

Hidatidosis ósea primaria de tibia. presentación de un caso.

Primary hydatid disease of the tibia. case report

Agustín Arancibia¹, María V. Bürgesser¹, Ricardo A. Albertini², Ana L. de Diller¹, Carlos B. Villalba³**Resumen**

Hidatidosis ósea primaria de tibia.

La hidatidosis es una enfermedad endémica en diferentes partes del mundo y su agente causal es el cestodo del género *Echinococcus*. Los órganos más frecuentemente afectados en el ser humano son el hígado y el pulmón, siendo la hidatidosis ósea secundaria, una entidad muy poco común, representando el 0,5 al 4% del total. Se presenta el caso de una mujer de 58 años oriunda de La Rioja, Argentina, que consulta por dolor infrapatelar izquierdo y dificultad en la marcha de ocho meses de evolución. Las imágenes mostraron una lesión quística metafisodiafisaria proximal en la tibia izquierda. Se realizó una resección quirúrgica y el estudio histopatológico confirmó que se trataba de un quiste hidatídico. La paciente evolucionó favorablemente y completó el tratamiento con 3 ciclos de albendazol. Actualmente se encuentra sin signos de enfermedad y ha recuperado su motilidad. La afección primaria del hueso, como el caso que presentamos, donde no hay evidencia de enfermedad sistémica, es aún más inusual. El compromiso de la tibia ocurre hasta en un 15% y son lesiones que se manifiestan clínicamente cuando presentan algún tipo de complicación. El diagnóstico preoperatorio es principalmente imagenológico y se debe realizar el diagnóstico diferencial con procesos tumorales e inflamatorios del hueso, ya que habitualmente se presenta como una lesión osteolítica que puede romper la cortical y expandirse a los tejidos blandos. El tratamiento es quirúrgico y su pronóstico es pobre, debido a su alta tasa de morbi-mortalidad y una recurrencia del 70 al 80%.

Palabras claves: hidatidosis, hidatidosis ósea, tibia, hueso, *Echinococcus Granulosus*.

Abstract

Primary hydatid disease of the tibia.

Hydatidosis is an endemic disease in different parts of the world. Its causal agent is the cestode from the genus *Echinococcus*. The most commonly affected organs in humans are liver and lung. Bone hydatid disease is a very rare entity, accounting for 0.5 to 4% of total cases. We report a case of a 58 year-old woman from La Rioja, Argentina, who consulted for left infrapatellar pain and walking disability of eight months duration. Imaging studies showed a cystic lesion which involved metaphysis and diaphysis of left proximal tibia. Surgical resection was performed and histopathological study confirmed that it was a hydatid cyst. The patient did well and completed three cycles of treatment with albendazole. Currently, she has no evidence of disease and she recovered motility of her left leg. Primary hydatid bone disease, where there is no evidence of systemic disease, is even more unusual. Tibia involvement occurs in up to 15% of the cases. These lesions clinically manifest when

1 Servicio de Patología, Hospital Privado de Córdoba SA, Córdoba Capital, Argentina.

2 Servicio de Clínica Médica, Hospital Privado de Córdoba SA, Córdoba Capital, Argentina.

3 Servicio de Traumatología, Hospital Privado de Córdoba SA, Córdoba Capital, Argentina.

Autor para correspondencia:

Arancibia, Agustín

Dirección: Naciones Unidas 346. Barrio Parque Vélez Sarsfield. Córdoba, Argentina. CP: X5016KEH

Teléfono: 0351-4688829; Fax: 0351-4688826

Email: aguarancibia@hotmail.com

El presente artículo es original y no ha sido enviado a otras revistas para su publicación

they suffer any type of complications. Preoperative diagnosis is mainly made by imaging studies. Lesions are usually osteolytic and can involve cortical bone and extend to soft tissues. Differential diagnosis with inflammatory processes and bone tumors should be mandatory. Treatment is surgical and prognosis is poor due to its high morbi-mortality rate and recurrence risk from 70 to 80%.

Keywords: hydatid disease, bone hydatid cyst, tibia, bone, Echinococcus

La hidatidosis o equinococosis es una zoonosis causada por la forma larval del cestodo del género *Echinococcus*, siendo la forma más común de afectación humana el *E. Granulosus*. Esta enfermedad presenta una distribución mundial con áreas endémicas en el sur de América Latina, Asia Central, Australia, África y países del Mediterráneo. La localización más frecuente del quiste hidatídico en el ser humano es el hígado en el 75% de los casos seguido por el pulmón en el 15%. El compromiso óseo es inusual, representando entre el 0,5 al 4% de todas las hidatidosis humanas. Los huesos más afectados son los cuerpos vertebrales en un 40-50%, seguidos por la pelvis en un 15-20%, los huesos largos en un 15% y más raramente el esternón, el cráneo y las falanges. Clínicamente son lesiones asintomáticas por varios años, manifestándose, habitualmente, recién cuando presentan algún tipo de complicación.¹⁻²⁻³

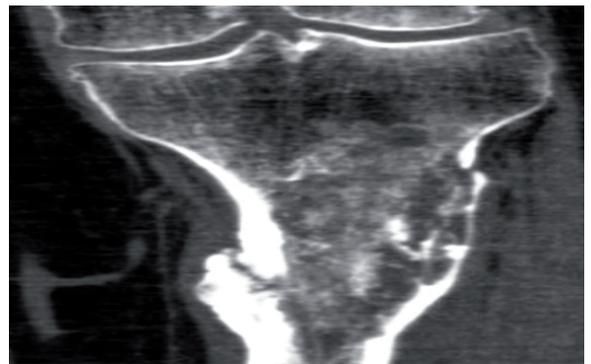
Los hallazgos imagenológicos de la hidatidosis ósea son inespecíficos y se debe realizar el diagnóstico diferencial con lesiones tumorales, pseudotumorales o inflamatorias, para un correcto tratamiento.¹⁻²⁻³⁻⁴

Se presenta el caso de una paciente con hidatidosis ósea primaria en tibia diagnosticada en el Hospital Privado de Córdoba, Argentina.

Reporte de caso

Mujer de 58 años oriunda de La Rioja, sin antecedentes patológicos de relevancia, que ocho meses previo a su consulta, luego de sufrir una caída desde su propia altura, comienza con dolor de intensidad progresiva en región infrapatelar izquierda que se acentuaba cuando caminaba y se acompañaba de impotencia funcional con dificultad en la marcha. Al examen físico se constata tumoración dolorosa de metáfisis de tibia izquierda con limitación severa de la motilidad. Se realiza resonancia nuclear magnética (RMN) que informa lesión expansiva de 74 x 45mm, metáfi-

sodiafisaria proximal de tibia izquierda, polilobulada, que expande y rompe la cortical (Figura 1). La tomografía axial computada (TAC) muestra una lesión quística con solución de continuidad en las paredes de la misma y la centellografía ósea, una lesión en tercio superior de tibia izquierda secundaria a enfermedad ósea primaria, siendo negativa para lesiones óseas secundarias.



Se decide realizar biopsia de la lesión ósea, en la cual se observan fragmentos de membranas de aspecto laminar y se sugiere investigar hidatidosis. La TAC de tórax y la ecografía abdominal resultan normales descartándose lesiones hidatídicas en otros órganos. Se comienza tratamiento con albendazol y 67 días posteriores a la biopsia se realiza resección quirúrgica oncológica metafisodiafisaria de tibia izquierda con reconstrucción por trasplante de homoinjerto masivo de tibia de banco de tejidos. En el estudio histopatológico de la pieza quirúrgica se observa una lesión quística multilocular revestida por membranas pardoblanquecinas (Figuras 2). A la microscopía, se evidencia múltiples estructuras quísticas revestidas por una membrana eosinófila, acelular y homogénea constituida por dos capas (Figura 3). Dentro de la cavidad y adheridos a la capa germinal se reconocen estructuras birrefringentes vincu-

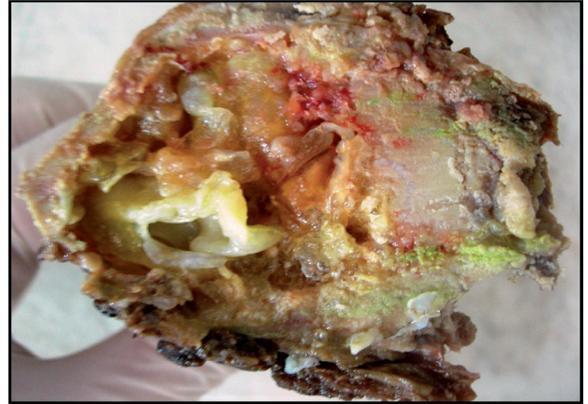
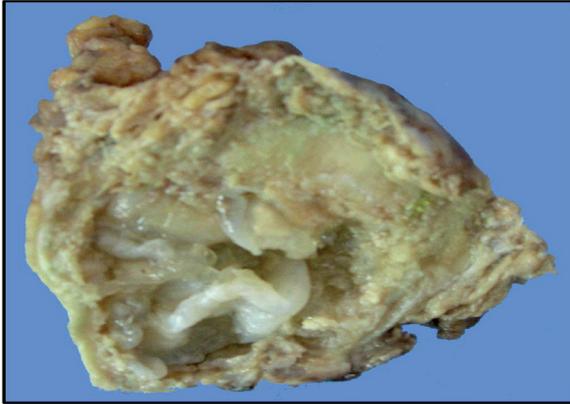


Figura 2 (A – B): Fotografía macroscópica donde se reconoce una lesión quística multilocular revestida por membranas pardoblanquecinas.

lables a escólex confirmando el diagnóstico de hidatidosis (Figura 4). Los márgenes quirúrgicos se encuentran libres de lesión y no hay invasión de músculo esquelético ni de tejido adiposo.

La paciente presenta buena evolución postquirúrgica y completa 3 ciclos de albendazol. Actualmente se encuentra asintomática con recuperación de la motilidad y sin signos de otras lesiones hidatídicas.

Discusión

La hidatidosis ósea es una entidad poco frecuente, que ocurre entre el 0,5 y el 4% de todos los casos, siendo habitualmente un compromiso secundario de la enfermedad. Los embriones del parásito, luego de atravesar la mucosa intestinal y alcanzar la circulación portal, son filtrados inicialmente por el hígado en un 70-75% y luego por el pulmón en un 15-20% de los casos, por lo que sólo un 10% llegan a la circulación general y comprometen otros órganos como el cerebro, musculo esquelético, riñones, bazo, hueso y otros tejidos. Por lo tanto el compromiso óseo primario, como en el caso que se presenta, es aún más raro que el secundario.^{1,2,3} Los huesos más comprometidos son aquellos con mayor vascularización, siendo afectados hasta en un 50% los cuerpos vertebrales, seguido por la pelvis en un 15-20% y los huesos largos, como fémur, tibia o húmero en un 15%. Otros sitios más raros son el esternón, las costillas, el cráneo y las falanges.^{2,3,4,5} En los huesos largos la lesión se localiza inicialmente en la metáfisis y luego se extiende hacia la diáfisis.³ En nuestro caso la pa-

ciente no presentaba compromiso sistémico de la enfermedad y la lesión hidatídica comprometía la epífisis y la diáfisis de la tibia izquierda.

El quiste hidatídico se compone de 3 capas: una interna, germinal, donde se producen los escólex (el estado larval del parásito), una capa media acelular, que permite el pasaje de nutrientes y una externa o adventicia formada por un tejido fibroso, producido por el órgano huésped. En el hueso el quiste hidatídico carece de capa adventicia, lo cual permite un lento crecimiento del mismo y la producción de otras vesículas, generando una lesión multiquística a diferencia de los demás órganos donde la lesión es unilocular.^{3,6,7} Clínicamente la afectación ósea permanece silente por un largo período de tiempo, diagnosticándose recién cuando la lesión es extensa, cuando ha presentando alguna complicación local o luego de la cirugía si no fue sospechada inicialmente. El síntoma más frecuente cuando el compromiso es de un hueso largo es el dolor local y las complicaciones pueden ser una fractura patológica, extensión a tejidos blandos con fistulización o una infección bacteriana sobreagregada.^{1,2,3,4,5,7} La paciente que presentamos refería como único síntoma dolor en la zona infrapatelar de la tibia izquierda de ocho meses de evolución, que fue progresivo generándole impotencia funcional con dificultad para la marcha.

La lesión hidatídica en el hueso es una lesión osteolítica, uni o multilocular, que puede producir adelgazamiento o ruptura de la cortical con expansión a tejidos blandos y acompañarse de osteoesclerosis en los estadios avanzados de la

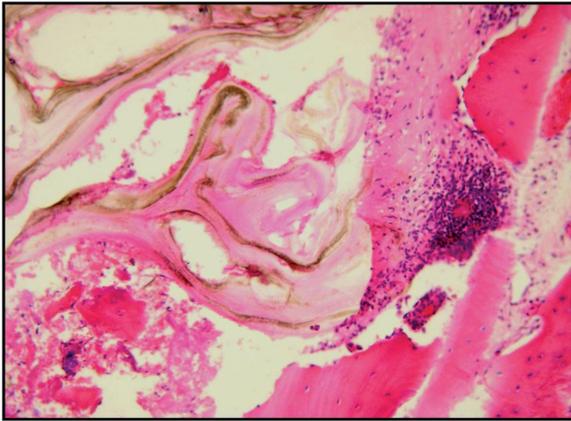
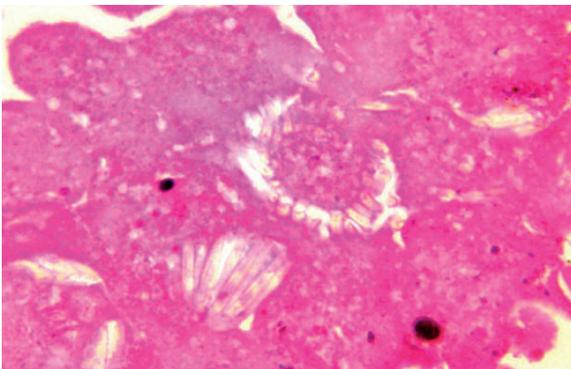


Figura 3: Microfotografía. H/E 10x: se reconoce membrana eosinofílica, acelular y homogénea de quiste hidatídico en tejido óseo.

enfermedad con reacción periosteal cuando existe una fractura patológica. Por lo tanto la apariencia imagenológica de estas lesiones se debe diferenciar de patologías tumorales e inflamatorias. Cuando la lesión es única puede confundirse con un plasmocitoma, un quiste simple óseo o un tumor pardo por hiperparatiroidismo, mientras que cuando es multiquística de aspecto botrioide debe diferenciarse de un fibroma condromixoide, una displasia fibrosa o una metástasis. Cuando hay compromiso de tejidos blandos adyacentes a una lesión osteolítica, se debe diferenciar de un condrosarcoma, de una osteomielitis (piógena o tuberculosa), de un tumor de células gigantes y de un quiste óseo aneurismal.^{2,3,5,7,8} En nuestro caso la imagen era polilobulada con destrucción focal de la cortical, sospechándose inicialmente una lesión maligna, por lo cual se realizó una biopsia, donde se observaron membranas sugestivas de hidatidosis, lo que motivó la resección quirúrgica definitiva.



La equinococosis ósea debe ser tratada igual que un tumor maligno, siendo el único tratamiento definitivo una resección quirúrgica completa con márgenes libres. Se puede realizar reconstrucción con injerto óseo, para cubrir el defecto de la escisión, como se utilizó en este caso presentado. A pesar de una correcta intervención la tasa de recurrencia local es alta, alcanzando el 70-80%. Se recomienda un tratamiento adyuvante preoperatorio con derivados del benzimidazol si el diagnóstico se conoce antes de la cirugía y continuar con unos ciclos adicionales en el postoperatorio. El pronóstico suele ser pobre, con altos índices de morbi-mortalidad, dependiendo de la localización y extensión de la lesión, de la presencia o no de complicaciones locales, del tipo de cirugía que se puede realizar y de los márgenes de resección.^{3,5,6,7,9} En el caso que presentamos se comenzó con albendazol 60 días previos a la cirugía y se realizó una resección quirúrgica tipo oncológica metafisodiafisaria de tibia izquierda con reconstrucción por trasplante de homoinjerto óseo. Actualmente la paciente se encuentra en buen estado general, con una buena recuperación postoperatoria y cumpliendo el tercer ciclo postquirúrgico de albendazol.

El diagnóstico de hidatidosis ósea primaria suele ser difícil, sin embargo, sobre todo en aquellas áreas endémicas, debe ser sospechada y considerada como diagnóstico diferencial de lesiones óseas tumorales, pseudotumorales o inflamatorias, ya que su tratamiento y pronóstico es diferente al resto de las entidades.

Referencias

- 1- Arazi M, Erikoglu M, Ozdemir M. Primary Echinococcus Infestation of the Bone and Muscles. *Clinical Orthopaedics and Related Research*. 2005; 432:234-241.
- 2- Schneppenheim M, Jerosch J. Echinococcosis granulosa/cystic of the tibia. *Arch Orthop Trauma Surg*. 2003; 123:107-111.
- 3- Papanikolaou A. Osseous hydatid disease. *Transaction of Royal Society of Tropical Medicine and Hygiene*. 2008; 102:233-238.
- 4- Polat P, Kantarci M, Okur A. Hydatid Disease from Head to Toe. *RadioGraphics*. 2003; 23:475-494.
- 5- Ozkan H, Dogramaci Y, Komurcu M. Primary Hydatid Disease of the Humerus. *Annals*

Academy of Medicine. 2008; 37:440-441.

6- Song XH, Ding LW, Wen H. Bone hydatid diseases. *Postgrad Med J. 2007; 83:536-542.*

7- Kalinova K, Proichev V, Priazova E. Hydatid bone disease: a case report and review of the literature. *J. of Orthopaedic Surgery. 2005; 13:323-325.*

8- Varer M, Sarsilmaz A, Apaydin M. Hydatid Disease of the Knee Joint: Osseous and Extraosseous Involvement. *Am J. Trop. Med. Hyg. 2009; 81: 371-372.*

9- Schipper H, Simsek S, Van Lieden K. Case Report: Bone Hydatid Disease Refractory to Nitazoxanide Treatment. *Am J. Trop. Med. Hyg. 2009; 81:446:448.*