielistej ze wzmożonym rysunkiem naczyniowym, o nieznacznie zwiększonym uciepleniu, palpacyjnie – twarde masy po stronie przedniej, przyśrodkowej i bocznej zajmujące okolicę stawu kolanowego oraz 1/3 dalszej kości udowej (Ryc. 1). Rzepka palpacyjnie trudna do oceny. Zakres ruchomości w stawie kolanowym lewym: zgię-

extension, pain upon movement). The patient gave a history of a fall in 2002 resulting in a comminuted epiphyseal fracture of the distal third of left femur that was treated surgically at another centre by open repositioning with screw stabilisation after a diagnosis of a pathologic fracture (histopathological examination of a specimen of synovial membrane from the knee revealed chronic focal inflammatory reaction with fibrosis). Due to significant limitation in the range of motion and pain in the knee the patient was rehabilitated in hospital on several occasions, which improved the range of motion. The screws were removed in 2004. In 2008, the patient suffered another injury to the knee, which was followed by gradual pain-related limitation of the range of motion and progressive increase in the perimeter of the knee. A CT performed on the patient's request in another centre showed a tumour in the distal third of femur. The patient presented at our Hospital with the CT scan. The physical examination revealed a marked deformity of the knee, which had an increased perimeter (56 cm compared to 42 cm in the right knee) and considerable atrophy of the quadriceps muscle; skin in the knee area was flesh-coloured with increased vascularity and felt slightly warmer. On palpation, hard masses were felt on the anterior, medial and lateral side of the knee and the distal third of femur (Fig. 1). The patella was difficult to assess by palpation. The range of motion in the left knee was ca. 60° flexion, with full extension and pain upon movement; sensation and perfusion within the limb were normal. Radiographs showed an extensive

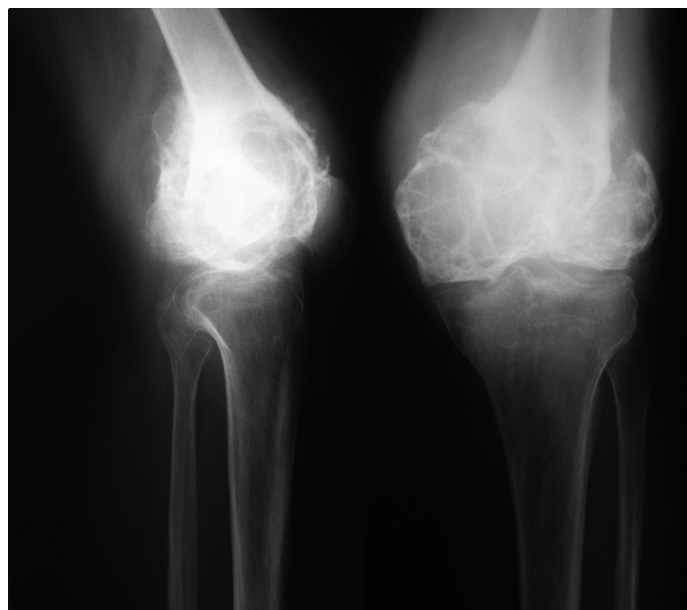


Ryc. 1. Obraz kliniczny przedoperacyjny

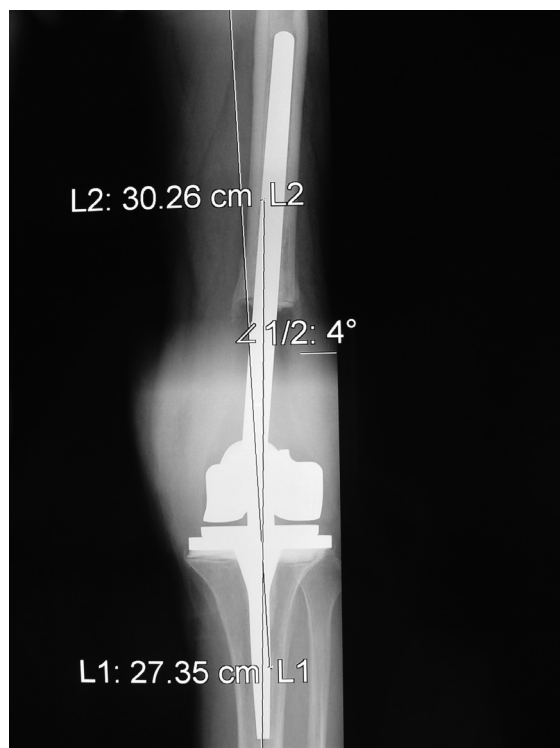
Fig. 1. Preoperative image

cie – około 60°, wyprost pełny, ruchomość w stawie bolesna, czucie i ukrwienie w obrębie kończyny zachowane. W obrazie radiologicznym stwierdzono rozległą zmianę o charakterze osteolitycznym z widocznym niszczeniem warstwy korowej (bez odczynu okostnowego), ze złamaniem patologicznym (guz typu III wg Ennekinga) (Ryc. 2). W diagnostyce MR stwierdzono rozległe masy guzowate niszczące chrząstkę powierzchni stawowej, naciekające otaczające tkanki miękkie oraz pęczek naczyniowo-nerwowy. W trakcie hospitalizacji w Klinice wykonano TK klatki piersiowej i jamy brzusznej oraz badania laboratoryjne krwi, w których nie stwierdzono odchyżeń od normy. Mając na względzie dotychczasowe problemy diagnostyczne chorego (przed przyjęciem do Kliniki), wykonano biopsję otwartą uzyskując rozpoznanie – guz olbrzymiokomórkowy. Badanie histopatologiczne poszerzono o badania immunohistochemiczne ze względu na trudności diagnostyczne (Zakład Patomorfologii Lekarskiej UM w Białymstoku). W badanym przypadku w obrazie histopatologicznym stwierdzono obecność dość licznych komórek wielojądrzastych, jednak w większości pół widzenia dominowały komórki jednojądrzaste stromalne o dość nasilonej atypii jądrowej, dość liczne figury podziału, nieliczne pola martwicy oraz bardzo liczne cienkościenne naczynia krwionośne. Badania immunohistochemiczne ujawniły gęstą sieć naczyń krwionośnych (CD34) oraz dużą aktywność mitotyczną (Ki-67), w niektórych polach widzenia sięgającą nawet do 20%. Obraz histopatologiczny przemawiał za agresywną postacią guza. Na podstawie

osteolytic lesion with visible destruction of the cortex (no periosteal reaction) and an Enneking Grade III pathologic fracture (Fig. 2). MRI scans showed extensive tumour-like masses destroying the cartilage of the articular surface and infiltrating the adjacent soft tissues and the neurovascular bundle. CTs of the chest and abdominal cavity as well as blood tests were performed during his stay at our centre; the results were normal. Taking into account his prior diagnostic problems (before his admission to our centre), an open biopsy was administered and Giant Cell Tumour was diagnosed on this basis. In view of the diagnostic difficulties, the histopathological work-up was extended to include immunohistochemical studies (Division of Medical Pathomorphology in Białystok). The histopathological examination revealed quite a large number of multinuclear cells although most views were dominated by mononuclear stromal cells demonstrating rather marked nuclear atypity, quite numerous division figures, some isolated areas of necrosis, and very abundant thin-walled blood vessels. The immunohistochemical tests showed a dense network of blood vessels (CD34) and intense mitotic activity (Ki-67), reaching even 20% in some fields. The histopathological results suggested an aggressive tumour. Based on the patient's clinical status, examination results and tumour size, a decision was made to remove the tumour and insert an endoprosthesis. Since the resection procedure was going to be extensive (with a 2-cm margin of tumour-free tissue) and the patient was tall (190 cm), we decided on using a custom-made endoprosthesis. Appropriate



Ryc. 2. Radiogram przedoperacyjny – rozległa zmiana o charakterze osteolitycznym ze złamaniem patologicznym
Fig. 2. Preoperative radiograph revealing an extensive osteolytic lesion with a pathological fracture



Ryc. 3. Radiogram pooperacyjny – endoproteza na wymiar – wyznaczona oś mechaniczna kończyny – 4° szpotawości

Fig. 3. Postoperative radiograph showing the custom made endoprosthesis and marking the mechanical axis of the lower limb. There is grade 4 varus deviation

stanu klinicznego, uzyskanych wyników, wielkości guza, podjęto decyzję o resekcji guza i zastosowanie poresekcyjnej endoprotezy. Ze względu na planowany rozległy zakres resekcji z zachowaniem 2 cm marginesu w granicy tk. zdrowych oraz wysoki wzrost pacjenta (190 cm), zdecydowano o wykonaniu endoprotezy na wymiar. Wykonano odpowiednią diagnostykę radiologiczną z użyciem przyrządów pomiarowych (firmy Link), z oznaczeniem poziomu resekcji. Po uzyskaniu projektu endoprotezy i jego zatwierdzeniu, została wykonana endoproteza na wymiar (Link). Śródoperacyjnie stwierdzono rozległe masy guza w tkankach miękkich, zniszczenie chrząstki powierzchni stawowej kości udowej oraz rzepekki, nacieczenie pęczka naczyniowo-nerwowego. Podjęto śródoperacyjnie decyzję o resekcji rzepekki. Po wykonaniu resekcji guza oraz przycięciu kości udowej z zachowaniem 2 cm marginesu w granicach zdrowych i kości piszczelowej zgodnie z przymiarami, osadzono endoprotezę na cemencie kostnym (Ryc. 3). W obserwacji 12- miesięcznej uzyskano zgięcie w stawie kolanowym 80°, pełny wyprost, ustąpienie dolegliwości bólowych, zmniejszenie obwodu stawu (50 cm). Skrócenie operowanej kończyny około 2 cm w stosunku do drugiej kończyny. Chory porusza się samodzielnie, bez pomocy kul łokciowych, z korygującą 2 cm wkładką pod piętę.

radiographic diagnostic work-up was performed using measurement tools (manufactured by Link) to designate the resection limit. When the endoprosthesis design had been prepared and approved, a custom-made endoprosthesis was prepared (Link). Intraoperatively, we found extensive penetration of the tumour into soft tissues, destruction of the cartilage on the articular surface of femur and patella and infiltration of the neurovascular bundle. In view of the above, the decision to remove the patella was made intraoperatively. Following the tumour resection, which also included trimming the femur to maintain the 2-cm resection margin and cutting the tibia as previously measured, the endoprosthesis was inserted on bone cement (Fig. 3). The outcomes during the 12-month follow-up included increased knee flexion to 80°, full extension, resolution of pain, and reduction in the joint perimeter (50 cm). The operated limb is now shorter than the other one by approximately 2 cm. The patient moves on his own, without the help of elbow crutches, using a 2 cm corrective insert under the heel.

DYSKUSJA

Celem leczenia pacjentów z guzem olbrzymiokomórkowym jest całkowita resekcja guza z zachowaniem funkcji stawu, w okolicy którego rozwinęła się zmiana. Niezbędną do ustalenia właściwej strategii leczenia operacyjnego jest dokładna diagnostyka. Przykładem tego może być prezentowany przypadek. W przypadku guzów olbrzymiokomórkowych pierwotnie złośliwych, bądź typu III wg Ennekinga oraz wznowy guza, zlokalizowanych w dalszej nasadzie kości udowej standardową procedurą jest resekcja guza z zachowaniem odpowiedniego marginesu chirurgicznego [12]. Szczególnie trudnym w takich przypadkach jest rekonstrukcja powstałego ubytku poresekcyjnego, tak, aby staw kolanowy i jego funkcja została zachowana [12,13]. Należy zawsze rozważyć zachowanie stawu, choć zwykle jest to niemożliwe (ze względu na rozmiary guza, zajęcie stawu i okolicznych tk. miękkich), bądź ryzykowne ze względu na niebezpieczeństwo wznowy guza. W przedstawionym przypadku dodatkową trudnością była konieczność resekcji rzepekki, co wymusiło rekonstrukcję aparatu wyprostnego odwróconym płatem mięśnia czworogłowego. Wybór metody rekonstrukcji powstałego ubytku zależy od wielu czynników: typu guza, wielkości, zajęcia stawu i okolicznych tkanek miękkich, wieku pacjenta, jego aktywności, jak również umiejętności i doświadczenia operatora [12]. W przypadku, gdy zachowanie stawu jest możliwe, w postępowaniu chirurgicznym istotny jest szeroki dostęp do guza, z odpowiednio dużym oknem w warstwie korowej [14,15]. Dokładne frezowanie jamy guza w celu jego całkowitego usunięcia jest podstawą w leczeniu guza olbrzymiokomórkowego [3,4,5,13,15]. Należy zwrócić uwagę by nie uszkodzić przy frezowaniu warstwy chrzęstnej, jak również zabezpieczyć otaczające tkanki przed ewentualnym rozsianiem komórek guza. W celu uzyskania radykalności resekcji guza opisywane jest stosowanie dodatkowo substancji chemicznych bądź metod termicznych (fenol, ciekły azot, kriochirurgia itp.). Choć zadaniem tych metod jest zmniejszenie ryzyka wznowy guza to wiele badań potwierdza, że nie wpływają w istotny sposób na wystąpienie wznowy, a niosą znaczne ryzyko powikłań [9,12,13,16]. Powstały ubytek można uzupełnić jak wspomniano we wstępie: przeszczepami kostnymi (autogennymi, allogennymi), substytutami kostnymi bądź cementem kostnym. Niewątpliwą zaletą użycia przeszczepów kostnych jest możliwość całkowitej przebudowy, a tym samym zakończenie procesu leczniczego. Cement kostny zdaniem wielu autorów zmniejsza ryzyko wznowy guza poprzez efekt termiczny oraz uwalnianie związków cytotoksycz-

DISCUSSION

The therapy of GCT patients aims to remove the whole tumour and preserve function of the adjacent joint. A thorough diagnostic work-up is necessary to determine an appropriate strategy for the surgery. The above may be illustrated by the case presented in this paper. In the case of primary malignant GCTs or those classified as Enneking Grade III and recurrent tumours in the distal epiphysis of femur, the standard procedure is resection of the tumour with an appropriate surgical margin [12]. A special difficulty in such cases is the reconstruction of the resultant bone cavity so as to preserve the knee joint and its function [12,13]. Preservation of the joint should always be considered, although this is frequently impossible (due to the tumour size, or involvement of the joint and adjacent soft tissues) or associated with a risk of tumour recurrence. An additional difficulty in our patient was posed by the need to remove the patella, following which the extensor mechanism had to be reconstructed with a reversed flap of the quadriceps muscle. The choice of a reconstruction method depends on a variety of factors, including tumour type and size, involvement of the joint and adjacent tissues, the patient's age and level of activity as well as the skills and experience of the operating surgeon [12]. If the joint can be preserved, it is important to obtain wide access to the tumour with a sufficient window in the cortex during the surgery [14,15]. Total removal of the tumour with reaming of the tumour cavity is the mainstay of GCT therapy [3,4,5,13,15]. Care must be taken not to damage the layer of articular cartilage in the process and the adjacent tissues should be protected from possible dissemination of the tumour cells during resection. Intraoperative use of chemical substances or thermal methods (phenol, liquid nitrogen, cryotherapy, etc.) as an adjunct in order to ensure radical resection has been described. Although the aim of such adjunctive treatments is to reduce recurrence risk, many publications confirm that these therapies do not significantly lower the risk and are associated with a high rate of complications [9,12,13,16]. As has been indicated in the Introduction, the resultant bone cavity may be filled with bone grafts (autografts or allografts), bone substitutes or bone cement. An undeniable advantage of autografts is that they enable complete remodelling, thus completing the therapeutic process. A number of authors are of the opinion that cementation reduces the risk of recurrence through a thermal effect and the release of cytotoxic chemicals. However, this approach requires a repeat procedure in order to fill the cavity com-

ne. Po uzupełnieniu ubytku cementem kostnym wymagana jest reoperacja i wypełnienie ostatecznie przeszczepami kostnymi. W przypadku resekcji guzów olbrzymiokomórkowych, w których nie jest możliwe zachowanie stawu kolanowego, mamy do wyboru artrodezę lub odtworzenie funkcji poprzez protezoplastykę [12,17,18]. W wyjątkowych przypadkach (przy znacznych rozmiarach guza i potwierdzonej złośliwości) rozważa się amputację kończyny [12,18,19]. Metoda ta nie zawsze jest akceptowana przez pacjentów, a dodatkową trudność w naszych warunkach sprawia wykonanie dobrej funkcjonalnie protezy. Jedną grupę metod rekonstrukcyjnych są artrodezy resekcyjne. Wydają się one lepsze od endoprotezoplastyki w przypadku młodych, aktywnych osób, bądź starszych wykonujących pracę fizyczną. Metoda ta związana jest z wysokim stopniem powodzenia, a niskim ryzykiem komplikacji. Istnieją różne techniki artrodezy resekcyjnej stawu kolanowego z użyciem różnych kombinacji: autogenych przeszczepów kości (kości strzałkowej, piszczelowej, z talerza biodrowego), przeszczepów allogennych jak również zastosowanie przeszczepów uszypułowanych. W celu uzyskania stabilności stosuje się śródszpikowe gwoździe blokowane. Metoda Ilizarowa jest również wykorzystywana w przypadku wykonania artrodezy resekcyjnej [1]. Inną z możliwych metod resekcyjnej artrodezy jest opisywana w literaturze procedura odwróconego przeszczepu Ennekinga i Sherley [12,20,21]. Istnieje również możliwość kombinacji różnych metod np. śródszpikowego gwoździa blokowanego, metody Ilizarowa i transferu kości. Choć wynik końcowy jest zazwyczaj dobry, artrodezy resekcyjne niosą za sobą ryzyko powikłań, takich jak: brak wgojenia przeszczepu, złamania przeszczepu, deformacje, infekcje. Opisywane są również – uszkodzenie nerwu strzałkowego, zwłknięcie głowy kości strzałkowej [12]. Należy pamiętać, że artrodeza niesie za sobą znaczne upośledzenie wydolności chodu (wchodzenie i schodzenie po schodach, chodzenie po nierównej powierzchni), uniemożliwia normalne siedzenie, powoduje przeciążenie stawu biodrowego i kręgosłupa. Skrócenie kończyny powyżej 2 cm wymaga zaopatrzenia w obuwie ortopedyczne [22,23]. Drugą z możliwości jest zastosowanie endoprotez resekcyjnych stawu kolanowego. Zaletą tej metody jest możliwość szybkiej rehabilitacji i pełnego obciążania kończyny [12, 15,20]. Jest to metoda, która zarezerwowana jest dla pacjentów starszych, którzy są w stanie zaakceptować ograniczenia aktywności obowiązujące po takiej rekonstrukcji [12]. Niektórzy autorzy są zdania, że nie jest to dobra metoda dla młodych, aktywnych osób, gdyż zwiększone jest ryzyko wczesnego aseptic

pletely with bony grafts. In the case of GCT removal where it is not possible to preserve the knee joint, the choice is between arthrodesis and restoration of joint function with a prosthesis [12,17,18]. Amputation of the limb is restricted to exceptional cases (large tumours and a confirmed diagnosis of malignancy) [12,18,19]. This method is not always accepted by patients, its additional disadvantage in Poland consisting in the difficulty to produce a prosthesis ensuring appropriate functional status. Resection arthrodeses represent one group of reconstruction methods. They seem superior to endoprostheses in the case of young active persons and those older patients who engage in physical work. The method is characterised by a high success rate and low risk of complications. Resection arthrodesis surgery of the knee may employ various combinations of autografts (fibula, tibia, iliac ala), allografts, and pedicle grafts. Stability is achieved through locked intramedullary nailing. The Ilizarov technique is also used with resection arthrodesis [1]. Another possible method of resection arthrodesis surgery is Enneking and Sherley reverse grafting, which has been described in the literature [12,20,21]. It is also possible to combine various methods, e.g. locked intramedullary nailing, Ilizarov technique and bone transfer. Although the final outcome is usually good, resection arthrodeses are associated with a risk of the following complications: failure of graft incorporation, graft fractures, deformities and infections. Damage to the fibular nerve and dislocation of the fibular head have also been described [12]. It should be borne in mind that arthrodesis considerably impairs gait performance (going up and down stairs, walking on an uneven surface), makes normal sitting impossible and causes overloading of the hip joint and the spine. Shortening of the limb by more than 2 cm requires the patient to wear orthopaedic footwear [22,23]. The second option is to use of a resection endoprosthesis in the knee. An advantage of the method is that it provides for rapid rehabilitation and full loading of the limb [12,15,20]. This technique is reserved for older patients who are able to accept the activity limitation that is necessary after such reconstruction surgery [12]. Some authors believe that this method is not appropriate for young active persons since it is associated with an elevated risk of early aseptic loosening of the endoprosthesis and accelerated wear and tear of the insert within 5 years [12,17,24]. Resection endoprostheses in use are mainly of the hinged rotary type. Currently, numerous companies offer ready-to-use cement and non-cement resection endoprostheses, which would not have been functional in our patient due to the extensive area of resection and his

tycznego obluzowanie endoprotezy oraz szybsze zużycie wkładki w ciągu 5 lat [12,17,24]. Stosowane endoprotezy resekcyjne są głównie zawiasowo-rotacyjne. Obecnie w ofercie wielu firm znajdują się gotowe endoprotezy resekcyjne cementowe, jak i bezcementowe, których zastosowanie w przedstawionym przypadku, nie stanowiło dobrego funkcjonalnie rozwiązania, ze względu na rozległy zakres resekcji oraz wysoki wzrost pacjenta. Indywidualnie dobrana custom made endoproteza, w naszej ocenie, była optymalnym rozwiązaniem leczniczym. Osadzanie endoprotez resekcyjnych bezcementowo jest możliwe u osób młodych jeżeli został uzyskany press –fit. W przypadku osób starszych, komponenty są osadzone na cemencie kostnym, jak również u pacjentów, którzy przebyli radioterapię lub była ona planowana [24]. Istnieje możliwość zastosowania jednocześnie endoprotezy resekcyjnej oraz przeszczepów allogennych [19,25]. Szczególnym problemem przy zastosowaniu endoprotez resekcyjnych jest rekonstrukcja aparatu wyprostnego stawu kolanowego, którego właściwe działanie wpływa na wynik końcowy [12,19,25]. Prezentowany w pracy chory jest tego przykładem. W rehabilitacji pooperacyjnej głównym problemem po tego typu zabiegach jest uzyskanie pełnego czynnego wyprostu. W niniejszym przypadku chory uzyskał pełny wyprost, lecz zgięcie ograniczone do 80°. W przypadku endoprotezoplastyki resekcyjnej stawu kolanowego opisywanymi powikłaniami są: uszkodzenia tętnicy podkolanowej, nerwu strzałkowego, septyczne obluzowanie protezy, aseptyczne obluzowanie implantu, złamania okołoprotezowe, infekcje głębokie i powierzchowne, martwica skóry, które ominęły naszego chorego [12,14,24].

WNIOSKI

1. Przedstawiony przypadek sugeruje, że określenie stopnia złośliwości guza olbrzymiokomórkowego stanowi nadal problem diagnostyczny.
2. Konieczność rozległej resekcji guza wynikająca z zasad aseptyki onkologicznej wymusza w niektórych przypadkach zastosowanie pierwotnie endoprotezy na wymiar.
3. Indywidualna endoproteza może być skutecznym i funkcjonalnym rozwiązaniem leczniczym.

PIŚMIENNICTWO / REFERENCES

1. Ziółkowska E, Windorbska W, Łożyńska-Podhrebelna D. Guz olbrzymiokomórkowy kręgu L3– zastosowanie techniki IMRT– opis przypadku. *Wsp. Onk.* 2007; (11) 10:506-9.
2. Wurtz D. Progress in the treatment of giant cell tumor of bone. *Curr Opin Orthop* 1999;10:474-80.
3. Miscellaneous tumors and tumor-like lesions. W: Greenspan A, Jundt G, Remagen W. *Differential Diagnosis In Orthopaedic Oncology*. II wyd. Philadelphia: Lippincott Williams&Wilkins; 2007, pp. 387-457.
4. Blackley BR, Wunder JS, Davis AM, White IM, Kandel R, Bell RS. Treatment of Giant – Cell Tumors of long bones with curettage and bone grafting. *J Bone Joint Surg* 1999; (81A)6: 811-20.

height. In our opinion, a custom-made endoprosthesis was the optimal solution in this case. Cementless insertion of resection endoprostheses in young persons is possible if a press-fit has been obtained. In the case of older patients and those after or awaiting radiotherapy, the components are inserted on a bone cement base [24]. It is possible to use a resection endoprosthesis and allografts at the same time [19, 25]. A special challenge to the use of resection endoprostheses is the need to reconstruct the extension apparatus of the knee, the appropriate function of which influences the final outcome [12,19,25]. The case described in this paper represents a good example of the above. Post-operative rehabilitation focuses primarily on obtaining complete active extension. Our patient achieved full extension but knee flexion was limited to 80°. The literature describes the following complications of resection endoprosthesis: damage to the popliteal artery and fibular nerve, septic loosening of the prosthesis, aseptic loosening of the implant, periprosthetic fractures, deep and superficial infections and skin necrosis, none of which occurred in our patient [12,14,24].

CONCLUSIONS

1. This case study suggests that determination of tumour malignancy still poses a diagnostic difficulty.
2. Due to the need for extensive resection of the tumour resulting from the principles of oncological asepsis, in some cases it is necessary to use a primary custom-made endoprosthesis.
3. A custom-made endoprosthesis may represent an effective and functional therapeutic solution.

5. Mendenhall WM, Zlotecki RA, Scarborough MT, Parker GC, Mendenhall NP. Giant Cell tumor of bone. *Am J Clin Oncol* 2006; (29)1:96-9.
6. Szulc A, Bernardczyk K, Bręborowicz J, Bruszewski J, Nazar J, Kurzawa P. Miejsce ortopedii w kompleksowym leczeniu nowotworów narządu ruchu. W: Marcinkiewicz W, Szulc A. Wiktor Degi Ortopedia i Rehabilitacja t.2. Warszawa: PZWL; 2003. str. 425-64.
7. McDonald DJ, Weber KL. Giant Cell Tumor of bone. W: Schwartz HS. *Musculoskeletal Tumors 2*. II wyd. Rosemont: AAOS; 2007. pp. 133-40.
8. Manikowski W, Kiciński A, Walusiak D, Wiese J. Guz olbrzymiokomórkowy kończyny górnej. *Pol Hand Surg* 1987; (2)10: 53-4.
9. Turcotte RE, Wunder JS, Isler MH, Bell RS, Schachar N, Masri BA, Moreau G, Davis AM. Giant Cell tumor of long bone. *Clin Orthop Relat Res* 2002;397:248-258.
10. Thacker MM. *Musculoskeletal Oncology*. W: Fischgrund JS. *Orthopaedic Knowledge Update 9. OKU9 European Edition by Medical Trends Spain:AAOS*; 2008:197-219.
11. Koszła MM. Guzy olbrzymiokomórkowe kości. Materiały z I Sympozjum Zespołu Rejestru do Badań nad Guzami Kości; 1973.05.30; Warszawa, Polska. Warszawa: PZWL; 1975.
12. Vidyadhara S, Rao SK. Techniques in the management of juxta-articular aggressive and recurrent giant cell tumors around the knee. *EJSO* 2007;33:243-51.
13. Puri A, Agarwal H. Treatment of giant cell tumor of bone. *IJO April-June* 2007; (41)2:101-8.
14. Sim LW, Tse LF, Ek ET, Powell GJ, Choong PF. Salvaging the limb salvage: Management of complications following endoprosthesis reconstruction for tumours around the knee. *ESJO* 2007;33:796-802.
15. Peh KT, Mann H T. Functional outcome study of mega endoprosthetic reconstruction in limbs with bone tumour surgery. *Annals Academy of Medicine Singapore* 2009; (38) 3:192-6.
16. Suzuki Y, Nishida Y, Yamada Y, Tsukushi S, Sugira H, Nanashima H, Ishiguro N. Re-operation results in osteoarthritic change of knee joints in patients with giant cell tumor of bone. *The Knee* 2007; (14):369-374.
17. Maruthainar K, Dunstan ER, Hamilton PD, Unwin P, Cannon SR, Briggs TW. Massive endoprostheses for giant cell tumours of distal femur: A 12- year follow-up. *The Knee* 2006; 13:378-381.
18. Nahamura S, Kusuzaki A, Murata H, Takeshita H, Hirata M, Hashiguchi S, Hirasawa Y. Ceramic endoprosthesis for aggressive giant cell tumors near the knee: eight cases followed for more than 10 years. *SICOT* 2001; 25:104-6.
19. Bajracharya S, Khanal GP, Nepal P, Shrestha BP, Singh M. Giant cell tumor of distal femur: a challenge in treatment. *Acta Ortop Bras* 2009;(17)2:58-61.
20. Heck Jr RK, Carnesale PH. General principles of tumors. In: Canale ST, editor. *Campbell's operative orthopaedics*. 10th ed. Mosby Publishers; 2003. p. 733-91.
21. Enneking WF, Shirley PD. Resection-arthrodesis for malignant and potentially malignant lesions about the knee using an intramedullary rod and local bone grafts. *JBJS Am* 1977; (59)2:223-36.
22. Michalski P. Zmiany zwyrodnieniowe stawu kolanowego. W: Górecki A. *Uszkodzenia stawu kolanowego*. Warszawa: PZWL; 2002. str 274-301.
23. Kotas-Strzoda J, Dec J. Usztywnienie stawu kolanowego zespoleniem sródszpikowym. W: Gaździk T. *Zespolenia sródszpikowe*. Warszawa: PZWL; 2006. str 273-280.
24. Kawai A, Healey JH, Boland PJ, Athanasian EA, Jeon DG. A Rotating- Hinge knee replacement for ,malignant tumors of the femur and tibia. *J Arthr* 1999; (14)2:187-196.
25. Bickels J, Witting JC, Kollender Y, Neff RS, Kellar-Graney K, Meller I, Malawer MM. Reconstruction of extensor mechanism after proximal tibia endoprosthetic replacement. *J Arthr* 2001; (16)7:856-62.

Liczba słów/Word count: 4800

Tabele/Tables: 0

Ryciny/Figures: 3

Piśmiennictwo/References: 25

Adres do korespondencji / Address for correspondence

dr Marta Karpik

Klinika Ortopedii i Traumatologii UMB

15-276 Białystok, ul. M. Skłodowskiej- Curie 24a, tel./fax: (85)746-82-82, e-mail: mkarpiky@op.pl

Otrzymano / Received

24.10.2010 r.

Zaakceptowano / Accepted

13.12.2010 r.

