



## Relato de Caso

# Cisto ósseo aneurismático do retopé: relato de dois casos<sup>☆</sup>



Alexandre Luiz Dal Bosco<sup>a,\*</sup>, Marcos Ceita Nunes<sup>a</sup>, Jung Ho Kim<sup>a</sup>,  
Luis Gustavo Calieron<sup>a</sup> e Rubens Rosso Nadal<sup>a,b</sup>

<sup>a</sup> Instituto de Ortopedia e Traumatologia, Passo Fundo, RS, Brasil

<sup>b</sup> Universidade Federal da Fronteira Sul (UFFS), Passo Fundo, RS, Brasil

### INFORMAÇÕES SOBRE O ARTIGO

Histórico do artigo:

Recebido em 9 de novembro de 2016

Aceito em 6 de março de 2017

On-line em 16 de maio de 2017

Palavras-chave:

Aneurisma

Cistos ósseos

Doenças do pé

Neoplasias ósseas

Keywords:

Aneurysm

Bone cysts

Foot diseases

Bone neoplasms

### R E S U M O

Os tumores do retopé são raros na literatura, o diagnóstico é difícil e muitas vezes é feito pelo profissional menos experiente. Acrescente-se a isso o fato de o tratamento cirúrgico e a reconstrução serem complicados pela intrincada anatomia local. Essas lesões são desafiantes para o ortopedista oncológico. Relatamos dois casos de cisto ósseo aneurismático do retopé e nossas opções e particularidades na condução deles de acordo com os princípios oncológicos. Nas lesões tumorais do retopé é importante a suspeita diagnóstica precoce, bem como o estadiamento adequado e a condução do caso de acordo com os princípios oncológicos, preferencialmente pelo ortopedista oncológico.

© 2017 Sociedade Brasileira de Ortopedia e Traumatologia. Publicado por Elsevier Editora Ltda. Este é um artigo Open Access sob uma licença CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

### Hindfoot aneurysmal bone cyst: report of two cases

#### A B S T R A C T

Osseous tumors of the hindfoot are not usual in the literature, the diagnosis in these cases is difficult and can often go unnoticed. Besides that, surgery and reconstruction are complicated due to the complexity of the local anatomy, which makes these lesions even more challenging for the orthopedic oncological professionals. On the following article two cases of aneurysmal bone cyst of the hindfoot are reported, as well as the alternatives and peculiarities in conducting these cases according to the oncological principles. When the subject are hindfoot tumor lesions, the early diagnosis is extremely important, as well as the proper staging and the management of the case by the orthopedic oncological professional according to oncological principles.

© 2017 Sociedade Brasileira de Ortopedia e Traumatologia. Published by Elsevier Editora Ltda. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

<sup>☆</sup> Trabalho desenvolvido no Serviço de Ortopedia Pediátrica e Cirurgia Oncológica do Instituto de Ortopedia e Traumatologia de Passo Fundo, Passo Fundo, RG, Brasil.

\* Autor para correspondência.

E-mail: [alexandredb1@yahoo.com.br](mailto:alexandredb1@yahoo.com.br) (A.L. Dal Bosco).

<https://doi.org/10.1016/j.rbo.2017.03.011>

0102-3616/© 2017 Sociedade Brasileira de Ortopedia e Traumatologia. Publicado por Elsevier Editora Ltda. Este é um artigo Open Access sob uma licença CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

## Introdução

Os tumores do retopé são descritos raramente na literatura, normalmente o diagnóstico é difícil pelo médico generalista, com frequência a única queixa conhecida é a dor e relacionada a eventos traumáticos, o que exige alto índice de suspeição para o diagnóstico.

O cisto ósseo aneurismático é um tumor benigno, localmente agressivo, ocorre de forma primária nas duas primeiras décadas de vida, representa 1 a 2% dos tumores primários do osso e se não for tratado adequadamente tem risco de

recorrência local e posterior destruição articular e prejuízo funcional importante. Devido à complexidade de tais tumores, o manejo correto e o seguimento devem ser feitos pelo ortopedista oncológico.

Relatamos dois casos de cisto ósseo aneurismático de apresentação no retopé e nossa condução deles.

## Relato de caso 1

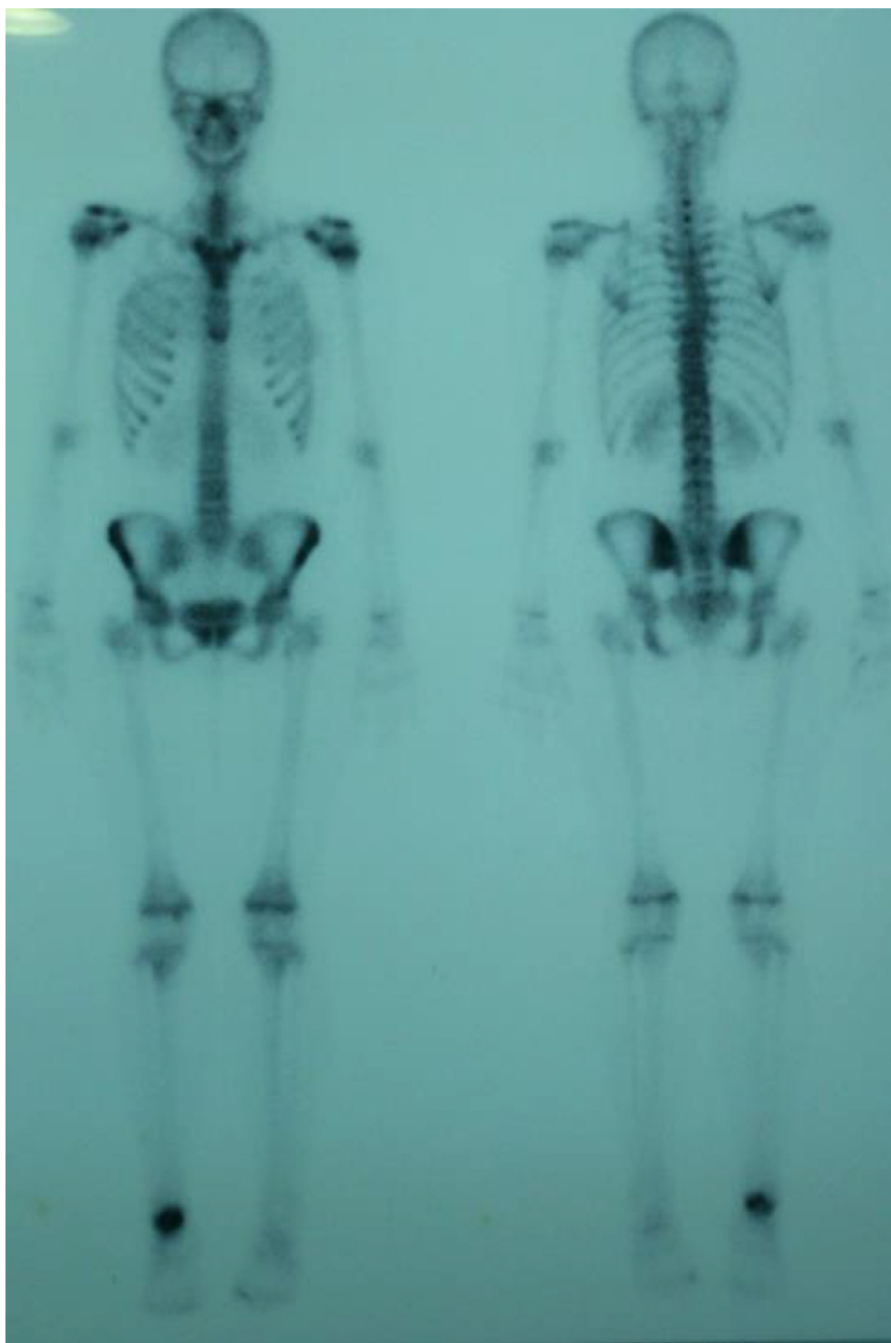
Paciente do sexo feminino, 18 anos, apresentava dor em tornozelo direito, radiografia com lesão lítica no corpo do



Figura 1 – Radiografia do tornozelo direito, lesão de aspecto lítico no tálus.



Figura 2 – Ressonância magnética, com hiperssinal da lesão na fase T2.



**Figura 3 – Cintilografia de esqueleto total com tecnécio-99 demonstra hipercaptação em tornozelo direito.**

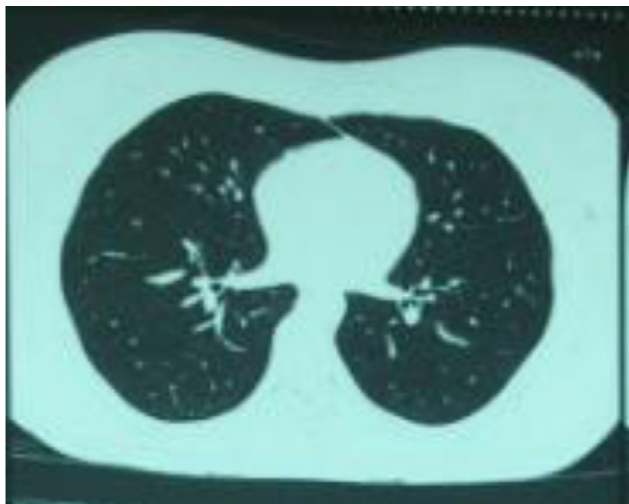
tálus com bordos irregulares, aspecto insuflativo, excêntrica, sem esclerose, com aparente afinamento da cortical posterior (fig. 1).

Procedemos ao estadiamento com ressonância magnética do segmento no qual se demonstrava uma lesão com hiperssinal em T2, sem evidência de nível líquido e corticais preservadas (fig. 2).

A cintilografia óssea de esqueleto total evidenciou captação em tornozelo direito nas três fases do exame (fig. 3); a tomografia de tórax não evidenciou lesões (fig. 4). Após indicarmos

biópsia por agulhamento, confirmou-se a suspeita diagnóstica de cisto ósseo aneurismático.

Devido à lesão localizada em área de carga com preservação da cartilagem do domo talar e considerando a idade da paciente, optamos pela ressecção marginal da lesão com curetagem e adjuvância com eletrocautério, após procedemos à reconstrução biológica com autoenxerto ósseo esponjoso retirado da crista ilíaca. Usamos para o procedimento o acesso posterior, no pós-operatório iniciamos mobilidade precoce no segundo dia e a mantivemos sem carga por 12 semanas após



**Figura 4 – Corte axial de tomografia de tórax, sem evidência de lesões metastáticas.**

documentação radiográfica de integração do enxerto ósseo (fig. 5).

A paciente encontra-se com um ano de seguimento pós-operatório, com boa mobilidade articular, indolor, sem sinais de recidiva.

## Relato de caso 2

Paciente do sexo masculino, 46 anos, relatou história de uma lesão no calcâneo direito havia cerca de oito anos. Na época, fez a retirada da lesão, o resultado foi inconclusivo e segundo o paciente “não conseguiram retirar a totalidade da lesão”. Agora com queixas de dor na região da cicatriz

medial, limitação de mobilidade articular e aumento de volume. Fizemos estadiamento com radiografia local, ressonância magnética, tomografia de tórax, cintilografia de esqueleto e biópsia.

Radiografia com lesão insuflativa de aspecto bolhoso, sem esclerose cortical (fig. 6). Ressonância magnética demonstrou lesão em calcâneo com hiperssinal e áreas heterogêneas em T2, hipossinal em T1, insuflado cortical, lesão grande da subtalar, acometimento do sustentáculo do tálus, sem comprometimento da articulação calcâneo cuboideia (fig. 7).

A tomografia de tórax não evidenciou lesões metastáticas e a cintilografia confirmou lesão única no calcâneo. A biópsia confirmou a hipótese de cisto ósseo aneurismático. A seguir, para planejamento pré-operatório, solicitamos uma tomografia local, a qual confirmou a destruição da articulação subtalar (figs. 8-10).

Fizemos abordagem medial, curetagem e adjuvância com eletrocautério e após álcool absoluto (fig. 11). A seguir, optamos pela reconstrução com enxerto biológico tricortical da crista ilíaca. A articulação subtalar, conforme evidenciada pela tomografia, foi destruída pela lesão, por esse motivo optamos pela artrodese subtalar primária com parafusos autocompressivos (figs. 12 e 13).

Atualmente com seguimento de três anos, o paciente retornou às atividades diárias, sem dor, sem limitações funcionais, ótima integração do enxerto e sem sinais de recidiva.

## Discussão

Tumores do pé são incomuns e constituem um grande problema na clínica ortopédica, há poucas revisões na literatura acerca de seu comportamento e epidemiologia não bem conhecida. Sabidamente os tumores ósseos são mais comuns no antepé e retropé, enquanto os tumores de tecidos



**Figura 5 – Radiografia tornozelo direito, um ano pós-operatório, ótima integração do enxerto e preservação articular.**



**Figura 6 – Radiografia pé direito, lesão de aspecto lítico, insuflativo no calcâneo.**

moles são mais comuns no mediopé e predominam no sexo feminino.<sup>1</sup>

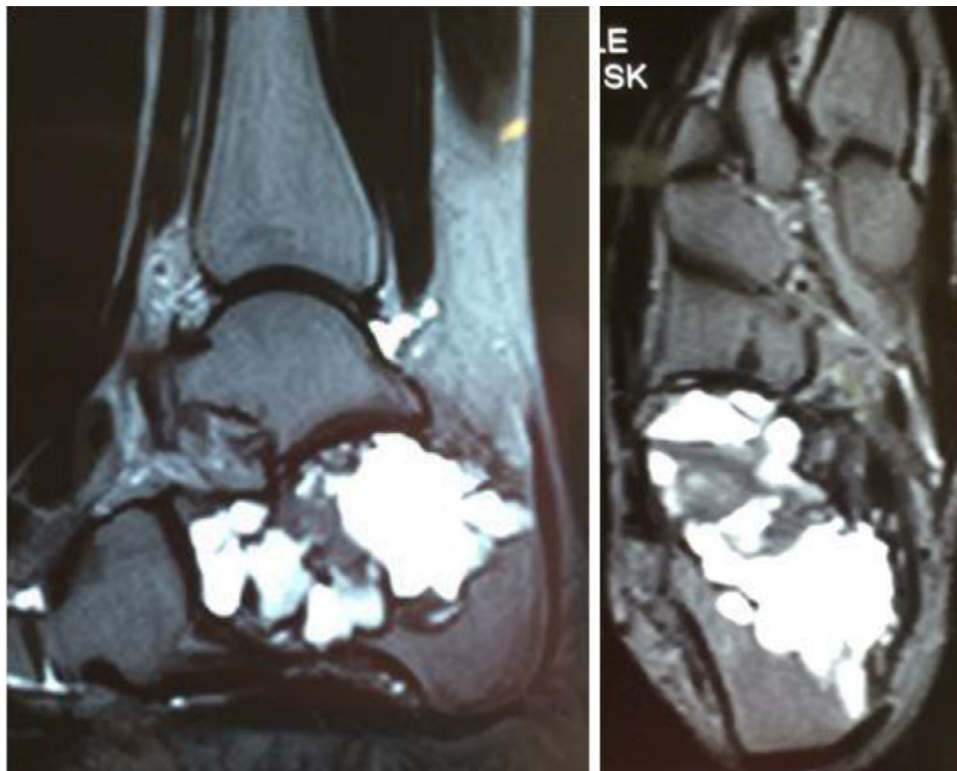
Os tumores primários do osso no pé perfazem 3% das neoplasias ósseas. Dentre os locais mais comuns do pé, a grande maioria está localizada nos metatarsos e calcâneo, com 31% de lesões benignas e 35% de malignas.<sup>2</sup> A literatura apresenta poucos casos de tumores do retropé. O não diagnóstico dessas lesões relatadas na literatura é atribuído a muitos fatores, dentre eles a raridade, o desconhecimento da complexa anatomia dessa região do pé, o baixo índice de suspeição pelo ortopedista generalista e a grande variabilidade de apresentação dos tumores ósseos quando localizados no retropé.<sup>3,4</sup> Desse modo, encontramos um alto índice de lesões localmente

agressivas e com metástases instaladas no momento do diagnóstico.

A dor é o sintoma mais comum relatado, particularmente nos tumores talares, e com maior severidade em lesões malignas, frequentemente a queixa que leva à procura de atendimento é a associação com um trauma banal. Fato esse que induz aos subdiagnósticos e tratamentos equivocados baseados na história traumática. O edema e a tumefação estão mais fortemente associados a malignidade.

Fratura patológica pode eventualmente estar presente no diagnóstico inicial, especialmente se forem lesões císticas.<sup>5,6</sup>

No estudo retrospectivo de Young *et al.*,<sup>7</sup> no qual foram avaliados 57 pacientes, a relação entre lesões benignas e malignas



**Figura 7 – Ressonância magnética em T2, com hiperssinal na lesão.**

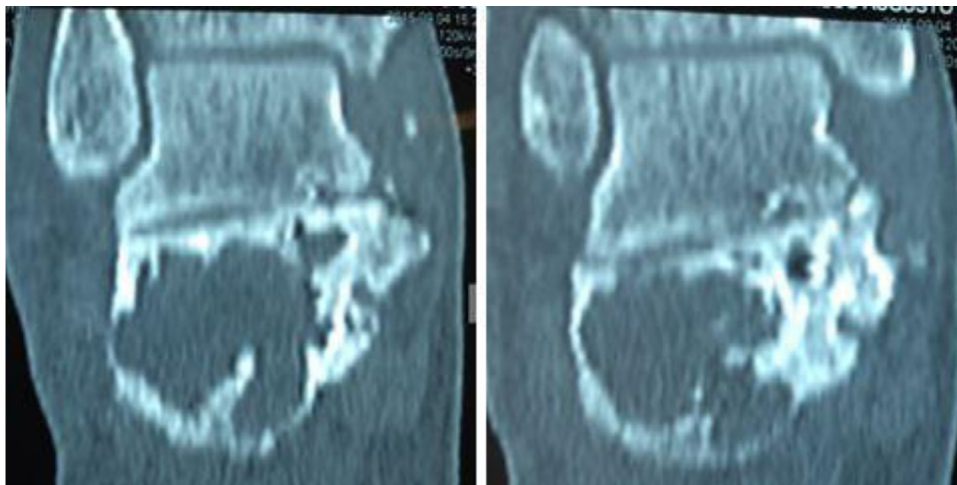


Figura 8 – Tomografia de tornozelo em corte coronal com acometimento do sustentáculo do tálus.

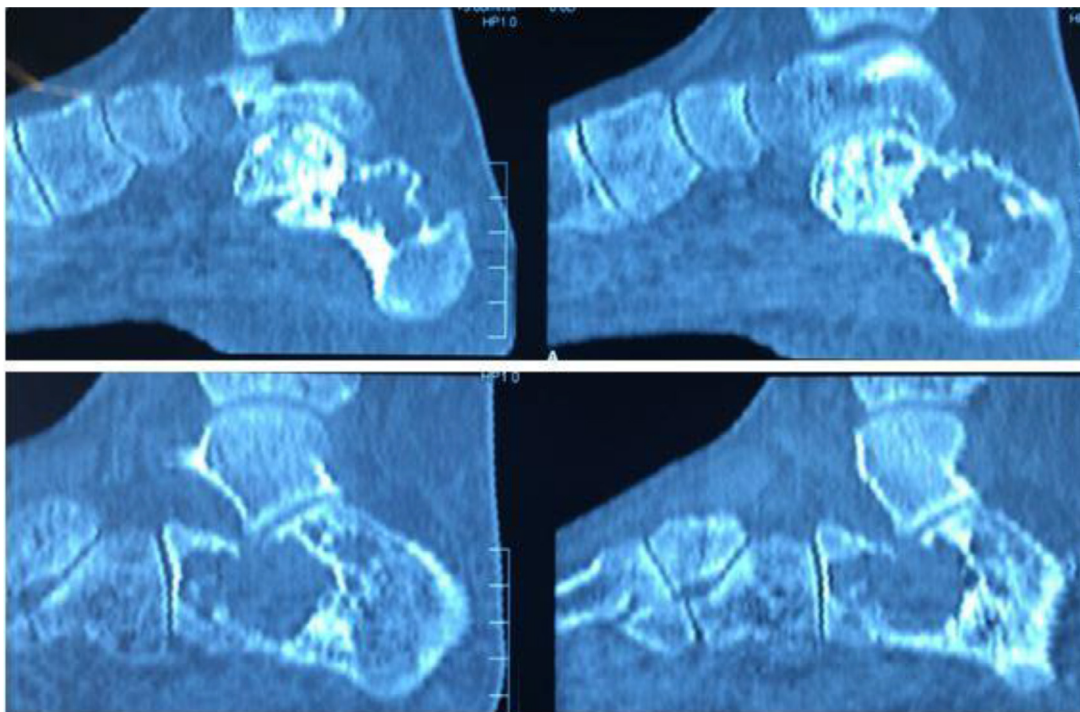


Figura 9 – Tomografia de tornozelo em corte sagital, com a articulação calcâneo-cuboideia preservada e destruição da articulação subtalar.

foi de 1,6:1 no calcâneo e no tálus foi de 6,7:1. Nas lesões do calcâneo o tumor mais comum foi o cisto osso simples, um terço com fratura patológica, e no tálus a lesão mais comum foi o osteoma osteoide, seguido pelo condroblastoma. O osteossarcoma foi a principal lesão maligna encontrada, um terço tinha doença de Paget preexistente.

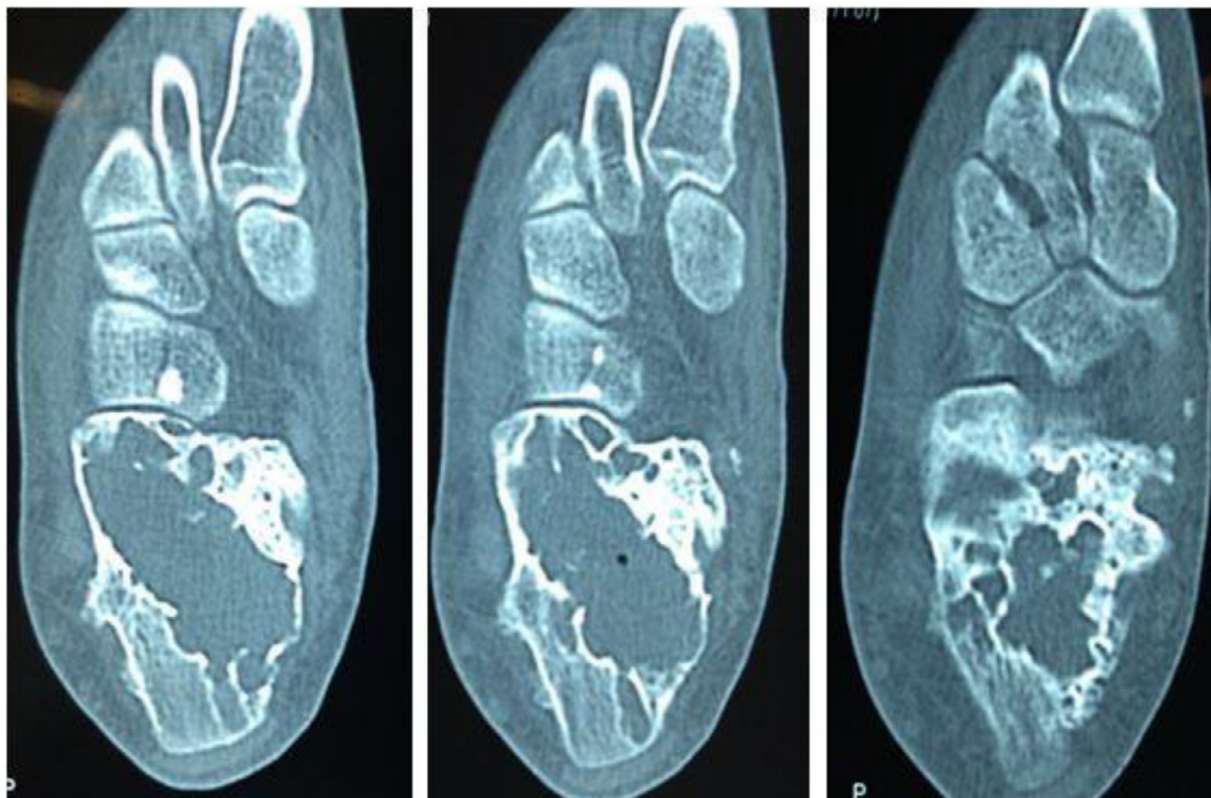
No estudo de Murrari *et al.*<sup>2</sup> a relação benigno x maligno encontrada no tálus foi 2,8:1 e no calcâneo 5:1, as lesões benignas foram predominantes no sexo masculino com idade média de 25 anos.

Kinoshita *et al.*<sup>8</sup> descreveram 83 casos de tumores do pé, porém apenas 12 casos de tumores do retropé, a maioria

deles era benigna e de origem condrogênica: três osteocondromas, dois condroblastomas e três cistos simples; e relataram apenas três tumores malignos, um condrossarcoma e duas metástases; em sua série também houve predominância do sexo masculino.

O condrossarcoma tem sido descrito na literatura com uma predileção pelo retropé, especialmente o calcâneo,<sup>9</sup> nos de alto grau produz metástases pulmonares.

Os sarcomas de alto grau frequentemente apresentam alta incidência de metástases pulmonares e ósseas no momento do diagnóstico, reforçam a importância do diagnóstico precoce para influenciar positivamente o desfecho da doença.



**Figura 10 – Tomografia de tornozelo em corte axial, demonstra a extensão da lesão no corpo do calcâneo.**

O cisto ósseo aneurismático primário do osso não tem a etiologia claramente definida e é considerado um tipo de malformação vascular, uma fístula arteriovenosa, ou, quando secundário, pode estar associado a outras lesões tumorais, como tumor de células gigantes, condroblastoma, osteoblastoma e osteossarcoma. Por esse motivo a biópsia

é obrigatória para a confirmação diagnóstica e exclusão de lesões associadas.<sup>10,11</sup>

No trabalho de Rastogi *et al.*,<sup>12</sup> uma revisão de 72 casos de cisto ósseo aneurismático tratados com escleroterapia, somente três foram descritos no pé, a média de idade dos pacientes foi de 15 anos.



**Figura 11 – Abordagem medial do calcâneo, curetagem da lesão com proteção e preservação do feixe neurovascular.**



**Figura 12 – Radiografia pós-operatória em perfil do tornozelo com parafusos autocompressivos e artrose talo calcânea.**

Várias modalidades de tratamento foram descritas e incluem somente observação, injeção de álcool, corticoide, embolização, ressecção ou curetagem intralesional.

Localização periarticular, distância fisária menor do que 2,5 cm, fise aberta, ressecção incompleta, número de mitoses, altos estágios de Enneking, fratura patológica, sexo feminino e idade menor de 12 anos são fatores de risco para recorrência local da lesão. A etnia não demonstrou influência nos estudos avaliados.<sup>13-15</sup>

O tratamento do cisto ósseo aneurismático primário, tipicamente, após a biópsia, é a ressecção intralesional seguida por um método adjuvante, o qual tem por objetivo estender a zona de necrose peritumoral e eliminar possíveis células. A curetagem isoladamente sem adjuvância tem uma

recorrência em torno de 31%, porém, quando associada a outro método, como fenol, nitrogênio líquido, polimetacrilato, eletrocautério ou plasma argônio, esses índices descem para 3,7% a 18%.<sup>15,16</sup>

A escolha do tipo de reconstrução após a retirada da lesão depende do local anatômico em questão, a história natural desse tumor mostra que a reossificação vai ocorrer após a retirada do tumor, porém esse mecanismo não é bem conhecido.

A embolização pré-operatória é uma boa opção para diminuir o sangramento transoperatório de lesões muito grandes. A radioterapia é descrita como uma opção em locais de difícil acesso cirúrgico. Entretanto, apresenta muitos efeitos colaterais da exposição a radiação.<sup>17</sup>

Métodos menos invasivos de tratamento, sem a curetagem da massa tumoral, podem ser usados. Scaglietti descreveu a infiltração de corticosteroides com bons resultados, contudo são necessárias diversas reaplicações. A infiltração de calcitonina também é sugerida por alguns autores, com base no seu mecanismo de atuação na supressão da atividade osteoclástica da lesão.<sup>18,19</sup>

O uso de cimento ósseo de metilmetacrilato tem a vantagem da adjuvância pelas altas temperaturas atingidas durante a sua polimerização, permite apoio imediato de carga. Entretanto, para pacientes jovens e lesões muito próximas da cartilagem articular, torna-se uma escolha de exceção com risco de migração intra-articular e desenvolvimento de artrose precoce.<sup>15</sup>

O uso de um material que estimule a osteoindução e a osteocondução é o desejado e tem melhores resultados do que somente enxerto ósseo desmineralizado. Para tal, o enxerto trabecular de íliaco atende a essas duas propriedades com baixo custo e baixa morbidade. Outros autores sugerem bons



**Figura 13 – Radiografia pós-operatória axial e oblíqua do calcâneo, boa integração do enxerto ósseo e posicionamento dos parafusos.**



resultados com enxerto desmineralizado associado ao aspirado de medula óssea na lesão.<sup>20-22</sup>

## Conclusão

Os tumores do retropé são raros, contudo com alto potencial destrutivo, por encontrarem-se próximo de articulações importantes, como a tibiotalar e a talocalcânea, prejudicam substancialmente o apoio de carga no membro inferior, com sérias repercussões funcionais. O diagnóstico é complicado pela complexa anatomia da região e muitas vezes ocorre tardiamente, já com avançada destruição local ou metástases a distância. A ressecção da lesão e a posterior reconstrução oncológica também são dificultadas por esses fatores.

O cisto ósseo aneurismático, embora classificado como uma lesão “benigna”, deve ser adequadamente tratado de acordo com os princípios oncológicos, com o objetivo de minimizar as recorrências e complicações locais. Frente a uma lesão tumoral do retropé são fundamentais a avaliação e o estadiamento pelo cirurgião oncológico o mais breve possível.

## Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

## REFERÊNCIAS

- Kirby EJ, Shereff MJ, Lewis MM. Soft-tissue tumors and tumor-like lesions of the foot. An analysis of eighty-three cases. *J Bone Joint Surg Am.* 1989;71(4):621-6.
- Murari TM, Callaghan JJ, Berrey BH Jr, Sweet DE. Primary benign and malignant osseous neoplasms of the foot. *Foot Ankle.* 1989;10(2):68-80.
- Biscaglia R, Gasbarrini A, Böhling T, Bacchini P, Bertoni F, Picci P. Osteosarcoma of the bones of the foot – An easily misdiagnosed malignant tumor. *Mayo Clin Proc.* 1998;73(9):842-7.
- Dhillon MS, Singh B, Singh DP, Prabhu V, Nagi ON. Primary bone tumors of the talus. *J Am Podiatr Med Assoc.* 1994;84(8):379-84.
- Kilgore WB, Parrish WM. Calcaneal tumors and tumor-like conditions. *Foot Ankle Clin.* 2005;10(3):541-65.
- Monroe MT, Manoli A 2nd. Osteoid osteoma of the lateral talar process presenting as a chronic sprained ankle. *Foot Ankle Int.* 1999;20(7):461-3.
- Young PS, Bell SW, MacDuff EM, Mahendra A. Primary osseous tumors of the hindfoot: why the delay in diagnosis and should we be concerned? *Clin Orthop Relat Res.* 2013;471(3):871-7.
- Kinoshita G, Matsumoto M, Maruoka T, Shiraki T, Tsunemi K, Futani H, et al. Bone and soft tissue tumours of the foot: review of 83 cases. *J Orthop Surg (Hong Kong).* 2002;10(2):173-8.
- Ogose A, Unni KK, Swee RG, May GK, Rowland CM, Sim FH. Chondrosarcoma of small bones of the hands and feet. *Cancer.* 1997;80(1):50-9.
- Enneking WF, Dunham W, Gebhardt MC, Malawar M, Pritchard DJ. A system for the functional evaluation of reconstructive procedures after surgical treatment of tumors of the musculoskeletal system. *Clin Orthop Relat Res.* 1993;(286):241-6.
- Martinez V, Sissons HA. Aneurysmal bone cyst. A review of 123 cases including primary lesions and those secondary to other bone pathology. *Cancer.* 1988;61(11):2291-304.
- Rastogi S, Varshney MK, Trikha V, Khan SA, Choudhury B, Safaya R. Treatment of aneurysmal bone cysts with percutaneous sclerotherapy using polidocanol. A review of 72 cases with long-term follow-up. *J Bone Joint Surg Br.* 2006;88(9):1212-6.
- 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.
- Gibbs CP Jr, Hefele MC, Peabody TD, Montag AG, Aithal V, Simon MA. Aneurysmal bone cyst of the extremities. Factors related to local recurrence after curettage with a high-speed burr. *J Bone Joint Surg Am.* 1999;81(12):1671-8.
- Steffner RJ, Liao C, Stacy G, Atanda A, Attar S, Avedian R, et al. Factors associated with recurrence of primary aneurysmal bone cysts: is argon beam coagulation an effective adjuvant treatment? *J Bone Joint Surg Am.* 2011;93(21):e1221-9.
- Cottalorda J, Bourelle S. Modern concepts of primary aneurysmal bone cyst. *Arch Orthop Trauma Surg.* 2007;127(2):105-14.
- Papagelopoulos PJ, Choudhury SN, Frassica FJ, Bond JR, Unni KK, Sim FH. Treatment of aneurysmal bone cysts of the pelvis and sacrum. *J Bone Joint Surg Am.* 2001;83(11):1674-81.
- Scaglietti O, Marchetti PG, Bartolozzi P. Final results obtained in the treatment of bone cysts with methylprednisolone acetate (depo-medrol) and a discussion of results achieved in other bone lesions. *Clin Orthop Relat Res.* 1982;(165):33-42.
- Szendrői M, Antal I, Liszka G, Kónya A. Calcitonin therapy of aneurysmal bone cysts. *J Cancer Res Clin Oncol.* 1992;119(1):61-5.
- Delloye C, De Nayer P, Malghem J, Noel H. Induced healing of aneurysmal bone cysts by demineralized bone particles. A report of two cases. *Arch Orthop Trauma Surg.* 1996;115(3-4):141-5.
- Delloye C. The bridging capacity of a cortical bone defect by different bone grafting materials and diaphyseal distraction lengthening [thesis]. Louvain-la-Neuve, Bélgica: Université Catholique de Louvain; 1990.
- Docquier PL, Delloye C. Treatment of aneurysmal bone cysts by introduction of demineralized bone and autogenous bone marrow. *J Bone Joint Surg Am.* 2005;87(10):2253-8.