

Revue scientifique
Faculté de Médecine de Nouakchott
Mauritanie

MAURITANIE MÉDICALE

## Cas Cliniques

# Intérêt des Biphosphonates dans le traitement de Kyste anévrysmal osseux : à propos d'un cas.

# Interest of Biphosphanates in the treatment of aneurysmal bone cyst : About one Observation.

**Auteurs** :
EL HACEN. M. Mahmoud[1], LIMAM Sid'AHMED[2], HEMMED A. Salem[3], NE. Cheikh[4]

**Auteur correspondant** : EL HACEN M. MAHMOUD
chef Clinique Assistant à la Faculté de médecine de Nouakchott
Email : mmh.ortho@yahoo.fr

**Services** :
[1] chef Clinique Assistant a la faculté de médecine de Nouakchott
[2] chef service de Traumato-orthopédie, Hôpital Cheikh Zaied, Mauritanie
[3] service de Traumato-orthopédie, HR de Kiffa, Mauritanie
[4] chef service de Traumato-orthopédie, CTGB de Nouakchott, Mauritanie

**Article Info**

Soumis : le 12/10/2019
Accepté : le 10/12/2019

**Résumé**

**Introduction** :

Le kyste osseux anévrismal (KOA)est une lésion agressive et destructrice, mais bénigne, des os longs, de la colonne vertébrale ou du bassin, touche principalement les enfants et les jeunes adultes.

**Méthodes** :

Nous rapportons le cas d'un garçon de 10 ans, présentant un kyste anévrismal de l'Extrémité supérieure de l'humérus, qui a bien répondu au traitement a bade de Biphosphonate après stabilisation de la fracture par embrochage.

**Résultats** :

L'évolution a été marquée par le remodelage osseux avec consolidation de la fracture. A travers notre travail, nous voulons mettre le point sur Intérêt des Biphosphonates dans le traitement de Kyste anévrysmal en comparant nos résultats avec ceux de la littérature mondiale.

**Conclusion** :

Le kyste osseux anévrysmal est une lésion d'aspect impressionnant à l'imagerie, mais dont le pronostic est globalement bon. La confirmation du diagnostic est cependant histologique. Le traitement par le Biphosphanate permet d'éviter la récidive et favorise le remodelage osseux.

**Mots clés** : Kyste osseux anévrismal • Tumeur osseuse • Biphosphanate

## Abstract

**Introduction** :

The aneurysmal bone cyst (ABC) is an aggressive and destructive but benign lesion of long bones, spine or pelvis, mainly affecting children and young adults. However, it is a rare tumour.

**Methods :**

We report a case of a 10 - year - old boy, with an aneurysmal bone cyst of the upper extremity of the humerus, which responded well to the surgical treatment followed by a biphosphonate rehab that allowed consolidation.

**Results :**

Evolution was marked by bone remodeling with consolidation of fracture. Through our work, we want to focus on this orthopaedic affection by comparing our results with those of Global Literature.

**Conclusion** :

The aneurysmal bone cyst is an impressive aspect lesion at the imagerie, but the prognosis of which is good. Confirmation of the diagnosis is, however, Histological. Treatment with Biphosphanate helps to avoid recurrences and to bring bone remodeling.


**Key words** : cyst bone • aneurysmal tumor • ethiosbiphosphate


## ملخص

**مقدمة :**

كيسة ام الد العظمية هي آفة عدوانية ومخربة ولكنها حميدة أكثر ما تصيب العظام الطويلة والعمود الفقري
والحوض؛ تصيب بشكل خاص الأطفال والشباب ومع ذاك فهي أودام حقيقية نادرة

**الدراسة:**

عرضنا حالة لصبي يبغ من العمر 10 سبوات تعرض لكيسة ام دم عظميه في الطرف العلوي لعظم العضد والذي استجاب جيدا لعلاج جداحي تلاه علاج مكمل بمل بمادة البايفوسفونيت مما ساعد علي التئام الكسر

**النتا نج :**

لقد تم وضع علامة علي إعادة تشكيل العظم والتئامه ومن خلال عملنا هذانريد تقديم هذه الحالةة ومقارنة نتائجنا مع نتائج علوم وأدب العالم علي ارض الواقع

Cas Cliniques

**الخلاصة :**
ان كيسة ام الدم العظمية هي آفة ذات ظهور مثير للإعجاب في الشكل و لكن يمكن تأكيد تشخيصا نالفحص النسبجي، ويعتبر العلاج مع البيفوسفونيت (فئة من الأدوية تمنع تآكل العظم وتقويه تستخدم أيضا لعلاج هشاشة العظام ) يمنع نكس الآفة ويعززإعادة بناء وتسكيل العظم

**الكلمات المحددة :** كيسة ام الد العظمية، ورم عظمي، البيفوسفونيت

**Introduction** :

Le kyste osseux anévrismal (KOA) est une lésion particulière du squelette osseux, représente 1% des tumeurs du squelette et touche plus souvent le sujet jeune de sexe féminin [1]. La métaphyse des os longs et la colonne vertébrale en constituent les sièges préférentiels [2]. Cette lésion est définie comme une lésion pseudo-tumorale bénigne, ostéolytique expansive constituée des espaces remplis de sang et séparés par des cloisons de tissu conjonctif.

Il s'agit d'une dystrophie osseuse pseudo-tumorale bénigne, habituellement solitaire qui réalise une distension cavitaire uni ou pluriloculaires à contenu hématique. Le KOA représente approximativement 1 à 4 % des tumeurs bénignes [3]. Il peut se voir à tout âge mais la grande majorité des cas survienne entre 10 et 20 ans [4,5].

Nous rapportons une localisation exceptionnelle de kyste osseux anévrismal (KOA) de l'humérus, chez un garçon de 10 ans. Notre travail va montrer l'efficacité de notre choix thérapeutique fonde sur une cure de Biphosphonate pour permettre le remodelage osseux et éviter la récidive en comparant nos résultats aux ceux des autres séries de la littérature.

**Méthodes** :

M. B. garçon âgé de 10 ans, a consulté pour douleurs récidivantes de l'épaule droite avec une tuméfaction de la moitié supérieure du bras droite, sans limitation des amplitudes de l'épaule.

La radiographie standard objectivait des lacunes de la moitié supérieure de l'humérus droit refoulant la corticale réalisant une incurvation de l'humérus avec intégrité des parties molles (**Figure1**). Une intervention chirurgicale aété réalisée avec évidement-curetage et la biopsie effectuée a montré un aspect en faveur de kyste anévrismal sans recours au traitement par le Biphosphanat.

6 mois PO et suite à un mouvement simple l'enfant nous aconsulté pour une douleur intense avec à la radiographie une fracture pathologique d'où l'indication d'une reprise chirurgicale avec embrochage axial (**Figure 2**) dont le but principal c'est d'aligner l'humérus suivi d'une cure des Biphosphonates (4 injections à un mois d'intervalle) avec résultat satisfaisant : pas de récidive et bon remodelage osseux et au recule de 3 ans un humérus solide bien axé (**figure 3**).



**Figure 1 :** Radio initiale montrant lésions kystique avec déformation de l'humérus.




**Figure 2 :** Fracture pathologique embrochage axiale.



**Figure 3 :** 3 ans PO avec consolidation, remodelage osseux satisfaisant et un humérus bien axé.

**Discussion** :

Le kyste anévrysmal est une tumeur osseuse qui a été décrite pour la première fois en 1942 par Jaffe et Lichtenstein [4]. Il représente 2,5% de toutes les tumeurs osseuses.

Bien que l'étiopathogénie reste encore discutée. Il est probable que le kyste osseux anévrismal résulte d'une perturbation hémodynamique locale avec augmentation de la pression veineuse ou création de communication artério-veineuse anormale [4].

Les sièges les plus fréquents de KOA sont la métaphyse des os longs des membres inférieurs (40,80 %) en particulier le tibia (17,85 %), le fémur (15,94 %) et le bassin [1].

Le diagnostic différentiel de kyste osseux anévrysmal comprend les tumeurs à cellules géantes, fibrome chondromyxoïde et ostéosarcome télangiectasique [1]. Le kyste osseux anévrysmal a des caractéristiques radiologiques particulières et distinctives [6]. Il faut souvent un pathologiste habitué aux tumeurs osseuses pour en établir le diagnostic histologique formel.

Même si l'association radiographie - IRM permet de fortement suspecter un KOA, la biopsie nous paraît indispensable avant tout traitement [3,5]. La ponction n'est pas un argument diagnostique fiable.

Pour Vergel de Dios et al. [7], le curetage est le traitement de choix pour le KOA. Le principe consiste à pénétrer par une fenêtre plus ou moins large à l'intérieur du kyste (curetage ou saucérisation), à faire un curetage soigneux de sa cavité et à en exciser sa paroi (fig. 1). On peut y associer ou non une greffe osseuse, voire une ostéosynthèse. Le taux de récidive après curetage varie beaucoup dans la littérature : 22 % pour Vergel de Dios et al. [7], 59 % pour Biesecker et al. [8] et jusqu'à 71 % pour Freiberg et al. [9]

Si la radiothérapie a permis dans le passé d'obtenir de bons résultats cliniques [10], elle ne doit plus être actuellement utilisée en raison de son risque à long terme de destruction du cartilage de croissance et de dégénérescence sarcomateuse [11,12]. Le traitement par injection intra-kystique de corticoïdes n'est pas indiqué pour les KOA. Les échecs sont constants et le KOA peut se développer de manière très rapide après l'injection de corticoïdes [13,14,15]

Les biphosphonates (acide zolédronique : Zometa®) ont été utilisés avec succès dans de nombreuses tumeurs osseuses : kyste osseux essentiel, dysplasie fibreuse, tumeurs à cellules géantes, histiocytose langerhansienne, ostéomyélite multifo-

cale récurrente chronique. Ils agissent par inhibition de l'activité ostéoclastique. L'acide zolédronique a été utilisé par voie intra veineuse chez un enfant de huit ans porteur d'un KOA du sacrum inopérable et dont un traitement préalable par embolisation répétée avait échoué [14]. Le traitement a consisté en l'injection de sept doses à quatre mois d'intervalle sur une durée de 24 mois. Même si sept injections ont été nécessaires pour obtenir une guérison du kyste, une amélioration clinique spectaculaire a été notée immédiatement après la première injection. Cornelis et al. [16] ont traités huit tumeurs osseuses bénignes dont cinq KOA par biphosphonates en IV (Aredia®, Zometa®). Le nombre de cures de biphosphonate a été de trois en moyenne (1 à 4) pour traiter les KOA. Nous avons une cure des Biphosphonates avec quatres injections de Zometa en IV a un mois d'intervalle et nous n'avons pas signalé des effets indesirables.

Malgré la rareté des KOA, les essais thérapeutiques les concernant connaissent en revanche un essor constant. L'utilisation plus récente de protéine ostéoinductrice [17] et d'injection de calcitonine [18] semble être une voie prometteuse.

**Conclusion** :

Le kyste osseux anévrysmal est une lésion particulière, survenant principalement dans les deux premières décennies de vie, rapidement progressive, d'aspect impressionnant à l'imagerie, mais dont le pronostic est globalement bon. La confirmation du diagnostic est cependant histologique. Le traitement radical par résection donne satisfaction : pas de récidive et bon remodelage osseux ensuite radiologiquement[19].

## Références


[1] Capanna R. Appareillocomoteur. Encycl Med Chir. 2001:14–788.

[2] Schreuder HW, Veth RP, Pruszczynski M, Lemmens JA, Koops HS, Molenaar WM. Aneurismal bone cysts treated by curettage, cryotherapy and bone grafting. J Bone Surg Br. 1997 Janvier;79(1):20–5.

[3] Cottalorda J, Bourelle S. Le kyste osseux anévrismal primitif : Quoi de neuf en 2006 ? Rev Chir Orthop 2007;93:5-16.

[4] Jaffe HL, Lichtenstein L. Solitary unicameral bone cysts: with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis. Arch Surg 1942;44:1004-25.

[5] Lichtenstein L. Aneurysmal bone cyst. A pathological entity commonly mistaken for giant-cell tumor and occasionally for hemangioma and osteogenic sarcoma. Cancer 1950;3:279-89.

[6] Hudson TM. Fluid levels in aneurismal bone cyst: ACT feature. Am J Radiol. 1984;142(5):1001–4

[7] Vergel de Dios AM, Bond JR, Schives TC, Mc Leod RA, Unni KK. Aneurysmal bone cyst. A clinicopathologic study of 238 cases. Cancer. 1992;69:2921-31.

[8] Biesecker JL, Marcove RC, Huvos AG, Mike V. Aneurysmal bone cysts: a clinicopathologic study of 66 cases. Cancer 1970;26:61525.

[9] Freiberg AA, Loder RT, Heidelberger KP, Hensinger RN. Aneurysmal bone cysts in young children. J Pediat Orthop. 1994;14:86-91.

[10] Nobler MP, Higinbotham NL, Phillips RF. The cure of aneurysmal bone cyst: irradation superior to surgery in an analysis of 33 cases. Radiology. 1968;90:1185-92.

[11] Clough JR, Price HG. Aneurysmal bone cyst: pathogenesis and long term results of treatment. Clin Orthop Relat Res. 1973;97:52-63.

[12] Maeda M, Tateishi H, Takaiwa H, Kinoshita G, Hatuno N, Nakano K. High-energy, low dose radiation therapy for aneurysmal bone cyst. Clin Orthop Relar Res. 1989;243:200-3.

[13] Arlet V, Rigault P, Padovani JP, Mallet JF, Finidori G, Touzet P. Le kyste anévrysmal des os chez l'enfant. Etude de 28 cas. Rev Chir Orthop. 1987;73:337-48.

[14] Scaglietti O, Marchette PJ, Bartolozzi P. Final results obtained in the treatment of bone cysts with methylprednisolone acetate (Depo-Medrol) and a discussion of results achieved in other bone lesions. Clin Orthop Relat Res. 1982;165:33-42. 38. Cahuzac JP, Bollini G, Kohler R, Durroux R, Gaubert J. Faut-il biopsier les kystes osseux essentiels ? Rev Chir Orthop. 1991;77 (Suppl 1):143.

[15] Simm PJ, O'Sullivan M, Zacharin MR. Successful treatment of a sacral aneurysmal bone cyst with zoledronic acid. J Pediatr Orthop. 2013;33:61-4.

[16] Cornelis F, Truchetet ME, Amoretti N, Verdier D, Fournier C et al. Bisphosphonate therapy for unresectable symptomatic benign bone tumors: A long-term prospective study of tolerance and efficacy. Bone. 2014;58:11-6.

[17] Delloye C, Denayer P, Malghem J, Noel H. Induced healing of aneurismal bone cyst by demineralized bone particles. A report of two cases. Arch Orthop Trauma Surg. 1996;115(3-4): 141–518.

[18] Szendroi M, Cser I, Konya A, Renyi-Vamos A. Aneurismal bone cyst. Arch Orthop Trauma Surg. 1992;111(6):318–22

[19] Achraf El Bakkaly,1,& Moulay Dris Hanine,1 Abdelouahed Amrani,1 Anouar Dendane,1 Sidi Zouhair Fellouss El Alami,1 et Tarik El Madhi1 -Kyste anévrismal osseux de la clavicule: à propos d'un cas Aneurysmal bone cyst of the clavicle: about a case Pan Afr Med J. 2017; 27: 115.