

Kostniak kostnawy o nietypowej lokalizacji w wyrostku barkowym łopatki

Unusual Location of Osteoid Osteoma in the Acromion

Łukasz Chojecki^(A,B,D), Janusz Płomiński^(D), Artur Peplowski^(B)

Klinika Ortopedii, Wojskowy Instytut Medyczny, Warszawa, Polska
Department of Orthopaedics, Military Institute of Medicine, Warsaw, Poland

STRESZCZENIE

Praca prezentuje przypadek kliniczny 14-letniej chorej z dolegliwościami bólowymi w obrębie barku, u której rozpoznano ognisko kostniaka kostnawego (osteoid osteoma) zlokalizowanego w wyrostku barkowym łopatki. Zmianę usunięto techniką artroskopową, uzyskując ustąpienie dolegliwości. Ponadto zaprezentowano przegląd publikowanych prac dotyczących nietypowych lokalizacji kostniaka kostnawego.

Słowa kluczowe: kostniak kostnawy, ból barku, artroskopia barku, nietypowa lokalizacja nowotworu

SUMMARY

We present the clinical case of a 14-year-old female patient complaining of omalgia. A focus of osteoid osteoma located in the acromion was diagnosed. The lesion was removed using the arthroscopic technique, and the symptoms subsided completely. We also present a review of published papers regarding unusual locations of osteoid osteoma.

Key words: osteoid osteoma, omalgia, arthroscopy of the shoulder joint, unusual location of a neoplasm

WSTĘP

Dolegliwości bólowe barku są częstą przyczyną zgłaszania się chorych do lekarza. Zazwyczaj ich początek wiąże się z urazem lub przeciążeniem stawu. W każdym przypadku, a szczególnie, gdy przyczyna jest niejednoznaczna lub dolegliwości bólowe są niecharakterystyczne, należy brać pod uwagę dolegliwości wywołane procesem nowotworowym.

Kostniak kostnawy (osteoid osteoma) to łagodny nowotwór kości zlokalizowany zazwyczaj w kościach długich. Po raz pierwszy tę zmianę opisał Jaffe w roku 1935 [1].

Najczęstszą lokalizacją guza jest bliższy koniec lub trzon kości udowej oraz kości piszczelowej. Zmiana może jednak lokalizować się w mniej typowych miejscach i wówczas powoduje problemy diagnostyczne. Wśród opisywanych rzadkich lokalizacji są rzepka, paluch, dystalny paliczek palca ręki albo żuchwa [2-5].

Przy różnicowaniu kostniaka kostnawego należy bać pod uwagę inne łagodne nowotwory kości, takie jak osteoma lub osteoblastoma. Wszystkie zmiany charakteryzują się nowotworzeniem tkanki kostnej przez komórki guza. Często obraz histopatologiczny tych guzów jest bardzo podobny, co sprawia trudności diagnostyczne.

Celem pracy jest prezentacja przypadku 14-letniej chorej, u której rozpoznano kostniaka kostnawego zlokalizowanego w wyrostku barkowym łopatki.

PREZENTACJA PRZYPADKU

14-letnia chora zgłosiła się do lekarza rodzinnego z powodu nieswoistych dolegliwości bólowych barku. Ból umiejscowiony był w okolicy stawu barkowo-obojęzycznego i wyrostka barkowego łopatki. Objawy nie były poprzedzone urazem ani przeciążeniem barku, nasilały się w nocy. Początkowo chora była diagnozowana ambulatoryjnie. W badaniu barku nie stwierdzono ograniczenia zakresu ruchów czynnych i biernych. Nie stwierdzono również cech niewydolności mięśni stożka rotatorów. Obecny był słabo dodatni test Neera i bolesny łuk (80 st). W badaniach laboratoryjnych (w tym OB, CRP) nie stwierdzono nieprawidłowości. Początkowo zastosowano standardowe leczenie: ograniczenie obciążeń, niesterydowe leki przeciwzapalne, usprawnianie (stabilizacja stożka rotatorów, stabilizacja łopatki), nie uzyskano poprawy. Po 8 miesiącach od wystąpienia objawów wykonano badanie rezonansu magnetycznego. W badaniu stwierdzono odcinkowe zmiany obrzękowe tkanki kostnej wyrostka barkowego łopatki w okolicy stawu barkowo-obojęzycznego (Ryc. 1,2). Wobec braku charakterystycznych cech radiologicznych w MR, wykonano

BACKGROUND

Shoulder pain is a common reason for seeking medical advice. The onset of pain is usually associated with an injury or overload of the joint. However, in each case, and particularly when the cause is unclear or pain is non-characteristic, the presence of a neoplasm has to be considered.

Osteoid osteoma is a benign bone cancer usually located in long bones. It was first described by Jaffe in 1935.[1]

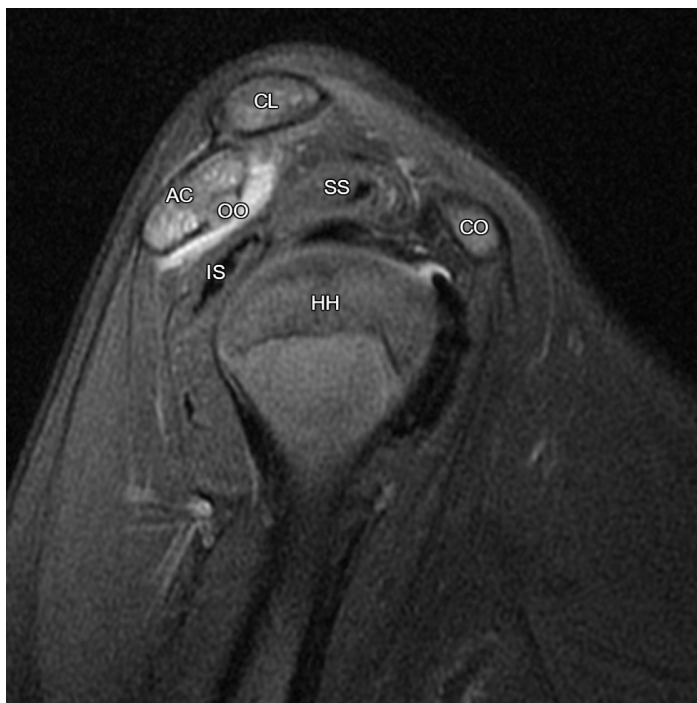
Osteoid osteoma is most commonly located in the proximal end or shaft of the femur and tibia. It may be also located in less typical sites, posing some diagnostic problems. Those rarely reported locations include the patella, the hallux, distal phalanx or mandible [2-5].

Differential diagnosis of osteoid osteoma should consider other benign bone tumours, including osteoma and osteoblastoma. All those pathologies are characterized by neoplastic transformation of osseous tissue. The histopathological presentation of those tumours is often similar, which poses some diagnostic difficulties.

The purpose of this paper is to present the case of a 14-year-old female patient diagnosed with osteoid osteoma of the acromion.

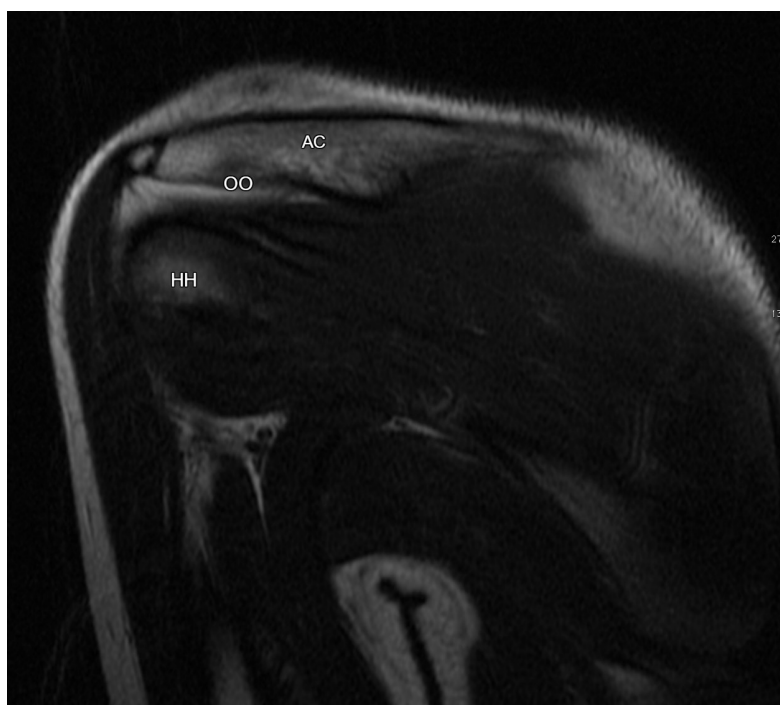
CASE REPORT

A 14-year-old girl reported to her GP because of non-specific pain of the shoulder. The pain was localised to the area of the acromioclavicular joint and the acromion. Symptoms had not been preceded by a trauma or overload of the shoulder and they intensified at night. Initially, the patient was diagnosed at an outpatient facility. Examination of the shoulder demonstrated a full passive and active range of motion, no evidence of inadequate muscular strength of the rotator cuff and no pain in tests of muscles of the shoulder girdle. Neer's test was weakly positive and the arch was painful at 80 degrees. Laboratory tests (including ESR, CRP) demonstrated no abnormalities. Standard treatment was applied initially with limitation of activity, NSAIDs and rehabilitation (stabilization of the rotator cuff and the scapula). However, that approach proved unsuccessful. Eight months after symptom onset, an MRI demonstrated segmental bone oedema of the acromion in the region of the acromioclavicular joint (Fig. 1,2). Considering the absence of characteristic radiographic features in the MRI, a CT of the joint was performed (Fig. 3). The findings



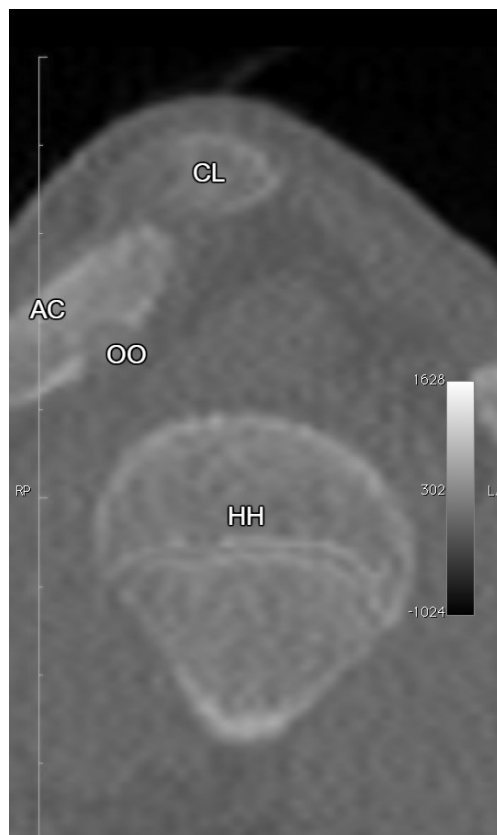
Ryc. 1. Ognisko kostniaka kostnawego w wyrostku barkowym łopatki, obraz rezonansu magnetycznego – Sag PD. (AC – wyrostek barkowy łopatki, CL – obojczyk, CO – wyrostek kruczy łopatki, HH – głowa kości ramiennej, IS – mięsień podgrzebieniowy, OO – ognisko kostniaka kostnawego, SS – mięsień nadgrzebieniowy)

Fig. 1. A focus of osteoid osteoma in the acromion. MRI image – Sag PD. (AC – acromion, CL – clavicle, CO – coracoid process, HH – humeral head, IS – infraspinatus, OO – osteoid osteoma, SS – supraspinatus)



Ryc. 2. Ognisko kostniaka kostnawego w wyrostku barkowym łopatki, obraz rezonansu magnetycznego – Cor T2. (AC – wyrostek barkowy łopatki, HH – głowa kości ramiennej, OO – ognisko kostniaka kostnawego)

Fig. 2. A focus of osteoid osteoma in the acromion. MRI image – Cor T2. (AC – acromion, HH- humeral head, OO – osteoid osteoma)

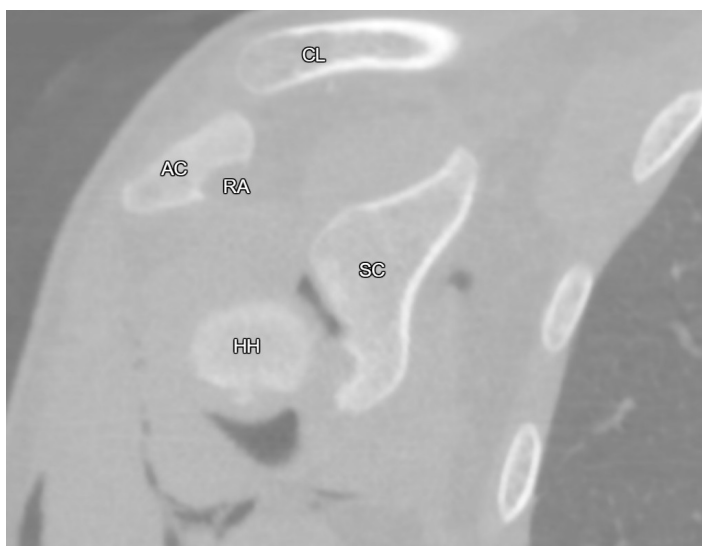


Ryc. 3. Ognisko kostniaka kostnawego w wyrostku barkowym łopatki, obraz tomografii komputerowej. (AC – wyrostek barkowy łopatki, CL – obojczyk, HH – głowa kości ramiennej OO – ognisko kostniaka kostnawego)

Fig. 3. A focus of osteoid osteoma in the acromion. CT image. (AC – acromion, CL – clavicle, HH- humeral head, OO – osteoid osteoma)

no tomografię komputerową stawu (Ryc. 3). Obraz dał podejrzenie zmian o charakterze kostniaka kostnawego, włókniaka niekostniejącego lub zarodkowego. Zakwalifikowano chorą do biopsji otwartej. Przy użyciu łyżeczki pobrano 3 preparaty kostne z wyrostka barkowego. Na podstawie uzyskanych preparatów i całokształtu obrazu choroby rozpoznano kostniaka kostnawego. Chorą zakwalifikowano do leczenia operacyjnego celem radykalnego usunięcia zmiany. Z uwagi na umiejscowienie nidusa na dolnej powierzchni wyrostka, guz usunięto techniką artroskopową. W planowaniu operacyjnym zastosowano pomiary z tomografii komputerowej, określając położenie ogniska względem końca wyrostka barkowego. Po wprowadzeniu artroskopu do przestrzeni podbarkowej, stwierdzono dwa ogniska o zmniejszonej twardości kości na powierzchni dolnej wyrostka barkowego. Wyłyżeczkowano ognisko i materiał przekazano do badania histopatologicznego. W kontrolnym badaniu TK potwierdzono radykalne usunięcie zmiany (Ryc. 4). We wczesnym okresie pooperacyjnym unieruchomiono kończynę na temblaku włączając ćwiczenia izometryczne, a wraz

raised a suspicion of an osteoid osteoma, non-osteogenic fibroma or osteoblastoma. The patient was qualified for a biopsy. Three bone specimens were harvested from the acromion with a curette. Examination of the specimens and the overall presentation led to a diagnosis of osteoid osteoma. The patient was qualified for radical surgical removal of the lesion. As the nidus was located on the inferior surface of the acromion, the tumour was removed arthroscopically. Surgical planning used measurements derived from the CT images to determine the location of the focus in relation to the tip of the acromion. When the arthroscope was introduced to the subacromial space, two foci of reduced bone density were found on the inferior surface of the acromion. The focus was curetted and sent for a histopathological examination. A follow-up CT confirmed radical removal of the lesion (Fig. 4). In the early post-operative period, the limb was immobilized on a sling and isometric exercises were allowed. As pain receded, mobilization was gradually increased. The limb was fully mobilized when the surgical wounds had healed. Already



Ryc. 4. Obraz pooperacyjny po resekcji ogniska kostniaka kostnawego z wyrostka barkowego łopatki, obraz tomografii komputerowej. (AC – wyrostek barkowy łopatki, CL – obojczyk, HH – głowa kości ramiennej, RA – obszar resekcji, SC – łopatka)

Fig. 4. Post-surgical presentation after resection of a focus of osteoid osteoma from the acromion. CT image. (AC – acromion, CL – clavicle, HH- humeral head, RA – resection area, SC – scapula).

z ustępowaniem dolegliwości bólowych włączono stopniową mobilizację. Po wygojeniu ran pooperacyjnych, stopniowo usprawniano chorą uzyskując pełen powrót czynności stawu. Już w pierwszych dobach po operacji chora odczuwała radykalne ustąpienie dolegliwości bólowych sprzed operacji. Po wygojeniu się ran pooperacyjnych i usprawnianiu, objawy ustąpiły całkowicie.

DYSKUSJA

Kostniak kostnawy jest niezłośliwym nowotworem kości i stanowi ok. 1:10 diagnozowanych przypadków łagodnych zmian. Występuje zazwyczaj u osób w młodym wieku w 2. i 3. dekadzie życia [6]. Charakterystyczną cechą są nocne dolegliwości bólowe kości, łagodzone przez podanie kwasu acetylosalicylowego. Zmiana może lokalizować się w całym układzie kostno-stawowym łącznie z kośćmi kręgosłupa i czaszki, jednak najczęściej znajdowana jest w kościach kończyny dolnej [7].

Podstawowym badaniem w diagnostyce kostniaka kostnawego jest radiogram. Zmiana daje obraz drobnego ogniska sklerotycznego otaczającego nidus wielkości ok. 1-1,5 cm. Może być zlokalizowany w warstwie gąbczastej, jak i korowej kości. Przy wątpliwościach, diagnostykę można poszerzyć o tomografię komputerową i rezonans magnetyczny. Lokalizacja w warstwie korowej może dawać obraz sugerujący zmiany okostnowe charakterystyczne dla nowotworów złośliwych. Dlatego kostniaka kostnawego należy różnicować z nowotworami złośliwymi kości, takimi jak osteoblastoma oraz z zakażeniem kości [8].

on first days after the surgery the patient reported radical alleviation of the pain she had felt before the surgery. After healing of the surgical wounds and rehabilitation, the symptoms disappeared completely.

DISCUSSION

Osteoid osteoma is a non-malignant bone tumour constituting approx. 1:10 of all diagnosed cases of benign lesions [6]. It usually occurs in young people during the second and third decade of life. A characteristic feature is intensification of pain at night, alleviated by acetylsalicylic acid. The lesion may be located anywhere in the human osteoarticular system, including bones of the spine and skull. However, most lesions are located in bones of the lower extremity [7].

Radiography is the basic diagnostic modality in work-up for osteoid osteoma. Osteoid osteoma presents as a fine sclerotic focus surrounding a 1-1.5 cm nidus. It may be localized in both the spongy and compact layer of a bone. In case of doubt, a CT and MRI can be additionally performed. A cortical location may present as periosteal changes abnormalities typically associated with malignant tumours. For that reason, osteoid osteoma has to be differentiated from malignant bone tumours, including osteomyelitis and osteoblastoma, as well as bone infection [8].

Jedynym skutecznym leczeniem jest chirurgiczna resekcja guza. Śródoperacyjnie często kłopotem jest zlokalizowanie zmiany. Dlatego wprowadza się precyzyjniejsze techniki z wykorzystaniem nawigacji komputerowej, pozwalającej na przeszskórną resekcję zmiany za pomocą wiertła lub termoablacji.

Dolegliwości bólowe zlokalizowane w obrębie barku związane są najczęściej z zapaleniem kaletki podbarkowej, patologiami mięśni stożka rotatorów, głowy długiej mięśnia dwugłowego lub obrąbka stawowego. Najczęściej przyczyną jest łatwa do ustalenia i wiąże się u młodszych pacjentów ze sportami wymagającymi pracy z rękami ponad poziomem obręczy barkowej, jak siatkówka, pływanie czy kulturystyka. U osób starszych główną przyczyną mogą być zmiany zwyrodnieniowe lub zerwanie ścięgien mięśni stożka rotatorów, zapalenie kaletki podbarkowej lub zmiany zwyrodnieniowe stawu barkowo-obojczykowego. Cechą charakterystyczną dolegliwości bólowych związaną z patologiami struktur przestrzeni podbarkowej jest nasilenie dolegliwości w nocy, gdy w pozycji leżącej siła docisku mięśnia naramiennego nie przeciwdziała sile grawitacji. Podobnie w chorobach nowotworowych kości ból nasila się w nocy. Dlatego zawsze należy brać pod uwagę chorobę nowotworową, jako przyczynę dolegliwości bólowych. Prezentowany przykład pokazuje, że może nią być również rzadka lokalizacja nowotworu, typowo niespotykanego w obrębie kości budujących obręcz barkową [9,10].

Zdecydowano o leczeniu techniką artroskopową ze względu na łatwą dostępność przestrzeni podbarkowej oraz powierzchowną lokalizację guza. Potwierdzeniem radykalnego usunięcia zmiany jest ustąpienie dolegliwości bólowych u chorej oraz potwierdzony w TK obszar resekcji.

PODSUMOWANIE

Typowy przebieg kliniczny kostniaka kostnawego, z charakterystycznymi objawami radiologicznymi, nie powinien nastroczać trudności w jego rozpoznaniu. Jednak w przypadkach nietypowej lokalizacji może być przyczyną pomyłek diagnostycznych. Z drugiej strony kostniak kostnawy powinien być zawsze brany pod uwagę w diagnostyce dolegliwości bólowych, nawet jeżeli objawy są typowe dla innej jednostki chorobowej. W przypadkach nietypowej lokalizacji, badanie tomografią komputerową potwierdza rozpoznanie. Leczenie zmiany jest standardowe i polega na całkowitej jego resekcji. Lokalizacja w wyrostku barkowym pozwala na leczenie operacyjne techniką artroskopową. Całkowite usunięcie zmiany pozwala na pełne wyleczenie chorego.

The only effective treatment is surgical tumour resection. Locating the lesion is a frequent intraoperative problem. Therefore, some more precise techniques involving computer-aided navigation are used, allowing transcutaneous resection of a lesion with drills or by radiofrequency ablation.

Shoulder pain is most commonly associated with subacromial bursitis, pathologies of the rotator cuff muscles, long head of the biceps or glenoid labrum. Usually, the cause is easy to determine and in younger patients it is associated with sports involving lifting of the arms above the level of the shoulder girdle, including volleyball, swimming and body building. In older patients, symptoms are usually caused by degenerative changes or torn tendons of the rotator cuff muscles, subacromial bursitis or osteoarthritis of the acromioclavicular joint. The characteristic feature of complaints associated with pathologies of structures located in the subacromial space is intensification of pain at night, when compression of the deltoid muscle is not counteracted by gravity. Similarly, in bone tumours, pain is intensified at night. Therefore a neoplasm should always be considered as a cause of the pain. The case of our patient indicates that pain may also be caused by a rare location of a tumour that typically does not occur in the bones forming the shoulder girdle [9,10].

Considering easy access to the subacromial space using the arthroscopic technique, and superficial location of the tumour, we decided to carry out an arthroscopic procedure. Radical resection of the lesion was confirmed by resolution of the pain, and an area of resection visible on the follow-up CT.

CONCLUSION

A typical clinical course of osteoid osteoma with characteristic radiological symptoms should not pose any diagnostic difficulties. However, in cases of non-typical locations, it may be misdiagnosed. On the other hand, osteoid osteoma should always be considered in the diagnosis of pain, even if symptoms appear to be typical for another condition. In cases of non-typical location, the diagnosis is confirmed by CT. Treatment is typical and involves radical resection of the tumour. Location in the acromion allows surgical treatment using the arthroscopic technique. Radical resection leads to a complete cure.

PIŚMIENICTWO / REFERENCES

1. Jaffe HL. Osteoid osteoma: a benign osteoblastic tumor composed of osteoid and atypical bone. Arch Surg 1935; 31: 709-28.
2. Chillemi C, Franceschini V, D'Erme M, Ippolito G, Farsetti P. Patellar osteoid osteoma as a cause of anterior knee pain in adolescents: a case report and literature review. Case Rep Med 2013; doi:10.1155/2013/746472
3. Turkmen I, Alpan B, Soylemez S, Ozkan FU, Unay K, Ozkan K. Osteoid osteoma of the great toe mimicking osteomyelitis: a case report and review of the literature. Case Rep Orthop 2013; doi:10.1155/2013/234048
4. Khajouei S, Sajadie-Khajouei S. Osteoid osteoma of distal phalanx: A rare disorder and review of literature. J Res Med Sci 2013; 18(3): 264-6.
5. An SY, Shin HI, Choi KS, et al. Unusual osteoid osteoma of the mandible: report of case and re view of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol 2013; 116: 134-40.
6. Greenspan A. Benign bone-forming lesions: osteoma, osteoid osteoma, and osteoblastoma: clinical, imaging, pathologic, and differential considerations. Skeletal Radiology 1993; 22(7): 485-500.
7. Healey JH, Ghelman B. Osteoid osteoma and osteoblastoma: current concepts and recent advances. Clinical Orthopaedics and Related Research 1986; 204: 76-85.
8. Davies AM, Sundaram M, James SL. Imaging of Bone Tumors and Tumor-Like Lesions: Techniques and Applications. Berlin: Springer; 2009.
9. Degreef I, Verduyck J, Debeer P, De Smet L. An unusual cause of shoulder pain: osteoid osteoma of the acromion – a case report. J Shoulder Elbow Surg 2005; 14(6): 643-6.
10. Damade R, Ziza JM, Strauss C, et al. An uncommon site of osteoid osteoma: the acromion. Rev Rhum Mal Osteoartic 1991; 58(6): 485-6.

Liczba słów/Word count: 2641
Tabele/Tables: 0**Ryciny/Figures:** 4**Piśmiennictwo/References:** 10*Adres do korespondencji / Address for correspondence**Eukasz Chojecki**Wojskowy Instytut Medyczny, Klinika Ortopedii, ul. Szaserów 128, 04-141 Warszawa, Polska**tel. +48 261 817 042, fax. +48 261 817 504, e-mail: l.chojecki@mp.pl**Otrzymano / Received**10.08.2016 r.**Zaakceptowano / Accepted**05.12.2016 r.*