

Hidatidosis ósea del peroné

Inmaculada Barredo Santamaría¹, Martín Aperribay Ulacia², Jorge Cancio Fanlo³

¹ Servicio de Anatomía Patológica. ² Servicio de Radiodiagnóstico. ³ Servicio de Reumatología. Hospital Alto Deba. Arrasate-Mondragón. inmab@euskalnet.net

RESUMEN

La hidatidosis ósea es rara. Representa el 0,5-2,5% de todas las hidatidosis humanas. Se presenta un caso de hidatidosis del peroné, en un varón de 64 años, diagnosticado después de la cirugía. Los hallazgos radiográficos son sugestivos de malignidad, por lo que se realiza una excisión parcial del peroné. Histológicamente se observan numerosas microvesículas entre las trabéculas óseas, compuestas por membranas anhistas, que inducen una reacción inflamatoria, con agujas de colesterol, células gigantes multinucleadas y fenómenos de necrosis. Hay infiltración masiva de la cortical ósea, con disrupción de la misma, y afectación de las partes blandas con fistulización a la piel. La hidatidosis ósea se caracteriza por una progresión insidiosa y por un larguísimo periodo de latencia, de forma que se diagnostica en estadios muy avanzados, cuando hay una afectación muy extensa del hueso. El diagnóstico es difícil, ya que generalmente es asintomática y no se suele detectar hasta que se produce una complicación. El pronóstico es malo. El tratamiento de elección es la excisión completa de la lesión con un amplio margen sano, siguiendo criterios oncológicos.

Palabras clave: Hidatidosis, equinococosis, hueso, peroné.

Osseous hydatidosis of the fibula

SUMMARY

Hydatidosis of bone is rare, accounting for only 0.5 to 2.5% of human hydatidosis. This is the report of a case of hydatidosis of the fibula, in a 64-year-old man. The diagnosis is established after surgery. Radiographic findings are suggestive of malignancy, so a partial excision of the fibula is performed. Histologically there are numerous microvesicles between the bone trabeculae, composed of chitinous membranes, causing a reactive inflammation with cholesterol clefts, multinucleated giants cells and necrosis. There is massive infiltration of the cortical bone, with osseous disruption and invasion of surrounding soft tissues with fistulation to skin. Osseous hydatidosis is characterized by an insidious progression and a very large latency, the patient being diagnosed at an advanced stage, when the bone lesions are already extensive. The diagnosis is difficult because it is generally an asymptomatic disease, and complications are usually the reason for detection. The prognosis is poor. The treatment of choice is a complete surgical excision of the lesion with a wide healthy margin, like an oncologic therapy.

Key words: Hydatidosis, echinococcosis, bone, fibula.

INTRODUCCIÓN

La hidatidosis es una enfermedad parasitaria, de distribución mundial, producida por la larva del género *Echinococcus*, generalmente de la especie *E. granulosus* (1). La hidatidosis ósea es rara. Representa el 0,5-2,5% de todas las hidatidosis humanas. Sin embargo, es una de las formas más severas de esta infección (2-4). Se presenta un caso de hidatidosis del peroné.

MATERIAL Y MÉTODOS

Varón de 64 años, taxista de profesión, que consulta por presentar ligero dolor en la rodilla izquierda, de tipo mecánico (al subir y bajar escaleras y al pisar y soltar el embrague), de un mes

de evolución. En la radiografía simple se observa una lesión osteolítica en la metáfisis y epífisis proximal del peroné, mal delimitada, de aspecto infiltrativo, combinada con pequeñas zonas quísticas, sin esclerosis. La lesión destruye la cortical posterior, sin reacción perióstica, y se extiende a las partes blandas (fig. 1). En la Resonancia Magnética se identifica una lesión bien delimitada, polilobulada, con tabicaciones en su interior y escasa captación de contraste, que afecta a la parte proximal del peroné, y rompe la cortical posterior, con afectación del músculo sóleo posteriormente y del peroneo largo lateralmente (fig. 2).

Se realiza una biopsia de la lesión, que se informa de inflamación granulomatosa. Dos meses después de la biopsia, el paciente tiene un absceso doloroso en la cara externa de la rodilla izquierda, con fistulización a la piel. Debi-



Fig. 1: Radiografía simple: Lesión osteolítica en la metáfisis y epífisis proximal del peroné, que destruye la cortical, sin reacción perióstica, y se extiende a las partes blandas.



Fig. 2: RM (Imagen coronal en T2*): Lesión bien delimitada, polilobulada, con tabicaciones en su interior, que destruye la cortical y tiene un importante componente de partes blandas.

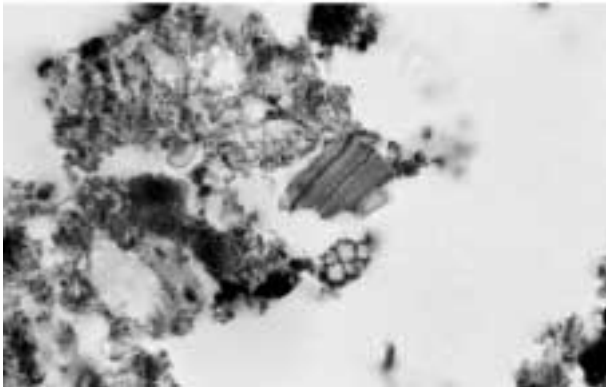
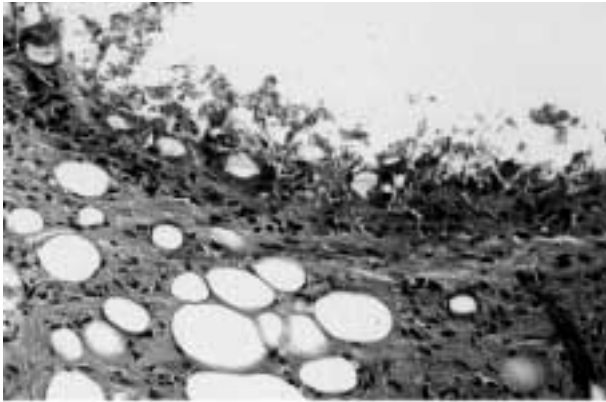


Fig. 3: Granulomas grandes, con centro necrótico (original, HE x 200). Pequeño fragmento de membrana anhista inmerso en el material necrótico (original, HE x 1000).

do a los hallazgos radiológicos, que sugieren malignidad, se decide intervención quirúrgica. Se realiza una excisión parcial del peroné. Tras el estudio anatomopatológico se diagnostica de hidatidosis ósea. La conducta postoperatoria consiste en añadir tratamiento médico con albendazol durante 2 meses. Se realiza una ecografía abdominal y una radiografía de tórax, descartándose la afectación hepática y pulmonar. Siete meses después se hace una radiografía de la tibia y peroné residual, que es normal.

RESULTADOS

La primera biopsia de la lesión consiste en un cilindro óseo fragmentado, en el que se observan varios granulomas, de tamaño grande, con un centro de aspecto necrótico, compuestos por células epitelioides, algunas de ellas con espacios claros intracitoplasmáticos. En un minucioso



Fig. 4: Múltiples vesículas compuestas por membranas anhistas, entre las trabéculas óseas (original, HE x 100).

examen posterior se observa un pequeño fragmento de membrana anhista inmerso en el material necrótico (fig. 3).

La segunda biopsia corresponde a una excisión parcial de peroné, de 13 cm de longitud, que incluye la cabeza, parte del cuerpo, y un fragmento de partes blandas revestido por piel. A la sección se observa un material de aspecto gelatinoso, mal definido, en la parte central del hueso. Además, en el formol del frasco flotan unas membranas blanquecinas. Microscópicamente se observan membranas anhistas, algunas de ellas con capa germinativa interna, que penetran en las trabéculas óseas, a modo de divertículos, produciendo múltiples vesículas, e inducen una reacción inflamatoria, con granulomas a cuerpo extraño, agujas de colesterol y un infiltrado inflamatorio con frecuentes eosinófilos (figs. 4 y 5).

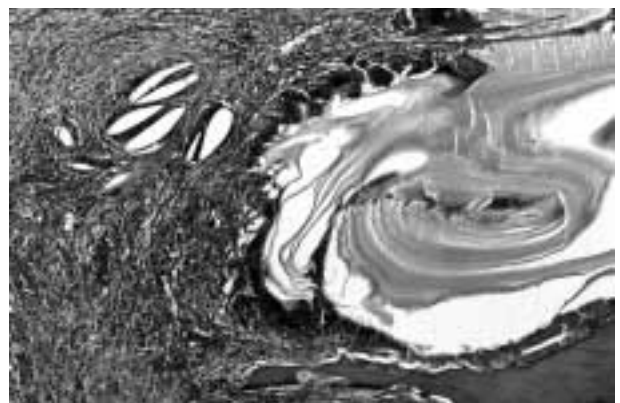


Fig. 5: Marcado infiltrado inflamatorio con células gigantes multinucleadas y agujas de colesterol (original, HE x 200).

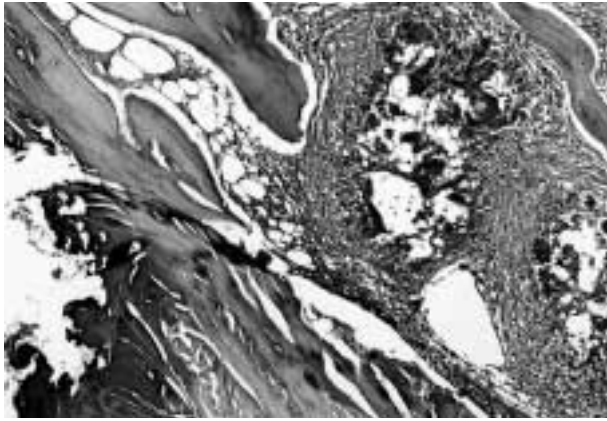


Fig. 6: Infiltración masiva de la cortical ósea, con disrupción de la misma y afectación de las partes blandas (original, HE x 100).

Se observan además fenómenos de necrosis, con abundantes detritus celulares que engloban membranas anhistas. No se identifican escólicis ni ganchos. La infección se extiende a la epífisis, pero respeta el cartílago articular. Hay infiltración masiva de la cortical ósea, con disrupción de la misma, y afectación de las partes blandas con fistulización a la piel (fig. 6).

DISCUSIÓN

La hidatidosis es una enfermedad parasitaria producida por la larva del género *Echinococcus*, generalmente de la especie *E. granulosus*. Tiene una distribución mundial. Es más frecuente en Europa del Sur y del Este, Oriente Próximo, Asia Central, África del Norte y del Sur, Australia, Sudamérica, y algunas áreas de Canadá y EEUU. Otras especies de *Echinococcus* que producen infección humana son *E. multilocularis* y más raramente *E. vogeli* y *E. oligarthrus* (1,3,4).

El gusano adulto vive en el intestino delgado del huésped definitivo, generalmente el perro. Los huevos son expulsados con las heces. El hombre, que sería el huésped intermedio, se infecta cuando ingiere accidentalmente estos huevos, los cuales anidan en el duodeno y liberan embriones invasivos que atraviesan la mucosa, entran en la circulación portal, y alcanzan el hígado, que es la localización más frecuente de esta infección. A veces las larvas pasan la primera barrera hepática y alcanzan los pulmones.

Más raramente, las larvas consiguen pasar el filtro de los capilares pulmonares y alcanzan la circulación arterial para afectar a otros tejidos, como cerebro, riñones, hueso, etc. (1,3-5).

La hidatidosis ósea es rara, ya que las larvas tienen que penetrar dos filtros, el hepático y el pulmonar. Representa al 0,5-2,5% de todas las hidatidosis humanas. Sin embargo, es una de las formas más severas de esta infección (2-4,6).

En localización ósea no se forma nunca el típico quiste unilocular que se encuentra en localizaciones viscerales, ya que la estructura rígida del hueso no permite el crecimiento esférico uniforme ni la formación de una adventicia fibrosa. Dentro del hueso esponjoso el parásito crece lentamente en forma de microvesículas (2,5,6). La invasión intraósea se produce por tres mecanismos: 1) Mediante un proceso mecánico de compresión y dislocación. 2) Mediante un proceso isquémico, por la compresión de vasos nutrientes y la consiguiente necrosis ósea, y 3) Mediante un proceso celular de proliferación osteoclástica alrededor del hueso comprimido. Con el tiempo, se puede producir la invasión extraósea de los tejidos blandos, por disrupción ósea o por una fractura patológica, formándose el llamado absceso hidatídico, que es un absceso frío, migratorio, similar al absceso tuberculoso (2). La afectación articular primitiva es muy rara; la mayor parte de los casos se deben a la extensión a partir de un hueso vecino (4,6).

Todos los casos de afectación ósea primaria se refieren a la especie *Echinococcus granulosus*. La afectación de hueso y partes blandas en la parasitación por *Echinococcus multilocularis* se produce por continuidad a partir del hígado generalmente (6).

La hidatidosis ósea es una enfermedad de adultos, aunque la infestación inicial puede ocurrir en la infancia. En general se limita a un solo hueso, aunque es frecuente la afectación de varios huesos adyacentes (4-6). Los huesos más comunmente afectados son: columna vertebral (42-46%), pelvis (16-28%) y huesos largos (15-30%). El hueso largo más frecuentemente afectado es el fémur seguido por la tibia (2).

Se caracteriza por una progresión insidiosa y tórpida del parásito, y por un larguísimo periodo de latencia (de 10-20 y hasta 40 años), de forma

que se diagnostica en estadios muy avanzados, cuando hay una afectación muy extensa del hueso, y su extirpación completa es muy difícil (2,3).

Clínicamente es generalmente asintomática, por lo que no se suele detectar hasta que se produce una complicación. Únicamente puede haber ligero dolor o tumefacción en relación con el absceso frío. Las posibles complicaciones son: 1) Fracturas patológicas en huesos largos. 2) Déficit neurológico secundario a compresión medular, en la columna vertebral. 3) Fistulización del absceso, con excreción de productos hidatídicos. 4) Infección bacteriana del absceso, que puede limitar la extensión de la destrucción ósea por esterilización de los parásitos (2).

El diagnóstico es difícil. Se basa sobre todo en los hallazgos radiológicos característicos. Sin embargo, el diagnóstico se hace con frecuencia únicamente después de la cirugía o biopsia de la lesión (2,3).

Los hallazgos radiológicos en la radiografía simple son los de una lesión osteolítica multilobular, con apariencia de «racimo de uvas», «panal de abeja» o «gofre», sin límites precisos, con ausencia de condensación o reacción perióstica. En los huesos largos la lesión inicial es generalmente metafisiaria, y después se extiende a la epífisis y diáfisis, dando lugar a la llamada panostoequinococosis de Costantini (2). La TAC y la RM son útiles para la valoración de la extensión y para el seguimiento después del tratamiento (2-4).

El aspecto macroscópico es el de una infiltración ósea difusa por pequeñas vesículas de diferentes tamaños, sin delimitación clara. Microscópicamente se observan fragmentos hidatídicos entre las trabéculas óseas, sin adventicia fibrosa, y un infiltrado inflamatorio con linfocitos, eosinófilos y células gigantes multinucleadas. A menudo hay discrepancias entre los límites macroscópicos y microscópicos de la lesión (2,5,7).

Los test de inmunodiagnóstico, como el test intradérmico de Casoni y el test de la fijación del complemento de Einberg pueden ser útiles, pero a menudo son negativos cuando no hay afectación hepática o pulmonar. Puede haber eosinofilia (sólo en el 25% de los casos) (3,4).

No es aconsejable la PAAF de rutina en pacientes con sospecha clínica de enfermedad

hidatídica, por el riesgo de reacción anafiláctica o de diseminación de la enfermedad. Sin embargo, puede tener valor diagnóstico en casos con presentación clínica o radiológica atípica. Debido a la frecuente extensión del parásito a los tejidos blandos adyacentes, no es rara la presentación de la enfermedad hidatídica ósea como una masa de partes blandas y, por tanto, la punción aspiración involuntaria de la misma (8-10).

El pronóstico de la hidatidosis ósea es malo, especialmente en localizaciones espinal y pélvica, que son las más frecuentes (2,3).

El tratamiento de elección es la excisión completa con un amplio margen sano, ya que la extirpación incompleta va seguida de recidivas. En huesos largos se puede realizar la resección del hueso o, si la lesión es difusa, la amputación o desarticulación. La hidatidosis ósea debe tratarse quirúrgicamente siguiendo criterios oncológicos, ya que se comporta como un tumor localmente maligno (2,3,5). El tratamiento médico con mebendazol o albendazol puede asociarse a la cirugía o usarse como terapia aislada para lesiones inoperables, aunque su eficacia en la enfermedad hidatídica ósea es dudosa (2-5).

La hidatidosis ósea, pese a su rareza, se debe sospechar ante la presencia de múltiples lesiones osteolíticas en un solo hueso o en una región esquelética, en un paciente procedente de un país con hidatidosis endémica (2,5,6).

BIBLIOGRAFÍA

1. Meyers WM, Neafie RC, Marty AM, Wear DJ, editors. Hydatidosis (Echinococcosis). En: Pathology of infectious diseases. Volume I. Helminthiasis. Washington DC: Armed Forces Institute of Pathology; 2000. p. 145-64.
2. Zlitni M, Ezzaouia K, Lebib H, Karray M, Kooli M, Mestiri M. Hydatid cyst of bone: Diagnosis and treatment. *World J Surg* 2001; 25: 75-82.
3. Sapkas GS, Stathakopoulos DP, Babis GC, Tsarouchas JK. Hydatid disease of bones and joints. 8 cases followed for 4-16 years. *Acta Orthop Scand* 1998; 69: 89-94.
4. Belzunegui J, Maíz O, López L, Plazaola I, González C, Figueroa M. Hydatid disease of bone with adjacent joint involvement. A radiological follow-up of 12 years. *Br J Rheum* 1997; 36: 133-5.

5. De Cristofaro R, Ruggieri P, Biagini R, Picci P. Case report 629. *Skeletal Radiol* 1990; 19: 461-4.
6. Navarro Izquierdo A, Pereda García JM. Hidatidosis ósea de la pelvis. *Rev Clin Esp* 1974; 135: 395-8.
7. Markakis P, Markaki S, Prevedorou D, Bouropoulou V. Echinococcosis of bone: Clinicolaboratory findings and differential diagnostic problems. *Arch Anat Cytol Path* 1990; 38: 92-4.
8. Ascoli V, Teggi A, Gossetti F. Hydatid Cyst: Primary Diagnosis by fine-needle aspiration biopsy. *Diagn Cytopathol* 1990; 6: 44-8.
9. Kapila K, Verma K. Aspiration cytology diagnosis of echinococcosis. *Diagn Cytopathol* 1990; 6: 301-3.
10. Saenz-Santamaría J, Moreno-Casado J, Nuñez C. Role of fine-needle biopsy in the diagnosis of hydatid cyst. *Diagn Cytopathol* 1995; 13: 229-32.