

Agresif Seyirli Anevrizmal Kemik Kisti: İki Olgu Sunumu

Aggressive Aneurysmal Bone Cyst: Two Case Report

Fuat Bilgili¹, Ufuk Özkaya¹, Yavuz Selim Kabukçuoğlu², Atilla Parmaksızoğlu¹, Cüneyt May¹

¹Taksim Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği, İstanbul, Türkiye

²Baltalimanı Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği, İstanbul, Türkiye

ÖZET

Femur ve ön kolda agresif seyirli anevrizmal kemik kisti olan 20 yaşında iki olgu sunuldu. Femurdaki agresif seyirli anevrizmal kemik kisti olgusunun total eksizyonlara rağmen tekrarlaması ve enfeksiyonla birlikteliği ekstremitte dolaşımını bozdu, tedavisinde kalça dezartikülasyonu yapıldı. Ulna'nın 2/3'ünün tümör ile invaze olduğu ikinci olguda tedavi olarak total eksizyon ve fibula otogrefti ile rekonstrüksiyon yapıldı. İki yıl takip sonrasında fibula otogreftinin ulnaya tamamen inkorpore olduğu ve eklem hareket açıklığının ağrısız olduğu görüldü. Anevrizmal kemik kistinin lokal agresif ve malign tümörlerle ayırımının önemi ve farklı tedavi yöntemleri literatür eşliğinde tartışıldı. (*JAREM 2011; 1: 65-8*)

Anahtar Sözcükler: Agresif anevrizmal kemik kisti, dezartikülasyon, rekonstrüksiyon, fibular greft

ABSTRACT

Two cases of an aggressive aneurysmal bone cyst that involved the distal femur and forearm in 20-year-old men were presented. The recurrence of the aggressive aneurysmal bone cyst with severe infection in the femur in spite of total excision caused deterioration of the extremity circulation. Hip disarticulation was applied for the treatment. The second case with an alytic expansile lesion involving the 2/3 of the right ulna was surgically treated by total excision and reconstruction of the ulna by using the ipsilateral fibula. At the 2-year follow-up, the patient had complete incorporation of the fibular graft. The differential diagnosis of the aneurysmal bone cyst from the local aggressive and malignant tumor and different treatment options were discussed with the literature. (*JAREM 2011; 1: 65-8*)

Key Words: Aggressive aneurysmal bone cyst, desarticulation, reconstruction, fibular graft

GİRİŞ

Anevrizmal kemik kistleri (AKK) benign, ekspansil, damarsal, lokal destrüktif non-neoplastik lezyonlardır. Tüm kemik tümörlerinin yaklaşık olarak %1'ini oluştururlar (1-4). Uzun kemiklerin metafizlerinde, vertebraların posterior elemanlarında ve pelviste görülür. En sık 2-3. dekatta görülür ve kadınlarda daha fazla görülür (2, 6, 7). Etiyolojisi tam olarak aydınlatılmamıştır. Anevrizmal kemik kistinin tek başına görüldüğü primer tipleri olduğu gibi kondroblastom, dev hücreli tümör, osteoblastom gibi selim, osteosarkom, malign fibröz histiositom gibi habis tümörler ile birlikte olduğu sekonder formları vardır (2, 5, 7). Birlikte görülebilme olasılıklarının bulunması yanında görüntüleme yöntemlerindeki ve davranışlarındaki benzerlikleri nedeniyle sayılan bu tümörler ayırıcı tanıda dikkate alınmalıdır. Bu nedenle biyopsi ile kesin tanı koyulmadan tedavi planlaması yapılmamalıdır.

AKK tedavisinde küretaj ve grefonaj, küretaj ve fenol, küretaj ve radyoterapi, küretaj ve kemik çimentosu, enblok rezeksiyon gibi metodlar mevcuttur (2, 6, 7). Sekonder sarkoma sebep olabileceği için son zamanlarda radyoterapi kontrendikedir (2, 4, 7). Yapılacak tedavinin öncelikle yüksek oranda kür sağlaması, düşük komplikasyon ve morbidite oranına sahip olması gerekir; fakat bu kriterlere uygun tedavi yöntemi mevcut değildir. AKK tedavisine karar verirken lezyonun anatomik lokalizasyonu, kistin boyutu, büyüme hızı, patolojik kırık riski veya spinal kord tutulumu ve lezyonun primer veya sekonder olması gibi faktörler dikkate alınmalıdır (8).

Bu çalışmanın amacı lokal agresif olması sebebiyle klinik olarak maligniteyi taklit eden ve tedavisinde birine dezartikülasyon di-

ğerine de rekonstrüksiyon uygulanan iki anevrizmal kemik kisti olgusu sunmaktır.

OLGU SUNUMU

Olgu 1

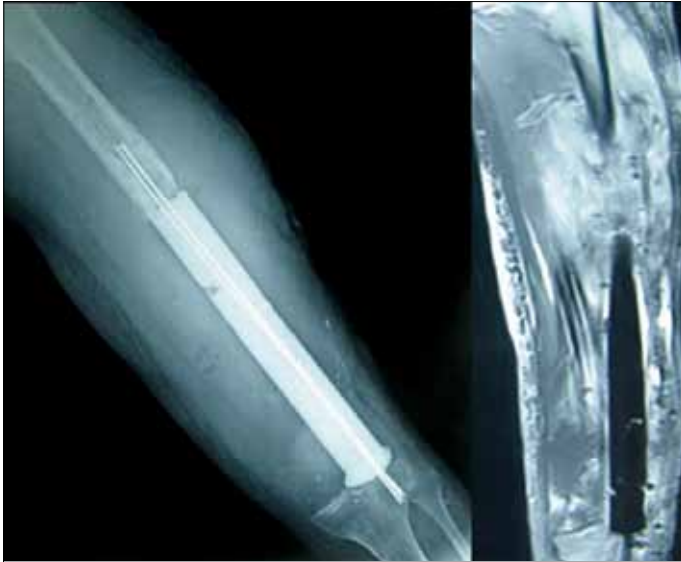
On dokuz yaşında erkek hasta sol femurdaki unilateral eksternal fiksatorün pin diplerinde akıntı, uyluğunda şişlik şikayeti ile başvurdu. Hastaya 22 ay önce sol femur distalinde patolojik kırık tanısıyla başka bir merkezde biopsi ve plak vida ile osteosentez uygulanmış. Dokuz ay sonra ağrısı olması sebebiyle plak çıkarılmış. Kırık bölgesinde dört ay sonra şişlik oluşmuş. Aynı seansta rezeksiyon, grefonaj, sirküler tip eksternal fiksator uygulanmış. Üç ay sonra sirküler tip eksternal fiksator çıkartılıp unilateral eksternal fiksatöre uygulanmış.

Fizik muayenede sol uylukta pin dipleri akıntılı unilateral eksternal fiksatorü mevcuttu. Uylukta distalden proksimale doğru uzanan lokal şişlik ve sıcaklık artışı vardı.

Direkt grafisinde sol femur distal 1/3'de lokal geniş destrüksiyon yapan kitlesel lezyon izlendi (Resim 1). Manyetik rezonans (MR) incelemesinde sol uyluk 1/3 distal kesimini tümüyle tutmuş, boyutları yaklaşık 19x9 cm olarak ölçülen kitlesel lezyon mevcuttu (Resim 1). Kitle bölgesinde normal femur dokusuna ait yapı seçilememekteydi. Kitle lezyonu multiseptali loküle kistik karakterde olup iç yapısında yaygın hemorajik seviyelendirmeler izlenmekteydi. Bu özellikleri ile kitle anevrizmal kemik kisti ile uyumluuydu.

Kitlenin klinik seyri malignite görünümündeydi. Hastaya aynı seansta tümör eksizyonu, antibiyotikli sementasyon ve AO tüp

Bu olgu Ortopedi ve Travmatoloji 2009'da sunulmuştur. / This case was presented at the Orthopedics and Traumatology 2009.



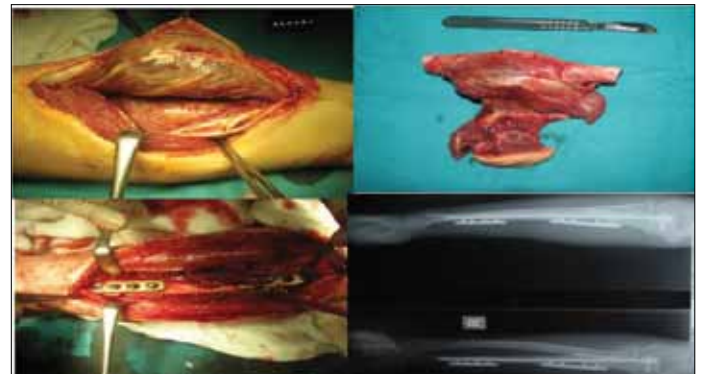
Resim 3. Segmental sement ile rekonstrüksiyon ve MR görüntüsü



Resim 6. Hızla büyüyen lezyonun 2 ay sonraki klinik ve radyolojik görüntüleri



Resim 4. Sol kalça dezartikülasyonu



Resim 7. Tümörün radikal rezeksiyonu ve fibula otogrefti ile rekonstrüksiyonu



Resim 5. Sağ önkoldaki kitlenin direk grafi ve MR görüntüleri

bir tümöre benzer şekilde geçiş zonu geniş de olabilir (6, 9). Olgularımızın her ikisinde dar geçiş zonu mevcuttu. Lezyonun görünümü hastalığın evresine göre değişebilmektedir (11). AKK'nin aktif olduğu ilk evrelerde ekspansiyon olan kemiğin sınırları belirgin olmadığı için malign bir lezyona benzetilebilir. Özellikle telanjiektazik osteosarkomdan ayırılması gerekir (8, 10). Ön kolda kitlesi olan olguda radyolojik olarak ön planda Ewing olabileceği düşünüldü. Femurda kitlesi olan olguda radyolojik ve histopatolojik olarak anevrizmal kemik kisti belirtilmiş olmasına rağmen geniş nüks alanı olması sebebiyle sekonder anevrizmal kemik kisti olabileceği düşünüldü. Diğer taraftan dev hücreli kemik tümörü ile ayırıcı tanısının iyi yapılması gerekir. Dev hücreli kemik tümöründe AKK'daki reaktif skleroz görülmez (10).

AKK'nin kistik ve solid tiplerinin de ayırılması gerekir (4, 9). Literatürde bildirilen solid tip anevrizmal kemik kisti olgularının tamamı, klasik anevrizmal kemik kisti ile ortak radyografik özelliklere sahiptir; fakat her iki olguda da solid komponent mevcut değildi.

AKK'nin tedavisinde intralezyoner rezeksiyon sonrası rekonstrüksiyon otojen veya allojen kemik greftleri ile yapılır. Ciddi yapısal defektlerde strut greft kullanılabilir. Gerekli olduğu durumlarda greft fiksasyonu için konvansiyonel plak, interfrans vida, intrame-



Resim 8. Hastanın 2 yıl sonraki sağ ön kol grafisi

düller rod kullanılabilir (1, 2). Marco ve Miller genç popülasyonda çok büyük kistik kavitelelerin sürekli stabilitesinin fibüler strut greft ile sağlanarak en iyi şekilde tedavi edildiğini rapor etmişlerdir (8). İkinci olgumuzda ön koldaki büyük kistik lezyon ulnanın 2/3'ünü tuttuğu için stabilite açısından radikal rezeksiyon ve fibular kemik otogrefti ile rekonstrüksiyon (fibüler kemik strut otogrefti proksimal ve distalden ulnaya plak vidalarla tespit edildi) yapıldı.

Geniş eksizyon sonrası rekürrens oranı sifıra yaklaşırken küretaj yapılanlarda bu oran ciddi şekilde artmaktadır (6, 7, 9). Marco ve ark. (11) intralezioner rezeksiyon ve kriyocerrahi yaptıkları 51 hastalık seride ilk rekürrens oranını %18, tekrarlanan kriocerrahiden sonra bu oranın %4'e düştüğünü bildirmişlerdir. Biesecker ve ark. (7, 12) sadece küretaj veya küretaj ve greftonaj yaptıkları 44 hastalık seride rekürrens oranının %59 olduğunu rapor etmişlerdir. Campanacci (10) küretaj ile tedavi ettiği agresif anevrizmal kemik kisti olan 91 hastanın %21'inde rekürrens olduğunu, parsiyel veya

total rezekte edilenlerde rekürrens olmadığını bildirmişlerdir. Birinci olgumuzda lezyonun eksizyonuna rağmen nüks oluştu.

Agresif seyirli anevrizmal kemik kistlerinin malign tümörlerden özellikle telanjiektazik osteosarkomla ayırıcı tanısının iyi yapılması gerekir. Hastanın hikayesinin, fizik muayenesinin dikkatli yapılması radyolojik görüntülemenin iyi değerlendirilmesi bile bazen ayırt edici olmayabilir. Mutlaka biopsi yapılmalı ve yapılan biopsi tecrübeli bir patolog tarafından değerlendirilmelidir. Nüks olmaması için agresif lezyonlarda agresif tedavi uygulanmasında fayda vardır.

Çıkar çatışması: Yazarlar herhangi bir çıkar çatışması bildirmemişlerdir.

KAYNAKLAR

1. Randall RL, Nork SE, James PJ. Aggressive aneurysmal bone cyst of the proximal humerus. A case report. Clin Orthop Relat Res 2000; 370: 212-8. [CrossRef]
2. Cottalorda J, Bouelle S. Current treatments of primary aneurysmal bone cysts. J Pediatr Orthop B 2006; 15: 155-67. [CrossRef]
3. Kaila R, Ropars M, Briggs TW, Cannon SR. Aneurysmal bone cyst of the paediatric shoulder girdle: a case series and literature review. J Pediatr Orthop B 2007; 16: 429-36. [CrossRef]
4. Kervancıoğlu S, Kervancıoğlu R, Şirikçi Ş, Özkur A. Klavikulanın solid tipte anevrizmal kemik kisti: nadir bir çocuk olgu. Tanısal ve Girişimsel Radyoloji 2002; 8: 299-301.
5. Cottalorda J, Bouelle S. Modern concepts of primary aneurysmal bone cyst. Arch Orthop Trauma Surg 2007; 127: 105-14. [CrossRef]
6. Mankin HJ, Hornicek FJ, Ortiz-Cruz E, Villafuerte J, Gebhardt MC. Aneurysmal bone cyst: a review of 150 patients. J Clin Oncol 2005; 23: 6756-62. [CrossRef]
7. Brindley GW, Greene JF Jr, Frankel LS. Case reports: malignant transformation of aneurysmal bone cysts. Clin Orthop Relat Res 2005; 438: 282-7. [CrossRef]
8. Kapoor H, Singh D, Bhatia N, Chaudhary D, Singh AK. Distal tibial aneurysmal bone cyst treatment by using a proximal fibular autologous bone graft: a case report. J Foot Ankle Surg 2004; 43: 179-84. [CrossRef]
9. Greenspan Adam, Jundt Gernot, Remagen Wolfgang. Differential Diagnosis of Orthopaedic Oncology, 2nd Edition, 2007. Lippincott Williams & Wilkins
10. Campanacci M, Capanna R, Picci P. Unicameral and aneurysmal bone cysts. Clin Orthop Rel Res 1986; 204: 25-36.
11. Marcove RC, Sheth DS, Takemoto S, Healey JH. The treatment of aneurysmal bone cyst. Clin Orthop Relat Res 1995; 311: 157-63.
12. Biesecker JL, Marcove RC, Huvos AG, Miké V. Aneurysmal bone cysts: A clinicopathologic study of 66 cases. Cancer 1970; 26: 615-25. [CrossRef]