

Osificación heterotópica neurogénica de la cadera en un paciente con trauma craneoencefálico grave

Neurogenic heterotopic ossification of the hip in a patient with severe traumatic brain injury

Dr. Erick Héctor Hernández González ^I; Dra. C. Gretel Mosquera Betancourt ^{II}; Dr. Osmando Quintero Estenoz ^{II}; Dr. Rigoberto Peñones Montero ^{II}; Dr. Luís Rosa Napal ^I; Lic. Mirtha Eugenia Báez García ^{II}

I Hospital Universitario Amalia Simoni. Camagüey, Cuba.

II Hospital Universitario Manuel Ascunce Domenech. Camagüey, Cuba.

RESUMEN

Fundamento: la osificación heterotópica es la formación de hueso ectópico y lamelar con médula ósea. La fisiopatología no se conoce en su totalidad. El tratamiento se basa en: antiinflamatorios no esteroideos, radioterapia, bifosfonatos, cirugía y terapia física.

Objetivo: presentar un caso de osificación heterotópica neurogénica de la cadera derecha como causa de limitación de la movilidad articular y ciática troncular.

Caso clínico: paciente masculino de 28 años de **edad** con antecedentes de trauma craneoencefálico grave. Permaneció por más de dos meses encamado en estado crítico. Un año después comenzó con aumento de volumen de la región glútea derecha, dolor ligero en la pierna, que le dificultaba la posición de sentado, asociado a debilidad con predominio distal (pie péndulo), e hipoestesia. A la exploración física se constató masa tumoral en región glútea derecha de consistencia dura, pétreo, fija a planos profundos, no dolorosa con signo de Tinel positivo en la emergencia del nervio ciático. En la radiografía AP de la cadera

derecha se pudo apreciar imagen ósea tumoral. Se comenzó tratamiento conservador sin mejoría, por lo que se realizó cirugía para resecar la masa ósea, obtener el diagnóstico histológico y mejorar la sintomatología.

Conclusiones: la osificación heterotópica es una complicación en pacientes con trauma craneoencefálico grave, el cuadro clínico no es específico y el diagnóstico es orientado por la imaginología y confirmado por la histopatología. El tratamiento quirúrgico ofrece los mejores resultados. La recurrencia se puede minimizar al combinar antiinflamatorios no esteroideos, radioterapia y rehabilitación.

DeCS: OSIFICACIÓN HETEROTÓPICA; TRAUMATISMOS CRANEOCEREBRALES/cirugía; MIOSITIS OSIFICANTE; ADULTO; INFORMES DE CASOS.

ABSTRACT

Background: heterotopic ossification is the formation of ectopic lamellar bone containing bone marrow. The physiopathology is not known in its entirety. The treatment is based on non-steroid anti-inflammatory drugs, radiotherapy, biphosphonates, surgery, and physical therapy.

Objective: to present a case of neurogenic heterotopic ossification of the right hip caused by limited articular mobility and truncal sciatica.

Clinical case: a twenty-eight-year-old male patient with antecedents of severe traumatic brain injury. The patient stayed in bed for two months in a critical condition. A year later, his right gluteal region started to grow and he presented a slight pain in the leg that made him difficult to sit associated to debility with distal predominance (pendular feet) and hypoesthesia. In the physical examination, a tumor mass of hard consistence and fix to deep planes, painless with positive signs of Tinel in the emergence of the sciatic nerve, was found in the right gluteal region. In the radiography of the right hip, an osseous tumoral image was seen. A conservative treatment was started without any improvement, that's why a surgery was conducted to remove the osseous mass, obtain the histological diagnosis and improve the symptomatology.

Conclusions: neurogenic heterotopic ossification is a complication that appears in patients with severe craniocerebral trauma. The clinical manifestations are not specific and the diagnosis is determined by means of imaging and confirmed through histopathology. The surgical treatment offers the best results. The recurrence can be minimized when combining non-steroid anti-inflammatory drugs, radiotherapy and rehabilitation.

INTRODUCCIÓN

La osificación heterotópica (OH) es definida como la formación de hueso ectópico y lamelar con médula ósea. Presenta tres causas: 1) trauma (fracturas, luxaciones, poscirugías, quemaduras) 2) genética (Fibrodisplasia Osificante Progressiva (FOP), heteroplasia ósea progresiva y osteodistrofia hereditaria de Albright y 3) neurogénica (trauma craneoencefálico (TCE) y trauma raquímedular (TRM)). En pacientes con TCE, la OH es una complicación frecuente con un rango del 11 al 76% de los casos en dependencia de su origen. Se ha reportado que el 10 % de las OH sintomáticas ocurren en pacientes con TCE, con una frecuencia 2,5 mayor en hombres y en las edades entre los 20 a los 30 años.¹⁻³

La fisiopatología de la OH no se conoce en su totalidad, la radiografía simple y la Tomografía Axial Computarizada (TAC) con reconstrucción tridimensional son los estudios de mayor importancia para orientar el diagnóstico que se confirma con el estudio histopatológico.¹

Las opciones disponibles de tratamiento son: los antiinflamatorios no esteroideos (AINES), la radioterapia, los bifosfonatos, la cirugía y la terapia física. Las indicaciones para el tratamiento quirúrgico son: la compresión vascular y neurológica, la limitación de los movimientos, las dificultades para la higiene y el dolor intratable.^{1,3}

El propósito del presente artículo es presentar un caso de OH de causa neurogénica como una complicación tardía del trauma craneoencefálico grave, con el objetivo de familiarizar a los residentes y cirujanos con esta causa interesante y poco frecuente de limitación de la movilidad articular y ciática troncular.

CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 28 años de edad, diestro, con buenos antecedentes de salud hasta septiembre de 2011 cuando fue agredido con un arma blanca en región

parietal izquierda que le causó fractura deprimida con dislaceración meningocortical de aproximadamente seis cm. No recibió trauma directo en región glútea.

En la TAC se confirmó la fractura deprimida parietal izquierda con esquirlas intraparenquimatosas y pequeño foco de contusión subyacente.

Se decidió tratamiento neuroquirúrgico urgente y se trasladó a la unidad de traumas para los cuidados posoperatorios neurocríticos. Allí permaneció encamado, en estado crítico por más de dos meses, de ellos 22 días con fiebre mantenida y cuadro de shock séptico que mejoró con la terapia antimicrobiana de amplio espectro.

Al alta se encontraba con una cuadriparesia espástica a predominio del hemicuerpo derecho con marcada atrofia por desuso y estado de caquexia consecuencia del estado hipercatabólico asociado con el TCE grave.

Se inició la fisioterapia y un año después comenzó con aumento de volumen de la región glútea derecha y dolor ligero en la pierna, que le dificultaba la posición de sentado. Apareció de forma progresiva una ciática troncular derecha, acompañada de parestesias que le impedía sentarse y la marcha.

A la exploración física se constató masa tumoral en región glútea derecha de consistencia dura, pétreo, fija a planos profundos, no dolorosa de más de 10 cm, sin alteraciones de la piel adyacente. Presentó signos de Lassegue y Bragard positivo a menos de 10 grados. Se encontró además dolor y signo de Tinel positivo en la emergencia y el recorrido del nervio ciático, asociados a debilidad a predominio distal de la pierna derecha (pie péndulo), e hipoestesia.

En la exploración complementaria evaluativa del estado general del paciente se obtuvieron los siguientes resultados:

Hematocrito: 0,44, Leucocitos: $9,8 \times 10^9$, Polimorfos nucleares: 0,63, Linfocitos: 0,36, Monocitos: 0,01, Eosinófilos Y Stab: 0,00.

Eritrosedimentación: 20 mm/h.

Glucemia: 5 mmol/l.

Cratinina: 51 mmol/l.

Transaminasa glutámico oxalacética: 22 UI.

Transaminasa glutámico pirúvica: 23,1 UI.

Fosfatasa alcalina: 310 unidades.

Grupo sanguíneo y factor Rh: O positivo

Coagulograma: INR: 1,41- TPC: 13seg. patrón: 17seg.

Proteínas totales: 88,8 g/l Proteínas fraccionadas: 59,3 g/l

Los estudios de rayos X de pelvis ósea antero posterior y de TAC multicortes de pelvis demostraron masa tumoral de consistencia ósea, bien delimitada, extra articular en la proyección del músculo glúteo medio y rotadores externos de cadera derecha. (Figuras 1 y 2)

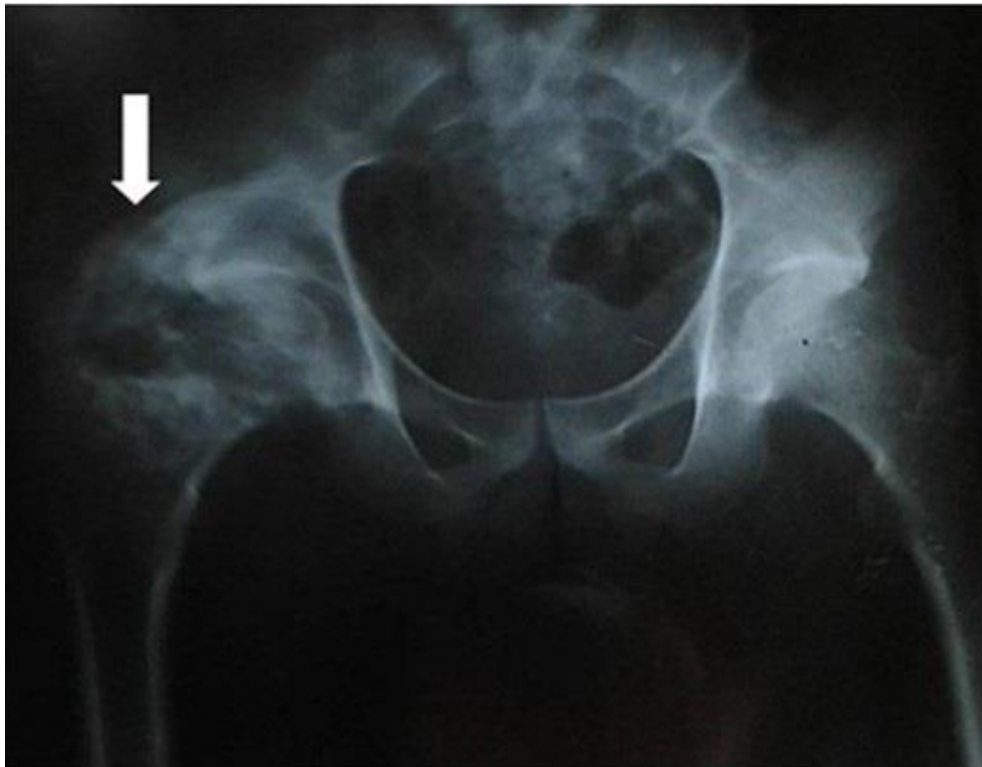


Figura 1. Rayos X de pelvis antero posterior que muestra la imagen tumoral que bordea la cadera derecha (flecha blanca)

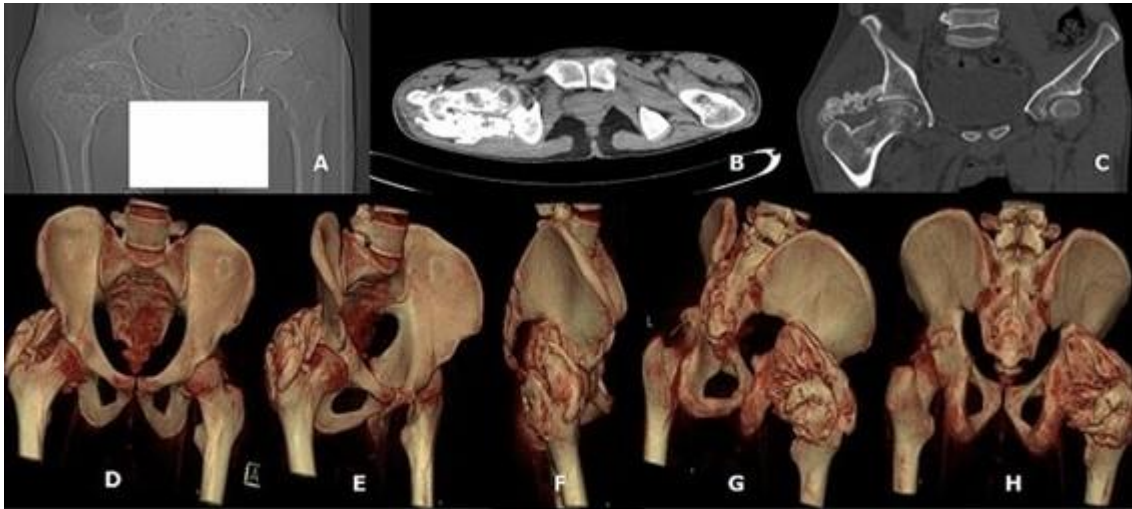


Figura 2. TAC multicortes de pelvis ósea (A: topograma, B: corte axial, C: corte coronal) y reconstrucciones tridimensionales (D, E, F, G, H), que evidencian la imagen tumoral que bordea la porción posterior de la cadera derecha.

Biopsia: muestra constituida por tejido óseo maduro sin encontrarse células neoplásicas. De acuerdo con los antecedentes y los estudios imaginológicos se interpretó como una osificación heterotópica de causa neurogénica. Se inició tratamiento con indometacina 75 mg diarios por dos meses. El paciente no mejoró por lo que se decidió tratamiento quirúrgico.

Descripción de la técnica

Se practicó abordaje para la exploración del nervio ciático derecho y se extendió para una mejor resección de la masa tumoral.

Posición: decúbito lateral, con la cadera derecha hacia arriba.

Método anestésico: anestesia general endotraqueal más catéter peridural continuo. Diéresis: incisión en signo de interrogación para exploración del nervio ciático que comenzó cuatro cm lateral y distal a la espina ilíaca postero-superior derecha, se continuó hasta el vértice del trocánter mayor y se curveó hasta el punto medio del pliegue glúteo para terminar 15 cm distal por el eje central del muslo. Operación: se creó un flap cutáneo y muscular formado por el glúteo máximo, se pudo identificar la tumoración ósea que tenía un plano de clivaje, por lo que no infiltraba del tejido óseo normal. Se realizó excéresis de la mayor parte de la lesión, hasta exponer el músculo piramidal, liberar el origen y extensión inicial del ciático y realizar la neurolisis externa. (Figura 3 A, B, C, D)

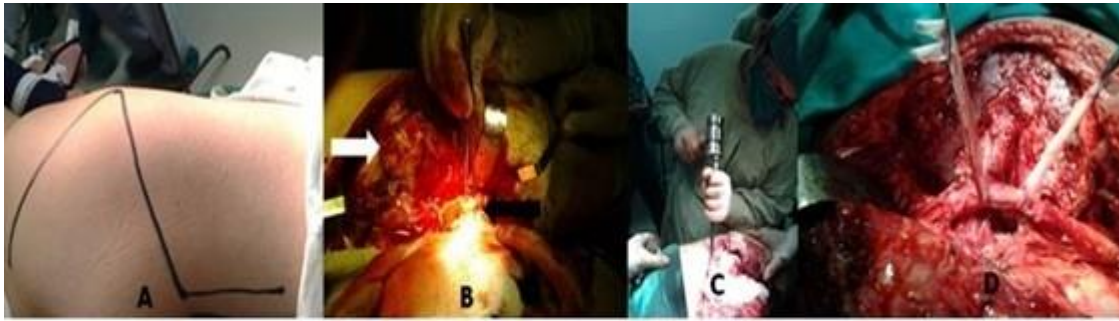


Figura 3. A: incisión de piel. B: identificación de la masa tumoral y el nervio ciático. C: Excéresis de la masa tumoral. D: Neurolysis total (Flecha blanca: masa tumoral, flecha negra: nervio ciático)

Síntesis: se cerró por planos y se suturó piel con puntos hemostáticos de Mayo. Se colocó drenaje de Penrose. Se tomó muestra para biopsia.

El paciente evolucionó favorablemente por lo que se egresó con tratamiento profiláctico con indometacina 75 mg diarios por dos meses, se le programaron sesiones de radioterapia, terapia física y rehabilitación, las que se realizaron sin dificultad.

En estos momentos el paciente está sin dolor, la parestesia mejoró y se puede incorporar solo; inclina el tronco hacia delante y realiza hasta 200 cuclillas desde la posición de sentado. (Figura 4 A, B)



Figura 4. A: Flexión del tronco. B: Extensión del miembro inferior afectado.

Fuente: archivo personal del autor.

Las imágenes de la TAC de pelvis ósea posoperatoria con reconstrucciones tridimensionales demostraron la reducción considerable del volumen de la tumoración ósea. (Figura 5)

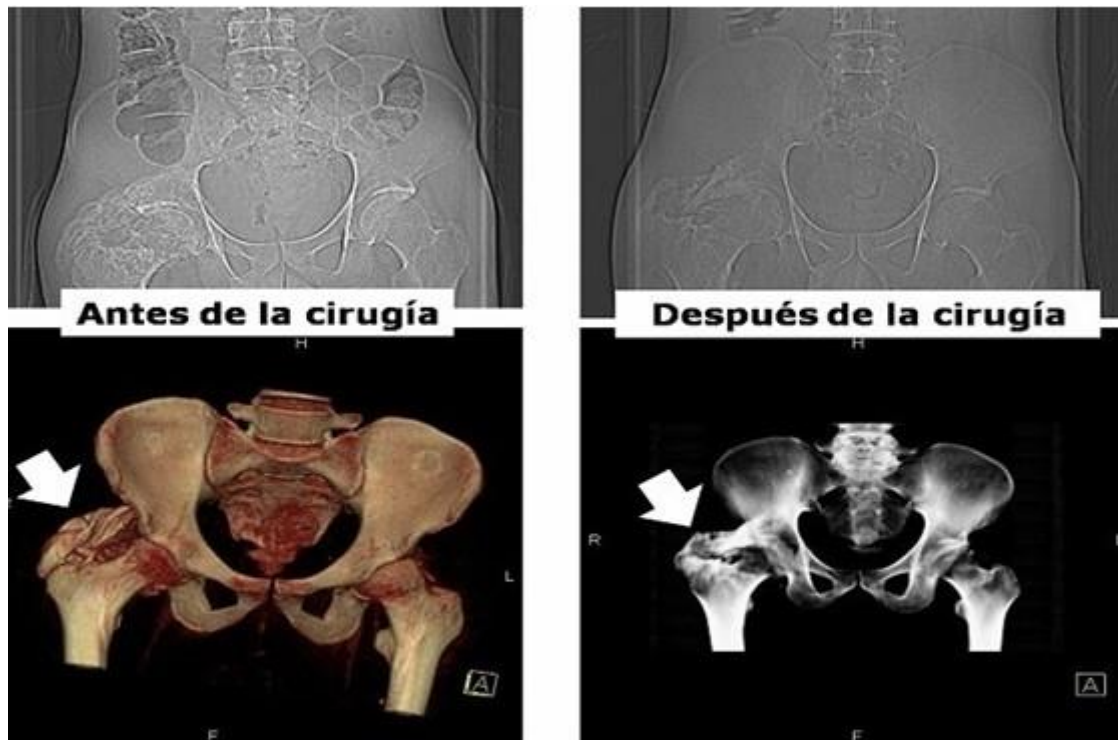


Figura 5. TAC multicortes de pelvis ósea antes y después de la cirugía, que muestran la reducción de la masa ósea de la porción posterior de la cadera derecha.

DISCUSIÓN

La OH es una complicación que se presenta en un rango del 3-30 % de los casos con TCE grave según la literatura revisada ³⁻⁵, no obstante, en más de 10 series internacionales revisadas no superan los 200 casos en un rango de cinco años en el mundo.⁵⁻⁷ En nuestro medio no es un diagnóstico frecuente. En cuanto a la edad y el sexo, la OH tiene mayor incidencia en masculinos y en las edades de 20-30 años, además la cadera es la localización más frecuente con el 73,3 % seguida por la rodilla ^{2,3}, características coinciden en el caso presentado.

Tanto a nivel nacional como en la provincia de Camagüey no se recogen reportes de casos similares hasta el momento de la presentación de este trabajo.

La clasificación más usada para este tipo de enfermedad es la Brooker, citada por Sakellariou VI et al. ³ Este caso se presenta como un tipo IV. A pesar de ello esta clasificación se utiliza a nivel mundial para la miositis osificante secundaria a artroplastia total de cadera. Mavrogenis AF, et al, ⁴ publicaron una nueva

clasificación relacionada con la zona afectada y el tipo de lesión, el paciente en cuestión tuvo un tipo II b, dada la localización posterior y haber sido secundaria a un TCE grave. Además refirieron que la localización posterior (II) es la que menor pérdida sanguínea genera de las cuatro variantes expuestas, y tiene la menor tasa de recurrencias.

El cuadro clínico de este paciente está en concordancia con la mayoría de las publicaciones al respecto, que señalan como formas de presentación más frecuentes la compresión neurológica, la limitación de la movilidad articular, el dolor y la dificultad para sentarse de forma adecuada.^{1, 7, 8}

En la exploración complementaria, la radiografía simple y la TAC con reconstrucciones tridimensionales son el estándar de oro para el estudio de esta enfermedad y así lo confirman varias de las investigaciones encontradas.^{1, 2, 9} Estos complementarios son importantes tanto para orientar el diagnóstico, como para preparar la estrategia quirúrgica. La radiografía tiene sus limitantes en este aspecto al restringirse a la vista antero-posterior, esto genera dudas a la hora de determinar si la tumoración es anterior o posterior y el grado de compromiso articular debido a la superposición de estructuras.¹ Se debe señalar que las reconstrucciones en tercera dimensión permitieron un cambio en el pensamiento quirúrgico sobre este paciente, debido a la limitación de la movilidad por una artrodesis extraarticular que pudo ser descartada solo mediante este examen.

El diagnóstico de certeza se realiza mediante la histopatología donde se describe una zona central de tejido conjuntivo y fibroblastos, con una zona intermedia de osteoblastos y tejido óseo inmaduro con calcificación que progresa hacia la formación de hueso, por tanto con formación ósea periférica. Esta formación ósea desde la periferia permite diferenciarla del osteosarcoma en que la osificación es central.³

El tratamiento conservador es muy limitado y ofrece poco tiempo de alivio, por lo que la solución quirúrgica es la que brinda los mejores resultados, que se reportan entre el 44-95 %, siempre que el diagnóstico esté bien establecido.^{1, 2}

Existen numerosos trabajos publicados^{5, 7} que hacen referencia a la utilidad de la indometacina y la radioterapia como terapia coadyuvante y se reportan bajos porcentos de recidiva cuando se usan de forma precisa. También se perfilan nuevos tratamientos, algunos de ellos todavía en estudio como: los bifosfonatos,

los campos electromagnéticos de pulso, el nogging, que inhiben la acción de la proteína morfogenética, los buscadores de radicales libres como el alopurinol y la n-acetilcisteína.⁸

Este caso en particular cumplió con las cuatro indicaciones básicas citadas por Nauth A, et al,² para el tratamiento quirúrgico que son: compresión vascular y neurológica, limitación de los movimientos, dificultades para la higiene y el dolor intratable. Hubo una mejoría importante de la sintomatología a partir del tercer día de la cirugía.

Las complicaciones relacionadas con el procedimiento quirúrgico incluyen: dehiscencia de la herida, infección, lesión neurológica, cicatrices hipertróficas, el sangrado y la recurrencia y exhiben porcentajes entre el 5-7 %, a pesar de ello se reportan un escaso porcentaje de estas.^{1, 5, 10} La recurrencia se reporta entre el 8 y el 12, 5 %^{1, 6}, sin embargo la mayor parte de las revisiones no la presentaron.⁸⁻¹¹ El caso presentado no tuvo complicaciones relacionadas con el procedimiento quirúrgico y seis meses después de la cirugía no ha habido recurrencia.

CONCLUSIONES

La OH es una complicación a tener en cuenta en todo paciente con un TCE grave o TRM, el cuadro de manera general es florido y el diagnóstico no es complejo. La opción de tratamiento quirúrgico ofrece los mejores resultados, al eliminar el dolor y permitir un rango de movimiento adecuado siempre que haya una maduración de la masa ósea de más de un año de evolución. La recurrencia se puede minimizar cuando se combina con antiinflamatorios no esteroideos, radioterapia y rehabilitación.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Genêt F, Jourdan C, Schnitzler A, Lautridou C, Guillemot D, Judet T, et al. Troublesome Heterotopic Ossification after Central Nervous System Damage: A Survey of 570 Surgeries. PLoS one [Internet]. 2011 Jan [citado 2013 Oct 14];6(1):[aprox. 15 p.]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3031592/>

2. Nauth A, Giles E, Potter BK, Nesti LJ, O'Brien FP, Bosse MJ, et al. Heterotopic Ossification in Orthopaedic Trauma. *J Orthop Trauma* [Internet]. 2012 Dec [citado 2013 Oct 14];26(12):[aprox. 4 p.]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3504617/>
3. Sakellariou VI, Grigoriou E, Mavrogenis AF, Soucacos PN, Papagelopoulos PJ. Heterotopic ossification following traumatic brain injury and spinal cord injury: insight into the etiology and pathophysiology. *J Musculoskelet Neuronal Interact*. 2012 Dec;12(4):230-40.
4. Mavrogenis AF, Guerra G, Staals EL, Bianchi G, Ruggieri P. A classification method for neurogenic heterotopic ossification of the hip. *J Orthop Traumatol* [Internet]. 2012 Jun [citado 2013 Oct 14];13(2):[aprox. 9 p.]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3349026/>
5. Blokhuis TJ, Frölke JP. Is Radiation Superior to Indomethacin to Prevent Heterotopic Ossification in Acetabular Fractures?: A Systematic Review. *Clin Orthop Relat Res* [Internet]. 2009 Feb [citado 2013 Oct 14];467(2):[aprox. 4 p.]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC2628498/>
6. Citak M, Backhaus M, Kälicke T, Ucher I, Aach M, Meindl R, et al. Treatment of heterotopic ossification after spinal cord injury - clinical outcome after single-dose radiation therapy. *Z Orthop Unfall*. 2011 Jan;149(1):90-3. doi:10.1055/s-0030-1250688.
7. Aubut JA, Mehta S, Cullen N, Teasell RW. A Comparison of Heterotopic Ossification Treatment within the Traumatic Brain and Spinal Cord Injured Population: An Evidence Based Systematic Review. *Neuro Rehabilitation* [Internet]. 2011 Nov [citado 2013 Oct 14];28(2):[aprox. 9 p.]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3206068/>
8. Baird EO, Kang QK. Prophylaxis of heterotopic ossification – an updated review. *J Orthop Surg Res* [Internet]. 2009 Nov [citado 2013 Oct 14];4(4):[aprox. 9 p.]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC2674414/>
9. Palanisami D, Shanmuganathan R, Jeyaraman A. Surgical excision of heterotopic ossification of hip in a rare case of Moyamoya disease with extra articular ankylosis. *Indian J Orthop* [Internet]. 2012 Nov [citado 2013 Oct 14];46(6):[aprox. 3 p.]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3543894/>
10. Panagiotopoulos EC, Syggelos SA, Plotas A, Tsigkas G, Dimopoulos P. Sciatica due to extrapelvic heterotopic ossification: A case report. *J Med Case Reports*

[Internet]. 2008 Nov [citado 2013 Oct 14];2(9):[aprox. 3 p.]. Disponible en:
<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC2556682/>

11. Gurcan S, Ozyurek S, Kose O, Sehirlioglu A. Ankylosing pelvitrochanteric heterotopic ossification in a patient with spinal cord injury. *BMJ Case Rep.* 2013 May 21; 2013.

Recibido: 1ro de junio de 2014

Aprobado: 28 de julio de 2014

Dr. Erick Héctor Hernández González. Especialista de I Grado en Ortopedia y Traumatología. Máster en Urgencias Médicas. Profesor Instructor. Hospital Universotario Amalia Simoni. Camagüey, Cuba.