

CASE REPORT

Tumor de Células Gigantes originado en la porción anterior de un arco costal. Reporte de un caso y revisión de la literatura

*Giant Cell Tumor originating in the anterior portion of a costal arch.
Case report and literature review*

**Rolando González Cabañas¹ , Blanca Yiset Garbey Salas² ,
Ares Ferran Fernández³ , Jesús Yasoda Endo Milan⁴ **

1. Hospital Provincial "Ciro Redondo García". Provincia Artemisa. Cuba.

2. Policlínico "Miguel Perera Ortega". Municipio Caimito. Provincia Artemisa. Cuba.

3. Hospital Universitario "Celestino Hernández Robau". Universidad de Ciencias Médicas de Villa Clara. Cuba.

4. Universidad de Ciencias Médicas de Villa Clara. Cuba.

Corresponding author

Jesús Yasoda Endo Milan

Universidad de Ciencias Médicas de Villa Clara. Cuba

E-mail: jesusendo@infomed.sld.cu

Received: 22 - X - 2021

Accepted: 13 - XII - 2021

doi: 10.3306/AJHS.2022.37.01.173

Resumen

El tumor de células gigantes (TCG) es una neoplasia ósea considerada benigna generalmente, aunque localmente agresiva y puede presentar recidivas. Se origina en la epífisis/metáfisis de los huesos largos, su presentación en un arco costal es rara y de ocurrir generalmente se sitúa en la porción posterior, existiendo pocos casos reportados en la porción anterior. Se presenta el caso de una paciente femenina de 40 años de edad con gran masa en el hemi-tórax derecho. Clínicamente aparentaba un tumor profundo de la mama con invasión local de la pared torácica. La detallada evaluación radiográfica reveló una lesión costal con invasión de tejidos blandos. El examen histológico mostró células gigantes. El tumor se extirpó junto con la costilla, el defecto fue reconstruido y la paciente se recuperó sin incidentes. Se concluye que el TCG de las costillas es un caso raro, pero el diagnóstico diferencial de una masa de la pared torácica anterior debe incluirlo.

Palabras clave: Neoplasias óseas, tumor de células gigantes, arcos costales.

Abstract

Giant cell tumor (GCT) is a bone tumor usually considered benign, although locally aggressive and may recur. It originates in the epiphysis / metaphysis of the long bones. Its presentation in a costal arch is rare and if it occurs it is usually located in the posterior portion. There are very few cases reported in the anterior portion of the costal arches. The case of a 40-year-old female patient is presented with large mass in the right hemi-thorax. Clinically it appeared a deep tumor of the breast with local invasion of the thoracic wall. The detailed radiographic evaluation revealed that the mass was a costal lesion with soft tissue invasion. Histological examination of the biopsy sample showed giant cells. The tumor was removed along with the rib. The defect was reconstructed and the patient recovered without incident. It is concluded that it is a case of GCT originating in the anterior arch of a rib with dimensions between the two largest reported in the specialized literature. It is a rare case, but the differential diagnosis of a mass of the anterior chest wall should include GCT of the ribs.

Keywords: Bone neoplasms, giant cell tumors, ribs.

Introducción

El tumor de células gigantes (TCG) del hueso representa alrededor de 5% de todos los tumores óseos. Es un tumor considerado generalmente benigno con un comportamiento local agresivo¹. Generalmente surgen en la región epifisaria de las extremidades. Su ubicación sub-articular típica y su alto riesgo de recurrencia pueden asociarse con una morbilidad significativa. Los huesos largos son los que más frecuentemente se ven afectados, especialmente alrededor de la rodilla². Aunque benigno, rara vez puede hacer metástasis, especialmente en los pulmones.

Su aparición en las costillas es inusual³. Cuando aparecen en un arco costal, por lo general, se encuentran en su porción posterior (epífisis de la cabeza y el tubérculo), y su presentación anterior es muy rara⁴. Los TCG de la porción anterior de un arco costal, en las proximidades de los senos pueden presentar problemas de diagnóstico y terapéuticos. En este artículo se presenta un caso con TCG localizado en la porción anterior de un arco costal y se revisan los casos similares publicados en la literatura especializada.

Presentación de caso

Mujer boliviana de 40 años, consulta con la queja principal de una masa que se agranda lentamente justo debajo de su mama derecha durante el último año. El único síntoma asociado fue dolor ocasional leve y sensación de opresión de inicio reciente. Clínicamente, la tumoración era de aproximadamente 20x15 cm, de consistencia dura e indolora, abombando la pared anterior del hemitórax derecho (**Figura 1**). Los márgenes eran imprecisos y la superficie era lisa con piel suprayacente de características normales.

Las radiografías de tórax (vistas frontal y lateral) mostraron una lesión radiopaca, con densidad de partes blandas, en región anterior del hemitórax derecho con amputación de la porción anterior del tercer arco costal (**Figura 2**). La tomografía computarizada del tórax (**Figura 3**) reveló una masa tumoral sólida, no-homogénea, con densidad mayoritaria de partes blandas (40 UH de densidad media) y áreas relativamente hipodensas (20 UH de densidad media) sugestivas de necrosis o degeneración quística. También "mineralización intratumoral" dada por múltiples calcificaciones ramificadas. Dicha tumoración sustituye totalmente el cartílago y la porción anterior del 3^{er} arco costal derecho y se extiende mayoritariamente a una situación intratorácica (mediastinal), pero extrapulmonar. Anteriormente desplaza al músculo pectoral adyacente por detrás de la mama sin infiltrarlo. Posteriormente comprime los tres lóbulos del pulmón derecho. Medialmente desplaza ligeramente el corazón a la izquierda haciendo contacto con las cavidades derechas sin infiltrarlas ni condicionar derrame pericárdico. Sus dimensiones son: 16 cm de extensión céfalo-caudal; 15 cm de diámetro transverso y 13 cm de diámetro AP. Derrame pleural derecho de densidad agua homogénea y espesor de 15 mm con disposición gravitacional.

Figure 1: Tumoración que abomba la pared anterior del hemitórax derecho. La piel suprayacente se muestra de características normales.



El tumor se extirpó junto con la costilla. El defecto fue reconstruido y la paciente se recuperó sin incidentes. La histopatología informó una gran masa lobular que encierra la costilla y mide 16 cm de diámetro máximo. La sección de corte mostró áreas de necrosis, hemorragia y una sensación arenosa.

El examen microscópico reflejó una gran cantidad de células gigantes multinucleadas dispersas sobre el parénquima. El estroma contenía células fusiformes vesiculares con núcleos. Había grandes áreas de hemorragia y necrosis. Se realizó una impresión final de un tumor de células gigantes de grado III de la costilla.

Figure 2: Las radiografías de tórax (vistas frontal (A) y lateral (B)) mostraron una lesión radiopaca, con densidad de partes blandas, en región anterior del hemitórax derecho con amputación de la porción anterior del tercer arco costal.

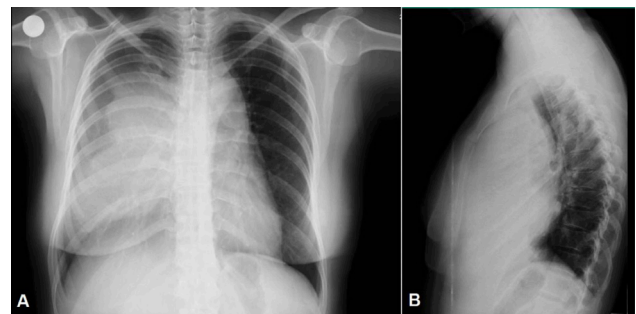
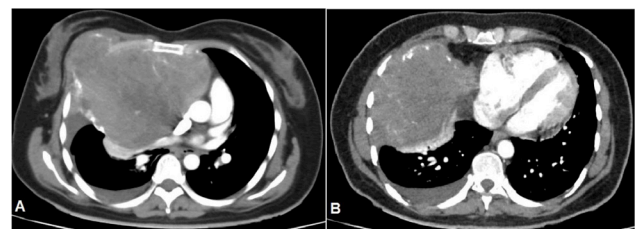


Figure 3: Cortes axiales de TC del tórax, a nivel de la mama (A) y a nivel del corazón (B). Muestran masa sólida, no-homogénea, con densidad mayoritaria de partes blandas y áreas relativamente hipodensas sugestivas de necrosis o degeneración quística. También "mineralización intratumoral" dada por múltiples calcificaciones ramificadas. Sustituye totalmente el cartílago y la porción anterior del 3er arco costal derecho; parece originarse en este sitio y extenderse mayoritariamente a una situación intra-torácica (mediastinal), pero extra-pulmonar. Anteriormente desplaza al músculo pectoral adyacente por detrás de la mama sin infiltrarlo. Posteriormente comprime los tres lóbulos del pulmón derecho. Medialmente desplaza ligeramente el corazón a la izquierda haciendo contacto con las cavidades derechas sin infiltrarlas ni condicionar derrame pericárdico. También es evidente el derrame pleural derecho de densidad agua homogénea.



Discusión

Los tumores de células gigantes del hueso representan el 5% de todos los tumores óseos primarios⁵. La mayoría (85%) ocurre en los huesos largos, y aproximadamente el 50% se encuentran alrededor de la articulación de la rodilla. Muchas series grandes han reportado una incidencia de alrededor del 1% en las costillas. Microscópicamente, los dos componentes básicos de los TCG benignos son el estroma y las células gigantes multinucleadas; las células del estroma son mononucleares y pueden

tener forma de huso, ovoide o redonda, mientras que las células gigantes multinucleadas pueden ser tan grandes que los numerosos núcleos son casi incontables.

La frecuencia de las células gigantes multinucleadas es variable y probablemente depende del patrón estromal. Las variantes de los TCG incluyen condroblastoma, fibroma condromixoide, quiste óseo aneurismático y tumor "marrón" de hiperparatiroidismo. En la presentación de un TCG en un arco costal el diagnóstico diferencial incluye al quiste óseo simple. Es más probable que estos últimos se formen en la parte anterior de las costillas, mientras que los TCG se localizan principalmente en la epífisis del hueso (es decir, la cabeza y el tubérculo de las costillas). Solo el 3% de los TCG se desarrollan en los esqueletos inmaduros que distinguen a estos pacientes de aquellos con quistes óseos aneurismáticos, en los que el tumor se produce al máximo antes de la fusión epifisaria.

Los tumores de células gigantes son tumores localmente agresivos y se presentan con los signos y síntomas de dolor, hinchazón y limitación del movimiento alrededor de una articulación⁶. En el caso que se describe, la paciente presentó una masa retro-mamaria de crecimiento lento durante un período de 1 a 2 años, y el dolor ocasional comenzó cerca de su momento de presentación. Esta presentación retrasada probablemente contribuyó al tamaño del tumor extremadamente grande encontrado en el momento de la resección quirúrgica. Si bien se han reportado múltiples casos de TCG que se originan en la costilla, las dimensiones encontradas en la TC de este caso parece ser el segundo más grande hasta la fecha (**Tabla I**).

Table I: Casos publicados de tumor de células gigantes originados en la porción anterior de un arco costal.

Autor(*)	Arco costal	Tamaño (cm)
Riddle et al. [12]	5to anterior	5.0 x 5.0 x 4.5
Sakao et al. [2]	5to anterior	5.8 x 5.2
Sakao et al. [2]	2do anterior	7.6 x 6.0
Tavecchio et al. [13]	11no completo	7.6 x 6.0
Shin et al. [14]	2do anterior	8.0 x 6.5 x 6.0
Sakao et al. [2]	2do anterior	9.0 x 7.0 x 5.0
Al-Otaibi et al. [15]	9no anterior	9.5 x 6.5 x 3.0
Sakao et al. [2]	4to anterior	10.0 x 7.0 x 5.0
Sakao et al. [2]	3ro anterior	11.0 x 12.0 x 13.0
Dehghan et al. [16]	4to anterior	12.5 x 10.5 x 5.7
Briccoli et al. [17]	9no anterior/posterior	13.0 x 11.0 x 2.5
Sakao et al. [2]	4to anterior	15.0 x 7.5 x 5.5
Cordeiro et al. [18]	5to anterior	25.0 x 17.0
Sharma et al. [19]	7ma anterior	28.0 x 24.0
Semionov et al. [20]	8vo anterior	5.4 cm
Heo et al. [21]	6to anterior	6.0 x 4.5 x 4.5

Los métodos actuales disponibles para tratar el TCG incluyen legrado con o sin el uso de alcohol, nitrógeno líquido, fenol o metil macrilato o injerto óseo, y la resección quirúrgica completa del segmento afectado del hueso⁷. La escisión es deseable ya que el 10% de los TCG en las costillas sufren una transformación maligna, mientras que la radioterapia no se recomienda ya que la mayoría de las transformaciones malignas están relacionadas con la radioterapia previa. Por lo tanto, la escisión en bloque es un tratamiento apropiado, y la supervivencia libre de enfermedad es directamente proporcional al margen de resección negativo⁸. Hay que añadir que recientemente la FDA ha aprobado el Pexidartinib (TURALIO™) como un novedoso medicamento administrado por vía oral⁹.

Debido a la recurrencia tardía y la transformación maligna¹⁰, se justifica un seguimiento prolongado, aunque actualmente los datos de biología molecular permiten hacer un pronóstico más certero¹¹. El diagnóstico diferencial del tumor TCG maligno de hueso debe también incluir el osteosarcoma telangectásico y el osteosarcoma rico en células gigantes¹². La malignidad primaria en el TCG es extremadamente inusual, pero es muy difícil de distinguir y debe tenerse presente en el diagnóstico diferencial¹³. La transformación maligna tardía, aunque rara, puede ocurrir con un pronóstico muy pobre.

Conclusiones

Presentamos el caso de una paciente con un tumor de células gigantes ubicado en la cara anterior de un arco costal con dimensiones entre las dos más grandes reportadas en la literatura especializada. El presente caso ilustra el hecho de que los tumores de células gigantes de la pared torácica anterior pueden confundirse con masas mamarias. La biopsia central con aguja fina o guiada por imagen sería diagnóstica si se obtiene una muestra adecuada. Los autores creen que el diagnóstico diferencial de una masa de la pared torácica anterior debe incluir TCG de las costillas.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Mohaidat ZM, Al-Jamal HZ, Bany-Khalaf AM, Radaideh AM, Audat ZA. Giant cell tumor of bone: Unusual features of a rare tumor. *Rare Tumors*. 2019 Sep 25;11:2036361319878894.
2. Sharma A, Armstrong AE. Giant cell tumor of rib arising anteriorly as a large inframammary mass: a case report and review of the literature. *Case Rep Med*. 2012;2012:850509.
3. Suarez Conejero AM, Pérez González R, Otero Morales JM, Cruillas Miranda S, Moret Hernández Y, Ferreiro Granda AM. Tumores pardos en paciente con hiperparatiroidismo secundario en hemodiálisis. Presentación de caso. *Revista Habanera de Ciencias Médicas* 2015;14(1): 118-26.
4. Gupta V, Mittal R. Giant cell tumor of rib--rare location on the anterior aspect. *Arch Orthop Trauma Surg*. 2000;120(3-4):231-2.
5. Liede A, Hernandez RK, Tang ET, Li C, Bennett B, Wong SS, Jandial D. Epidemiology of benign giant cell tumor of bone in the Chinese population. *J Bone Oncol*. 2018 Jul 26;12:96-100.
6. He H, Zeng H, Luo W, Liu Y, Zhang C, Liu Q. Surgical Treatment Options for Giant Cell Tumors of Bone Around the Knee Joint: Extended Curettage or Segmental Resection?. *Front Oncol*. 2019;9:946.
7. Valladares-Vijil LD, Silva-Cárcamo H, Armando-Domínguez R.. Tumor de células gigantes de hueso: diagnóstico incidental en una paciente con artralgia de larga evolución. *Archivos de Medicina* 2015; 11(4): 1
8. Wiratnaya IGE. Wide margin excision followed by tibialisation of fibula and ankle arthrodesis as novel surgical technique in giant cell tumor patient. *J Clin Orthop Trauma*. 2019 Sep-Oct;10(5):1004-7.
9. Lamb YN. Pexidartinib: First Approval. *Drugs* 2019;79:1805-12
10. Movahedinia S, Shooshtarizadeh T, Mostafavi H. Secondary Malignant Transformation of Giant Cell Tumor of Bone: Is It a Fate?. *Iran J Pathol*. 2019;14(2):165-174.
11. Maros ME, Schnaidt S, Balla P, Kelemen Z, Sapi Z, Szendroi M, Laszlo T, Forsyth R, Picci P, Krenacs T. In situ cell cycle analysis in giant cell tumor of bone reveals patients with elevated risk of reduced progression-free survival. *Bone*. 2019 Oct;127:188-98.
12. Subramanian S, Viswanathan VK. Lytic Bone Lesions. 2021 Aug 25. In: StatPearls [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2021 Jan-. PMID: 30969659.
13. Palmerini E, Picci P, Reichardt P, Downey G. Malignancy in Giant Cell Tumor of Bone: A Review of the Literature. *Technol Cancer Res Treat*. 2019 Jan 1;18:1533033819840000.