

Osteosarcoma “tipo osteoblastoma” de columna cervical.

A propósito de un caso

Gastón Camino Willhuber, Gonzalo Kido, Martín Estefan, Maximiliano Mereles, Julio Bassani, Matías Petracchi, Carlos Sola, Marcelo Gruenberg

Sector Patología del Raquis, Hospital Italiano de Buenos Aires, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina

RESUMEN

El osteosarcoma “tipo osteoblastoma”, una variante menos agresiva del osteosarcoma, es una enfermedad poco frecuente y representa un desafío diagnóstico tanto clínico como histopatológico. Se han publicado escasos reportes de casos de este tumor. Presentamos a un paciente de 16 años con un osteosarcoma “tipo osteoblastoma” localizado en la columna cervical. La biopsia ósea bajo tomografía reveló una lesión con un patrón de crecimiento permeativo, con sospecha de osteosarcoma “tipo osteoblastoma.” Se realizó una espondilectomía total en bloque mediante un doble abordaje. Se describen el caso clínico, la secuencia diagnóstica, la técnica quirúrgica y el seguimiento a 10 años.

Palabras clave: Osteosarcoma tipo osteoblastoma; osteoblastoma agresivo; espondilectomía; tumor; columna cervical.

Nivel de Evidencia: IV

Osteoblastoma-like osteosarcoma of the cervical spine. A case report

ABSTRACT

Osteoblastoma-like osteosarcoma, a less aggressive variant of osteosarcoma, is a rare tumor which presents a clinical and histopathological diagnostic challenge. We have found few reports of cases of this tumor in the literature. In this case, we describe an osteoblastoma-like osteosarcoma of the cervical spine in a 16-year-old patient. CT-guided bone biopsy showed a lesion with a permeated growth pattern, which led to the suspicion of an osteoblastoma-like osteosarcoma. A total *en bloc* spondylectomy was performed through a dual approach. We present the clinical case, the diagnostic sequence, the surgical technique and 10-year follow-up results.

Key words: Osteoblastoma-like osteosarcoma; aggressive osteoblastoma; spondylectomy; tumor; cervical spine.

Level of Evidence: IV

INTRODUCCIÓN

Los tumores óseos primarios de raquis son lesiones infrecuentes, representan el 90% de las lesiones tumorales de origen metastásico.¹ Los tumores primarios más frecuentes son el osteoma osteoide y el osteoblastoma, que tienen una tasa de incidencia en la columna vertebral del 10%.²⁻⁴

La diferenciación clínica e histopatológica entre osteoblastoma y osteosarcoma puede ser difícil y la presencia de enfermedades que pueden confundir constituye un desafío en el diagnóstico y el tratamiento de estos tumores.⁵ El osteosarcoma “tipo osteoblastoma” es una variedad infrecuente que representa el 1,1% de los osteosarcomas. Este subtipo se asemeja histológicamente al osteoblastoma, porque produce el mismo tipo de hueso microtrabecular revestido por osteoblastos.⁶ Es sumamente importante realizar un diagnóstico preciso debido a la tasa de recurrencia y el eventual riesgo de metástasis de estos tumores, a diferencia del osteoblastoma.⁷

Presentamos a un paciente joven con un osteosarcoma tipo osteoblastoma en la columna cervical, la secuencia diagnóstica, el tratamiento quirúrgico y el seguimiento a 10 años.

Recibido el 24-11-2017. Aceptado luego de la evaluación el 20-12-2017 • Dr. GASTÓN CAMINO WILLHUBER • camino.gaston@gmail.com 

Cómo citar este artículo: Camino Willhuber G, Kido G, Estefan M, Mereles M, Bassani J, Petracchi M, Sola C, Gruenberg M. Osteosarcoma “tipo osteoblastoma” de columna cervical. A propósito de un caso. *Rev Asoc Argent Ortop Traumatol* 2019;84(2):149-154. <http://dx.doi.org/10.15417/issn.1852-7434.2019.84.2.798>

CASO CLÍNICO

Un varón de 16 años ingresó, en nuestra institución, con dolor cervical agudo postraumático, sin irradiación. El paciente fue derivado luego de un hallazgo en la radiografía cervical. El examen físico era normal.

Las radiografías simples de columna cervical revelaron una imagen radiopaca (blástica) en C5 (Figura 1). Ante este hallazgo, se solicitaron una tomografía computarizada y una resonancia magnética, a fin de caracterizar, en detalle, la lesión.

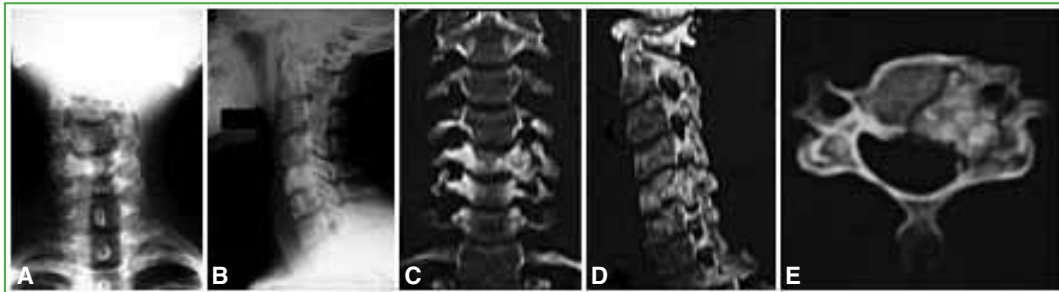


Figura 1. A y B. Radiografías simples de columna cervical de frente y de perfil. Se observa una imagen esclerótica en el quinto cuerpo vertebral. C-E. Tomografía computarizada. Lesión de bordes bien definidos que compromete el cuerpo vertebral izquierdo.

En la tomografía, se observó una imagen esclerótica sobre el lado izquierdo del cuerpo vertebral de C5, con compromiso del pedículo y alteración del agujero de la arteria vertebral homolateral (Figura 2).



Figura 2. A-D. Tomografía computarizada y resonancia magnética. Se observa la lesión en C5. E. Biopsia guiada por tomografía.

La resonancia magnética mostró una imagen hipointensa en ponderación T1 y T2 sobre el lado izquierdo de C5, sin compromiso de la médula espinal; sin embargo, se observó alteración de los tejidos blandos circundantes, característica de lesión agresiva.

Se realizó una biopsia percutánea guiada por tomografía. El análisis histológico mostró un tumor osteoblástico con áreas de patrón tipo osteoblastoma mezclado con un tumor maligno formador de hueso.

Se diagnosticó una lesión compatible con un osteosarcoma "tipo osteoblastoma". En consecuencia, se planificó una espondilectomía total en bloque mediante un doble abordaje.

Planificación quirúrgica

Durante la evaluación preoperatoria, se efectuó la prueba de compresión de la arteria vertebral⁸ sobre el lado izquierdo para evaluar la dominancia del circuito de la arteria vertebral. Además, se realizaron cortes sobre un modelo tridimensional (Figura 3) para lograr un mejor conocimiento espacial y anatómico de la lesión.

Luego se llevó a cabo una espondilectomía total en bloque por un doble abordaje combinado anterior y posterior. El primer paso, con el paciente en decúbito ventral y a través de un abordaje posterior, consistió en la liberación ligamentaria y muscular, la identificación radioscópica de C5 y la resección de su arco posterior. Además, se realizó instrumentación posterior de C3-C6 con tornillos a masas laterales, a fin de proporcionar estabilidad espinal.

En el segundo paso, durante el mismo tiempo quirúrgico y luego de colocar al paciente en decúbito dorsal y a 45°, se realizó, mediante un abordaje anterior, la osteotomía vertebral de C5 con conservación del foramen de la arteria vertebral derecha y extracción de la pieza en bloque. El espacio se rellenó con una celda *mesh* de titanio y hueso autólogo dentro de la jaula.

El procedimiento duró 340 minutos y la pérdida de sangre estimada fue de 250 ml. Ambas etapas se realizaron bajo monitorización neurofisiológica, que incluyó potenciales evocados somatosensoriales y motores. La profilaxis antibiótica se administró según el protocolo habitual propuesto por el Servicio de Infectología de nuestra institución.

No se produjeron complicaciones intraoperatorias importantes. El paciente permaneció dos días en Cuidados Intensivos y fue dado de alta en siete días.

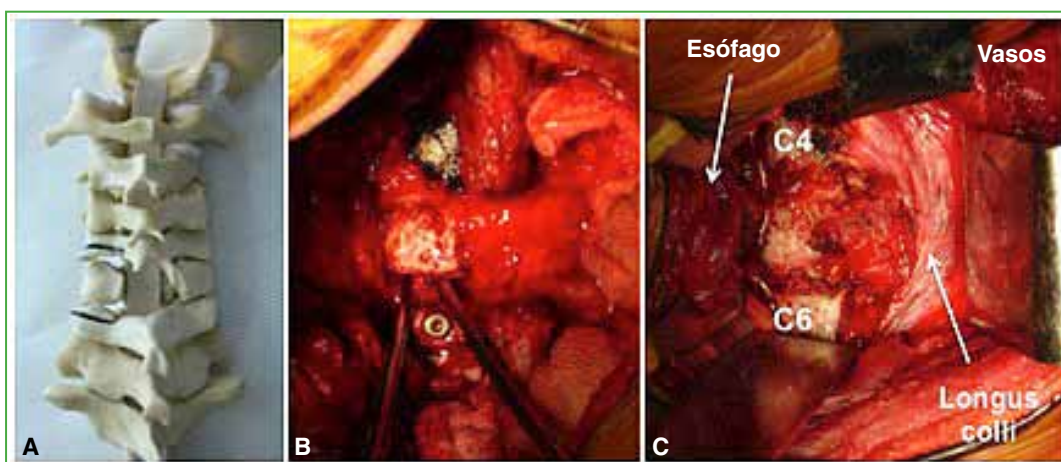


Figura 3. A. Resección vertebral planificada. B y C. Imágenes intraoperatorias de la resección en bloque.

Histopatología

El análisis histológico muestra células tumorales osteoblásticas redondas y ovals con núcleos grandes que contienen nucleolos prominentes, con una leve actividad mitótica y osteoide; además, contiene áreas celulares sólidas sin producción ósea. Otra característica es la presencia de patrón de crecimiento permeativo con atrapamiento de trabéculas óseas, que no se observa ni en el osteoblastoma ni en el osteoblastoma agresivo (Figura 4).

Seguimiento

No se produjeron complicaciones secundarias al procedimiento. Luego de la cirugía, el paciente recibió quimioterapia adyuvante con metotrexato, ifosfamida y adriamicina (protocolo MIA), durante cuatro semanas.

Se tomó una tomografía de tórax cada tres meses, durante los primeros dos años; cada seis meses, en los dos años siguientes y posteriormente cada año.

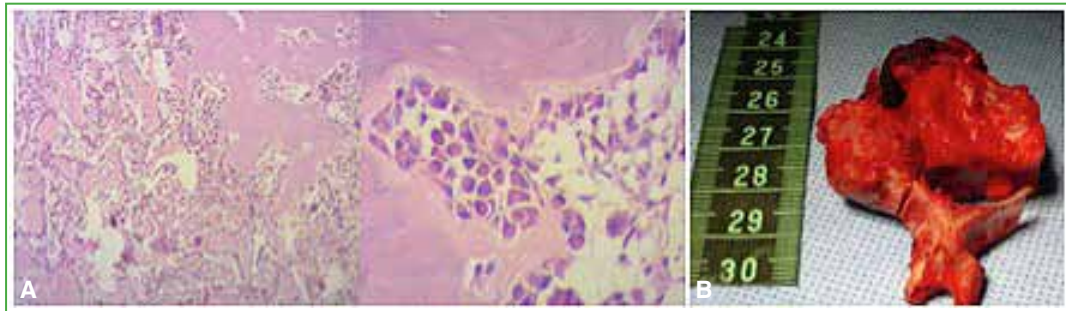


Figura 4. A y B. Sección microscópica del cuerpo vertebral que muestra grandes células hiper cromáticas activas asociadas con cordones gruesos de matriz ósea. **C.** Pieza vertebral macroscópica.

La evaluación radiográfica fue normal durante el seguimiento sin signos de falta de consolidación o desequilibrio espinal. En el seguimiento a 10 años, no hubo recidiva local ni metástasis a distancia. Además, las radiografías simples mostraron una artrodesis cervical sólida (**Figura 5**).

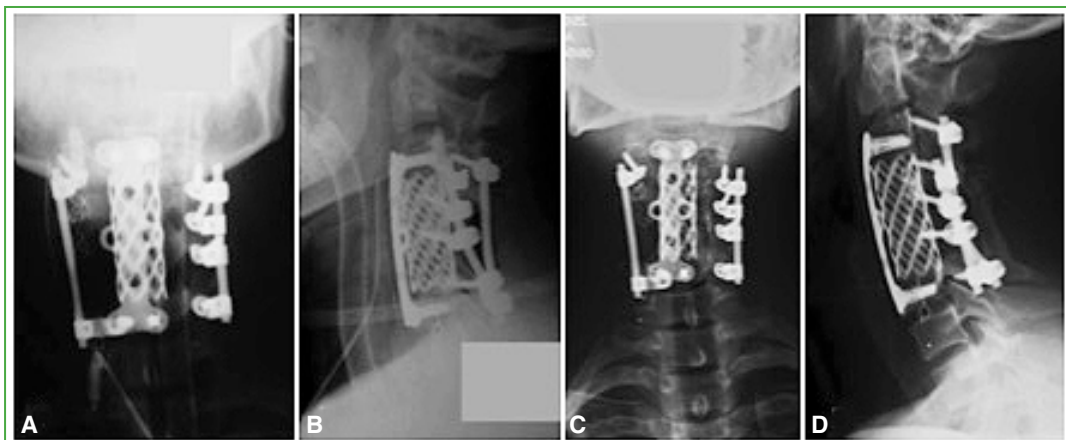


Figura 5. A y B. Radiografías de frente y de perfil después de la cirugía. **C y D.** Control radiográfico a los 10 años.

DISCUSIÓN

Aunque el osteosarcoma representa el segundo tumor óseo primario más común, el compromiso espinal es raro, varía entre el 3% y el 5% de todos los osteosarcomas^{8,9} y el 3-14% de los tumores malignos de la columna.¹⁰⁻¹³ El síntoma más frecuente que provoca el osteosarcoma es dolor, que sufren casi todos los pacientes, mientras que, hasta un 70% puede tener déficit neurológico.¹² La presentación clínica y los hallazgos radiográficos son variables, por lo que el diagnóstico tardío es la situación más frecuente.⁷ El principal diagnóstico diferencial de esta entidad es el osteoblastoma. Tanto el osteoblastoma como el osteosarcoma representan neoplasias formadoras de huesos que surgen del hueso medular. El osteosarcoma “tipo osteoblastoma” es una variante poco común de bajo grado de osteosarcoma que se asemeja a un osteoblastoma. Las características radiográficas pueden variar desde la lítica hasta la lesión esclerótica y sus bordes pueden aparecer bien a mal definidos, lo que dificulta aún más el diagnóstico de esta lesión.⁵ La distinción entre estas dos enfermedades es muy importante para definir el pronóstico y el tratamiento de estos tumores. En el estudio histopatológico, el osteoblastoma, en general, se caracteriza por presentar una disposición laxa del tejido conectivo fibrovascular que separa las trabéculas osteoides y por su falta de permeación. En el osteosarcoma, los espacios medulares entre las trabéculas están ocupados por células de aspecto maligno. Si la biopsia permite observar la periferia de la lesión, en el osteoblastoma, es posible visualizar un borde

preciso que lo limita del tejido óseo normal. Por el contrario, los osteosarcomas tienden a invadir el tejido óseo esponjoso normal adyacente.

En la actualidad, se sabe que la resección en bloque con márgenes libres es la mejor posibilidad quirúrgica para lograr la curación en los tumores primarios del raquis.^{13,14} Bertoni y cols.⁷ publicaron 11 casos de osteosarcomas "tipo osteoblastoma" en el Instituto Rizzoli. Observaron diferentes patrones radiográficos desde líticos hasta escleróticos y reportaron una alta tasa de recidiva después del curetaje intralesional en cinco pacientes comparados con aquellos sometidos a resección amplia.

Con respecto a la ligadura unilateral de la arteria vertebral durante la resección en bloque, en una serie de 15 pacientes, Hoshino y cols.¹⁵ demostraron que este gesto no provoca efectos adversos sobre el cerebro, el cerebelo o la médula espinal. Sin embargo, creemos que el estudio prequirúrgico es de gran importancia, ya sea mediante angiografía craneal y espinal, u oclusión transitoria de la arteria vertebral con potenciales evocados somatosensoriales y motores.

Abramovici y cols.¹⁶ describieron un osteosarcoma "tipo osteoblastoma" de la tibia distal en un joven de 14 años, quien fue sometido a una resección en bloque seguida de artrodesis después de la recurrencia secundaria a un curetaje insuficiente. Tani y cols.¹⁷ también comunicaron una recidiva después de un curetaje e injerto óseo en un fémur proximal, que finalmente resultó un osteosarcoma "tipo osteoblastoma".

En nuestro caso, la biopsia preoperatoria permitió confirmar la sospecha de una lesión maligna y efectuar la resección en bloque con márgenes libres como primera intención.

CONCLUSIONES

El diagnóstico y el tratamiento de los tumores primarios de la columna vertebral requieren de un manejo multidisciplinario y minucioso, pues hay enfermedades que pueden llevar a la confusión a la hora del diagnóstico tanto clínico como histológico. Sobre la base de la evidencia bibliográfica, en el caso de un osteosarcoma "tipo osteoblastoma", al tratarse de un tumor agresivo, se recomienda una amplia resección para disminuir la tasa de recurrencia y como tratamiento definitivo seguido de quimioterapia.

Conflicto de intereses: Los autores no declaran conflictos de intereses.

ORCID iD de G. Kido: <https://orcid.org/0000-0001-5521-7918>
 ORCID iD de M. Estefan: <http://orcid.org/0000-0002-7327-8703>
 ORCID iD de M. Mereles: <https://orcid.org/0000-0002-6733-4940>
 ORCID iD de J. Bassani: <http://orcid.org/0000-0002-3340-8606>

ORCID iD de M. Petracchi: <http://orcid.org/0000-0001-7350-1816>
 ORCID iD de C. Sola: <http://orcid.org/0000-0001-9606-2107>
 ORCID iD de M. Gruenberg: <http://orcid.org/0000-0001-7681-7058>

BIBLIOGRAFÍA

1. Simmons ED, Zheng Y. Vertebral tumors: surgical versus nonsurgical treatment. *Clin Orthop Relat Res* 2006;443: 233-47. <https://doi.org/10.1097/01.blo.0000198723.77762.0c>
2. Kan P, Schmidt MH. Osteoid osteoma and osteoblastoma of the spine. *Neurosurg Clin N Am* 2008;19:65-70. <https://doi.org/10.1016/j.nec.2007.09.003>
3. Zileli M, Cagli S, Basdemir G, Ersahin Y. Osteoid osteomas and osteoblastomas of the spine. *Neurosurg Focus* 2003;15:E5. <https://doi.org/10.3171/foc.2003.15.5.5>
4. Flemming DJ, Murphey MD, Carmichael BB, Bernard SA. Primary tumors of the spine. *Semin Musculoskelet Radiol* 2000;4:299-320. <https://doi.org/10.1055/s-2000-9340>
5. Bertoni F, Unni KK, McLeod R, Dahlin DC. Osteosarcoma resembling osteoblastoma. *Cancer* 1985;55:416-26. [https://doi.org/10.1002/1097-0142\(19850115\)55:2<416::AID-CNCR2820550221>3.0.CO;2-5](https://doi.org/10.1002/1097-0142(19850115)55:2<416::AID-CNCR2820550221>3.0.CO;2-5)
6. Hermann G, Klein MJ, Springfield D, Abdelwahab IF. Osteoblastoma like osteosarcoma. *Clin Radiol* 2004;59(1): 105-8. <https://doi.org/10.1016/j.crad.2003.08.010>
7. Bertoni F, Bacchini P, Donati D, Martini A, Picci P, Campanacci M. Osteoblastoma like osteosarcoma. The Rizzoli Institute Experience. *Mod Pathol* 1993;6:707-16.

8. Ilaslan H, Sundaram M, Unni KK, Shives TC. Primary vertebral osteosarcoma: imaging findings. *Radiology* 2004; 230:697-702. <https://doi.org/10.1148/radiol.2303030226>
9. Mukherjee D, Chaichana KL, Gokaslan ZL, Aaronson O, Cheng JS, McGirt MJ. Survival of patients with malignant primary osseous spinal neoplasms: results from the Surveillance, Epidemiology, and End Results (SEER) database from 1973 to 2003. *J Neurosurg Spine* 2011;14:143-50. <https://doi.org/10.3171/2010.10.SPINE10189>
10. Kelley SP, Ashford RU, Rao AS, Dickson RA. Primary bone tumours of the spine: a 42- year survey from the Leeds Regional Bone Tumour Registry. *Eur Spine J* 2007;16:405-9. <https://doi.org/10.1007/s00586-006-0188-7>
11. Kozar-Hurina OM. Relationship of indices of cerebral blood flow and reflex manifestations in patients with cervicogenic vertebrobasilar insufficiency. *Lik Sprava* 2013;(4):76-81.
12. Katonis P, Datsis G, Karantanas A, Kampouroglou A, Lianoudakis S, Licoudis S, et al. Spinal osteosarcoma. *Oncology* 2013;7:199-208. <https://doi.org/10.4137/CMO.S10099>
13. Yamazaki T, McLoughlin GS, Patel S, Rhines LD, Fourney DR. Feasibility and safety of en bloc resection for primary spine tumors: a systematic review by the Spine Oncology Study Group. *Spine* 2009;34(22 Suppl):S31-8. <https://doi.org/10.1097/BRS.0b013e3181b8b796>
14. Lucas DR, Unni KK, McLeod RA, O'Connor M, Franklin HSM. Osteblastoma: clinicopathologic study of 306 cases. *Hum Pathol* 1994;25:117-34. [https://doi.org/10.1016/0046-8177\(94\)90267-4](https://doi.org/10.1016/0046-8177(94)90267-4)
15. Hoshino Y, Kurokawa T, Nakamura K, Seichi A, Mamada T, Saita K, et al. A report on the safety of unilateral vertebral artery ligation during cervical spine surgery. *Spine* 1996;21:1454-7. <https://insights.ovid.com/pubmed?pmid=8792523>
16. Abramovici L, Kenan S, Hytiroglou P, Rafii M, Steiner GC. Osteblastoma-like osteosarcoma of the distal tibia. *Skeletal Radiol* 2002;31(3):179-82. <https://doi.org/10.1007/s00256-001-0458-8>
17. Tani T, Okada K, Shoji K, Hashimoto M, Sageshima M. Osteblastoma like osteosarcoma. *Skeletal Radiol* 2000; 29:656-9. <https://doi.org/10.1007/s002560000271>