

Tratamento de adamantinoma de tibia através da técnica de congelamento em nitrogênio líquido

Matheus do Nascimento Castro¹, Igel de Souza Aquino¹, Nataly Cristina Reis Uzelyn¹,
Marcello Martins de Souza², Marcos Hajime Tanaka³

RESUMO

O adamantinoma de ossos longos é uma rara neoplasia do osso, representando menos de 0,4% dos tumores ósseos malignos. Descrevemos o tratamento de uma menina de 12 anos com essa lesão, após confirmação diagnóstica, com a técnica de ressecção, tratamento com desbridamento e curetagem, e posterior submersão em nitrogênio líquido e fixação com placas. Essa técnica encontra respaldo na literatura de reconstrução, e é uma alternativa à amputação ou tratamento com endoprótese ou banco de tecidos.

Palavras-chave: adamantinoma; tumor ósseo; nitrogênio líquido; ressecção.

SUMMARY

Long bone adamantinoma is a rare bone neoplasm, representing less than 0.4% of malignant bone tumors. We describe the treatment of a 12-year-old girl with this lesion, after diagnostic confirmation, with the technique of resection, treatment with debridement and curettage, and subsequent submersion in liquid nitrogen and fixation with plates. This technique is supported by literature of reconstruction, and is an alternative to ablative reconstruction or treatment with an endoprosthesis or tissue bank.

Keywords: adamantinoma; bone tumor; liquid nitrogen; resection.

INTRODUÇÃO

Histologicamente maligno e composto por estruturas epiteliais e mesenquimais de baixo grau^{1,2}, esse tumor ósseo se assemelha ao ameloblastoma, anteriormente chamado de adamantinoma mandibular³, e é originado dos ameloblastos, células precursoras do esmalte dentário. A histopatologia do adamantinoma de ossos longos continua obscura, e embora se aceite sua origem epitelial, há

quem defenda a natureza vascular da lesão⁴. Apesar da semelhança com o ameloblastoma, não se estabelece qualquer relação entre as duas condições^{1,5,6}. Embora remota, há a discussão sobre a relação com a osteofibrodisplasia de ocorrência cortical exclusiva⁷⁻¹⁰, por isso o diagnóstico diferencial entre os dois processos deve sempre ser cogitado. Tanto a osteofibrodisplasia, quanto o adamantinoma de ossos longos apresentam boa evolução pós-operatória^{1,7}.

1. Médico Residente do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do HSPE, São Paulo, SP, Brasil

2. Médico Assistente do Grupo de Oncologia Ortopédica do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do HSPE, São Paulo, SP, Brasil

3. Chefe do Grupo de Oncologia Ortopédica do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do HSPE, São Paulo, SP, Brasil

Autor Responsável: Marcos Hajime Tanaka / **E-mail:** tanakamarcos1@gmail.com

O adamantinoma de ossos longos é uma rara neoplasia do osso, representando menos de 0,4% dos tumores ósseos malignos. Primeiramente descrito por Fischer em 1913, o adamantinoma geralmente está localizado na diáfise da tibia (80%)¹, acometendo indivíduos na segunda e terceira década de vida, podendo variar até a quarta década em alguns casos.

Clinicamente apresenta-se com dor, podendo evoluir com deformidade progressiva e aumento de volume local^{1-2,11}, raramente manifestando-se em crianças e adolescentes^{12,13}. Pelo seu comportamento indolente e variedade de diagnóstico diferencial, geralmente não é diagnosticado nas fases mais precoces da doença, podendo evoluir com metástase pulmonar e recorrência local.

RELATO DE CASO

Paciente feminino, 12 anos, com história de dor insidiosa e progressiva na perna esquerda sem história de traumas e sem alterações sistêmicas. Procurou atendimento ortopédico, no qual foram realizadas radiografias da perna esquerda, sendo identificada lesão lítica no terço médio da diáfise da tibia. Na ocasião, foi encaminhada ao Hospital do Servidor Público Estadual (HSPE) para seguimento.

No primeiro atendimento no HSPE, foram realizadas radiografias da perna esquerda, incidências anteroposterior (AP) e perfil (Figura 1). Identificada lesão lítica no terço médio da diáfise da tibia, sendo solicitada uma tomografia computadorizada da perna esquerda (Figura 2) e indicada a realização de biópsia fechada (Figura 3).

Após processamento do material colhido evidenciou-se a presença de população celular bifásica proliferativa: epitelial basalóide



Figura 1. RX Perna esquerda (pré-operatório)

e fusocelular fibro-óssea, indicando diagnóstico de adamantinoma de tibia.

Realizada ressonância magnética (RM) (Figura 4) para avaliação do acometimento ósseo e de partes moles, com intuito de posterior planejamento cirúrgico.

Para o caso foi indicado tratamento cirúrgico, utilizando a técnica descrita por Tsuchiya et al.¹⁴, com nitrogênio líquido.

Com a paciente em posição supina, foram obtidas imagens sob fluoroscopia em AP da perna esquerda, a fim de demarcar as margens cirúrgicas, previamente definidas através do exame de RM da perna esquerda. Com a margem definida e demarcada na pele como 16cm distal à articulação do joelho e 8cm proximal da articulação do tornozelo (Figura 5A), foi feita uma incisão na face anteromedial da tibia de aproximadamente 20cm, abrangendo toda a extensão do osso a ser ressecado, fragmento de 11cm, abrangendo a cicatriz da biópsia previa (Figura 5B).

A seguir foi realizada a liberação de partes moles para expor toda a região a ser ressecada. Com a demarcação das margens proximal e distal no osso, foi feita prefixação de uma placa medial na tibia (Figura 6A), a fim de facilitar a fixação do fragmento em outro momento do procedimento. Uma serra foi utilizada para realizar a osteotomia proximal e distal, sendo possível a ressecção em bloco da região acometida (Figura 6B e C).

Como descrito por Tsuchiya et al.¹⁴, após a ressecção em bloco da lesão, os tecidos moles aderidos ao osso foram removidos e o osso foi curetado (Figura 7A). Seguindo o protocolo sugerido por Tsuchiya, o fragmento foi submerso em nitrogênio líquido por 20 minutos, seguido por 15 minutos em temperatura ambiente e mais 10 minutos em água destilada (Figura 7B).

Com o auxílio de fluoroscopia foi realizada a fixação da placa medial na tibia. Após, o fragmento ósseo acometido foi reposicionado, sendo preciso realizar a sua fixação à placa medial com 2 parafusos monocorticais. Em seguida, uma segunda placa bloqueada, essa lateral, foi fixada, contribuindo para a estabilidade do fragmento ósseo (Figura 8).

No pós-operatório imediato foi recomendada carga proprioceptiva, sendo liberada carga parcial, com auxílio de muletas, após 10 meses. A liberação da carga foi feita de acordo com a avaliação clínica e radiográfica obtida (Figura 9).

DISCUSSÃO

O adamantinoma de ossos longos é uma neoplasia maligna rara de baixo grau, de crescimento lento, podendo acometer esqueleto apendicular, porém é encontrada mais comumente na tibia (80%). Sua característica bimodal na histologia torna o diagnóstico difícil, e tem a displasia fibrosa como principal diagnóstico diferencial. O

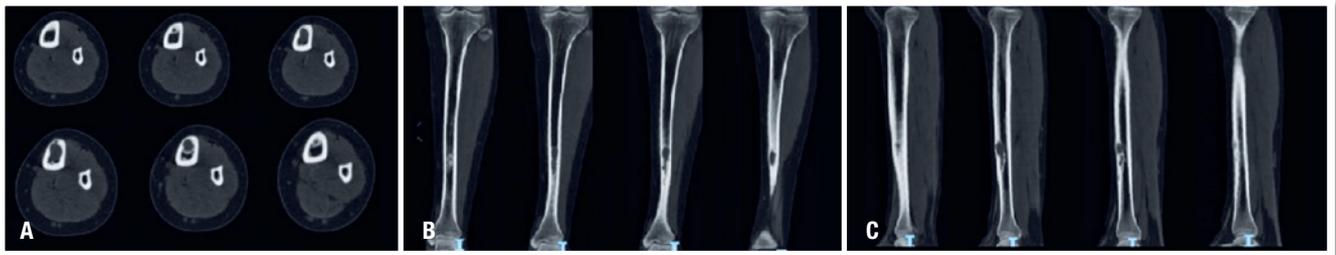


Figura 2. Tomografia computadorizada mostrando a alteração óssea da perna esquerda. A. Cortes axiais; B. Cortes coronais; C. Cortes sagitais

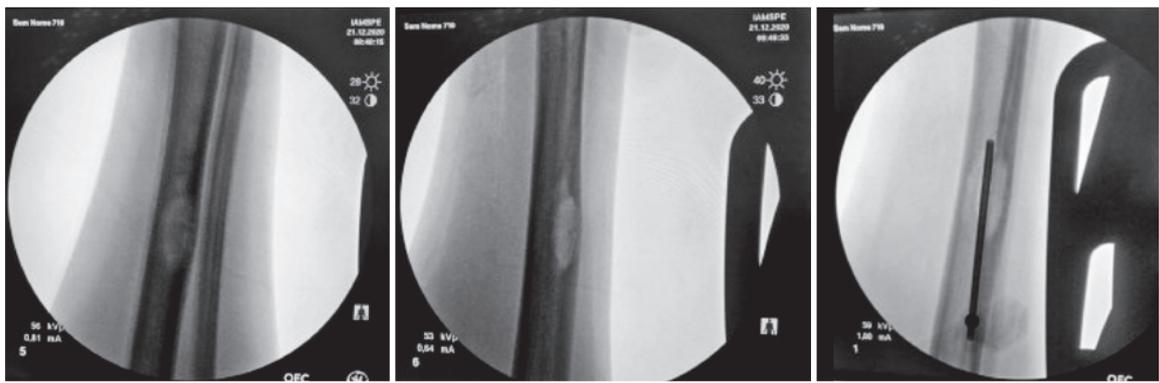


Figura 3. Imagens intraoperatórias, biópsia fechada. A. Visão anteroposterior; B. Perfil; C. Retirada de material

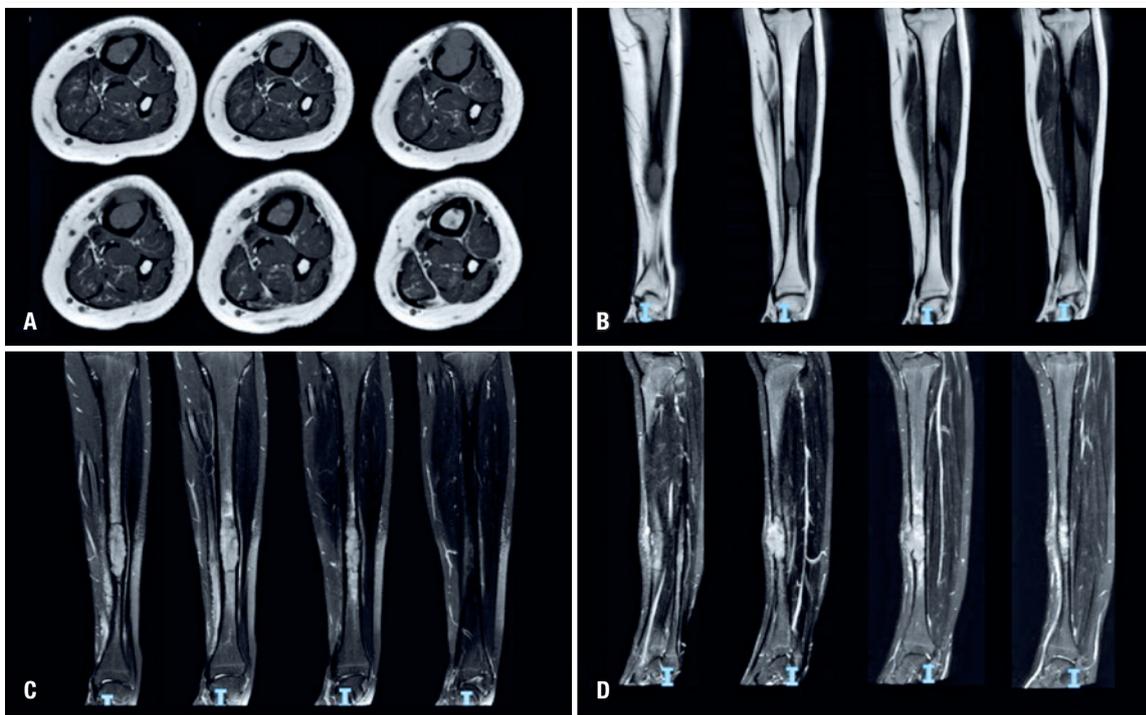


Figura 4. RM perna esquerda mostrando hipersinal na diáfise da tíbia esquerda. A. Cortes axiais (T1); B. Cortes coronais (T1); C. Cortes coronais (T2); D. Cortes sagital (T2)

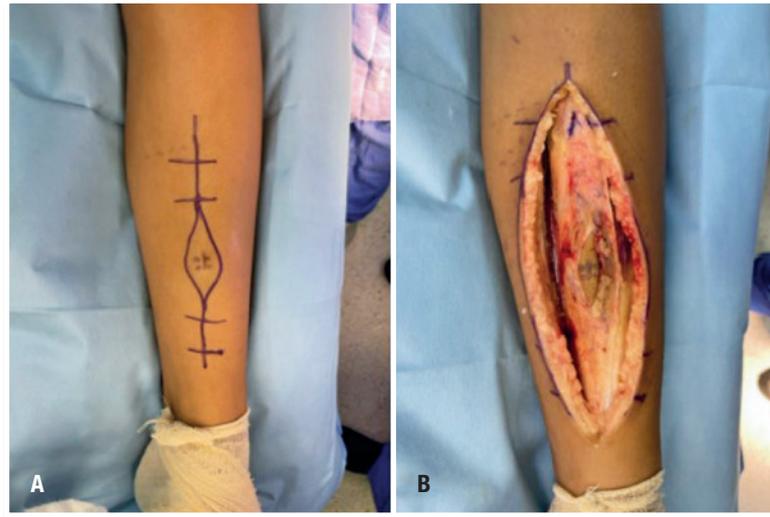


Figura 5. A. Marcação na pele. B. Incisão

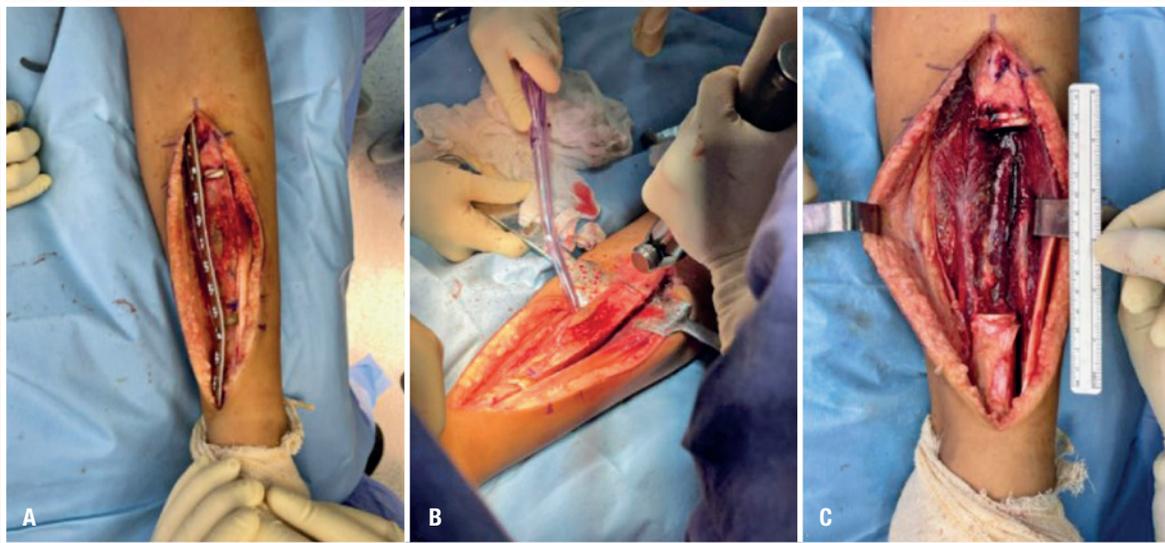


Figura 6. A. Pré-fixação da placa medial. B. Osteotomia. C. Excisão do fragmento ósseo

achado clínico mais frequente é a dor^{1,2}, insidiosa neste caso descrito, e raramente evolui com fratura. Os métodos de imagem evidenciam lesão da cortical inicialmente excêntrica, lítica, de limites imprecisos, alongada, com maior eixo ao longo do osso^{1,2}. Neste caso denota-se uma lesão lítica na medular óssea adjacente a lesão cortical, o que possibilitou levantar a hipótese de uma lesão mais agressiva em despeito a uma lesão fibrosa de cortical.

A fim de confirmar a presença da lesão foram realizadas a tomografia computadorizada (TC) e a ressonância magnética (RM),

avaliando a real extensão do tumor a fim de orientar os limites da ressecção cirúrgica. A biópsia é obrigatória pela suspeita de agressividade da lesão e, no nosso serviço, realizada de forma percutânea com agulha na possível via de acesso cirúrgico.

Por se tratar de um tumor maligno de baixo grau, não há indicação de terapia neoadjuvante, sendo indicado a ressecção com margem ampla da lesão.

Há vários métodos de reconstrução descritos para tumores de tíbia, como por exemplo fíbula vascularizada e tibialização da fíbula

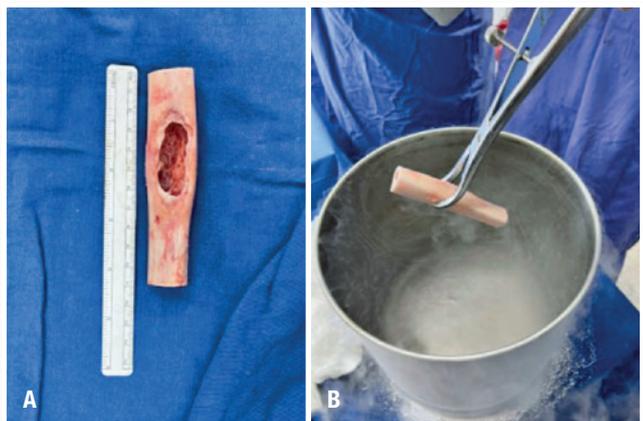


Figura 7. A. Fragmento ósseo curetado. B. Submersão em nitrogênio líquido

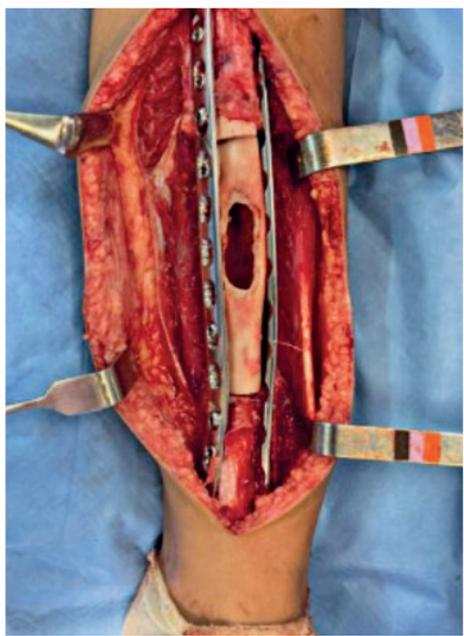


Figura 8. Fixação com placas bloqueadas lateral e medial

que devem ser considerados principalmente em paciente jovens, apresentando um alto potencial curativo. A reconstrução com endoprótese é citada na literatura e usada em casos selecionados, mas apresentam resultados limitados nessa topografia. Ressaltamos nesse caso a utilização da crioterapia da lesão com posterior reconstrução com placas (“Método de Frozen”), descrito pelo professor Dr. Tsuchiya¹⁴. Essa técnica consiste na excisão em bloco do tumor incluindo a ressecção de partes moles adjacentes com características tumorais, seguido da preparação do segmento ósseo ressecado através de curetagem exhaustiva e retirada de todo tecido

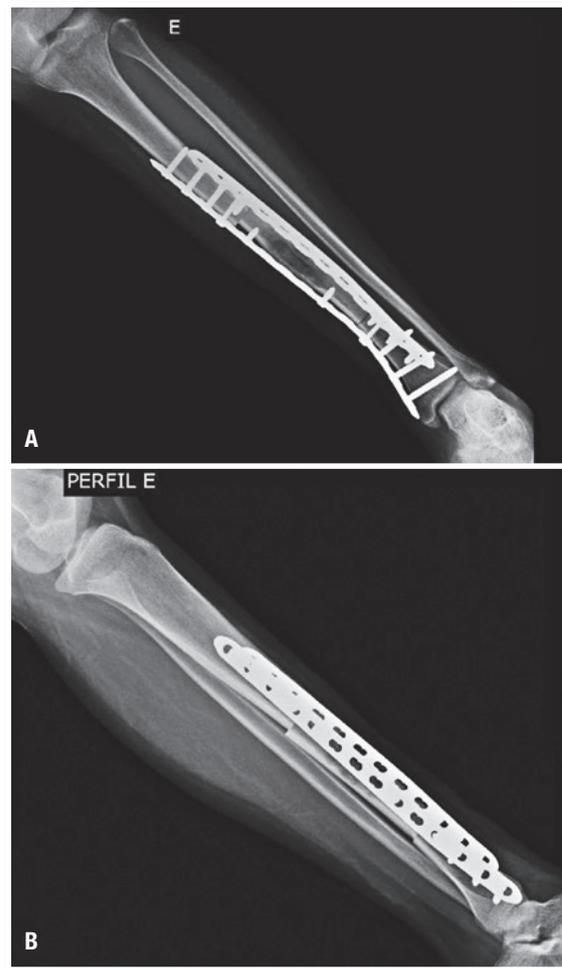


Figura 9. RX pós-operatório 10 meses

tumoral externo e intramedular. Após esse procedimento, é realizada a submersão de todo o segmento em nitrogênio líquido durante 20 minutos, em seguida é deixado em temperatura ambiente durante 15 minutos, e, finalmente, mergulhado em água destilada durante 10 minutos. Posteriormente, o segmento ósseo é devolvido visando a reconstrução, e fixado com uso de haste intramedular ou placa.

O tratamento com nitrogênio líquido tem várias vantagens, incluindo baixo custo, manutenção das propriedades osteoindutivas e osteocondutivas¹⁶, manutenção da conformação óssea e matriz cartilaginosa, força biomecânica suficiente¹⁷, não transmissão de doenças e não rejeição imunológica por não ser necessário uso de osso proveniente de banco de osso. Como complicações mais comuns com o processo de reconstrução após utilizar o nitrogênio líquido, temos a infecção, a pseudoartrose, reabsorção do fragmento ósseo e fratura do fragmento reinserido.

O seguimento dos pacientes por longo prazo é fator de extrema importância para avaliarmos a evolução da doença.

REFERÊNCIAS

1. Dorfman HD, Czerniak B. Bone tumors. St. Louis: Mosby; 1998. p. 953-73.
2. Próspero JD. Adamantinoma de ossos longos. In: Próspero JD. Tumores ósseos. São Paulo: Roca; 2001. p. 197-201.
3. Fischer B. [Über ein primäres Adamantinom der tibia]. Frankfurter Zeitschr Pathol. 1913;12:422-41. German.
4. Hogendoorn PCW, Hashimoto H. Adamantinoma. In: Fletcher CDM, Unni KK, Mertens F, editors. Pathology and genetics of tumours of soft tissue and bone. Lyon: IARC Press; 2002. p. 332-4.
5. Dabbs DJ, editor. Diagnostic immunohistochemistry. 2nd ed. Philadelphia: Churchill Livingstone; 2006. p.104-6.
6. Kuruvilla G, Steiner GC. Osteofibrous dysplasia-like adamantinoma of bone: a report of five cases with immunohistochemical and ultrastructural studies. Hum Pathol. 1998;29(8):809-14.
7. Hazelbag HM, Wessels JW, Mollevangers P, van den Berg E, Molenaar WM, Hogendoorn PC. Cytogenetic analysis of adamantinoma of long bones: further indications for a common histogenesis with osteofibrous dysplasia. Cancer Genet Cytogenet. 1997;97(1):5-11.
8. Hatori M, Watanabe M, Hosaka M, Sasano H, Narita M, Kokubun S. A classic adamantinoma arising from osteofibrous dysplasia-like adamantinoma in the lower leg: a case report and review of the literature. Tohoku J Exp Med. 2006;209(1):53-9.
9. Hazelbag HM, Hogendoorn PC. Adamantinoma of the long bones: an anatomical-clinical review and its relationship with osteofibrous dysplasia. Ann Pathol. 2001;21(6):499-511.
10. Campanacci M. Osteofibrous dysplasia of long bones: a new clinical entity. Ital J Orthop Traumatol. 1976;2(2):221-37.
11. Desai SS, Jambhekar N, Agarwal M, Puri A, Merchant N. Adamantinoma of tibia: a study of 12 cases. J Surg Oncol. 2006;93(5):429-33.
12. Deyrup AT, Montag AG. Epithelioid and epithelial neoplasms of bone. Arch Pathol Lab Med. 2007;131(2):205-16.
13. Van Rijn R, Bras J, Schaap G, van den Berg H, Maas M. Adamantinoma in childhood: report of six cases and review of the literature. Pediatr Radiol. 2006;36(10):1068-74.
14. Tsuchiya H, Wan SL, Sakayama K, Yamamoto N, Nishida H, Tomita K. Reconstruction using an autograft containing tumour treated by liquid nitrogen. J Bone Joint Surg Br. 2005;87(2):218-25.
15. Jeon DG, Kim MS, Cho WH, Song WS, Lee SY. Pasteurized autograft-prosthesis composite for distal femoral osteosarcoma. J Orthop Sci. 2007;12(6):542-9.
16. Takata M, Sugimoto N, Yamamoto N, Shirai T, Hayashi K, Nishida H, et al. Activity of bone morphogenetic protein-7 after treatment at various temperatures: freezing vs. pasteurization vs. allograft. Cryobiology. 2011;63(3):235-9.
17. Yamamoto N, Tsuchiya H, Tomita K. Effects of liquid nitrogen treatment on the proliferation of osteosarcoma and the biomechanical properties of normal bone. J Orthop Sci. 2003; 8(3):374-80.