

# Quiste óseo esencial de calcáneo en el niño. Presentación de tres casos

L.M. Antón Rodríguez, L. Ortega Medina, M.I. Cabadas González, L. Aguilar Rodríguez

**Resumen.** *Objetivo:* Analizar las características propias del quiste óseo esencial de calcáneo (QOE) en la edad pediátrica, su evolución y sus diferencias con los pacientes adultos.

*Métodos:* Se revisaron de forma retrospectiva los niños con diagnóstico patológico de QOE de calcáneo tratados en la unidad de Ortopedia Infantil del Hospital Clínico San Carlos en los últimos 16 años. Se valoraron los datos clínicos, los radiológicos siguiendo los criterios de Södergard y los histológicos, así como la respuesta a la terapia corticoidea intracavitaria y al raspado y relleno de la cavidad según la escala de Neer.

*Resultados:* Se estudiaron tres casos de QOE de calcáneo. La edad media fue de 10,3 años. Dos presentaron talalgia recurrente durante más de seis meses. La corticoterapia intracavitaria fracasó en los dos casos en los que se practicó. La cirugía mediante raspado y relleno de la cavidad con aloinjerto se realizó en los tres, en dos por fracaso de la terapia corticoidea y en el otro por presentar una imagen atípica. El estudio histológico identificó en los tres casos la existencia de una membrana de tejido conectivo característica. La evolución postquirúrgica tras un período de seguimiento medio de cuatro años ha sido satisfactoria.

*Conclusiones:* En el niño el QOE de calcáneo es una localización excepcional, con frecuencia sintomática y resistente a la corticoterapia intracavitaria a diferencia de lo que ocurre con los QOE de otras localizaciones y con los QOE de calcáneo en la edad adulta. La talalgia persistente y la radiología atípica son indicaciones quirúrgicas.

*An Esp Pediatr 1998;49:364-368.*

**Palabras clave:** Tumores óseos; Quiste óseo esencial; Calcáneo.

## ESSENTIAL BONE CYST OF THE CALCANEUS IN CHILDREN. THREE CASES.

**Abstract.** *Objective:* The purpose of this study was to analyze the properties of essential bone cyst of the calcaneus in childhood, as well as its evolution, and differences with regard to adults.

*Patients and methods:* The cases of children with a diagnosis of essential bone cyst of calcaneus in last sixteen years in the pediatric orthopedic unit of San Carlos Clinic have been reviewed. We evaluated the information regarding the clinical history and the radiological and histological date as well as the therapy result with steroid intracavitary therapy and curettage and bone grafting. The radiologic score was done following Södergard criteria and the posttreatment follow-up with Neer's score.

Unidad de Ortopedia Infantil. Servicio de Cirugía Ortopédica y Traumatología. (Prof. López-Durán Stern). Hospital Clínico San Carlos. Madrid.

*Correspondencia:* L.M. Antón Rodríguez. CMU San Juan Evangelista.

Av. Gregorio del Amo, nº 4. 28040 Madrid.

*Recibido:* Marzo 1998

*Aceptado:* Junio 1998

*Results:* The mean age of the patients was 10,3 years. Two of the patients had recurrent heel pain for more than six months. Treatment consisted in intracavitary steroid in two cases and curettage and bone grafting in all three cases, in two of the cases because of failure of steroid therapy and in the other because of an atypical X-ray image. In all cases the histological study identified the existence of a characteristic membrane connective tissue. The postsurgery follow-up a period of half four years has been satisfactory.

*Conclusions:* The essential bone cyst of the calcaneus is exceptional localization in children, frequently symptomatic and resistant to the steroid intracavitary contrary to what happens with the essential bone cyst of other localizations and with the essential bone cyst of the calcaneus in the adults. The recurrent heel pain and atypical X-ray image are surgery indications.

**Key words:** Bone tumours. Essential bone cysts. Calcaneus.

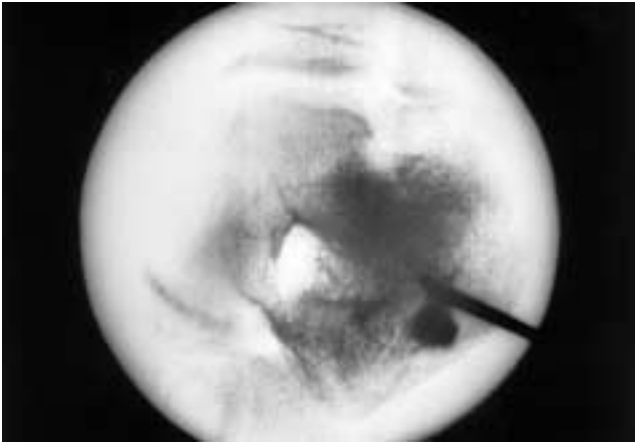
## Introducción

El quiste óseo esencial (QOE) es una lesión ósea, pseudo-tumoral, lítica y benigna, frecuente del esqueleto en crecimiento<sup>(1-5)</sup>. Constituye el 3% de las lesiones óseas y en el 80% de los casos se asienta en las metáfisis proximales de húmero y fémur<sup>(4,7)</sup>. Consiste en una cavidad simple de contenido líquido seroso o serosanguinolento, delimitada por una fina membrana de tejido conectivo. Sus imágenes radiológica e histológica son características; sin embargo, su etiología, evolución y respuesta al tratamiento, a pesar de los numerosos estudios realizados, sigue siendo controvertida<sup>(5-8)</sup>.

La localización calcánea del QOE es excepcional (3% de los QOE e inferior al 1% en menores de 15 años<sup>(5-8)</sup>). Además, presenta aspectos clínicos e histológicos diferentes a los QOE de otras localizaciones, por lo que algunos autores lo consideran como una entidad diferenciada<sup>(4,5,7,9)</sup>. Describimos nuestra experiencia sobre esta lesión calcánea en niños y su respuesta a la terapia corticoidea intralesional y al tratamiento tradicional mediante raspado y relleno de la cavidad.

## Material y métodos

Se ha realizado un estudio retrospectivo de los QOE de calcáneo en niños tratados en los últimos 16 años en la Unidad de Ortopedia Infantil del Hospital Clínico San Carlos. Únicamente se han incluido en este estudio los que tenían confirmación histológica. Se han analizado la sintomatología, semiología radiológica, hallazgos histológicos, tratamiento empleado y evolución.



**Figura 1.** Quistografía preterapia corticoidea.



**Figura 2.** Intraoperatoria: relleno de la cavidad con aloinjerto.

Los casos se han clasificado, según los criterios radiológicos establecidos por Södergard<sup>(2)</sup>, en dos grupos: típicos, cuando correspondían a lesiones líticas con patrón geográfico tipo IA de Lodwick y tamaño inferior a 3x5 cm; y atípicos, cuando existía un patrón geográfico tipo IB de Lodwick, su forma era irregular, bilobulada, afectaba a una superficie articular o su tamaño era superior a 3x5 cm. en la radiología lateral. Como exploraciones complementarias se han realizado TC y RMN.

El tratamiento empleado tras un período de observación de seis a doce meses fue, en dos ocasiones, la aspiración e infiltración de metilprednisolona (80 mg.), previa quistografía, siguiendo la sistemática de Scaglietti<sup>(1)</sup> (Fig. 1). La cirugía mediante abordaje submaleolar lateral, raspado y relleno con aloinjerto (Fig. 2) se hizo en los tres, en dos como tratamiento asociado y en el otro por la existencia de una imagen atípica. Se realizó estudio histopatológico del tejido lesional obtenido en el acto quirúrgico. La carga libre se permitió a las seis semanas de la cirugía tras un período de inmovilización escayolada de seis semanas, con carga parcial en las dos últimas.

El período de seguimiento tras el curetaje ha sido de dos a siete años (4 años como media) y los resultados se han valorado clínica y radiológicamente siguiendo la pauta de Neer<sup>(3)</sup>: I, obliteración; II, obliteración parcial con quistes residuales; III, recurrencia y IV, sin respuesta.

## Resultados

En los 16 años revisados hemos tratado a tres niños de 8, 10 y 13 años, dos varones y una mujer, con hallazgos radiológicos, quirúrgicos e histológicos de QOE de calcáneo. Dos presentaron talalgia y cojera de seis a doce meses de duración sin signos inflamatorios locales y con exploración física normal. El tercer niño estaba asintomático y el hallazgo fue casual. El estudio radiológico evidenció una lesión lítica con patrón geográfico tipo IA de Lodwick situada en la región anterolateral del calcáneo (*trigonum calcis*), sin reacción cortical ni perióstica, de forma ovoidea y tamaño inferior a 3 x 5 cm (forma típica) en dos casos (Fig. 3); e irregular, bilobulada y de tamaño superior (for-

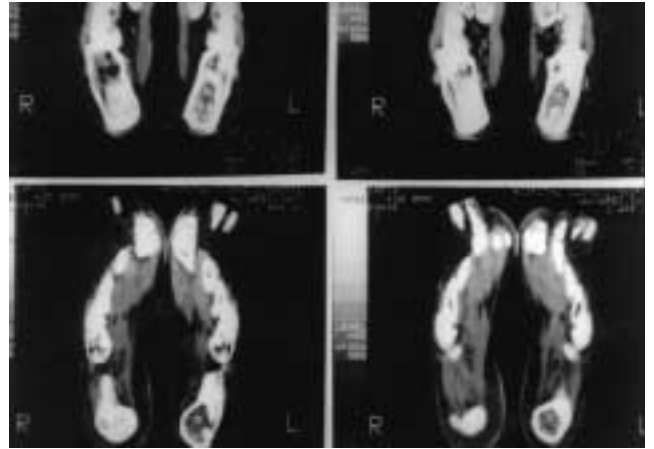


**Figura 3.** Radiología: imagen lítica con patrón geográfico IA de Lodwick en el *trigonum calcis*, menor de 3x5 cm (forma típica).

ma atípica), en el otro (Fig. 4). Los estudio TC (Fig. 5) y RMN no mostraron reacción cortical ni perióstica, ni fracturas patológicas, ni calcificaciones, aunque en el quiste considerado atípico se vió, en ambos estudios, un septo óseo incompleto que bilobulaba al quiste (Fig. 4).



**Figura 4.** RMN: Imagen bilobulada, mayor de 3x5 cm (forma atípica).



**Figura 5.** TC: Quiste unicameral con desarrollo medial.



**Figura 6.** RMN: Postoperatorio inmediato.

La aspiración e infiltración con metilprednisolona (Fig. 1) fue ineficaz en los dos casos en los que se practicó (Neer<sup>(3)</sup> IV: sin respuesta). La cirugía con raspado y relleno de la cavidad con aloinjerto tuvo un resultado satisfactorio (Neer<sup>(3)</sup> I: obliteración) en los tres casos (Fig. 6). El postoperatorio evolucionó



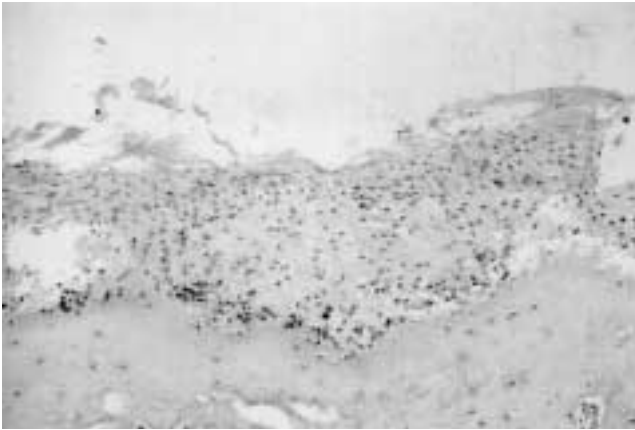
**Figura 7.** Obliteración completa del quiste (Neer3 IV).

sin complicaciones y la incorporación funcional y escolar fue rápida (dos semanas). En la evolución a largo plazo se constató, tras un período de seguimiento medio de 4 años, la remisión clínica y la obliteración completa del quiste con incorporación del injerto sin detectarse signos de recidiva ni degeneración (Fig. 7).

El estudio histológico permitió identificar, en todos los casos, la existencia de una membrana de tejido conectivo con abundantes macrófagos, células gigantes, cristales de colesterol y espículas de tejido óseo reactivo inmaduro compatibles con el diagnóstico de quiste óseo esencial (Fig. 8).

## Discusión

En la infancia, el QOE es todavía más inusual que en la edad adulta, pero en el niño es sintomático con mayor frecuencia, ocasionando dolor que se acentúa con la presión y, sobre todo, con la marcha, como ha ocurrido en dos de nuestros casos<sup>(2,7,8)</sup>. Según Moreau<sup>(8)</sup>, la talalgia recurrente es una indicación formal de tratamiento quirúrgico, y se debe a microfracturas repetidas del quiste que son más frecuentes en los niños por su mayor acti-



**Figura 8.** Histología: tejido conectivo con macrófagos, células gigantes, cristales de colesterol y espículas de tejido óseo reactivo inmaduro (HE 50x).

vidad física y que originan los derivados hemorrágicos encontrados en los estudios histológicos.

El QOE de calcáneo presenta rasgos característicos, tanto clínicos, como histológicos. Entre los primeros destacan la ausencia de fracturas patológicas, a pesar de los requerimientos biomecánicos del calcáneo, y la nula respuesta a la punción con corticoides. Los histológicos se relacionan con la composición de la membrana conectiva que limita el quiste (en cuanto al contenido de hemosiderina, cristales de colesterol, células gigantes y neoformación ósea) que es diferente a la de los QOE del húmero y fémur (80% de los casos). Esto ha inducido a que se considere al QOE del calcáneo como una entidad diferenciada del QOE clásico<sup>(4,5,7,9)</sup>.

A pesar de los estudios realizados, la etiología de los QOE de calcáneo y la de los QOE de otras localizaciones sigue siendo desconocida<sup>(3-9)</sup>. Se han sugerido diferentes factores de predisposición para el QOE de calcáneo: la existencia de lipomas (entidad anatomopatológica discutida por autores como Mirra<sup>(5)</sup>), alteraciones vasculohemorrágicas<sup>(6)</sup>, o defectos congénitos<sup>(7)</sup>. Mirra<sup>(5)</sup>, incluso, considera que existe una interrelación patológica entre defectos congénitos y trastornos hemorrágicos.

Los QOE de calcáneo se asientan en la región anterolateral, donde tiene lugar la unión del cuerpo con el “*sustentaculum tali*”, denominada “*trigonum calcis*” por estar limitada por los sistemas trabeculares de carga anterior, posterior e inferior del calcáneo. A esta peculiaridad anatómica se deben la ausencia de fracturas patológicas, a pesar del tamaño de los quistes, y la existencia de un área de disminución de la trabeculación ósea que, en la radiología simple, se aprecia como una radiolucencia moderada en el 22% e importante en un 7% de los calcáneos normales, situación definida como pseudoquiste calcáneo y que, en ocasiones, es difícil de diferenciar del QOE<sup>(5,9-11)</sup>.

En el diagnóstico diferencial hay que considerar el pseudoquiste, procesos infecciosos (osteomielitis aguda o crónica), inflamatorios (poliartritis), tumores benignos (quiste aneurismático, fibroma condromixóide, fibroma no osificante, lipoma, an-

gioma) y malignos (sarcoma osteogénico, condrosarcoma y Ewing)<sup>(2)</sup>. El pseudoquiste es un hallazgo radiológico, descrito por Sirry<sup>(3,9,10)</sup>, que se observa en el 29% de los calcáneos normales y consiste en una atenuación de diferente intensidad en la densidad radiológica del “*trigonum calcis*”. Si bien la localización del pseudoquiste es idéntica a la de los QOE el vacío no es completo en su parte central, los bordes están peor definidos, su forma es triangular y son asintomáticos. No obstante, como señalan Neer<sup>(3)</sup> y Smith<sup>(6)</sup>, es concluyente de QOE la semiología radiológica que presenta una lesión lítica con patrón geográfico IA de Lodwick, sin expansión cortical ni reacción perióstica, centrada sobre el “*trigonum calcis*” y de tamaño inferior a 3x5 cm. La realización de otras exploraciones de mayor rendimiento diagnóstico como la TC y la RMN permiten diferenciar el QOE del pseudoquiste y de otras patologías más agresivas, al descartar la presencia de reacciones corticales y periósticas, calcificaciones, septos, fracturas y edema medular, que ocasionan imágenes atípicas en la radiología simple<sup>(2,4,5,8)</sup>.

Aunque sólo Smith<sup>(6)</sup> ha descrito un caso de curación espontánea de QOE de calcáneo, el tratamiento conservador, indicado por diferentes autores<sup>(4,6,9)</sup>, está avalado en los pacientes asintomáticos por la excepcionalidad, tanto de la degeneración maligna (se han descrito sólo cinco casos de degeneración condromatosa<sup>(2,4,5)</sup>), como de la producción de fracturas patológicas<sup>(5,7-9)</sup>. Nosotros coincidimos con otros<sup>(2,3,7,8,10-12)</sup> que propugnan la cirugía de los QOE en los niños con sintomatología dolorosa o en estado de “trauma psicológico” que les condicione su actividad recreativa, y en aquéllos con imágenes atípicas ya que, en estos casos, no hay respuesta ni a la terapéutica conservadora mediante descarga (con o sin inmovilizaciones escayoladas durante largos períodos de tiempo<sup>(2,7,8)</sup>), ni a la punción cavitaria con corticoides, como en nuestros casos. Comportamiento opuesto tienen los QOE de otras localizaciones (60 al 90% de obliteración completa<sup>(1,5,9,13)</sup>) y en pacientes adultos, en los que se han publicado series como la de Núñez Samper<sup>(10)</sup> con buenos resultados.

El tratamiento quirúrgico mediante raspado y relleno de la cavidad es curativo, con independencia de la naturaleza del relleno<sup>(4,5,7,8,13)</sup>, y las posibles recidivas están más relacionadas con la técnica quirúrgica que con la procedencia del relleno empleado, como demuestra la diversidad de injertos utilizados con resultados comparables en las revisiones publicadas<sup>(13)</sup>. La evolución postoperatoria a largo plazo es uniforme, como en nuestros casos, comprobándose como normas la desaparición de la sintomatología, la obliteración total de la cavidad y la incorporación del injerto sin signos de recidiva ni degeneración<sup>(4,5,7,8)</sup>.

## Bibliografía

- Scaglietti O, Marchetti PG y Bartolozzi P. Final results obtained in the treatment of bone cysts with methylprednisolone acetate (Depo-Medrol) and a discussion of results achieved in the other bone lesions. *Clin Orthop* 1982; **165**:33-42.
- Södergard J y Karaharju EO. Kystes du calcanéum, diagnostic et traitement. *Rev Chir Orthop* 1990; **76**:502-506.

- 3 Neer CS III, Francis KC, Johnston AD y Kierman HA. Current concepts on the treatment of solitary unicameral bone cyst. *Clin Orthop* 1973; **97**:40-51.
- 4 Campanacci M, Capanna R y Picci P. Unicameral and aneurysmal bone cysts. *Clin Orthop* 1986; **204**:25-37.
- 5 Mirra JM. Calcaneal bone cyst. En: Mirra JM, Picci P y Gold RH. Bone tumours. Clinical, radiologic and pathologic correlations. Vol. 2, pp 1325-1330. 2ª Ed.; Lea and Febiger. Philadelphia-London, 1989.
- 6 Smith RW y Smith CF. Solitary unicameral bone cyst of the calcaneus. A review of twenty cases. *J Bone Joint Surg* 1974; **56A**:49-56.
- 7 Van Linthoudt D y Lagier R. Calcaneal cysts. A radiological and anatomic-pathological study. *Acta Orthop Scand* 1978; **49**:310-316.
- 8 Moreau G y Letts M. Unicameral bone cyst of the calcaneus in children. *J Pediatr Orthop* 1994; **14**:101-104.
- 9 Sanchís Alfonso V, del Pino Ortiz JM y Gasco Gómez de Membrillera J. Quiste óseo esencial de calcáneo. Entidad clinicopatológica diferente del quiste óseo esencial de otras localizaciones. *Rev Ortop Traum* 1992; **36IB**:25-29.
- 10 Núñez Samper M, Burgueño P y Ulloa J. Quiste óseo esencial del calcáneo. Presentación de cuatro casos. *Rev Ortop Traum* 1990; **34IB**:509-513.
- 11 Sueiro Fernández J, Mario Baudet Carrillo E, López Muñoz A, Sabaté Sivianes C, Ayllón García A y Garrido García F. Quiste óseo esencial de calcáneo. *Rev Ortop Traum* 1988; **32IB**:135-138.
- 12 Roeland A, Magotteaux J y Vandepaer F. Les kystes osseux essentiels du calcaneum à propos d'un cas. *Acta Orthop Bel* 1991; **57**:188-191.
- 13 Hashemi-Nejad A y Cole WG. Incomplete healing of simple bone cysts after steroid injections. *J Bone Joint Surg* 1997; **79B**:727-730.