

Omurganın Anevrizmal Kemik Kisti

Aneurysmal Bone Cyst of The Spine

GÖKHAN AKDEMİR, RÜÇHAN ERGÜN, ALİ İHSAN ÖKTEN, ETEM BEŞKONAKLI,
SELDA SEÇKİN, YAMAÇ TAŞKIN

Ankara Numune Hastanesi Nöroşirürji (GA, RE, AİÖ, EB, YT) ve Patoloji (SS) Klinikleri, Ankara

Özet: Anevrizmal kemik kisti, iyi huylu, genişleme özelliği olan ve daha çok çocuk ve gençlerde görülen kemik lezyonlarıdır. İyi huylu olmalarına karşın, bu lezyonlardan bazıları hızlı büyüme ve kemikte harabiyet yapma yeteneğine sahiptirler. Bu yazıda üç anevrizmal kemik kisti olgusu sunulmuştur. Bu olgularda ağrı, şişlik ve omurilik basısı bulguları saptanmıştır. Tam laminektomi ve radyoterapi uygulanmış ve nörolojik semptomlarda düzelme görülmüştür. Omuriliğin anevrizmal kemik kisti tarafından basıya uğratılması, motor ve duyu kayıpları ile sonuçlanabilir. Anevrizmal kemik kistinin tedavisinde tam çıkarma en iyi yöntemdir.

Abstract: Aneurysmal bone cyst is a benign expansile bone lesion that mainly affects children and young adults. Despite its benign nature, some of these lesions have a remarkable ability to destroy bone and grow rapidly. We report three cases of aneurysmal bone cyst of the spine. These patients were presented with pain and swelling and were found to have compression of the spinal cord. Total laminectomy and radiotherapy of the spine resulted in improvement of neurological symptoms. Compression of the spinal cord by the aneurysmal bone cyst may result in motor and sensorial loss. When possible complete excision is the treatment of choice.

Anahtar Sözcükler: Anevrizmal kemik kisti, omurga

Key Words: Aneurysmal bone cyst, spine

GİRİŞ

Anevrizmal kemik kistleri (AKK) iyi huylu, tahrip edici, genişleme özelliği olan ve etiyojisi bilinmeyen lezyonlardır (4,7). AKK, genellikle çocuklarda ve genç erişkinlerde görülür. En sık ikinci on yılda rastlanır. Hastalar genellikle 20 yaşın altındadır (19).

Genel olarak çok boşluklu, genişleyici, yüksek oranda damarsal osteolitik lezyonlardır. Birincil kemik tümörleri içinde % 1 oranında görülür. Bunların yaklaşık % 50'si uzun kemiklerde, % 25'i omurgada (servikal % 22, torakal % 34, lomber % 31 ve sakral % 13), % 13'ü düz kemiklerde, % 3-6'sı kalvariumda (frontal, temporal ve oksipital kemik)

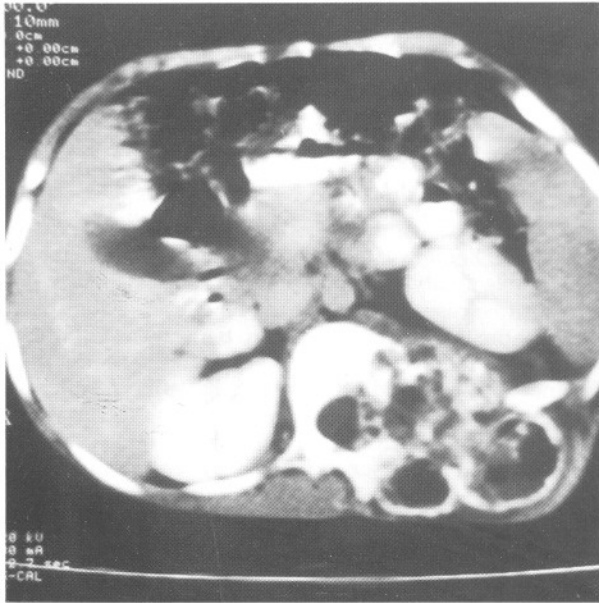
görülür (3,9,13). AKK, % 40 oranında omurga cisminde ve % 60 oranında arka elemanlarda yer alır (14). Yüzde 40 oranında da intervertebral aralıktan yayılarak başka bir omurgaya veya kaburgalara geçer (3,13). Omurganın AKK'i omurilik ve köklerde bası yapabilir, orta dereceli kök semptomlarından, parapleji veya kuadriplejiye kadar uzanabilen klinik bulgulara neden olur (23).

OLGU SUNUMLARI

Olgu 1: Altı yaşında erkek hasta üç ay önce başlayan sırtında şişlik, şişlik bölgesinden karın bölgesine yayılan kuşak tarzında ağrı yakınmalarıyla kliniğimize kabul edildi. Muayenesinde torakolomber bölgede 6x10 cm boyutlarında sert,

flüktüasyon vermeyen şişlik saptandı. Nörolojik muayenesinde alt ekstremitelerde DTR'lerde azalma dışında patolojik bulgu saptanmadı.

Olgunun omurga grafilerinde T12 ve L1 vertebra arka elemanlarında balpeteği görünümünde litik lezyon saptandı. Bilgisayarlı tomografide (BT) ise T12 sol pedikül düzeyinden başlayarak L1 düzeyinde sol pediküle ulaşan, L1 cisminin sol kısmında ve solda posterior elemanlarda harabiyete neden olan, lobule kenarlı 6 cm çapında bölmeler içeren, çevresi kalsifiye kitle görüntüsü saptandı. Kitle T12 ve L1 düzeyinden omurga kanalı içine uzanarak dural keseyi sağa itmekte ve kitle arkada cilt altına kadar yayılım göstermekteydi (Şekil 1).

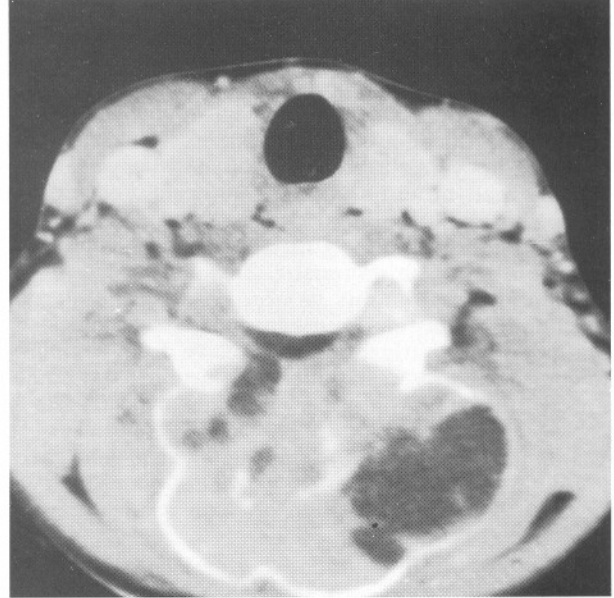


Şekil 1: T12 ve L1 düzeyinden alınmış BT kesiti. Omurganın postero-lateral kısmı ve kaburga anevrizmal kemik kisti tarafından etkilenmiştir.

Sedimentasyon hızı 67 mm/saat olarak saptandı. Diğer laboratuvar incelemeleri normal sınırlarda olan hasta, yüzüstü durumda ameliyata alındı. Cilt kesisinden sonra paravertebral kaslar arasına uzanım gösteren kapsüllü kitle görüldü. Kapsül kesisinden sonra bölmeler içeren ve içinde kanlı sıvı içeren kistik yapılar ile karşılaşıldı. Kist içinde beyazımsı zar görüldü. Kitle T12 ve L1 total laminektomi yapılarak tama yakın çıkarıldı ve kanal içindeki omurilik serbestleştirildi. Ameliyat sonrası dönemde ek nörolojik kayıp ve komplikasyon olmadı. Hasta radyoterapi için radyoterapi kliniğine sevk edildi.

Olgu 2: Onbeş yaşında kadın hasta, 8 ay önce başlayan boyun hareketlerinde ağrı, kısıtlılık, boyunda şişlik ve ellerinde kuvvetsizlik yakınmalarıyla kliniğimize kabul edildi. Nörolojik muayenesinde üst ekstremitelerde solda % 60-80, sağda % 20-40 motor kayıp, alt ekstremitelerde spastik paraparezi saptandı. DTR'ler hiperaktif, Babinski bilateral müspet olarak bulundu. Duyu kaybı ve sfinkter kusuru saptanmadı. Laboratuvar incelemeleri sedimentasyon hızında hafif bir yükseklik (35 mm/saat) dışında normaldi.

Omurga grafilerinde C6 omurga arka elemanlarını içine alan kistik kitle saptandı. BT' de C6 arka elemanlarından köken alan yumuşak doku içine büyüyen kistik ve katı bölümleri olan, lobule kenarlı, yer yer kemik parçalar içeren homojen olmayan kitle saptandı (Şekil 2).



Şekil 2: İkinci olguda arka elemanların tutulumunu gösteren BT kesiti.

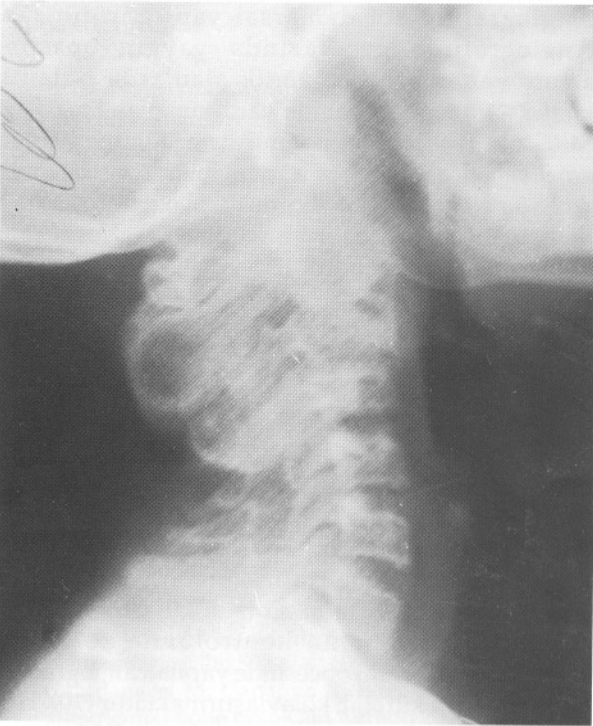
Olgu oturur pozisyonunda ameliyata alındı. C6 ve C7 tam laminektomi ve küretaj yapılarak kitle tama yakın çıkarıldı. Ameliyat sonrası dönemde hastanın kuadriparezisinde düzelme görüldü. Yakalılık ile ayağa kaldırıldı ve yürütüldü.

Olgu 3: Oniki yaşındaki erkek hasta, 1,5 yıl önce başlayan boyunda şişlik, eğrilme ve boyun hareketlerinde kısıtlılık yakınması ile kliniğimize kabul edildi. Sistemik muayenesinde suboksipital ve servikal bölgenin sol postero-lateralinde sert, hareketsiz, 4x5 cm boyutlarında kitle ele geliyordu.

Nörolojik muayenesinde, solda C2 -C6 arasında hipoestezi dışında bulgu saptanmadı.

Laboratuvar incelemelerinde serum amilaz düzeyi hafif yüksek (152 U/L, normali 35-140 U/L), alkalin fosfataz düzeyi yüksek (194 U/L, normali 45-132 U/L) ve sedimantasyon hızı 67 mm/saat olarak bulundu. Omurga grafilerinde C2 ve C3 düzeyinde arka elemanlardan kaynaklanan ve sola doğru büyüme gösteren, litik lezyonlar içeren 4x5 cm boyutlarında kitle görüldü (Şekil 3). BT ve manyetik rezonans görüntüleme (MRG) C2 ve C3 omurga cismi ve sol pedikülü, transvers çıkıntı ve arka elemanları tutan, kemik yapıda belirgin genişlemeye neden olan heterojen, yer yer kistik alanlar içeren kitle saptandı (Şekil 4).

Olgu oturur durumda ameliyata alındı. C2 ve C3 omurga arka elemanlarında kaynaklanan sola doğru büyümüş sert, içinde koyu renkli kan içeren bölmelerle birbirinden ayrılan kistik yapısı olan kitle görüldü. C2 ve C3 tam laminektomi yapıldı. Kitle, laminadan pedikül aracılığı ile omurga cismine doğru uzanıyordu. Kısmen çıkarıldı ve küretaj yapıldı. Ameliyat sonrası ek nörolojik bulgu ve komplikasyon gelişmedi. Hastaya radyoterapi önerilerek taburcu edildi. Ameliyat sonrası MRG'de



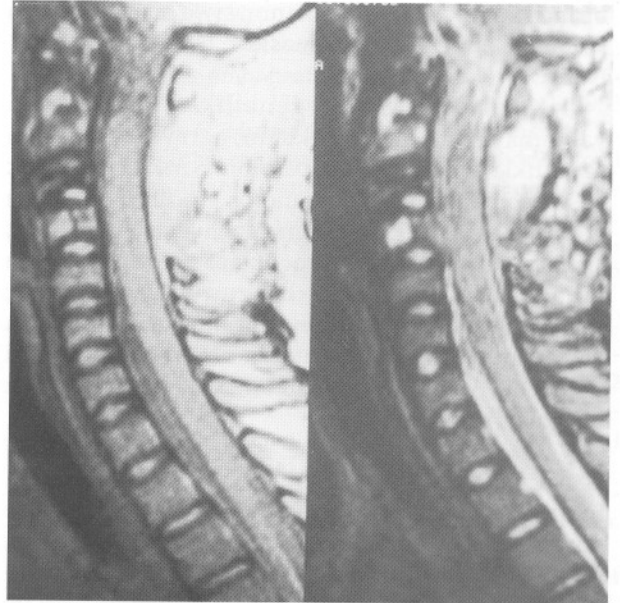
Şekil 3: Anevrizmal kemik kistin omurga radyogramında görüntüsü (Olgu 3).

omurilik basısının ortadan kalktığı (Şekil 5), servikal lordozun normal olduğu görüldü.

Her üç olgumuzdan alınan kitlelerden yapılan patolojik incelemelerde döşeyici epiteli bulunmayan kistik boşluklar çevresinde çok çekirdekli dev hücreler, oval veya yuvarlak veziküler çekirdekli, eozinofilik, uzantılı sitoplazmalı hücreler dikkati



Şekil 4: MRG'de anevrizmal kemik kisti görünümü (Olgu 3).



Şekil 5: Kısmi çıkarma sonrası MR görüntüsü. Omurilikten bası kalkmıştır (Olgu 3)

çektii. Tüm olgular anevrizmal kemik kisti olarak değerlendirildi.

TARTIŞMA

Anevrizmal kemik kisti (AKK), ilk defa 1893 yılında tanımlanmıştır. İlk histolojik tanımlama 1925 yılında yapılmıştır. "Anevrizmal kemik kisti" terimi 1942 yılında kullanılmıştır. Bu deyim kullanılmasının nedeni lezyonun anevrizmal ya da kistik olması değil yapısal ve radyolojik görüntüsüdür (6,7,13,22).

AKK'nin yaklaşık % 75'nin 20 yaş, % 90'nun da 30 yaş altında olduğu belirtilmiştir (13,22). Her iki cinsiyette eşit dağılımın yanı sıra kadınlarda (9) ya da erkeklerde daha fazla olduğunu (20) belirten yayınlar da vardır. Yerleşim yeri çoğunlukla servikal ve torakal omurga olarak bildirilirken (8), lomber bölgede daha fazla olduğunu bildiren yayınlar da mevcuttur (1,11,13). Bizim üç olgumuzun ikisi erkek biri kadındır. Yaş olarak iki olgumuz ikinci onyıldan bir olgumuz da birinci onyıldan yer almıştır. Her üç olgumuz da 20 yaş altındadır. AKK, iki olgumuzda servikal bir olgumuzda ise torako-lomber bölgede yerleşmiştir.

AKK'nin patogeneğinde üç hipotez ileri sürülmüştür. Birincisi, kistin travmatik subperiosteal kanamanın uygunsuz (kötü) iyileşmesinin sonucu olduğudur (21). İkincisi, kemik altındaki damarsal anomalilerin varlığında, venöz tromboz gibi venöz basıncın arttığı durumlar ve gelişimsel geniş damar yataklarında AKK oluşmasıdır (15). Üçüncüsü, birincil kemik lezyonun tıkanmasıyla birlikte gelişen kanama sonucu kist oluşmasıdır (14).

Klinik bulgular genellikle iki önemli yakınmayla ortaya çıkmaktadır; ağrı ve şişme, daha az sıklıkla da kas spazmı, patolojik kırıklar, omurilik basısı sonucunda gelişen motor ve duyu kayıpları görülmektedir (8,12,20). Ağrı genellikle geceleri artar; sırtüstü durumda yatan çocuklarda ağrının artması muayenede önemli bir bulgudur (22). Her üç olgumuz da ağrı ve şişlik yakınmasıyla başvurmuştur. Bir olgumuzda omurilik basısı ileri derecede iken iki olgumuzda hafif derecede bası bulguları saptanmıştır.

Laboratuvar bulgusu olarak serum alkalin fosfataz düzeyinde orta dereceli bir yükselme görülmektedir (20). Sadece bir olgumuzda alkalin fosfataz ve amilaz değerlerinde hafif derecede yükselme görülmüş, sedimentasyon hızında ise üç olguda da orta derecede yükseklik saptanmıştır. Bu bulgular tanısız özellik taşımazlar.

AKK, % 60 metafiz, % 28 meta-epifizel ve subkondral bölgeden kaynaklanır (20). Histolojik olarak anevrizmal kemik kistleri, balpeteği görünümünde ve hemosiderin birikintileri içeren, genişlemiş damar yataklarından oluşmuştur. Stromasında sıklıkla dev hücreler, nadiren de kemik ve osteoid oluşumu görülür. Mitotik figür sıklıkla bulunur. AKK, epitelyal hat içermez ve gerçek kist değildir (1,8).

Radyolojik olarak direkt grafilerde, genişlemiş osteolitik boşluklar trabeküllere ayrılmış ve kortikal kemik yumurta kabuğu benzeri bir görünüm almıştır. Etrafında yumuşak doku kitlesi sıklıkla görülür (9). Matriks kalsifikasyonu yoktur (16). BT'de lezyonun yapısı, yumuşak doku ve omurga kanalıyla ilişkisi hakkında daha ayrıntılı anatomik bilgiler sağlanır. Kontrast madde verilmesinden sonra epidural mesafeye genişleme, reaktif kemik oluşumunun kanal içine genişlemesi, patolojik kırıklar, epidural kanama ile ilgili bulgular saptanır. MR görüntülemesinde lobule, kistik, çok bölmeli, sıvı-sıvı seviyesi veren ve kan ürünleri sinyalleri saptanır (16). T1 ağırlıklı kesitlerde karışık sinyal yoğunluğu alınır. T2 ağırlıklı kesitlerde yoğunluk artar. Gadolinium verildikten sonra alınan görüntülerde sıvı-sıvı seviyesi, bölmeler daha belirginleşir ve AKK'nin ayırıcı tanısında önemlidir. Sıvı-sıvı seviyesi telanjiektazik osteosarkomda da görülür (4). Angiografide bol damarsal yapı görülür (7). Angiografinin geç fazında yaygın opasite, arteriovenöz şantlar, kistik alanlarda bulanık kontrast göllenmesi tanıya yardımcı olabilir. BT ve MRG'nin tanıdaki bu önemli üstünlüğüne karşın, ameliyat öncesi ayırıcı tanı zor olabilir. Ayırıcı tanıya dev hücreli granüloma, fibröz displazi, fibrosarkom ve osteoblastom düşünülmelidir (16). Kesin tanı biyopsi ile konulmalıdır.

Omurganın anevrizmal kemik kistlerinin tedavisinde iki önemli nokta vardır. Birincisi, omurilik basısı olan olgularda erken dekompresyon, ikincisi, tespittir (18). Bu işlemler iki aşamada ya da aynı anda yapılır. Büyük tümörlerin tam çıkarılmalarında kemik stabilitesinde bozulma olabilir ve tespit gerekir. Tedavide tam ya da kısmi çıkarma ve radyoterapi veya sadece radyoterapi önerilmektedir. Ameliyatta küretaj sırasında bol kanama olabilir. Etrafta sinir dokularının olması nedeniyle kanamanın kontrolünde zorluklar artmaktadır. Cerrahi öncesinde yapılan anjiyografi ve embolizasyon küretajı kolaylaştırmaktadır (10). Her üç olgumuzda da cerrahi sırasında kontrollü kanama olmuş, iki olgumuzda kan transfüzyonuna gereksinim duyulmuştur. Olgularımızda tespit

yapılmamıştır. Olgular ortalama 1.5 yıldır takip edilmektedirler. Kontrollerde yapılan incelemelerde nüks ve tespiti gerektirecek patoloji henüz saptanmamıştır.

Radyoterapide toplam doz 20-30 Gy arasındadır (17). Omurga AKK'lerine uygulanan radyoterapide % 2.9 oranında myelopati ve sarkomatöz değişiklik tehlikesi vardır (13, 22). Her üç olgumuza da 25 Gy dozunda radyoterapi uygulanmıştır.

Tam çıkarmada nüks bildirilmemiş, kısmi çıkarmayla birlikte radyoterapide % 6, yalnız radyoterapide % 11 nüks bildirilmiştir (13). Nükse etki eden faktörler arasında yaş, lezyonun yerleşimi ve mitotik figürün sayısı etkili olmaktadır. Nüksetmiş olguların % 90'ının 20 yaşın altındaki olgular olduğu bildirilmektedir (8). Uzun kemik ve omurgalarda küretaj daha zor olduğundan nüks daha sıktır. Bu hastalarda nüks oranı cerrahiden iki yıl sonrasında düşmektedir, bu nedenle uzun takiplere gereksinim duyulmaz. Geç nüks % 10 olarak bildirilmiştir (2,8). AKK'de kendiliğinden iyileşme de bildirilmiştir (2,3). Orta yaş ve daha yaşlılarda kendiliğinden iyileşme daha sık görülmektedir. İleri sürülen hipoteze göre lezyonda tromboz ve fibrozis gelişmektedir. Birikmiş olan kanın boşalması ve kanamanın durması ile kendiliğinden iyileşme olmaktadır (5).

AKK'nin neden olduğu omurilik basılarında; 1) erken dekompresyon, 2) geniş cerrahi küretaj, 3) cerrahi sırasında ya da sonrasında tespit yapılmalı, 4) tam küretaj yapılamayan olgularda radyoterapi uygulanmalıdır ve 5) tespit yapılmayan cerrahi eksizyon ve radyoterapi uygulanmış olgular takibe alınmalıdır.

Yazışma Adresi: Gökhan Akdemir.
Kuzgun Sokak 24/18
A. Ayrancı 06540 Ankara
Tel: (312) 426 1992

KAYNAKLAR

- Anderson BJ, Goldhagen P, Cahill DW: Aneurysmal bone cyst of the odontoid process: case report. *Neurosurgery* 28: 592-594, 1991
- Campanacci M, Capanna R, Picci P: Unicameral and aneurysmal bone cyst. *Clin Orthop* 204: 25-36, 1986
- Capanna R, Albisinni U, Picci P, Calderoni P, Campanacci M, Springfield DS: Aneurysmal bone cysts of the spine. *J Bone Joint Surg* 69: 111-115, 1985
- Caro PA, Mandel GA, Stanton RP: Aneurysmal bone cyst of the spine in children. MRI imaging at 0.5 tesla. *Pediatr Radiol* 21: 114-116, 1991
- Cole WG: Treatment of aneurysmal bone cyst in childhood. *J Pediatr Orthop* 6:326-329, 1986
- Cone SM: Ossifying hematoma. *J Bone Joint Surg* 10: 474-482, 1928
- Cory DA, Fritsch SA, Segall GK: Aneurysmal bone cysts: imaging findings and embolotherapy. *AJR* 153: 369-373, 1989
- De Dios AMV, Bond JR, Shives TC, McLeod RA, Unni KK: Aneurysmal bone cyst: a clinicopathological study of 238 cases. *Cancer* 69: 2921-2931, 1992
- Dorwart RH, LaMasters DI, Watanabe TJ: Tumors. Newton TH, Potts DG, (ed), *Computed Tomography of the Spine and Spinal Cord*, San Anselmo: Clavadel Press, 1983:115-147 içinde
- Dysart SH, Swengel RM, van Dam BE: Aneurysmal bone cyst of a thoracic spine. *Spine* 17: 846-848, 1992
- Friedrich H, Seifert V, Becker H: Operative treatment of aneurysmal bone cyst of the spine: radical excision and spinal stabilization. Wenker H, Klingler M, Brock M, Reuter F (ed) *Advances in Neurosurgery*, cilt 14, Berlin: Springer Verlag 1986:116-132 içinde
- Gupta VK, Gupta SK, Khosla VK, Vashisth RK, Kak VK: Aneurysmal bone cyst of the spine. *Surg Neurol* 42:428-432, 1994
- Hay M, Paterson D, Taylor TKF: Aneurysmal bone cysts of the spine. *J Bone Joint Surg* 60: 406-411, 1978
- 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
- Lichtenstein L: Aneurysmal bone cyst, further observations. *Cancer* 6:1228-1232, 1953
- Munk PL, Helms CA, Holt RG, Johnston J, Steinbach L, Neumann C: MR imaging of aneurysmal bone cyst. *AJR* 153: 99-101, 1989
- Murphy WA, Strecker WB, Schoenecker PL: Transcatheter embolization therapy of an ischial aneurysmal bone cyst. *J Bone Joint Surg* 64:166-168, 1982
- Raftopoulos C, Hurrell A, Ticket L, Sziwowski HB, Brotchi J: Total recuperation in case of sudden total paraplegia due to an aneurysmal bone cyst of the thoracic spine. *Child's Nerv Syst* 10: 464-467, 1994
- Riuter DJ, Van Rijssel TG, Van der Velde EA: Aneurysmal bone cyst. A clinicopathological study of 105 cases. *Cancer* 39: 2231-2239, 1977
- Szendrői M, Cser I, Konya Rényi-Vamos A: Aneurysmal bone cyst: a review of 52 primary and 16 secondary cases. *Arch Orthop Trauma Surg* 111: 318-322, 1992
- Thompson PC: Subperiosteal giant cell tumor: Ossifying subperiosteal hematoma-aneurysmal bone cyst. *J Bone Joint Surg* 36: 281-291, 1954
- Tillman BP, Dahlin DC, Lipscomb PR, Stewart JR: Aneurysmal bone cyst: an analysis of ninety-five cases. *Mayo Clin Proc* 43: 478-495, 1978
- Vandertop WP, Pruijs JEH, Snoeck IN, Van Den Hout JHW: Aneurysmal bone cyst of the thoracic spine: radical excision with use of Cavitron. *J Bone Joint Surgery* 76-A: 608-611, 1994