Cisto ósseo aneurismático em costela

Aneurysmal bone cyst in the rib

Jéssica Alessio Gottfried[1], Kelly Caroline Welter[1], Marcelo Heleno da Fonseca[2], Tiago Ernesto Fabris Cezar[3]

RESUMO

O cisto ósseo aneurismático (COA) representa uma lesão óssea benigna, que ocorre mais frequentemente nos ossos longos ou na coluna vertebral. Relatamos um caso raro de COA com surgimento em costelas, representando apenas 2% de todos os casos deste tumor. O diagnóstico pode ser suspeitado através de exames de imagem, sendo o exame histopatológico, com o material ressecado cirurgicamente, fundamental para o diagnóstico final.

UNITERMOS: Cisto Ósseo Aneurismático, Tumor Ósseo, Costela.

ABSTRACT

The aneurysmal bone cyst (ABC) is a benign bone lesion that occurs most often in the long bones or spine. We report a rare case of ABC with emergence in the ribs, which represents only 2% of all cases of this tumor. The diagnosis may be suspected through imaging and histopathological examination of the surgically resected material, essential for the final diagnosis.

KEYWORDS: *Aneurysmal Bone Cyst, Bone Tumor, Rib.*

INTRODUÇÃO

Cisto ósseo aneurismático (COA) é um tumor ósseo osteolítico expansivo benigno raro, que contém cavidades de paredes finas cheias de sangue, revestidas por tecido conjuntivo com células gigantes e osso trabecular (1). Estes tumores podem crescer rapidamente e destruir o osso. Geralmente, são solitários (1), podendo ser primários ou relacionados a outras lesões ósseas benignas, como o tumor de células gigantes, o osteoblastoma e o condroblastoma (2). O termo COA foi cunhado por Jaffe e Lichtenstein em 1942 para descrever sua aparência radiográfica (1).

Apresenta maior incidência na segunda década com vida e são incomuns na população idosa (3,4). Embora o COA possa ser visto em todo o esqueleto, o local geralmente envolvido é a metáfise dos ossos longos, principalmente nos elementos posteriores da coluna vertebral, no fêmur e na tíbia, sendo rara a localização nas costelas (1,4).

Há hipóteses de que o COA seja o resultado de uma malformação vascular óssea, embora a causa final da malformação ainda esteja em discussão (5). O COA normalmente causa dor localizada e pode se apresentar com fratura patológica ou edema à medida que aumenta de tamanho. Lesões da coluna vertebral podem estar associadas a sintomas neurológicos. As lesões que atravessam a placa de crescimento podem causar a interrupção do crescimento (6).

Em radiografias simples, o COA aparece como lesões agressivas, expansivas, líticas metafisárias com uma borda esclerótica. Fratura patológica ou reação periosteal podem estar presentes (7). A hipótese de COA deve sempre ser considerada no diagnóstico diferencial dos tumores da parede torácica (4).

O tratamento do COA é muito diversificado, podendo ser utilizada excisão, curetagem, enxerto ósseo, dentre outros (8,9). O tratamento de eleição é o cirúrgico, pois outras modalidades terapêuticas resultam em alta taxa de recorrência (1,4,9,10).

[1] Acadêmica de Medicina da Universidade de Santa Cruz do Sul (UNISC).
[2] Cirurgião Torácico e Docente do Curso de Medicina, UNISC.
[3] Médico Residente em Cirurgia Geral, Hospital Santa Cruz.

No presente artigo é relatado um caso raro de cisto ósseo aneurismático em costela. São discutidos aspectos clínicos, imaginológicos, histológicos, diagnóstico diferencial, bem como tratamento dessa patologia.

RELATO DE CASO

Paciente feminina, 23 anos, apresentando dor intensa em região torácica direita, a qual sentia havia cerca de 9 anos, porém de forma esporádica e em menor intensidade, aliviava com compressas quentes, sem uso de analgésicos. Houve piora progressiva da dor após trauma e cirurgia para correção de fratura de fêmur dois meses antes, e uso de muletas pós-operatório.

Radiografia de tórax evidenciou apenas pequena opacidade de 9º e 10º arcos costais à direita (Figura 1). Em 24 horas, houve piora progressiva da dor sem melhora com analgesia. Realizada ultrassonografia que identificou extensa massa de densidade de partes moles acompanhando os arcos costais à direita, próximos aos seios costo-frênicos, com extensão aos tecidos profundos da caixa torácica e desvio das pleuras. Massa com diâmetros longitudinais de 10 cm e profundidade de 5 cm. O achado muito provavelmente correspondia à tumoração de parede torácica.

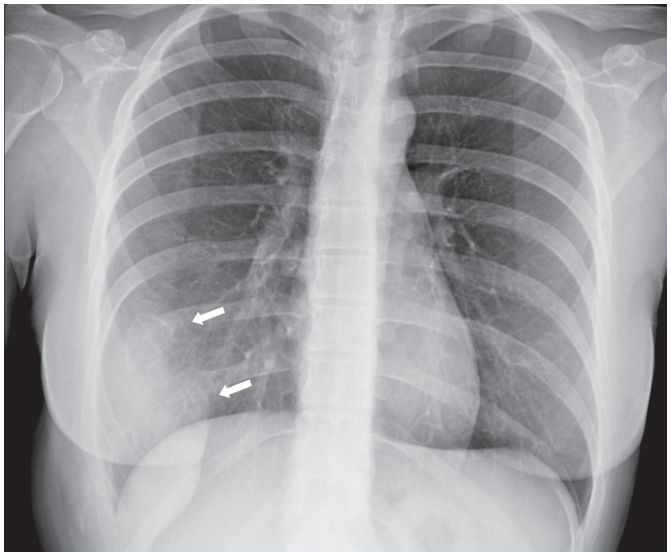


Figura 1 – Raio x de tórax demonstrando opacidade de 9º e 10º arcos costais à direita.

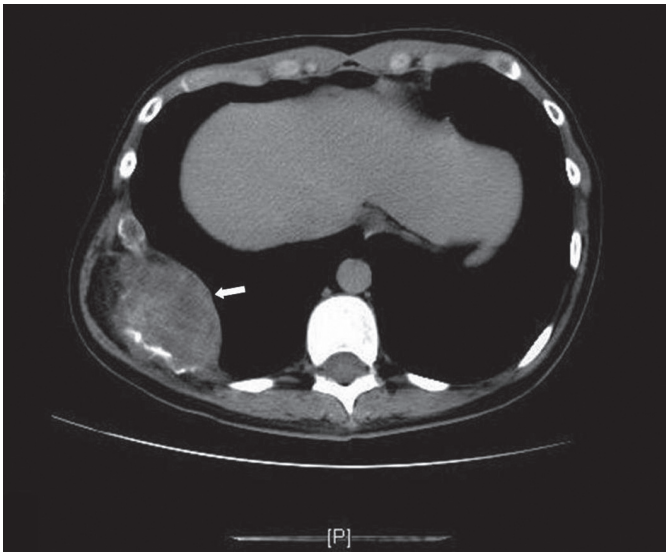


Figura 3 – Tomografia de tórax com lesões osteolíticas expansivas em 9º e 10º arcos costais à direita.

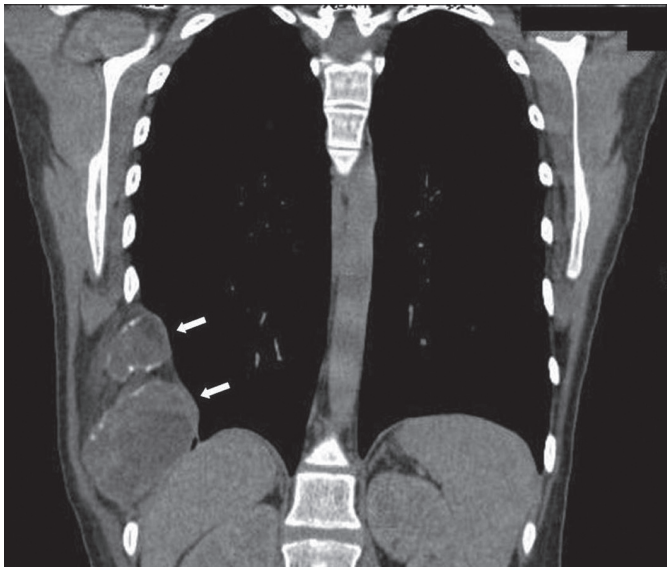


Figura 2 – Tomografia de tórax com lesões osteolíticas expansivas em 9º e 10º arcos costais à direita.

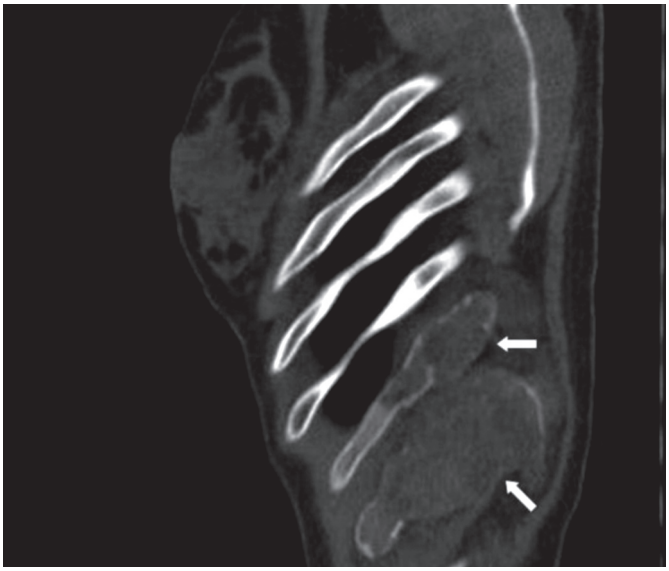


Figura 4 – Tomografia de tórax com lesões osteolíticas expansivas em 9º e 10º arcos costais à direita.

Investigação com TC de tórax identificou duas lesões osteolíticas expansivas com componente de partes moles, localizadas no aspecto póstero-lateral do 9º e 10º arcos costais à direita; a maior com pelo menos 9 cm de diâmetro. As lesões determinavam abaulamento sobre a pleura visceral e parede torácica adjacente, sem evidência de ruptura da cortical. As lesões sugeriam neoplasia primária em arcos costais (Figuras 2, 3 e 4).

Procedeu-se à cirurgia para ressecção do tumor de parede torácica, e o material (Figuras 5 e 6) foi encaminhado para avaliação anatomopatológica (AP) e imuno-histoquímica (IH).

Resultado AP: Lesão osteolítica expansiva, constituída por espaços de tamanhos variados contendo sangue, e separados por traves de tecido conjuntivo que contém trabéculas ósseas ou osteoide e células gigantes tipo osteoclásticas. Os achados correspondem a cisto ósseo aneurismático.

Resultado IH: Painel imuno-histoquímico associado aos aspectos histológicos, compatível com cisto ósseo aneurismático na dependência de correlação com demais dados radiológicos.

DISCUSSÃO

O COA caracteriza uma lesão óssea benigna, osteolítica, de caráter localmente destrutivo devido ao crescimento progressivo, com apresentação solitária, sendo de rara incidência (8,9,10,11,12).

De acordo com a Organização Mundial de Saúde, define-se como uma lesão osteolítica expansiva constituída de espaços de tamanhos variados, cheios de sangue, separados por paredes de tecido conectivo, que contém trabéculas de tecido ósseo ou osteoide e células gigantes do tipo osteoclastos (8,11,13).

O COA geralmente atinge a região metafisária dos ossos longos ou a coluna vertebral (4,8,9,10,12,13,14), e raramente ocorre em costelas (1,4,12,15). Apresenta-se, a princípio, como tumor excêntrico, que insufla a cortical óssea, e com o crescimento evolui para destruição da região metáfiso-epifisária do osso (7,10).

A etiologia e a patogênese são controversas, sendo que várias teorias foram postuladas. Há hipótese de que o cisto resulte de um distúrbio hemodinâmico do osso, na forma de uma oclusão venosa súbita ou o desenvolvimento de desvio arteriovenoso. O trauma tem sido proposto como fator etiológico, porém existem poucas evidências para sustentar esta hipótese (4,8,9,10,12,13,14). De acordo com alguns autores, uma lesão preexistente pode ser identificada em até um terço dos casos (9).

O COA pode desenvolver-se como uma lesão primária ou secundária a uma patologia preexistente, como tumor de células gigantes, condroblastoma, osteoblastoma, osteosarcoma, fibroma condromixoide, e displasia fibrosa (4,7,8,10,14). Quando a lesão é primária, tem seu início em uma malformação arteriovenosa do osso, e sua pressão hemodinâmica estabelece o cisto ósseo aneurismático (8).

O COA constitui apenas 5% de todos os tumores ósseos primários (12) e afeta comumente pessoas jovens, com maior incidência na segunda década da vida (1,4,8,10,11,13,15). Em relação ao gênero, a literatura aponta pequena predileção pelo feminino (8,9,10,13,15). Os locais comumente acometidos são as hastes dos ossos longos como o fêmur, e a coluna vertebral (4,7,8,10,13,15), sendo de rara incidência em costelas. Um estudo demonstrou que apenas 2% de todos os casos analisados de COA estavam localizados em costelas (15).

Neoplasias primárias nas costelas são incomuns, compreendendo 5 - 7% de todos os tumores ósseos primários. O COA apresentando-se como um tumor primário de cos-

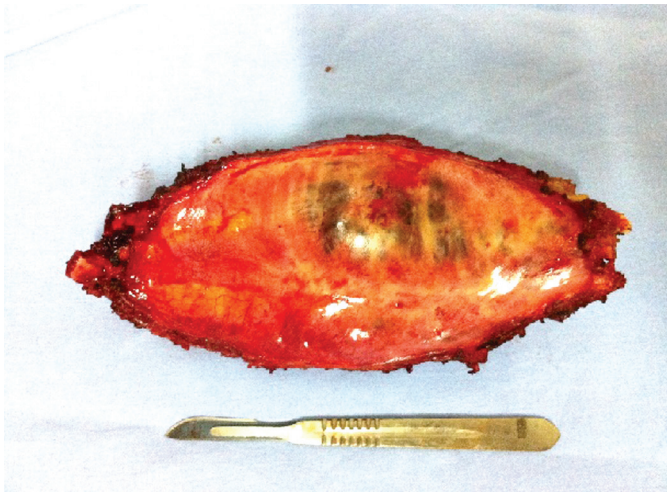


Figura 5 – Nono e décimo arcos costais ressecados.



Figura 6 – Lesão osteolítica expansiva constituída por espaços de tamanhos variados, contendo sangue e separados por traves de tecido conjuntivo.

telas é muito raro, sendo 1,3% de todos os tumores ósseos primários (4).

Os achados clínicos são inespecíficos e incluem edema e dor óssea (4,7,8,9,11,14). Muitas vezes, devido à sintomatologia ser inespecífica, pode ser um achado acidental em um exame de imagem, como radiografia de tórax, no caso da localização nas costelas (1,4,7,12).

A lesão pode perfurar a cortical e ficar revestida apenas por periósteo, apresentando crepitação, não pulsátil e sem ruídos. A tumefação e a má oclusão são progressivamente piores com o tempo, e o crescimento é geralmente rápido (8).

De acordo com a rápida expansão, a sintomatologia escassa torna-se rapidamente exacerbada, pois o crescimento da lesão causa compressão de estruturas nervosas, levando ao surgimento de dor local, dispneia (se lesão em costelas), paresias, paraplegia e até mesmo fraturas patológicas, porém estes sintomas são menos frequentes (1,4,8,9,14). A lesão pode simular um tumor maligno, apresentando agressividade local, como o tumor de células gigantes e até mesmo o osteossarcoma telangiectásico, dentre outros (14).

O diagnóstico pode ser suspeitado através de exames de imagem. Os achados radiográficos podem variar conforme a maturidade e a localização da lesão. As características à radiografia podem ser inespecíficas, sendo que as imagens tomográficas costumam ser mais sugestivas (8,9,10). Alguns autores sugerem que a hipótese diagnóstica com maior valor é obtida pela tomografia computadorizada (8).

Na radiografia, pode ser observada lesão lítica, insuflativa, com septações internas e erosão cortical. A lesão geralmente é de localização excêntrica e delimitada por uma fina margem esclerótica (1,4,14).

Através da TC, é possível detalhar a arquitetura óssea e observar a correlação anatômica, determinando a extensão do comprometimento, sendo que auxilia no diagnóstico diferencial de acordo com a densidade do conteúdo da lesão. O COA comumente é demonstrado como lesões osteolíticas, bem delimitadas e multiloculadas (8,9,10,14).

A RM permite maior detalhamento das características do cisto, detectando septações internas, níveis líquido-líquido, hemorragia de diversos estágios e halo hipointenso circular delimitando a lesão (8,9,10,13,14).

A TC *multislice* é considerada melhor do que a RM para identificação de envolvimento cortical e/ou medular e de calcificações, embora não represente impacto significativo (14).

A confirmação histológica do tipo de lesão é imprescindível para o tratamento; no entanto, não está indicada a biópsia pré-operatória do cisto ósseo aneurismático, devido ao risco de sangramento (8,12). Desta forma, a suspeita diagnóstica antes do tratamento cirúrgico é feita através dos exames de imagem. Porém, muitas vezes os achados de imagem são inespecíficos para o tipo histológico da lesão, tornando o exame histopatológico, com o material ressecado cirurgicamente, fundamental para o diagnóstico final de COA (1,4,8,9,11,14).

No caso relatado, a literatura corrobora a conduta adotada, de maneira que o diagnóstico foi suspeitado com base nos achados de imagem, não sendo realizada biópsia pré-operatória. Após a ressecção cirúrgica, os exames histopatológico e imuno-histoquímico confirmaram a hipótese de COA.

Macroscopicamente, são observadas cavidades císticas, contendo sangue, revestidas por membrana espessa, podendo haver erosão cortical e reação óssea se a lesão for expansiva (8,10,13). Microscopicamente, são vistos espaços de diversos tamanhos, cheios de sangue, separados por tecido fibroblástico celular, que contém células gigantes multinucleares e trabéculas de osso osteoide e medular (8,10).

Quanto ao diagnóstico diferencial, as lesões benignas que devem ser consideradas são o granuloma eosinófilo, o osteoblastoma, o cisto simples, a displasia fibrosa e o tumor de células gigantes. Dentre as malignas, o osteossarcoma telangiectásico, o fibrossarcoma e as metástases de neuroblastoma devem ser incluídos (1,8,14).

A conduta frente às lesões ósseas benignas ainda é muito diversificada (8,9). As possibilidades incluem a ressecção simples da lesão, com ou sem enxerto ósseo, a embolização da lesão, como terapêutica única ou como adjuvante ao tratamento cirúrgico, o uso de radioterapia, a injeção percutânea de Ethibloc, dentre outros métodos (4,8,9,11).

O tratamento de eleição é o cirúrgico, sendo que outras modalidades terapêuticas resultam em alta taxa de recorrência (1,4,9,10,12,13,14). A indicação cirúrgica depende da atividade biológica, dos sintomas clínicos e de sua localização anatômica. Lesões assintomáticas, sem risco de fraturas patológicas ou transformação maligna não necessitam cirurgia, apenas acompanhamento. Os casos sintomáticos requerem uma rápida intervenção cirúrgica (9). O tipo de cirurgia varia de acordo com a extensão do comprometimento ósseo e a localização (14).

A cirurgia excisional associada à embolização pré-operatória reduz possíveis complicações transoperatórias, como sangramento excessivo. Porém, a embolização não pode ser utilizada como método de tratamento definitivo, já que ocorrem recanalização das artérias e revascularização do cisto em poucos dias (8,9,10).

A radioterapia pode atuar como adjuvante, após a cirurgia, prevenindo recidivas. Entretanto, traz risco de complicações, como danos neurológicos ou degeneração sarcomatosa e somente deve ser adotada em caso de desenvolvimento secundário a um tumor maligno ou em casos inoperáveis (1,8,9).

O índice de recidiva é diretamente relacionado à ressecção incompleta (4,8,12,14), sendo que a recorrência aparece em cerca de 8 meses após o procedimento inicial. (17) Casos tratados apenas com curetagem, mesmo que com técnica adequada, podem resultar em recidiva em até 30% dos casos (14). Quando ocorre a completa ressecção do cisto, com margens adequadas sem lesão, a cura será definitiva (4,11,12,14).

COMENTÁRIOS FINAIS

O cisto ósseo aneurismático é uma lesão osteolítica expansiva, com maior incidência na segunda década da vida, e pequena predileção pelo sexo feminino. Apenas 2% de todos os casos são localizados em costelas. O diagnóstico pode ser tardio, uma vez que os achados clínicos são inespecíficos, incluindo edema e dor óssea. A lesão pode crescer rapidamente, comprimindo estruturas nervosas, levando à dispneia, paresias, paraplegia ou fraturas patológicas.

A radiografia é ideal para a avaliação inicial, porém a TC pode ser necessária para avaliar lesões que não estejam claramente visíveis, podendo definir melhor a lesão. O exame anatomopatológico, com o material ressecado cirurgicamente, é fundamental para o diagnóstico final. O tratamento de escolha é a excisão completa das costelas envolvidas. Outras modalidades terapêuticas resultam em altas taxas de recorrência.

REFERÊNCIAS

1. S.Y. Lee *et al.* Aneurysmal bone cyst originating from the first rib. The American Journal of Surgery 195 (2008) 104-105.
2. Wyers MR. Evaluation of pediatric bone lesions. Pediatr Radiol 2010; 40:468.
3. Guven M, *et al.* An aggressive aneurysmal bone cyst of the proximal humerus and related complications in a pediatric patient. Strat Traum Limb Recon (2012) 7:51-56.
4. Yasaroglu M, Ketenci B, Demirbag H, Yildirim M, Dogusoy I. Aneurysmal bone cyst of the rib: a case report. Journal of Medical Case Reports 2009, 3:8457.
5. Yoshida K: Aneurysmal bone cyst of the rib: report of a case. Surg Today 2005, 35:1073-1075.
6. Novais EN, Rose PS, Yaszemski MJ, Sim FH. Aneurysmal bone cyst of the cervical spine in children. J Bone Joint Surg Am 2011; 93:1534.
7. Tis JE. Overview of benign bone tumors in children and adolescents. UpToDate 2011. Disponível em www.uptodate.com
8. Silva EDOS, Gomes ACA, Raimundo RC, Carvalho RWF, Santos TS. Cisto Ósseo Aneurismático: Relato de Caso e Revisão da Literatura. Rev. Cir. Traumatol. Buco-Maxilo-Fac., Camaragibe. v.7, n.4, p. 9 - 18, outubro/dezembro 2007
9. Vale BP, Alencar FJ, Aguiar GB, Almeida BR. Cisto Ósseo Aneurismático Vertebral: Estudo de três casos. Arq Neuropsiquiatr 2005;63(4):1079-1083
10. Yu JW, Ki-Uk Kim, Kim SJ, Choi S. Aneurysmal Bone Cyst of the Orbit : A Case Report with Literature Review. J Korean Neurosurg Soc 51 : 113-116, 2012
11. Parashari UC, Khanduri S, Upadhyay D, Bhadury S, Singhal S. Radiologic and pathologic correlation of aneurysmal bone cysts at unusual sites. J Cancer Research and Therapeutics - January/March 2012 - vol.8 - Issue 1
12. Cheng C, Yeung SCY, Zhong F, Xiong Y, Luo H, Ji S, Pan J. Aneurysmal Bone Cyst in the First Rib. Ann Thorac Surg 2008; 85:2118-20
13. Omami G, Mathew R, Gianoli D, Lurie A. Enormous aneurysmal bone cyst of the mandible: case report and radiologic-pathologic correlation. Oral and Maxillofacial Radiology, 2012.
14. Santos FGPL, Suguita FM, Amaral DT, Ruggiero GM. Cisto ósseo aneurismático na falange proximal da mão: relato de caso e revisão da literatura. Rev Imagem 2008;30(2):71-7
15. Mankin HJ, Hornicek FJ, Ortiz-Cruz E, Villafuerte J, Gebhardt MC. Aneurysmal Bone Cyst: A Review of 150 Patients. J Clinical Oncology. V. 23, nº 27, setembro 2005.

✉ Endereço para correspondência
Jéssica Alessio Gottfried
Rua Venâncio Aires, 553/404
96.810-100 – Santa Cruz do Sul, RS – Brasil
☎ (51) 2109-6769
jessica.alessio@yahoo.com.br

Recebido: 7/4/2013 – Aprovado: 7/5/2013