

Subperiostal anevrizmal kemik kisti

Subperiosteal aneurysmal bone cyst

Atilla POLAT, Abdullah DEMİRTAŞ, Mehmet SAĞBAŞ, Gürkan GÜRKAYNAK

Haydarpaşa Numune Hastanesi, Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği, İstanbul

Subperiostal yerleşimli anevrizmal kemik kisti, kemikteki diğer yerleşim yerlerine göre nispeten nadir görülen bir yerleşim bölgesidir, çevresindeki dokuya bası yaparak ve kitle çevresinde ödem oluşturarak belirti verir. Bu yazıda, sol humerus distal anterior bölümünde yaklaşık 1 yıl önce fark edilen ve hafif ağrılı, gittikçe büyüyen 4x4x3 cm boyutlarında, sert kıvamlı, hareketsiz kitlesi bulunan 14 yaşında bayan hasta sunuldu. Turnike altında ekstraperiostal, lezyon içi eksizyon yapıldı. Otuz aylık izlemde nüks görülmüdü.

Anahtar sözcükler: Anevrizmal kemik kisti; subperiostal; manyetik rezonans görüntüleme.

Subperiosteal localization of aneurysmal bone cysts is relatively rare compared to the other localizations in the bones. The mass can cause symptoms dependent upon compression and edema of the surroundings tissues. In this study, we present a 14-year-old girl with a vaguely painful, firm, immobile, enlarging mass measuring 4x4x3 cm on the distal-anterior part of her left humerus. The mass, which was first realized one year before, was removed by the extraperiosteal-intralesional route using tourniquet.

Key words: Aneurysmal bone cyst; subperiosteal; magnetic resonance imaging.

Anevrizmal kemik kistleri (AKK) yaygın olarak görülebilen, doğası ve sebebi tam olarak bilinmeyen reaktif lokal değişiklikler gösteren, osteolitik, hiperplastik, hiperemik, hemorajik selim tabiatta tümör benzeri lezyonlardır. Literatürde subperiostal yerleşimli tibia ve femur diyafizi AKK olgu sunumlarına rastlanmakla birlikte, humerus metafizi subperiostal yerleşimli olgu sayısı çok azdır. AKK hızlı büyüyen, trabekül veya osteoid doku ve osteoklastik dev hücreler içeren konnektif dokudan oluşan septalarla ayrılmış içi kan dolu osteolitik lezyonlardır. Semptom olarak en sık ağrı, şişlik, yer kaplayan kitle bulguları görülür. Yük binen kemiklerde ağrı bulgusu daha ön plandadır. Yerleşim olarak eksantirik, intrakortikal, subperiostal (nadir) ve yumuşak dokuda görülebilir. Patolojik kırık sık görülmez.^[1] Subperiostal yerleşimli lezyonlarda etraf dokuda meydana gelen ödem, enflamasyon ve bası semptomları daha belirgindir.^[2]

OLGU SUNUMU

On dört yaşında bayan hasta sol humerus distale yakın anterior bölümünde, tedaviye başlamadan bir yıl önce fark edilen ve zamanla büyüyen, son birkaç ayda büyümesi yavaşlayan, 4x4x3 cm boyutlarında hafif ağrılı, sert kıvamlı, hareketsiz kitle şikayeti ile ilk kez polikliniğimize müracaat etmişti (Şekil 1a). Komşu eklem muayenesi normal bulundu. Direkt lateral radyografide, humerus distal-anteriorda korteksde erozyona yol açmış, anteriora doğru çok az fark edilebilen yer yer kesintiye uğramış periost reaksiyonu vardı (Şekil 1b). Manyetik rezonans görüntülemeye (MRG) humerus diafiz-distal yarısında humerus ön konturunu manşon şeklinde çepeçevre saran, korteksde küçük erozyon oluşturan ve anterior kompartmanda brakialis ve biceps adalelerini de iterek yer kaplayan, kistik özellikte kalın duvarlı 49x45x35 mm boyutlarında,

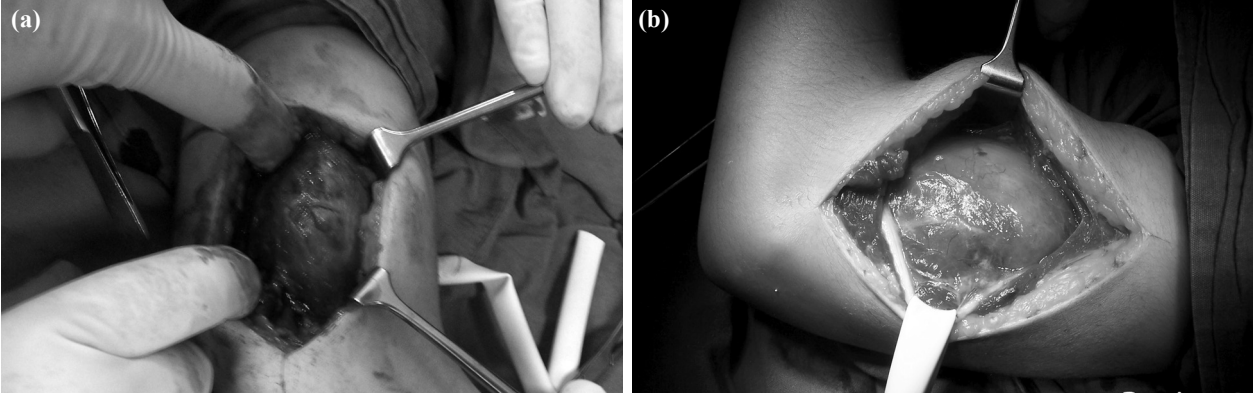


Şekil 1. (a) Olgunun klinik görünümü; kitlenin ameliyat öncesi (b) direkt grafisi ve (c) MRG görünümü.

içinde sıvı seviyesi bulunan, kanama ürünleri içeren kitle tespit edildi. Kitle, çevresindeki yumuşak dokularda ve humerus medüller kemikte yamalı tarzda kontras tutulumu gösteren enflamatuvar değişimlere sebep olmuştu (Şekil 1c). Hastada tanı olarak ilk planda subperiostal yerleşimli AKK, dev hücreli tümör, fibröz displazi, dev histiyositik fibrom, primer hiperparatiroidiye bağlı brown tümör, telenjiektatik osteosarkom düşünüldü. Direkt grafi ve MRG'de büyük olasılıkla subperiostal AKK düşünüldüğünden morbiditeyi ve nüks riskini artırmamak amacıyla biyopsi yapmadan doğrudan cerrahi tedavi planlandı.

Hasta ameliyat masasına sırtüstü pozisyonda yatırıldı, kanamanın fazla olması ihtimaline karşı kolun proksimal kısmından turnike uygulandı. Kol masası üzerinde çalışıldı. Kola hem medial hem

lateral kesilerle girildi. Önce lateral uzunlamasına kesi yapıldı, m. brakioradialis ve triseps kasları arasından girildi, radial sinir bulunup korundu. Daha sonra medial uzunlamasına kesi yapıldı, biceps ve triceps adaleleri arasından girildi. Her iki taraftan kitleye ulaşıp kitle kapsülü ile sağlam kas arasından kesiye devam edildi (Şekil 2). Kahverenkli olduğu görülen kitlenin, etrafı çepeçevre dissekte edilip kemiğe ulaşıldığında, kemiğin üzerinden kolaylıkla sıyrılarak çıkarıldı, o sırada ani kanama artışı olması nedeniyle kısa süreli kompresyon yapıldı ve sonrasında kanama durdu. Daha sonra ciltaltı ve cilt kapatıldı. Histopatolojik inceleme sonucu makroskopik olarak düzensiz şekilli kistik doku parçası, mikroskopik inceleme sonucu reaktif trabeküler yeni kemik oluşumu, anevrizmal kemik kisti ile uyumluydu (Şekil 3).



Şekil 2. (a, b) Ameliyat anından görüntümler.

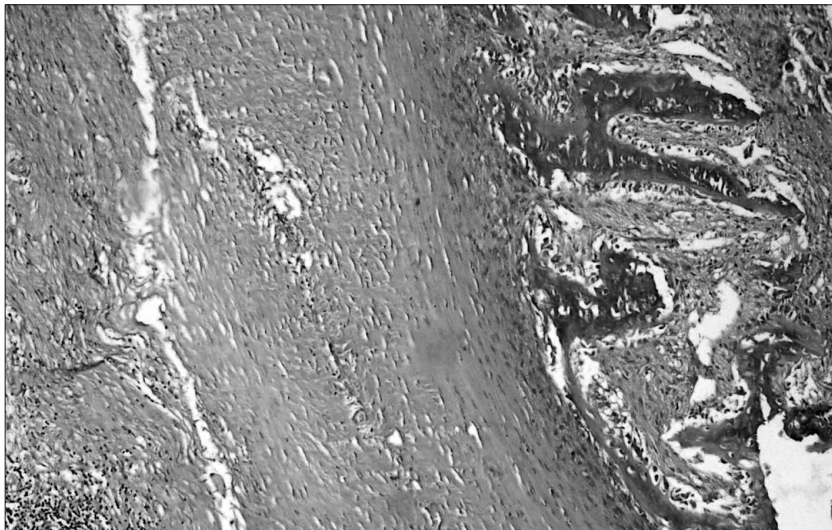
TARTIŞMA

AKK'nin etyolojisi tam bilinmemekle birlikte otoritelerin çoğu tarafından kemikteki vasküler bir malformasyon sonucu oluştuğuna inanılmaktadır. AKK Dünya Sağlık Örgütü tarafından tümör benzeri lezyon olarak tanımlanmıştır.^[3]

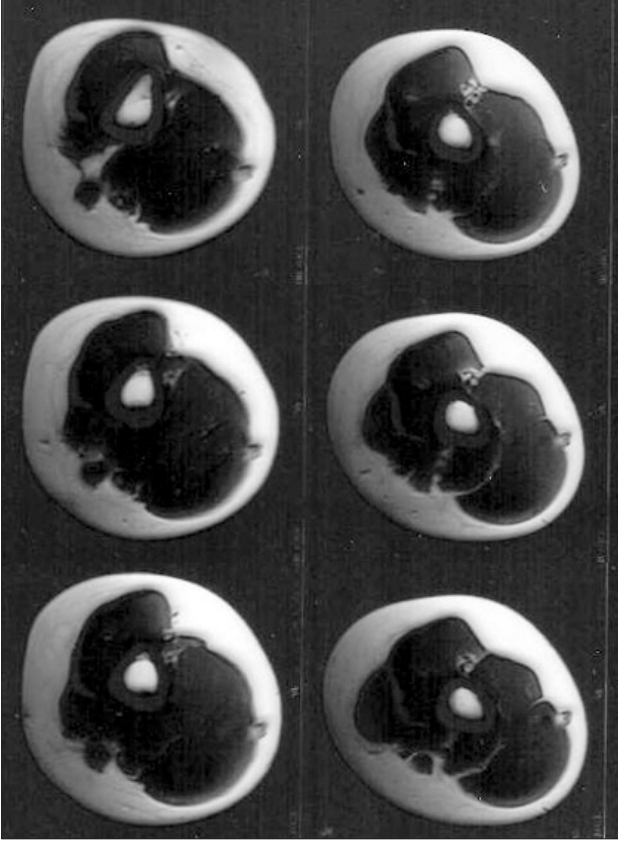
1942 yılında Jaffe ve Lichtenstein tarafından ilk olarak tanımlandıktan sonra, AKK'ye ait birçok olgu sunumları ve seriler şeklinde literatür bilgisine rastlanmaktadır. AKK tüm primer kemik tümörleri içinde %1-6 sıklıktadır. Olguların %50-70'i 20 yaşın altındadır. AKK en sık ikinci on yılda görülür. En sık uzun kemiklerde, sıklık sırasına göre femur, tibia, vertebra, pelvis, humerusta rastlanır.^[1] Eksantirik, intrakortikal, subperiostal ve yumu-

şak doku yerleşimli olabilir. AKK'leri içinde; Vergel de Dios ve ark.nın^[5] 238 vakalık serisinde %7 subperiostal, Campanacci ve ark.nın^[4] 198 AKK serisinde %5 subperiostal yerleşime rastlanmıştır. Woertler ve ark.nın^[6] yayınladığı subperiostal AKK bulunan altı olgudan oluşan serilerinde bir tane humerus yerleşimi bildirilmiştir. Schoedel ve ark.^[7] 3 olguluk, subperiostal yerleşimli AKK (bir tanesi humerus diafiz yerleşimli) ile ilgili makaleler yayınlamıştır. Tanıda direkt grafi bulgularını Campanacci ve ark.^[5] beş kategoride sınıflamıştır;

- i) Kemğin içinde santral metafizer yerleşim, kemik profil hafif genişlemesine rağmen sağlam.
- ii) Kemik segmentini içine alır, incelmış kemik korteksle beraber şişirilmiş gibi görüntü.



Şekil 3. Patoloji incelemesinde mikroskopik görünüm.



Şekil 4. Ameliyattan 1 yıl sonraki MRG'si.

iii) Eksantirik metafizyal yerleşim, genişleme yok veya kortekste minimal genişleme.

iv) Subperiostal genişleme, erozyon yok veya minimal kortikal erozyon, diyafizde nadir.

v) Meta-diyafizyal yerleşim, lezyon yumuşak dokuya doğru şişmiş, korteksi penetre etmiş, spongiöz kemik içine de genişlemiş.

Sunduğumuz olguda radyografide; subperiostal büyüme, minimal kortikal erozyon vardı.

BT lezyon içi septasyonları ve sıvı-sıvı seviyelerini iyi gösterebilmektedir.

MRG'de bunlara ek olarak yumuşak dokuya olan basıyı iyi gösterebilmekte, ayrıca lezyon içi kan oluşumunu görüntülemeye daha özgül bulgu vermektedir. Başlangıcı, büyüklüğü, kararlılığı ve iyileşme gibi, lezyonun hangi safhada olduğunu belirleyebilmektedir. Otoriteler tanıda radyografi, BT, MRG'nin yeterli olduğunu belirtmektedir.

Tanı için biyopsinin yeri tartışmalıdır. Başarir ve ark.^[8] 56 olguluk serilerinde 10 hastaya ameliyat öncesi biyopsi uyguladıklarını belirtmişlerdir. Cottalorda ve ark.^[9] çok merkezli çalışmalarında tüm hastalarında perkütan ya da açık biyopsi uygulandığını belirtmişlerdir. Biz bu olguda önceden açık biyopsi uygulamadık, tanıda radyografi ve MRG'yi yeterli gördük.

Cerrahi tedavide lezyonun çıkarılması çoğunlukla yeterli olmakla beraber, bazen çıkarılması zor olan olgularda en blok rezeksiyon (ör: fibula distalde), küretaj ve ek olarak lokal adjuvan ajan olarak sıvı nitrojen, polimetil metakrilat (PMMA) ve fenol kullanılabilir. Cerrahi uygulanamayan olgularda da selektif arteriyel embolizasyon, lezyon içine kalsitonin, metilprednizolon enjeksiyonu uygulanabilir.^[1,3] Bu olguda cerrahi tedavi olarak kitle ekstraperiostal, intralezyoner çıkarıldı. Anteriorda damar ve sinir ağının yoğun ve yaralanma riskinin daha yüksek olması nedeniyle lezyonun çıkarılması için anterior kesi yerine medial ve lateral'den çift kesiyi tercih ettik. AKK tedavisinde geçmişte radyoterapi de kullanılmakta iken, sarkom riskini artırması nedeniyle artık kullanılmamaktadır. AKK bazen kendiliğinden iyileşebilir. Malghem^[10] 3 hastada (67 olgu) kendiliğinden iyileşme tarif etmiştir. Leithner^[11] literatür taraması sonucunda toplam 23 kendiliğinden iyileşme tespit etmiştir. Nüks oranları değişkendir. Başarir ve ark.^[8] biyopsi yapmanın ve yetersiz küretajın nüks riskini 7 kat artırdığını ileri sürmüştür. PMMA ve koterizasyonun nüks riskini azalttığı ileri sürülmüştür. Birçok otör genç hastalarda nüksün daha sık olduğunu belirtmişlerdir. Vergel De Dios^[4] 200 olguluk serisinde 20 yaşın altındaki hastalarda nüks riskinin, daha büyüklerle oranla %90 daha fazla olduğunu belirtmiştir. Zehetgruber ve ark.^[12] 73 olguluk serilerinde yaş ve cinsiyet özelliklerini ele alarak epidemiyolojik çalışma yapmışlar, bu özelliklerle nüks arasında yüksek oranda bağlantı bulmuşlardır. Grag ve ark.^[13] yaptıkları çalışma sonunda, nüksün sadece küretaja göre, küretaj, burrleme, elektrokoter ve greftleme sonrası daha çok azaldığını, genellikle nüksün ilk bir yıl içinde meydana geldiğini, hemen tüm nükslerin iki yıl içinde ortaya çıktığını, yaşı küçük olanlarda daha sık nüks oluştuğunu ifade etmişlerdir. Dormans ve ark.^[14] yaptıkları çalışma sonucunda,

AKK tedavisi yaptıkları çocuklarda nüks oranları ile yaş arasında ilişki bulamamışlardır. Olgumuzda 30 aylık direkt radyografi ve MRG izleminde nüks saptanmadı (Şekil 4).

Humerus metafizinde subperiostal yerleşimli bir AKK lezyonunun tanısı kolay olmakla beraber, bu bölgede yerleşimin nadir görülmesi nedeniyle bu lezyonun tanınma, görüntüleme ve cerrahi tedavi özelliklerini ele aldık. Bu ve benzeri lezyonlarla sıkça karşılaşıldıkça yerleşim yerine göre tanı ve tedaviye bakışın daha da netleşeceği kanısındayız.

KAYNAKLAR

1. Campanacci M. Bone and soft tissue tumors. 2nd ed. Padova/Italy. Fotocroma Emiliana, Bologna, Italy. 1999.
2. Slavotinek JP, Wicks A, Spriggins AJ. Subperiosteal aneurysmal bone cyst with associated bone marrow oedema: an unusual appearance. *Australas Radiol* 2003;47(4):475-8.
3. Canale ST. Aneurysmal bone cyst within benign tumors of bone. *Campbell's operative orthopaedics*. Vol 1. 9th ed. St. Louis: Mosby Year-Book; 1998. p. 690.
4. Campanacci M, Capanna R, Picci P. Unicameral and aneurysmal bone cysts. *Clin Orthop Relat Res* 1986;(204):25-36.
5. Vergel De Dios AM, Bond JR, Shives TC, McLeod RA, Unni KK. Aneurysmal bone cyst. A clinicopathologic study of 238 cases. *Cancer* 1992;69(12):2921-31.
6. Woertler K, Brinkschmidt C. Imaging features of subperiosteal aneurysmal bone cyst. *Acta Radiol* 2002;43(3):336-9.
7. Schoedel K, Shankman S, Desai P. Intracortical and subperiosteal aneurysmal bone cysts: a report of three cases. *Skeletal Radiol* 1996;25(5):455-9.
8. Başarır K, Pişkin A, Güçlü B, Yıldız Y, Sağlık Y. Aneurysmal bone cyst recurrence in children: a review of 56 patients. *J Pediatr Orthop* 2007;27(8):938-43.
9. Cottalorda J, Kohler R, Sales de Gauzy J, Chotel F, Mazda K, Lefort G, et al. Epidemiology of aneurysmal bone cyst in children: a multicenter study and literature review. *J Pediatr Orthop B* 2004;13(6):389-94.
10. Malghem J, Maldague B, Esselinckx W, Noel H, De Nayer P, Vincent A. Spontaneous healing of aneurysmal bone cysts. A report of three cases. *J Bone Joint Surg Br* 1989;71(4):645-50.
11. Leithner A, Windhager R, Lang S, Haas OA, Kainberger F, Kotz R. Aneurysmal bone cyst. A population based epidemiologic study and literature review. *Clin Orthop Relat Res* 1999;(363):176-9.
12. Zehetgruber H, Bittner B, Gruber D, Krepler P, Trieb K, Kotz R, et al. Prevalence of aneurysmal and solitary bone cysts in young patients. *Clin Orthop Relat Res* 2005;439:136-43.
13. Garg S, Mehta S, Dormans JP. Modern surgical treatment of primary aneurysmal bone cyst of the spine in children and adolescents. *J Pediatr Orthop* 2005;25(3):387-92.
14. Dormans JP, Hanna BG, Johnston DR, Khurana JS. Surgical treatment and recurrence rate of aneurysmal bone cysts in children. *Clin Orthop Relat Res* 2004;(421):205-11.