

# Trudności diagnostyczne i terapeutyczne w przypadku kostniaka kostnawego w materiale własnym

## Osteoid Osteoma – Diagnostic and Therapeutic Difficulties. A Single-centre Experience

Marta Karpik<sup>1(B,D,E,F)</sup>, Jerzy Wojnar<sup>1(B,D,E,F)</sup>, Jan Skowroński<sup>1(D,E,F)</sup>, Joanna Reszeć<sup>2(D,E,F)</sup>

<sup>1</sup> Klinika Ortopedii i Traumatologii, Uniwersytecki Szpital Kliniczny, Białystok, Polska

<sup>2</sup> Zakład Patomorfologii Lekarskiej, Uniwersytet Medyczny w Białymstoku, Polska

<sup>1</sup> Department of Orthopaedics and Traumatology, Medical University of Białystok Hospital, Poland

<sup>2</sup> Division of Medical Pathomorphology, Medical University of Białystok, Poland

### STRESZCZENIE

**Wstęp.** Osteoid osteoma jest pierwotnym łagodnym nowotworem kości. Dolegliwości bólowe nasilające się w porze nocnej, zmniejszające się bądź ustępujące po salicylanach i niesterydowych lekach przeciwzapalnych (NLPZ) są typowym objawem klinicznym. Charakterystycznym obrazem radiologicznym jest radioprzejrzyste ognisko z obrąbkami osteosklerotycznym. Trudność diagnostyczną może sprawić nietypowa lokalizacja oraz radionegatywny obraz nowotworu w konwencjonalnej diagnostyce radiologicznej.

**Materiał i metody.** Autorzy opisują doświadczenia kliniczne 15 pacjentów z rozpoznaniem osteoid osteoma, ze szczególnym uwzględnieniem diagnostycznych i terapeutycznych trudności w dwóch przypadkach.

**Wyniki.** Wszyscy pacjenci zgłaszali typowy ból z większym nasileniem w nocy, zmniejszający się bądź ustępujący po salicylanach lub NLPZ. Typowy obraz radiologiczny dla osteoid osteoma występował w 13 przypadkach, u 2 pacjentów obraz radiologiczny nie wykazywał żadnych zmian, co wymagało poszerzenia diagnostyki o dodatkowe metody obrazowania.

**Wnioski.** 1. Osteoid osteoma może stwarzać problem diagnostyczny i terapeutyczny. 2. Brak widocznych zmian radiologicznych ze współistnieniem typowych objawów klinicznych nie wyklucza istnienia osteoid osteoma. 3. Scyntygrafia kośćca oraz rezonans magnetyczny mogą być pomocne w obrazowaniu niemego radiologicznie nowotworu.

**Słowa kluczowe:** osteoid osteoma, diagnostyka radiologiczna, scyntygrafia

### SUMMARY

**Background.** Osteoid osteoma is a primary, benign bone tumour. The characteristic clinical symptom is nocturnal pain at the tumour site that decreases or resolves completely with salicylates and non-steroidal anti-inflammatory drugs (NSAIDs). The typical radiological features include a radiolucent area with an osteosclerotic rim. An unusual location or absence of visible abnormalities on conventional radiographs may pose a diagnostic challenge.

**Material and methods.** We report our clinical experience with osteoid osteoma in 15 patients, with special regard to diagnostic and therapeutic difficulties in two cases.

**Results.** All patients reported the characteristic pattern of nocturnal pain that was reduced or resolved after administration of aspirin or NSAIDs. A typical radiological appearance of osteoid osteoma was observed in 13 patients, with radiological studies showing no changes in two patients, who required extended imaging work-up to establish the diagnosis.

**Conclusions.** 1. Osteoid osteoma may be a diagnostic and therapeutic problem. 2. Lack of visible abnormalities on conventional radiographs in the presence of typical clinical symptoms does not rule out osteoid osteoma. 3. Bone scintigraphy and magnetic resonance imaging are helpful methods in the imaging of radiologically silent pathological lesions.

**Key words:** osteoid osteoma, radiological features, scintigraphy

## WSTĘP

Kostniak kostnawy (osteoid osteoma) należy do pierwotnych łagodnych nowotworów kości. Nazwa wprowadzona przez Jaffe w 1935 r. [1,2,3,4,5]. Stanowi blisko 4% wszystkich pierwotnych, a 10%-12% łagodnych nowotworów kości [1,2,4,6,7,8,9]. W 80% dotyczy osób w wieku od 10-35 roku życia, z przewagą płci męskiej (M: K 3-4: 1) [1,6,7,9,10,11]. Typową lokalizacją kostniaka kostnawego są przynasady i trzony kości długich (65%). Najczęściej występuje w kości udowej oraz kości piszczelowej (>50%), rzadziej w kości ramiennej, w obrębie rąk i stóp, sporadycznie w lokalizacji szkieletu osiowego [4,12,13]. Nowotwór najczęściej występuje w postaci korowej, która stanowi jego klasyczną formę (60%), rzadziej jako postać wewnątrzszpikowa (20%) lub wewnątrzstawowa (20%) [1,3,4]. Osteoid osteoma występuje zwykle jako pojedyncza zmiana, choć są opisywane przypadki postaci wielogniskowej, a sporadycznie wielomiejscowej [1,3,4,14]. Charakterystycznym objawem klinicznym (w 75% przypadków) jest ból występujący w lokalizacji zmiany z nasileniem w porze nocnej i zmniejszający się bądź całkowicie ustępujący po salicylanach i NLPZ [1,4,5,6,7,11,13,14,15,16]. Ustępowanie dolegliwości bólowych związane jest prawdopodobnie z występowaniem w obrębie guza prostaglandyn oraz cyklooxygenazy 1 i 2 [1,14]. Objawom mogą towarzyszyć obrzęki, miejscowa bolesność, jak również zaniki mięśniowe [9,14,17]. Podstawą diagnostyki jest konwencjonalne RTG, gdzie w 85% wyraźnie widać typowy „nidus” – położony centralnie, o średnicy do 1,5 cm, z odczynową osteosklerozą powodującą zwykle wrzecionowate poszerzenie kości [1,3,5,7,9,10,11,13,19,18,20,21]. Najtrudniejszą w klasycznym obrazie radiologicznym jest identyfikacja kostniaka o lokalizacji wewnątrzszpikowej oraz wewnątrzstawowej [6,14,16]. Tomografia komputerowa jest pomocna w dokładnej lokalizacji nidusa, co jest istotne w zaplanowaniu dojścia operacyjnego [1,3,5,6,15]. W niektórych przypadkach pomocna w diagnostyce jest scyntygrafia kośćca z użyciem technetu, która uwidoczni typowe gromadzenie się radioznacznika w miejscu występowania nowotworu [1,4,11,14,16]. Jest ona również użyteczna szczególnie w nietypowych objawach wynikających z trudnej lokalizacji wewnątrzszpikowej i wewnątrzstawowej. Obrazowanie za pomocą rezonansu magnetycznego ma mniejsze znaczenie diagnostyczne (z wyjątkiem lokalizacji wewnątrzszpikowej) [1,4,5]. W każdym przypadku podejrzenia osteoid osteoma, rozpoznanie należy potwierdzić histopatologicznie. Makroskopowo – „nidus” jest różowo-szarym ogniskiem dobrze odgraniczonym, otoczonym sklero-

## BACKGROUND

Osteoid osteoma is a primary benign bone tumor. The name was introduced by Jaffe in 1935 [1,2,3,4,5]. It represents nearly 4% of all bone primaries and 10-12% of benign bone tumors [1,2,4,6,7,8,9]. Approximately 80% of patients are between 10-35 years of age and are predominantly male (M:F ratio being 3-4:1) [1,6,7,9,10,11]. Osteoid osteomas are typically located at metaphyses and diaphyses of long bones (65%). They are most common in the femur and tibia (> 50%), less frequent in the humerus and in the small bones of the hands and feet, and occasionally found at an axial location [4,12,13]. The tumor occurs most often within cortical bone, which is the classic form (60%), and is less common in intramedullary (20%) or intra-articular (20%) areas [1,3,4]. Osteoid osteoma usually occurs as a single focus, although there are reports of multifocal and occasionally multicentric forms [1,3,4,14]. The characteristic clinical symptom (in 75 % of cases) is pain at the tumor location increasing at night and decreasing or completely resolving after salicylates and NSAIDs [1,4,5,6,7,11,13,14,15,16]. Pain relief may be associated with the occurrence of prostaglandins, COX-1 and COX-2 in the tumor [1,14]. These symptoms may be accompanied by swelling, local pain, and muscle atrophy [9,14,17]. Diagnosis is based on conventional X-rays, where in 85% of cases a typical “nidus” can be seen in the form of a centrally located lucent area of 1.5 cm in diameter with a surrounding rim of reactive osteosclerosis usually causing fusiform broadening of the bone [1,3,5,7,9,10,11,13,18,19,20,21]. Intramedullary and intraarticular osteoid osteomas are the most difficult to locate by classic radiographic imaging [6,14,16]. Computed tomography is helpful in determining the exact location of the nidus, which is important in planning the surgical approach [1,3,5,6,15]. In some cases, bone scintigraphy with technetium can be helpful because of the typical pattern of accumulation of the radioisotope at the tumor site [1,4,11,14,16]. It is also particularly useful in cases with unusual symptoms resulting from intramedullary and intraarticular locations of the nidus. Magnetic resonance imaging is of lesser importance except for determining the location of an intramedullary osteoid osteoma [1,4,5]. The diagnosis of any case of a suspected osteoid osteoma should be confirmed histologically. Macroscopically the „nidus” is a pinkish-gray well defined focus surrounded by a reactive area of sclerotic compact bone [8,17]. Histologically, the lesion is composed of two parts: an outer part made up of randomly arranged trabeculae surrounded by numerous osteoblasts and a central portion,

tyczną kością zbitą [8,17]. Histologicznie zmiana jest zbudowana z 2 elementów: części zewnętrznej zbudowanej z chaotycznie ułożonych beleczek kostnych otoczonych przez liczne osteoblasty oraz części środkowej określanej mianem „nidus”. W obrębie utkania części środkowej widoczna jest luźna tkanka łączna oraz bardzo liczne, drobne naczynia krwionośne oraz komórki wielojądrowe, natomiast część zewnętrzna jest otoczona przez zwłókniałą tkankę łączną (sklerotyzacja) [2,23]. Standardem leczenia i wyznakiem skuteczności jest całkowita resekcja nidusa, co daje uwolnienie natychmiastowe od dolegliwości bólowych [5,9,10,13,15,21]. Usuwanie sklerotycznej otoczki jest zbędne. Najczęściej stosowane są techniki otwarte obejmujące resekcję nidusa przez frezowanie lub resekcję „en bloc” [11,14,19]. W ostatnich latach stosowana jest przezskórna metoda termoablacji – głównie w przypadkach lokalizacji nowotworu w kościach długich, jak i miednicy [11,12,14,18,19,21]. Resekcja „en bloc” wskazana jest w przypadku trudności określenia lokalizacji nidusa. Metoda ta wykazuje najmniejsze ryzyko wznowy (<10%), ale wzrasta ryzyko złamania patologicznego [12,14,15]. Czasami po wykonaniu tego rodzaju resekcji niezbędny jest przeszczep kostny bądź nawet wewnętrzna stabilizacja. W przypadku nawrotu dolegliwości niezbędna jest ponowna diagnostyka oraz leczenie operacyjne. W diagnostyce różnicowej należy wziąć pod uwagę osteoblastoma, gdzie podstawową różnicą jest wielkość nidusa. Maksymalna wielkość dla kostniaka kostnawego to około 1-1,5 cm, powyżej tej wielkości rozpoznaje się osteoblastoma [1,11,14]. Ogniska zakażenia, wyspę kostną, złamanie zmęczeniowe, a bardzo rzadko osteosarcoma śródkirowy mogą swoim obrazem przypominać kostniaka kostnawego [1].

## MATERIAŁ I METODY

Materiał kliniczny obejmuje 15 chorych (11 mężczyzn, 4 kobiety), hospitalizowanych w Klinice Ortopedii i Traumatologii USK w Białymstoku w latach 2001-2013 z powodu kostniaka kostnawego. Wiek chorych wahał się od 18 do 56 roku życia (średnia 26,3). W ocenie wzięto pod uwagę badanie podmiotowe, klasyczną diagnostykę radiologiczną oraz wynik leczenia operacyjnego (dolegliwości bólowe, wygojenie rany pooperacyjnej, wznowę miejscową nowotworu).

## WYNIKI

Wszyscy pacjenci zgłaszali typowe dolegliwości bólowe z nasileniem w nocy (skala VAS 6-8), zmniejszające się bądź ustępujące po salicylanach lub NLPZ.

which is referred to as the „nidus”. Within the central part, loose connective tissue, very numerous small blood vessels, and multinucleated cells are visible, while the outer part is surrounded by fibrotic connective tissue [2,23]. The standard of care is total resection of the nidus, which gives immediate pain relief [5,9,10,13,15,21]. Resection of the reactive osteosclerotic bone is unnecessary. Open resection of the nidus by burring or en bloc resection are the most common surgical techniques [11,14,19]. Percutaneous ablation has been used in recent years, mainly in cases where the tumor has invaded long bones or the pelvis [11,12,14,18,19,21]. “En bloc” resection is indicated when the exact location of the nidus is difficult to determine. This method is associated with the lowest risk of recurrence (<10%) but increases the risk of a pathologic fracture [12,14,15]. In some cases, bone grafting or even internal stabilization after this type of resection is required. If symptoms recur, the diagnostic process and surgery must be repeated. The differential diagnosis comprises osteoblastoma, where the size of the nidus is the main differentiating feature. The maximum nidus size for osteoid osteoma is about 1-1.5 cm; osteoblastoma is diagnosed above this value [1,11,14]. Inflammatory lesions, bony islands, fatigue fractures and, very rarely, intracortical osteosarcomas may all mimic an osteoid osteoma and must be taken into account in the differential diagnosis [1].

## MATERIAL AND METHODS

The study group consisted of 15 patients (11 males, 4 females) hospitalized due to osteoid osteoma in the Department of Orthopedics and Traumatology of the Medical University in Białystok in the years 2001-2013. The age of the patients ranged from 18 to 56 years (mean 26.3). Results of the physical examination, plain film x-rays, and surgical treatment outcomes (pain, wound healing, recurrence of tumor) were taken into account during assessment.

## RESULTS

All patients reported typical nocturnal pain for osteoid osteoma (VAS 6-8) which was reduced or resolved after aspirin or NSAIDs administration. The

Kostniak kostnawy zlokalizowany był w kości piszczelowej – 6 przypadków, kości udowej – 3, kości strzałkowej – 2 oraz po 1 przypadku: kość skokowa, łokciowa, żebro, wyrostek kolczysty kręgu. 13 chorych miało typowy dla osteoid osteoma obraz radiologiczny. W przypadku 2 pacjentów klasyczne diagnostyka radiologiczna nie wykazała zmian, w związku z tym diagnostyka musiała zostać poszerzona, celem ustalenia rozpoznania. Przypadki tych 2 chorych zostały opisane dokładnie poniżej. Każdego z pacjentów poddano zabiegowi operacyjnemu – resekcja nidusa (uzyskany materiał poddano badaniom histopatologicznym w Zakładzie Patomorfologii Lekarskiej UMB). Nie odnotowano powikłań śródoperacyjnych i pooperacyjnych u żadnego z pacjentów. U wszystkich uzyskano wygojenie rany pooperacyjnej bez infekcji. W przypadku wszystkich chorych uzyskano zniesienie dotychczasowych dolegliwości bólowych (skala VAS-0). Wznowa kostniaka kostnawego wystąpiła u 1 pacjenta po 7 miesiącach od zabiegu operacyjnego. Analiza pooperacyjnych zdjęć radiologicznych tego pacjenta wskazała na niekompletną resekcję nidusa jako przyczynę wystąpienia wznowy.

### OPIS PRZYPADKU 1

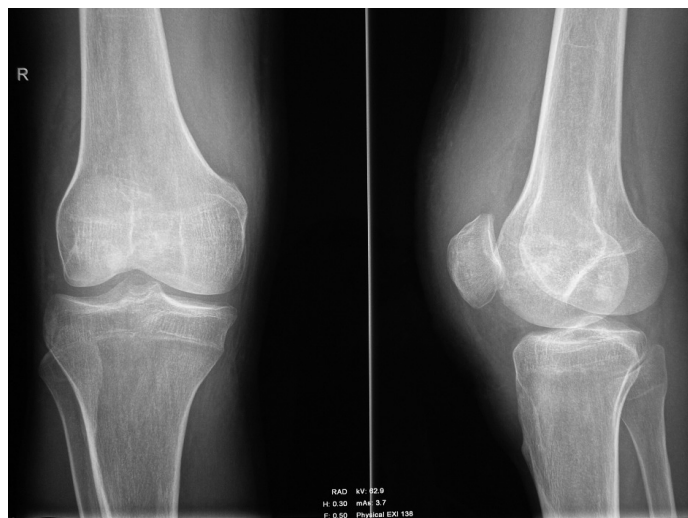
24-letni mężczyzna przyjęty do Kliniki celem diagnostyki dolegliwości bólowych z zakresu stawu kolanowego prawego o charakterze spoczynkowo-wysiłkowym, z towarzyszącymi bólami nocnymi od 2 lat, bez wywiadu urazowego. Chory na stałe przyjmował leki z grupy NLPZ uzyskując zmniejszenie dolegliwości bólowych. W badaniu klinicznym – widoczny znaczny zanik mięśnia czworogłowego w porównaniu do strony przeciwnej, zakres ruchomości w stawie kolanowym w normie, z towarzyszącą bolesnością w końcowej fazie zgięcia. Konwencjonalne zdjęcia RTG w dwóch projekcjach nie wykazały ogniska patologicznego (Ryc. 1). Diagnostykę poszerzono o scyntyografię kości (MDP-TC-99m), w której uwidoczniło się zwiększone gromadzenie znacznika w nasadzie dalszej kości udowej oraz w przylegających tkankach miękkich (odczynowe). W wykonanym rezonansie magnetycznym uwidoczniło się ognisko patologiczne (9x8x7mm) kłykcia przyśrodkowego po stronie przyśrodkowej z towarzyszącym obrzękiem szpiku, hipointensywne w T1, słabo wzmacniające się po podaniu kontrastu oraz towarzyszące uszkodzenie chrząstki rzepki II/III stopień. W badaniach laboratoryjnych bez odchylenia od normy. Wykonano zabieg operacyjny metodą otwartą- resekcja ogniska patologicznego z rekonstrukcją ubytku mozaikoplastyką. (Ryc. 2), jak również wykonano mikroślamania w obrębie powierzchni chrzęstnej rzepki. Tkanki gu-

most common tumor location was the tibia (6 cases), followed by the femur (3 cases), fibula (2 cases) and talus bone (1 case), ulna (1 case), rib (1 case) and vertebral spinous process (1 case). Osteoid osteoma with a typical radiological appearance was seen in 13 patients. Radiological studies showed no changes in two patients, who required extended work-up to establish the diagnosis. These patients are described in detail below.

Each of the patients underwent surgery consisting in nidus resection. The resected tissue was sent to the Division of Medical Pathomorphology for a histopathological examination. There were no intraoperative and postoperative complications. Primary wound healing without signs of infection was achieved in all the patients. All patients experienced complete relief of pain (VAS-0). One patient showed recurrence of osteoid osteoma at 7 months post surgery. Analysis of post-operative radiographs of this patient pointed to an incomplete resection of the nidus as the cause of recurrence.

### CASE REPORT 1

A 24-year-old male was admitted to the Department due to pain in the right knee at rest and on exertion with a 2 year history of concomitant nocturnal pain with no history of trauma. The patient had been chronically taking an NSAID, which relieved the pain. Clinical examination revealed significant atrophy of the quadriceps femoris muscle compared to the contralateral muscle, with a normal range of motion in the knee joint and soreness at the end of the flexion range. Conventional X-ray in two projections showed no pathological lesions (Fig. 1). Further work-up with MDP-TC-99m bone scintigraphy revealed increased tracer uptake at the base of the distal femur and reactive uptake in the adjacent soft tissues. A T1-weighted MRI scan revealed a pathological, hypointense and poorly enhancing focus (9x8x7mm) in the medial part of the medial femoral condyle with bone marrow edema and stage II/III chondromalacia of the patellar surface (Fig.2). There were no significant abnormalities in laboratory tests. An open surgery was performed to resect the pathological focus with mosaicoplasty reconstruction and formation of microfractures within the cartilage surface of the patella. A histological examination of the tumor tissue revealed an osteoid osteoma. The surgery produced complete relief of pain.



Ryc. 1. Rtg ap i boczne stawu kolanowego prawego- bez uchwytanych zmian (przypadek 1)  
Fig. 1. A-P and lateral X-rays of the right knee showing no evident abnormalities (case 1)



Ryc. 2. Przekrój strzałkowy stawu kolanowego prawego w MR – widoczny podchrzęstny ubytek w dystalnej części kości udowej (przypadek 1)  
Fig. 2. Sagittal MRI scan showing sub-chondral lesion in the distal femur (case 1)

za poddano badaniom histopatologicznym otrzymując wynik: osteoid osteoma. W wyniku zabiegu operacyjnego uzyskano zniesienie dotychczasowych dolegliwości bólowych.

## OPIS PRZYPADKU 2

20-letni mężczyzna przyjęty do Kliniki z powodu dolegliwości bólowych o znacznym nasileniu z zakresu 1/3 piszczeli lewej, o charakterze spoczynkowo-wy-

## CASE REPORT 2

A 20-year-old man was admitted to hospital due to a history of significant pain at rest and on exertion in the 1/3 left proximal calf with accompanying night

siłkowym z towarzyszącymi bólami nocnymi od około roku, bez wywiadu urazowego. Chory przyjmował salicylany uzyskując zmniejszenie dolegliwości bólowych. W badaniu klinicznym – bez odchyień od normy Konwencjonalne zdjęcia RTG w dwóch projekcjach nie wykazały ogniska patologicznego (Ryc. 3). Diagnostykę poszerzono o scyntygrafię kości (MDP-TC-99m), w której uwidoczniono zwiększone gromadzenie znacznika w nasadzie bliższej kości piszczelowej (Ryc. 4). W wykonanym rezonansie magnetycznym uwidoczniono ognisko patologiczne

pain for about a year and no history of trauma. The patient took salicylates, which reduced the pain. A clinical examination revealed no significant abnormalities. Conventional X-ray in two projections showed no pathological lesions (Fig. 3). The diagnostic process was extended to include a bone scan (MDP-TC-99m) which revealed an increased accumulation of the tracer in the proximal tibia (Fig.4). An MRI revealed a pathological focus (8x6x14mm) on the postero-lateral side of the tibia at the border of the metaphysis and the shaft with accompanying bone mar-



Ryc. 3. Rtg ap i boczne stawu kolanowego lewego - bez uchwytanych zmian (przypadek 2)  
Fig. 3. A-P and lateral X-rays of the left knee showing no evident abnormalities (case 2)



Ryc. 4. Scyntygrafia kośćca- wzmożona kumulacja znacznika w 1/3 bliższej kości piszczelowej lewej(przypadek 2)  
Fig. 4. Bone scintigraphy scan showing increased accumulation of tracer in proximal third of left tibia (case 2)

(8x6x14mm) po stronie tylno-bocznej kości piszczelowej na granicy przynasady i trzonu z towarzyszącym obrzękiem szpiku oraz nieznacznym pogrubieniem warstwy korowej, sugerujący proces zapalny z obecnością martwaka. Wykonano również tomografię komputerową, której obraz sugerował osteoid osteoma. W badaniach laboratoryjnych bez odchyżeń od normy. Wykonano zabieg operacyjny – resekcja ogniska patologicznego (lokalizację ogniska określono na podstawie pomiarów w obrazie TK), z frezowaniem sięgającym do jamy szpikowej. Tkanki guza poddano badaniom histopatologicznym otrzymując wynik: osteoid osteoma. W wyniku zabiegu operacyjnego uzyskano zniesienie dotychczasowych dolegliwości bólowych.

## DYSKUSJA

Kostniak kostnawy jest łagodnym nowotworem kości, występuje najczęściej w postaci jednoogniskowej w trzonach kości długich, głównie kończyny dolnej (kość udowa i piszczelowa) [12]. W materiale klinicznym nowotwór ten w latach 2001-2013 stanowił 7,5% wszystkich pierwotnych oraz 10,4% wszystkich operowanych łagodnych nowotworów kości. Nowotwór ten występuje najczęściej u młodych dorosłych do 35 r.ż., z dominacją płci męskiej. Średni wiek chorych w naszej klinice wyniósł około 26 lat (od 18 do 56 roku życia), a 73% stanowili mężczyźni. Najczęstszą lokalizacją nowotworu była kość piszczelowa (40%) i kość udowa (20%). Wszyscy chorzy hospitalizowani w Klinice podawali typowe dolegliwości bólowe z nasileniem w porze nocnej, zmniejszające się po NLPZ lub salicylanach. Wspomniany we wstępie obraz patomorfologiczny nidusa, w obrazie RTG nie zawsze jest typowy (centralne przejaśnienie, sklerotyczna otoczka). Przykładem takim są opisane przez nas 2 przypadki. Ten klasyczny obraz RTG dotyczy lokalizacji korowej, który występuje w blisko 60%. Wyzwaniem jest lokalizacja wewnątrzstawowa oraz wewnątrzszpikowa, która często jest „niema” w obrazie radiologicznym oraz zwykle towarzyszą niespecyficzne objawy kliniczne [6,11, 16]. Postać wewnątrzstawowa zajmuje głównie staw biodrowy, łokciowy oraz kolanowy. Towarzyszą jej często zapalenie błony maziowej oraz wysięki, co często rozpoznawane jest jako zapalenie, a właściwe rozpoznanie stawiane jest z dużym opóźnieniem [1,7,16,18]. Taka trudność z postawieniem właściwej diagnozy wystąpiła w opisanym przypadku pierwszego pacjenta z lokalizacją osteoid osteoma w obrębie stawu kolanowego. Wykonanie scyntygrafii, MR w korelacji z obrazem klinicznym, pozwoliło na postawienie wstępnego rozpoznania, które zostało po-

row edema and slight cortical thickening, suggesting an inflammatory process with a sequestrum. A CT scan was also performed which suggested an osteoid osteoma. There were no abnormalities in laboratory tests. The pathological tissue (located on the basis of CT evidence) was resected with burring to the marrow cavity. A histological examination of the tumor tissue revealed an osteoid osteoma. The surgery produced complete relief of pain.

## DISCUSSION

Osteoid osteoma is a benign tumor occurring most often as a single focus in shafts of long bones, especially of the lower limb (femur and tibia) [12]. In our clinical experience, it accounted for 7.5% of all bone primaries and 10.4% of all operated benign bone tumors in the years 2001-2013. This tumor occurs most often in young adults up to 35 years old with a male predominance. The average age of patients in our department was about 26 years (range: 18 to 56 years of age), of whom 73% were male. In 6 cases, the tumor was located in the tibia (40%) and in 3 it was in the femur (20%). All patients hospitalized in the Department reported typical patterns of pain that intensified at night and was reduced after the administration of NSAIDs or salicylates. The typical appearance of the nidus (a central lucency with sclerotized margins) mentioned in the introduction was not always seen on radiographs, as exemplified by the two case reports above. This classic X-ray appearance concerns tumors located in cortical bone, which occurs in nearly 60% of cases. Intramedullary and intraarticular locations, which are often radiologically “silent” and are usually accompanied by non-specific clinical signs, constitute diagnostic challenges [6,11,16]. Intraarticular osteoid osteoma usually involves the hip, elbow, and knee joints. It is often connected with synovitis and joint effusion which are commonly misdiagnosed as inflammation and the correct diagnosis is significantly delayed [1,7,16,18]. This difficulty of establishing the diagnosis was the case of the first patient, who had osteoid osteoma within the knee joint. A bone scan and MRI in correlation with the clinical presentation led to an initial diagnosis which was confirmed histologically. The MRI scan also revealed defects of the patellar cartilage surface which were treated with microfractures

twierdzone histopatologicznie. Wykonany MR uwi-  
docznił również ubytki powierzchni chrzęstnej rzep-  
ki, które poddano mikrozlamaniom podczas tego sa-  
mego zabiegu operacyjnego. Przypadek drugiego cho-  
rego, z charakterystycznym wywiadem dla osteoid  
osteoma, bez widocznej zmiany w obrazie RTG w ty-  
powych projekcjach wymagał dalszej diagnostyki.  
Wykonanie szeregu badań laboratoryjnych, w któ-  
rych nie stwierdzono odchyżeń od normy, scyntygra-  
fii – która wykazała nadmierne gromadzenie znacznika  
w trzonie kości piszczelowej, obrazu MR, który  
sugerował proces zapalny oraz tomografii kompute-  
rowej, której obraz odpowiadał osteoid osteoma, mi-  
mo braku typowego odczynu osteosklerotycznego  
wokół centralnego przejaśnienia. W przypadku tym,  
mimo lokalizacji korowej, nie było charakterystycz-  
nego obrazu radiologicznego, ale na podstawie prze-  
prowadzonych dodatkowych badań diagnostycznych  
wstępnie postawiono rozpoznanie kostniak kostna-  
wy, które zostało potwierdzone histopatologicznie.  
W obu przypadkach zastosowano leczenie operacyj-  
ne, które jest standardem postępowania w przypadku  
osteoid osteoma. W przypadku pierwszego pacjenta  
powstały po resekcji nidusa ubytek kostny na po-  
wierzchni chrzęstnej kłykcia przyśrodkowego, uzu-  
pełniono stosując metodę mozaikoplastyki. W dru-  
gim przypadku po resekcji nidusa, frezowano po-  
wstałą łożę, dochodząc do jamy szpikowej, bez uzu-  
pełniania powstałego ubytku przeszczepami kostnymi.  
Po zastosowanym leczeniu operacyjnym dolegli-  
wości bólowe całkowicie ustąpiły, bez nawrotu w roc-  
nej obserwacji. Procedury operacyjne w przypadku  
osteoid osteoma, oprócz resekcji samego nidusa, jak  
w przypadku naszych pacjentów, obejmują również  
resekcje „en bloc”, których zaletą jest zmniejszenie  
ryzyka wznowy nowotworu (<10%). Wadą tej szerokiej  
resekcji jest osłabienie kości, co wymusza zasto-  
sowanie przeszczepów kości oraz nawet stabilizacji  
wewnętrznej [12,15]. Dość nową metodą, szczegól-  
nie użyteczną w trudnych lokalizacjach jest termo-  
ablacja [11,12,13,15]. Jej zaletą jest mała inwazyj-  
ność, lecz technicznie jest wymagająca i ryzyko  
wznowy w przypadku tej metody jest największe  
(około 20%) [11,13,15]. Wznowa jest prawdopodob-  
na w każdym przypadku niecałkowitej resekcji nidu-  
sa, dlatego zaleca się dokładne jego usunięcie, sięga-  
jąc do jamy szpikowej. Problemem jest dokładna lo-  
kalizacja nidusa [11,15,20]. Przedoperacyjna ocena  
jego lokalizacji jest bardzo istotna, ponieważ śród-  
operacyjnie nidus jest trudny do identyfikacji, gdyż  
nie różni się wyraźnie od otaczającej tkanki kostnej  
[13]. Najdokładniejsza identyfikacja nidusa jest moż-  
liwa na podstawie obrazu tomografii komputerowej.  
Resekcja sklerotycznej warstwy korowej nie

during the same surgery. The case of the second pa-  
tient, with characteristic symptoms of osteoid osteo-  
ma and no apparent changes on standard X-ray views,  
required further work-up, including an array of labo-  
ratory tests, which showed no abnormalities, a bone  
scan which showed excessive accumulation of the  
tracer in the body of the tibia, an MRI which suggest-  
ed inflammation, and a CT scan which revealed find-  
ings consistent with an osteoid osteoma, even though  
the typical sclerotic reaction around a central lucent  
area was absent. Despite a cortical location, the ra-  
diographic appearance was not characteristic and an  
initial diagnosis of osteoid osteoma was based on  
additional diagnostic tests and ultimately confirmed  
histologically. In both cases, the treatment was sur-  
gery, which is a standard procedure in cases of oste-  
oid osteoma. In the first patient, an osteochondral  
defect developed after resection of the nidus on the  
surface of the medial femoral condyle cartilage and  
was treated with mosaicplasty. In the second case,  
after resection of the nidus and burring, the marrow  
cavity was opened and no bone grafting was used to  
fill the defect. Surgery resulted in complete resolu-  
tion of pain with no recurrence after a one year fol-  
low-up. Surgical procedures in osteoid osteoma, in  
addition to nidus resection as in the case of our pa-  
tients, also include “en bloc” resection which reduces  
the risk of tumor recurrence (< 10%). The disadvan-  
tage of this wide resection is weakening of the bone,  
which necessitates bone grafting and even internal  
fixation [12,15]. Radiofrequency ablation is a fairly  
new method that is especially useful in difficult tu-  
mor locations [11,12,13,15]. Its advantage is low in-  
vasiveness but it is technically demanding and the  
risk of recurrence with this method is the highest  
(about 20%) [11,13,15]. Recurrence is likely in any  
case of incomplete nidus resection; it is, therefore,  
advisable to remove it radically, reaching into the  
marrow cavity. The exact location of the nidus is pro-  
blematic but is an important aspect of the diagnostic  
and therapeutic process [11,15,20]. Preoperative  
evaluation of its location is very important because  
the nidus is difficult to identify intraoperatively as it  
is not clearly differentiated from the surrounding  
bone tissue [13]. Computed tomography allows for  
the most precise identification of the nidus. Resec-  
tion of the sclerotic cortical rim is not necessary  
because it is a reactive bone formation and not part  
of the tumor itself [25]. A preoperative diagnosis  
should always be verified by histopathological exa-  
mination of the material collected intraoperatively.  
Pain relief in the patient immediately after surgery is  
evidence of tumor resection and a definitive endpoint  
to treatment [10,13].



jest konieczna, dlatego że jest to reakcja odczynowa, a nie składowa nowotworu [25]. Zawsze należy zwerfikować rozpoznanie przedoperacyjne badaniem histopatologicznym pobranego śródoperacyjnie materiału. Uwolnienie pacjenta od dotychczasowego bólu bezpośrednio po zabiegu jest dowodem na resekcję nowotworu i definitywnym zakończeniem leczenia [10,13].

## WNIOSKI

1. Przedstawiony materiał sugeruje, że kostniak kostnawy może stanowić problem diagnostyczny, jak i leczniczy.
2. Typowe objawy kliniczne, mimo braku zmian w obrazie radiologicznym, nie wykluczają obecności kostniaka kostnawego.
3. Scyntygrafia oraz rezonans magnetyczny są pomocnymi metodami w obrazowaniu ognisk patologicznych niemych radiologicznie.
4. W przypadku trudności związanych z lokalizacją nidusa pomocna jest tomografia komputerowa, szczególnie w korowej lokalizacji nowotworu.

## CONCLUSIONS

1. Our experience suggests that osteoid osteoma may be a diagnostic and therapeutic problem.
2. Lack of visible abnormalities on conventional radiographs in the presence of typical clinical symptoms does not rule out osteoid osteoma.
3. Bone scintigraphy and magnetic resonance imaging are helpful methods in imaging of radiologically silent pathological lesions.
4. Computed tomography is helpful in difficult cases associated with the location of the nidus, especially in cortical locations of osteoid osteomas.

## PIŚMIENNICTWO / REFERENCES

1. Goswami P, Medhi M, Sarma PK, Das HS, Hazarika P. Imaging features of osteoid osteoma in plain radiograph, CT and MR: a case report and review of literatures. *IND J Radiol Imag* 2005; 15: 4: 481-4.
2. Mazurek T, Ziętek A. Podwójne ognisko kostniaka kostnawego piszczeli u 9-letniego chłopca – opis przypadku. *Chir Narz Ruchu i Ortop Pol* 2003; 68(5): 349-51.
3. Smet LD, Brys P, Fabry G, Baert A. An unusual localisation and presentation of an osteoid osteoma. *Acta Orthop Belg* 1997; 63: 2: 128-31.
4. Mahata KM, Keshava SK, Korula MJ. Osteoid osteoma of the femoral head treated by radiofrequency ablation: a case report. *JMCR* 2011; 5: 115.
5. Saccomanni B. Osteoid osteoma and osteoblastoma of the spine: a review of the literature. *Curr Rev Musculoskelet Med*. 2009; 2: 65-7.
6. Franceschi F, Marinozzi A, Papalia R, Longo UG, Gualdi G, Denaro E. Intra- and juxta-articular osteoid osteoma: a diagnostics challenge. Misdiagnosis and successful treatment: a report of four cases. *AOTS* 2006; 126: 660-7.
7. Baghdadi T, Mortazavi SM. Intrepiphyseal osteoid osteoma of proximal tibia epiphysis: a case report. *Acta Medi Iran* 2005; 43: 1: 75-8.
8. Vanderschueren GM, Taminiau AH, Obermann WR, Berg-Huysmans AA, Bloem JL. Osteoid osteoma: factors for increased risk of unsuccessful thermal coagulation. *Radiol* 2004; 233: 757-62.
9. Zmiany kościotwórcze (osteogeniczne) w: Greenspan A, Jundt G, Remagen W. Diagnostyka różnicowa w onkologii ortopedycznej. Warszawa: Medipage; 2008. p. 61-8.
10. Ayan I, Milcan A, Apaydin FD, Colak M. A novel technique for intraoperative confirmation of the presence of nidus in the resected bone. *Joint Dis Rel Surg* 2008; 19: 2: 94-5.
11. Rankine JJ. The diagnosis and percutaneous treatment of osteoid osteoma. *Curr Orthop* 2007; 21: 464-70.
12. Gebauer B, Tunn PU, Gaffke G, Melcher I, Felix R, Stroszczyński C. Osteoid osteoma: experience with laser-and radiofrequency – induced ablation. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2006; 29: 210-5.
13. Rolf O, Ettl V, Raab P. Unusual localization of an osteoid osteoma. *AOTS* 2006; 126: 53-6.
14. Weber KL, Heck RK. Cystic and Benin bone lesions. W: Schwartz HS. *Musculoskeletal Tumors 2*. II Edition. Rosemont: AAOS; 2007. p. 87-102.
15. Yang WT, Chen WM, Wang NH, Chen TH. Surgical treatment for osteoid osteoma-experience in both conventional open excision and CT-guided mini –incision surgery. *J Chin Med. Assoc* 2007; 12: 545-50.
16. Scalici J, Jacquet A, Mukish P, Trouilloud P, Baulot E. Intra-articular osteoid osteoma of the hip misdiagnosed by MRI: an unusual causa of unexplained hip pain. *OTSR* 2011; 97: 881-5.
17. Szulc A, Bernardczyk K, Bręborowicz J, Bruszewski J, Nazar J, Kurzawa P. Miejsce ortopedii w kompleksowym leczeniu nowotworów narządu ruchu. W: Marciniak W, Szulc A. *Wiktora Degi Ortopedia i Rehabilitacja t. 2*. Warszawa: PZWL; 2003. p. 425-64.

18. Rimondi E, Bianchi G, Ciminari R, Baldo R, Mercuri M, Albinini U. Radiofrequency thermoablation of primary non-spinal osteoid osteoma: optimization of the procedure. *Eur Radiol* 2005; 15: 1393-9.
19. Suresh SS, Rani V. Atypical periosteal osteoid osteoma: a case report. *Cases J*, 2009; 2: 124-6.
20. Kayalar M, Gurbuz Y, Hurel C, Doganavsargil B. Patellar osteoid osteoma. A case report. *EEXOT* 2009; 60: 1: 64-7.
21. Gunes T, Erdem m, Bostan B, Sen C, Sahin SA. Arthroscopic excision of the osteoid osteoma AT the distal femur. *Knee Surg Sport Trauma Arthr* 2008; 16: 90-3.
22. Ghanem I. The management of osteoid osteoma: updates and controversies. *Curr Opin Pediatr*. 2006; 18(1): 36-41.
23. Atesok KI, Alman BA, Schemitsch EH, Peyser A, Mankin H. Osteoid osteoma and osteoblastoma, *J Am Acad Orthop Surg* 2011; 19(11): 678-89.
24. Erol B, Dormans J. Nowotwory układu mięśniowo-szkieletowego u dzieci. *Dormans JP Ortopedia Pediatryczna: Core Knowledge in Orthopaedics*, 1ed. Wrocław: Elsevier Urban&Partner; 2009. p. 321-69
25. Elmrini A, Souhail SM, Daoudi A. The importance of CT-Scan localization in the surgery of osteoid osteoma. *Nige J Orthop Trauma*. 2006; 10: 5: 26-8.

---

**Liczba słów/Word count:** 5018

**Tabele/Tables:** 0

**Ryciny/Figures:** 4

**Piśmiennictwo/References:** 25

---

*Adres do korespondencji / Address for correspondence*

Marta Karpik, Klinika Ortopedii i Traumatologii, Uniwersytecki Szpital Kliniczny  
ul. Marii Skłodowskiej-Curie 24a 15-276 Białystok, Polska,  
Tel. +48857468282, e-mail: mkarpiky@op.pl

Otrzymano / Received 09.03.2016 r.  
Zaakceptowano / Accepted 18.04.2006 r.