

Kosta Orijinli Dev Anevrizmal Kemik Kisti

Costa Originated Giant Aneurysmal Bone Cyst

Ufuk Çobanoğlu

Asist. Prof., M.D.
Department of Torax Surgery
Yüzüncü Yıl University
drucobanoglu@hotmail.com

Mustafa Kösem

Assoc. Prof. M.D.
Department of Pathology
Yüzüncü Yıl University
mustafakosem@yyu.edu.tr

Ebru Altındal

Specialist, M.D.
Department of Pathology
Yüzüncü Yıl University

Harun Arslan

Specialist, M.D.
Department of Radiology
Yüzüncü Yıl University

Özet

On yıl önce geçirilmiş araç içi trafik kazası öyküsü olan 56 yaşında kadın, 2 yıldır nefes darlığı, göğüs ağrısı, sağ göğüs yan duvarında büyüyen bir kitle nedeniyle müracaat etti. Direkt akciğer radyografisinde 7. kot hizasından başlayan 14 x 10 cm boyutlarında kitle lezyon izlendi. Kitle ilgili kostalar, invazyon gösterdiği toraks ön duvarı kas yapısı ile diafragma bölgesinde kapsayacak şekilde total olarak rezeke edildi. Lezyonun patolojik incelenmesi sonucunda solid, kistik komponentleri olan anevrizmal kemik kisti rapor edildi.

Anahtar kelimeler: **Kemik Kisti, Anevrizmal.**

Abstract

A 56-years-old female patient who had a traffic accident 10 years ago applied to our out-patient clinic with complaints of dyspnea for 2 years, chest pain and an enlarging mass on her right chest side wall. There was a mass lesion sized 14 x 10 cm beginning from the 7th level with chest x-ray. Mass was resected totally to cover the relevant costas and thorax front wall muscular structure which was encompassed and diaphragm region. Aneurysmal Bone Cyst having solid and cystic components was reported at the pathologic examination.

Keywords: **Bone Cyst, Aneurysmal.**

Submitted : November 27, 2008
Revised : October 21, 2009
Accepted : September 14, 2010

Corresponding Author:

Yard. Doç. Dr. Ufuk Çobanoğlu
Yüzüncü Yıl Üniversitesi Tıp Fakültesi,
Göğüs Cerrahisi Anabilim Dalı
Van- Turkey

Phone : +90 - 432 2150475
e-mail : drucobanoglu@hotmail.com

Giriş

Anevrizmal kemik kisti (AKK), tümör benzeri, ekspansil, benign karakterli kemik lezyonudur. Primer kemik tümörlerinin yaklaşık %1'ini oluşturur. Etyopatogenezi tam olarak bilinmemekle beraber, primer lezyonun kemikten veya periostal bölgeden arteriyovenöz malformasyon olarak başladığı ve kan akımının hemodinamik etkileri sonucu, reaktif olarak anevrizmal kemik kisti geliştiği bildirilmektedir (1). AKK, vücutta hemen her kemikte bildirilmesine rağmen, sıklıkla uzun kemiklerin metafizlerinde ve vertebralarda görülür (2, 3). Yassı kemikler içerisinde ise en sık pelviste gözlenir. AKK'nin kosta yerleşimi çok nadir olup, tüm olguların %2,7'sini oluşturur ve alt 3 kosta da hemen hiç görülmez (4). Olguların %85'i 20 yaşın altında olup 5 yaşın altında ise çok nadir olarak görülmektedir (5).

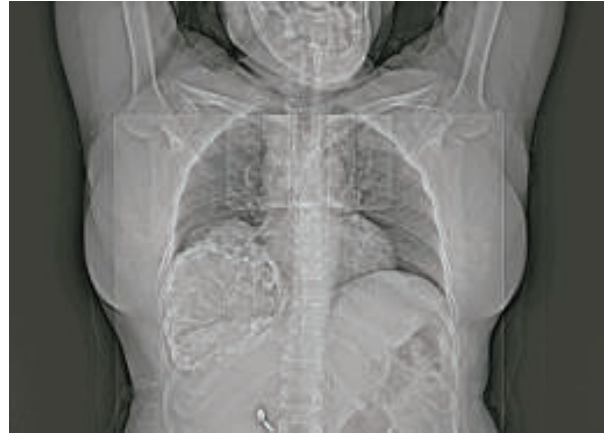
Tedavi seçenekleri tam rezeksiyon, küretaj, küretaj ve kemik greftleme, radyoterapi veya preoperatif adjuvan selektif arteriyel embolizasyon (SAE) ve perkütan fibrozan ajan enjeksiyonunu içerir (6). Son dönemde perkütan fibrozan ajan enjeksiyonunun (Ethibloc, Ethicon) iyi sonuçlar verdiği belirtilmektedir (7-9). Tam eksizyon dışındaki primer tedavi yöntemlerinde lokal rekürrens oranları %12 (10) ile %31,5 (11) arasındadır ve yalnız başına kemik greftlemeli veya greftlemesiz küretaj ile tedavi edilmiş 44 olgu içeren bir seride, rekürrens %59'a kadar ulaşmıştır (12). Gecikmiş tanı, cerrahi tedaviyi zorlaştırır (10, 11, 13).

Tüm dünyada oldukça nadir görülen kosta anevrizmal kemik kisti olgusunu, normalde görülen yaştan daha ileri bir yaşta tespit edilmiş olması ve dev boyutlara ulaşmış olması nedeniyle literatür eşliğinde sunmayı amaçladık.

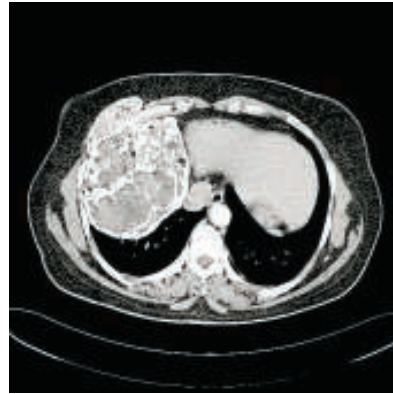
Olgu Sunumu

Elli altı yaşında kadın, son 2 yıldır nefes darlığı, göğüs ağrısı ve sağ göğüs yan duvarında büyüyen bir kitlesi olduğunu ve değişik sağlık merkezlerinde ağrı kesici ilaçlar ile tedavi edilmeye çalışıldığını ifade ederek kliniğimize müracaat etti. On yıl önce geçirilmiş araç içi trafik kazası öyküsü olan hastanın fizik muayenesinde sağ hemitoraks bazalinde anteriolateral lokalizasyonda 7x8 cm çapında fiske, sert bir kitlesi olduğu tespit edildi. Palpasyonda ısı artışı, duyarlılık ya da kızarıklık saptanmadı. Rutin biyokimya ve kan profili özellik göstermedi. Direkt akciğer radyografisinde 7. kot hizasından başlayan 14 x 10 cm boyutlarında kitle lezyon izlendi (Resim 1). USG eşliğinde yapılan 2. biopsi sonucunda tanı konulamadı. Hastanın Toraks MRI ve

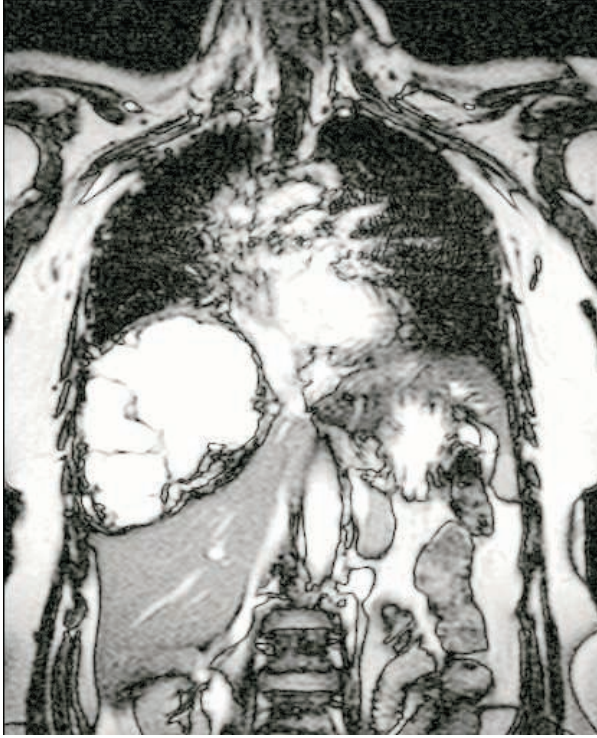
CT'si (Resim 2, 3), sağ hemitoraks orta lobu tamamen dolduran diafragma ve perikardiak alana uzanan, 14 x 11 cm ebatlı, T2 serilerde hipoidens, T1 serilerde hiperindens solid komponentleri olan, multipl septalı kistik kitle olarak değerlendirildi. Kitlenin inferiorda diafragmada yaylanma oluşturduğu ve karaciğerde belirgin bası meydana getirdiği saptandı.



Resim 1. Yedinci kot hizasından başlayan 14 x 10 cm boyutlarında kitle lezyon.

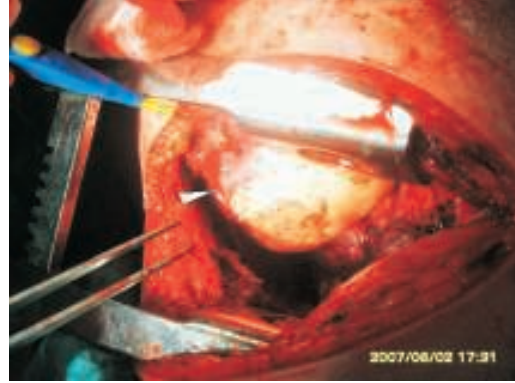


Resim 2. Bilgisayarlı toraks tomografisinde sağ hemitoraks orta lobu tamamen dolduran diafragma ve perikardiak alana uzanan, 14 x 11 cm ebatlı kitle.

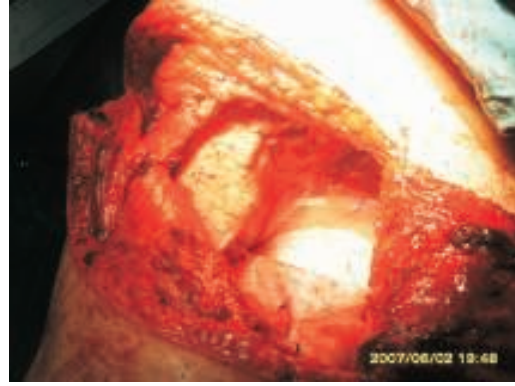


Resim 3. Kitlenin inferior diafragmada yaylanma oluşturduğu ve karaciğerde belirgin bası meydana getirdiği görülmektedir (Toraks MRI).

Operasyona alınan hastada lezyonun 7. kottan kaynaklandığı ve 8 ve 9. kostalarda invaze edecek şekilde ekspansiyon olduğu ve diafragma yapışıklık gösterdiği tespit edildi (Resim 4). Kitle ilgili kostalar ve invazyon gösterdiği toraks ön duvarı kas yapısı ile diafragma bölgesini de kapsayacak şekilde total olarak rezektore edildi (Resim 5). Diafragmada oluşan defekt prolen mek ile onarıldı. Göğüs duvarında oluşan geniş defekt marleks mek kullanılarak rekonstrükte edildi.

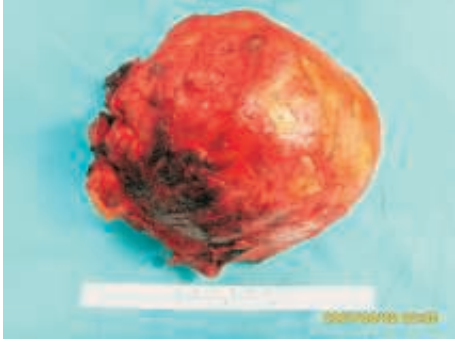


Resim 4. 7. kottan kaynaklandığı ve 8 ve 9. kostalarda invaze edecek şekilde ekspansiyon olan kitle.

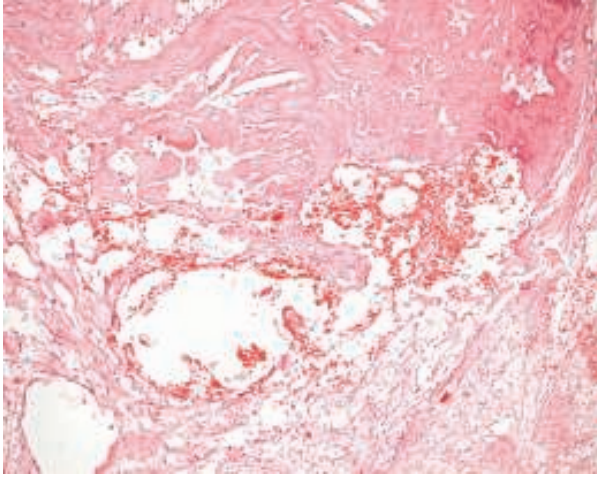


Resim 5. Kitlenin ilgili kostalar ve invazyon gösterdiği toraks ön duvarı kas yapısı ile diafragma bölgesini de kapsayacak şekilde total olarak rezektore edildikten sonraki göğüs duvarı.

Lezyonun patolojik incelenmesi sonucu şu şekilde rapor edilmiştir: Yaklaşık 14 x 10 x 8 cm büyüklüğünde olan ve kahverengi-sarı sıvı içeren kistik kitle ameliyatla alınmıştır (Resim 6). Histopatolojik inceleme kanla dolmuş kavernöz boşlukları göstermiştir. Bu boşluklar endotelial bir sırada değildir. Ekstravase olmuş geniş alanlar görülmüştür. Bu boşluklar fibroblastlar, fokal osteoklazi koleksiyonları ve ara dev hücreler içeren kolajenöz doku ile ayrılmıştır. Kapakta görülen lezyonun yayıldığı normal kemik trabekül anevrizmal kemik kisti izlenimi bırakmıştır. (Resim 7).



Resim 6. Yaklaşık 14 x 10 x 8 cm büyüklüğünde olan ve kahverengi-sarı sıvı içeren kistik kitle.



Resim 7. Histopatolojik inceleme kanla dolmuş kavernöz boşlukları göstermiştir. Bu boşluklar endotelial bir sırada değildir. Ekstravase olmuş geniş alanlar görülmüştür. Bu boşluklar fibroblastlar, fokal osteoklazi koleksiyonları ve ara dev hücreler içeren kolajenöz doku ile ayrılmıştır. Kapakta görülen lezyonun yayıldığı normal kemik trabekül anevrizmal kemik kisti izlenimi bırakmıştır.

Tartışma

AKK hastalarının yaklaşık hepsi 30 yaşın altındadır ve 50 yaşın üzerinde çok nadirdir; çünkü AKK büyümeye devam eden kemiklerde ortaya çıkar. İnsidensi çok düşüktür. Primer kemik tümörlerinin yaklaşık %1'i kadardır. AKK her kemiği etkileyebilir ama en çok etkilenen kemikler ve bölgeler konusunda çelişkili rakamlar mevcuttur. Uzun kemikler (%53) ve spinal kemikler (%15) vakaların %70'ini oluşturur ve kafatası, mandibula, maksilla, skapula, patella ve kaburgaların her birinde

%1-3 oranında görülür (13, 14). Hastamızın hem görülme yaşı hem de lokalizasyonu oldukça nadir bir olguyu yansıtmaktadır.

AKK'nin her iki cinsiyette eşit dağılımın yanısıra kadınlarda (15) ya da erkeklerde daha fazla olduğunu (16) belirten yayınlar da vardır. Kostaları etkileyen AKK, genellikle ağrı, palpabl kitle, dispne, parapleji veya patolojik fraktür ile birlikte (17). Olgumuzda göğüs ağrısı, dispne ve palpabl kitle ile müracaat etmiştir.

AKK'nin fizyopatolojisi hakkında değişik görüşler mevcuttur. Jaffe (18) AKK'nin hemoraji ile zararlanmış başka bir kemik lezyonundan modifikasyon sonucu oluştuğunu savunmuştur. Steiner ve Kanter ise; AKK'nin primer veya sekonder bir kemik lezyonuyla birlikte olabileceğini öne sürmüşlerdir (19,20). AKK'nin daha önceden var olan arteriovenöz malformasyonlardan orijin aldığını savunanlar vardır. Diğerleri ise; lokal dolayım bozukluğu nedeniyle hemodinaminin değişmesini sorumlu tutmuşlardır (21).

AKK, primer ve sekonder olarak ikiye ayrılmaktadır. Primer grup; daha önceden var olan arteriovenöz malformasyonların sorumlu tutulduğu ve çocuklarda görülen grubu oluşturur. Eşlik eden lezyon ve travma öyküsü çocuklarda yoktur. Erişkinlerde ise travma öyküsü vardır. Sekonder tip; kist, tümör, fibroosseöz lezyonun dejenerasyonu ile birlikte (21). Bizim olgumuzda da 10 yıl önce geçirilmiş araç içi trafik kazası öyküsü mevcuttur.

Gross olarak lezyon septalarla ayrılmış kaviter boşluklardan oluşur ve bu boşluklar serum ya da kan ile doludur. Mikroskopik olarak çeşitli boyutlarda içi serum veya kan dolu kistik yapılar şeklindedir (22, 23). Olgumuz benzer mikroskopik bulgulara sahiptir.

Mikroskopik olarak, eğer tüm spesmen aynı histopatolojik yapıyı gösteriyor ise, lezyonu primer veya klasik AKK olarak değerlendirmek gerekir. Eğer lezyonda benign veya malign başka bir kemik tümörü de var ise sekonder AKK adı verilmelidir. Tipik olarak AKK endotel döşemesi olmayan çok sayıda kavernöz alanlar içerir. Hemosiderin pigmenti içeren makrofajlar ve multinükleuslu osteoklastik dev hücreler, kan kanallarını bölen septalarda bol miktarda bulunur. Kesin tanı histopatolojik olarak konulabilir. Bu bilgiler ışığında olgumuzun primer bir AKK olduğu görülmektedir (24,25).

AKK'nin, osteochondroma, neuroblastoma ve lösemi metastazı, eosinophilic granuloma, ewing sarkomu, olgunlaşmamış kemik kisti, kostanın ve göğüs duvarının hamartoma'sı gibi iyi ve kötü huylu tüm kotal lezyonlarla ayırıcı tanısı yapılmalıdır (26, 27).

Kompüterize tomografi tanıda çok faydalıdır. Çok sayıda sıvı düzeyi elde edilmesi tanıda çok önemlidir. MRI görüntüleme yine tanıda oldukça önemli bilgiler sağlar. Kistik kitleyi çevreleyen düşük sinyalli kenar T1 ve T2 ağırlıklı sekansların her ikisinde de görülür (3, 14). Olgumuzda lezyon toraks MRI ve CT 'de sağ hemitoraks orta lobu tamamen dolduran diafragma ve perikardiyak alana uzanan 14x 11 cm ebatlı, T2 serilerde hipodens, T1 serilerde hiperdens solid komponentleri olan, multipl septalı kistik kitle olarak değerlendirildi.

Yumuşak dokuyu ve ilgili kostayı içeren en blok rezeksiyon AKK 'de en iyi tedavi seçeneğidir (28). Radyoterapi residü veya rekürrens olgularda önerilir. Operasyonu takiben nadir de olsa göğüs duvarı deformiteleri ve skolyoz gibi komplikasyonlar gelişebilir. Tam kalınlıkta bir kemik grefti ya da prostetik mesh rekonstrüksiyon amacıyla uygulanabilir (26). Bu olguda kitle ilgili kostalar ve invazyon gösterdiği toraks ön duvarı kas yapısı ile diafragma bölgesinde kapsayacak şekilde total olarak rezeke edildi. Diafragmada oluşan defekt prolen mech ile onarıldı. Göğüs duvarında oluşan geniş defekt marleks mech kullanılarak rekonstrükte edildi. 1 yıldır takibi sürdürülen hastada rekürrens saptanmadı.

AKK, oldukça nadir görülen bir kemik lezyonudur. Nadir görülmesi nedeniyle tanıyı belirlemek preoperatif dönemde güç olmaktadır. Hastadan alınan anamnez, fizik muayene bulguları, radyografi, intraoperatif bulgular tanıyı koymak için destek sağlayacaktır. Kesin tanı histopatolojik inceleme ile konulur.

Kaynaklar

- 1.Sadighi A, Tuccimei U, Annessi P. Aneurysmal bone cyst of the rib: a case report. *Chir Ital* 2006;58:403-406
- 2.Balci P, Obuz F, Göre O, Demirpolat G, Aktug T, Kovanlikaya I. Aneurysmal bone cyst secondary to infantile cartilaginous hamartoma of rib. *Pediatr Radiol* 1997; 27: 767-769.
- 3.Di Mario M, Colizza S, Fraracci L, et al. A rare case of an aneurysmal cyst of the rib. A study by traditional radiology, computerized axial tomography and magnetic resonance (Italian). *Radiol Med* 2000; 99: 276-278.
- 4.Sabanathan S, Chen K, Robertson C, et al. Aneurysmal bone cyst of rib. *Thorax* 1984; 39: 125-130.
- 5.Mirra JM. Aneurysmal bone cyst. In: Mira JM, Picci P, Gold RH, editors. *Bone tumors. Clinical, radiologic, and pathologic correlations. 2nd ed. Philadelphia: Lea and Febiger; 1989.p. 1267-1311.*
- 6.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: 1674-1681.
- 7.Adamsbaum C, Mascard E, Guinebretiere JM, Kalifa G, Dubousset J. Intralesional Ethibloc injection in primary aneurysmal bone cysts: an efficient and safe treatment. *Skeletal Radiol* 2003; 32: 559-566.
- 8.Guibaud L, Herbreteau D, Dubois J, et al. Aneurysmal bone cysts: percutaneous embolization with an alcoholic solution: series of 18 cases. *Radiology* 1998; 208: 369-373.
9. Gibbs CP, 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 highspeed burr. *J Bone Joint Surg Am* 1999; 81: 1671-1678.
- 10.Cheah HK, Griffin AM, White LM. Aneurysmal bone cyst of pelvis. *Can J Surg* 1999; 42: 411-412.

11. Feldenzer JA, McGauley JL, McGillicuddy JE. Sacral and presacral tumors: problems in diagnosis and management. *Neurosurgery* 1989; 25: 884–891.
12. Sirmali M, Ağaçkiran Y, Aydın E, et al. Aneurysmal bone cyst of the first rib. *Eur J Cardiothorac Surg* 2004; 26: 826–827.
13. Boriani S, De Lure F, Campanacci L, et al. Aneurysmal bone cyst of the mobile spine: report on 41 cases. *Spine (Phila Pa 1976)* 2001; 26: 27–35.
14. Huvos G. *Bone Tumors, Diagnosis, Treatment and Prognosis*. 2nd ed. Philadelphia: W.B. Saunders Company; 1991. p. 727–743.
15. Dorwart RH, LaMasters DI, Watanabe TJ. *Tumors. Newton TH, Potts DC, editors. Computed Tomography of the Spine and Spinal Cord*. 2nd ed. San Anselmo: Clavadel Pres; 1983. p. 115–147
16. Szendroi M, Cser I, Konya A, Renyi-Vamos A. Aneurysmal bone cyst: a review of 52 primary and 16 secondary cases. *Arch Orthop Trauma Surg* 1992; 111: 318–322,
17. Friedman B, Yellin A, Huszar M, Blankstein A, Lotan G. Aneurysmal bone cyst of the rib: a review and report of two cases (review). *Br J Dis Chest* 1988; 82: 179–185.
18. Jaffe HL, Lichtenstein L: Solitary unicameral bone cyst: With emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis. *Arch Surg* 44:1004–1025, 1942
19. Matsuura S, Tahara T, Ro T, Masumi T, Kasuya H, Yokota T. Aneurysmal bone cyst of the coronoid process of the mandible. *Dentomaxillofacial Radiology* 1999; 28: 324–326.
20. Struthers PJ, Shear M. Aneurysmal bone cyst of the jaws. (I). Clinicopathological features. *Int Journal Oral Surgery* 1984; 13: 85–91.
21. Gadre KS, Zubairy RA. Aneurysmal bone cyst of the mandibular condyle: Report of a case. *J Oral Maxillofacial Surgery* 2000; 58: 443–447.
22. 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: 2291–2304.
23. Unni K, Inwards CY. Tumors of the osteoarticular system. In: Fletcher CDM, editor. *Diagnostic histopathology of tumors*. New York: Churchill Livingstone; 2002. p. 1586–1587.
24. Andersen BJ, Goldhagen P, Cahill DW. Aneurysmal bone cyst of the odontoid process: case report. *Neurosurgery* 1991; 28: 592–594.
25. De Dios AMV, Bond JR, Shives TC, Mcleod RA, Unni KK. Aneurysmal bone cyst. A clinicopathological study of 238 cases. *Cancer* 1992; 69: 2921–2931.
26. Andiran F, Ciftci AO, Senocak ME, Akçören Z, Göğüş S. Chest wall hamartoma. An alarming chest lesion with benign course. *J Pediatr Surg* 1998; 33: 727–729.
27. Lee SY, Lee SJ, Lee CS, Lee KR. Aneurysmal bone cyst originating from the first rib. *Am J Surg* 2008; 195: 104–105.
28. Freidman B, Yellin A, Huszar M, Blankstein A, Lotan G. Aneurysmal bone cyst of rib: a review and report of two cases. *Br J Dis Chest* 1988; 82: 179–185.