

Miositis Osificante Circunscrita Bilateral de Cadera en Paciente con TEC Severo Complicado. Caso Clínico y Revisión de Literatura

PEDRO MORALES R, ⁽¹⁾ LUIS RODRIGO URREA C, ⁽²⁾ SERGIO BENAVENTE C, ⁽³⁾ JOSÉ IBARRA D. ⁽⁴⁾

Myositis Ossificans Circumscripita of bilateral hip in patient with severe complicated TBI. Case report and literature review

Summary

To describe the pathology Myositis ossificans circumscripta (MOC) in a patients with severe traumatic brain injury (TBI) complicated, emphasizing clinical features, imaging utility, surgery and postoperative prophylaxis with indomethacin. Introduction: MOC corresponds to heterotopic soft tissue calcification secondary to direct or repetitive trauma, in close relationship with TBI. The initial study is radiological, but computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) are the studies of choice. Case report: Male, 33 years old, polytraumatized with severe TBI complicated. That one year after his discharge from the hospital, began with increased volume inguino-crural bilateral, progressive, compatible with bilateral MOC Brooker 4. Surgical resection in two stages, both with postoperative prophylaxis with Indomethacin. It evolved with excellent response, symptomatic remission without recurrence after two years of follow-up. Discussion: MOC is a rare disease, where the combined medical-surgical management is of utmost importance when treating this disease and prevent recurrences.

Keywords: *Myositis ossificans circumscripta, heterotopic calcification; soft tissue tumor.*

Resumen

Objetivo: Describir la patología Miositis Osificante Circunscrita (MOC) en paciente con traumatismo encéfalo craneano (TEC) severo complicado, enfatizando características clínicas, utilidad de imágenes, tratamiento quirúrgico y profilaxis postoperatoria con Indometacina. Introducción: MOC corresponde a la calcificación heterotópica de tejidos blandos secundaria a traumatismo directo o repetitivo, en estrecha relación con TEC. El estudio inicial es radiológico por tomografía computada (TC) y resonancia magnética (RNM), son los estudios de elección. Presentación de caso: Hombre, 33 años, politraumatizado, con TEC severo complicado. Que tras un año del alta comenzó con aumento de volumen inguino-crural bilateral, progresivo, compatible con MOC bilateral Brooker 4. Resección quirúrgica en dos tiempos, ambas con profilaxis postoperatoria con Indometacina. Evolucionó con excelente respuesta, remisión sintomática y

Institución: Hospital Las Higueras de Talcahuano, Chile. ¹Traumatólogo y Ortopedista, Equipo de Cadera. ²Cirujano Vascular. ³Residente de Traumatología y Ortopedia. Universidad Católica de la Santísima Concepción. ⁴Interno de Medicina, Universidad de Concepción.

sin recurrencias tras dos años de seguimiento. Discusión: MOC es una enfermedad infrecuente, donde el manejo médico-quirúrgico combinado es de suma importancia al momento de tratar esta patología y prevenir recurrencias.

Palabras clave: *Miositis osificante circunscrita, calcificación heterotópica, tumor de partes blandas.*

INTRODUCCIÓN

Miositis osificante circunscrita (MOC) corresponde a una patología infrecuente caracterizada por calcificación heterotópica de tejidos blandos, principalmente musculatura estriada. ⁽¹⁾ Afecta con mayor frecuencia a hombres entre la segunda y tercera década de la vida. ^(2, 3) Habitualmente se desarrolla dos semanas luego de un traumatismo directo o repetitivo, presentándose como dolor y tumoración de la zona afectada, ^(1, 4) pudiendo determinar impotencia funcional e incluso invalidez a largo plazo. Sus principales diagnósticos diferenciales, dependiendo de la etapa de maduración histológica subyacente, son absceso de partes blandas, en etapas precoces, y osteosarcoma, en etapas tardías. ^(2, 5)

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente masculino de 33 años que en 2010 sufrió accidente automovilístico, resultando politraumatizado, con TEC severo complicado con daño axonal difuso. Requiere manejo por dos semanas en Unidad de Cuidados Intensivos y tres semanas en Unidad de Cuidados Intermedios. Finalmente fue dado de alta sin secuelas. Un año después, comenzó con aumento de volumen inguinocrural bilateral, progresivo, inicialmente sensible hasta hacerse indoloro. Al examen destacaba: tumoración en regiones inguinocrurales bilaterales, bien delimitadas, de consistencia pétreo y adheridas a plano profundo, sin cambios tróficos cutáneos ni alteración neurovascular distal de extremidades. Con flexión activa y pasiva de caderas severamente limitada por bloqueo mecánico a expensas de masas tumorales, acompañándose de marcha basculante. Resto del examen físico, sin hallazgos patológicos.

Se realiza radiografía de pelvis AP y tomografía computada (TC) de pelvis, donde se aprecian zonas de osificación heterotópica bilateral que ocupan toda la distancia entre fémur y pelvis (Figura 1). Cintigrafía ósea con Tc-99 (Figura 2), que muestra regiones de alta captación del radioisótopo, concordantes con hallazgos radiográficos y

tomográficos. Angio TC de pelvis (Figura 3) evidencia regiones hiperdensas bilaterales desde la espina ilíaca anteroinferior hasta tercio proximal del fémur por región anterior, y distorsión de la vasculatura femoral bilateral secundario a efecto de masa de lesión descrita. Debido a antecedentes, clínica e imágenes compatibles, se diagnóstica MOC bilateral de caderas Brooker 4.

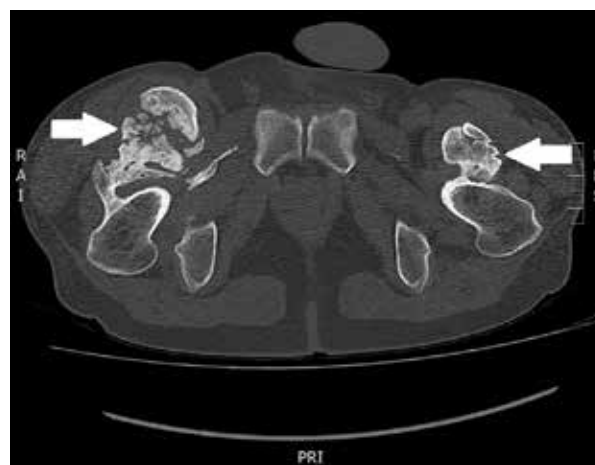


Figura 1. TC de Pelvis. Regiones hiperdensas bilaterales desde espina ilíaca anteroinferior hasta tercio proximal de fémur, donde se aprecia el “fenómeno de zona” de las lesiones (flechas).



Figura 2. Cintigrafía ósea con Tc-99. Regiones de alta captación del radioisótopo entre el fémur y pelvis del paciente, de modo bilateral.



Figura 3. Angio TC de Pelvis. Regiones hiperdensas bilaterales desde espina iliaca anteroinferior hasta tercio proximal de fémur, y distorsión de vasculatura femoral bilateral secundario.

Se decide resección quirúrgica asistida por cirujano vascular y toma de biopsias de ambas lesiones. En primer tiempo quirúrgico, se realizó la resección del tumor óseo de cadera izquierda. Se administró profilaxis post operatoria con Indometacina 25 mg c/8 horas v.o. por 21 días. Con TC pelvis control postoperatorio cirugía uno (Figura 4) donde se observa la restauración anatómica de cadera izquierda, con amplia resección de masa entre fémur y pelvis izquierda. Cuatro meses después, se realizó resección del tumor óseo derecho, se completó nuevamente profilaxis postoperatoria con Indometacina en dosis descrita. TC pelvis control postoperatorio segunda cirugía (Figura 5) confirma reducción de masa osificante entre fémur y pelvis derecha. Resultado de biopsias de ambas cirugías: Fragmentos tejido adiposo, fibroso y tejido óseo maduro sin atipía. Paciente es dado de alta al cuarto día logrando una flexión de caderas de 80° a izquierda y 60° a derecha. Iniciándose proceso de estricta rehabilitación kinésica de rango articular asociado a fortalecimiento y elongación muscular. Al cabo de dos años después de la primera cirugía y 18 meses posteriores a la segunda cirugía, el paciente logró una flexión activa de caderas de 100° a izquierda y 90° a derecha, con TC pelvis control postoperatorio de dos años (Figura 6) que no muestra recidiva de osificaciones heterotópicas.

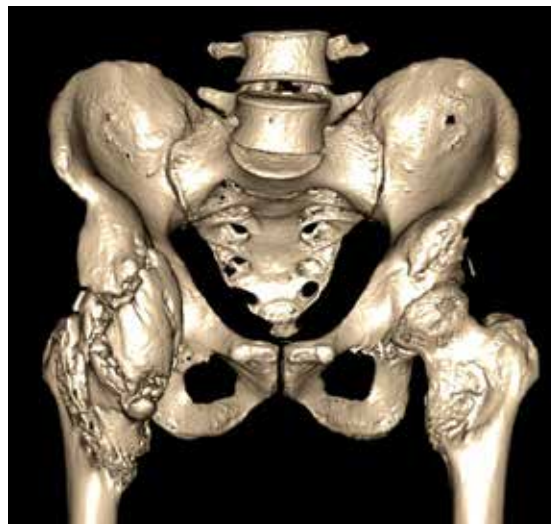


Figura 4. TC Pelvis control postoperatorio Cirugía 1. Restauración anatómica cadera izquierda, con amplia resección de masa izquierda.



Figura 5. TC Pelvis control postoperatorio Cirugía 2. Resección amplia de masa osificante derecha.



Figura 6. TC Pelvis control postoperatorio a los 24 meses de seguimiento. Cirugía 1 y 18 meses post segunda Cirugía. Sin evidencia de recidiva de osificaciones heterotópicas.

DISCUSIÓN

Definición y epidemiología: Miositis osificante circunscrita (MOC) corresponde a un tipo de osificación heterotópica, que afecta fascias, tendones, periostio, tejido subcutáneo y principalmente tejido muscular (cuádriceps, braquial, deltoides y escapular).^(1, 2) Siendo la cara anterior del muslo la ubicación más común.⁽⁵⁾ Corresponde al 0,7% de los tumores de partes blandas,⁽³⁾ con una asociación causal con lesiones traumáticas cerebrales entre un 3% al 20% según distintas series.^(4, 7, 8) Ocurre preferentemente en pacientes de sexo masculino, entre la segunda y tercera década de vida, donde en el 70%-80% de los casos existe el antecedente de trauma directo o repetitivo.^(2, 3, 6)

Patogenia: Pese a que la patogenia es todavía incierta se describe la existencia de células mesenquimales indiferenciadas,⁽¹⁾ con capacidad formadora de hueso en tejido muscular normal, las que debido a baja tensión de oxígeno y liberación de prostaglandinas, secundario a un traumatismo directo, repetitivo, o en asociación con trauma cerebral,⁽⁶⁾ proliferan rápidamente, infiltrando el músculo, y después de dos a tres semanas sufren metaplasia histiocitaria (“fenómeno de zona”), caracterizada por una maduración progresiva de los elementos histológicos desde una zona central intermedia con material osteoide organizado en un estroma laxo, hasta una zona externa que corresponde a tejido óseo perfectamente formado y maduro, que rodea la lesión.⁽²⁾

Diagnóstico: El antecedente de trauma directo, repetitivo, o en asociación con trauma cerebral es determinante.^(2, 4, 6, 7, 9) **Clínica:** Aumento rápido del dolor 1-2 semanas después de la lesión, aumento de volumen, calor, fiebre, rango de movimiento disminuido, tumefacción de zona afectada, y disminución de elasticidad del grupo muscular (diagnóstico diferencial de absceso de partes blandas).^(2, 5, 9) Asociado a un aumento de los niveles séricos de fosfatasa alcalina (que se normalizan entre 6-12 meses) y de velocidad de hemosedimentación.^(1, 2, 4)

Imágenes: Radiología simple: Refleja el patrón de maduración histológica subyacente.^(2, 3) Entre la 6ta y 8va semanas se observa un patrón de aposición ósea en la periferia de la lesión, paralela al eje mayor del hueso o músculo. A medida que la lesión evoluciona y alcanza la madurez, 6-12 meses, hay un incremento en la osificación de la lesión.^(2, 3, 10) **Ecografía:** En estadios tempranos se aprecia una masa heterogénea hipocóica. Mientras la lesión

madura, el centro se hace ecogénico con calcificaciones en la periferia, con refuerzo posterior y sombra acústica.⁽¹¹⁾

Cintigrafía ósea: Método sensible, pero poco específico, ya que imágenes con alta captación del radioisótopo (actividad osteoblástica) se pueden observar además en enfermedades inflamatorias, infecciosas o neoplásicas.⁽³⁾

¹¹⁾ **TC:** Corresponde al estudio de elección, permite una visualización detallada del fenómeno de zona, con un centro isodenso respecto al músculo, presentando en la periferia un borde calcificado de grosor variable, el cual aumenta con la madurez de la lesión. Además, es posible evaluar el efecto de masa sobre estructuras adyacentes.

RMN: En fases precoces permite detección de edema o nódulos isointensos en musculatura afectada (T1 con realce difuso periférico) e imágenes hiperintensas centrales en T2.^(3, 11)

Clasificación: Se utiliza la clasificación de Brooker (1973):^(7, 12) **Grado 0:** Sin osificación; **Grado 1:** 1 - 2 áreas aisladas de osificación de diámetro < 1 cm; **Grado 2:** Áreas aisladas de osificación u osteofitos del fémur proximal o del borde acetabular, que abarcan menos de la mitad de la distancia entre fémur y pelvis; **Grado 3:** Osificación que comprende más de la mitad de la distancia entre fémur y pelvis; **Grado 4:** Osificación que ocupa toda la distancia entre el fémur y la pelvis.

Tratamiento: Fase aguda: Frío local, compresión, elevación y reposo de la extremidad (24 - 48 horas). El fortalecimiento muscular con isométricos suaves, y el rango de movimiento activo, asistido, ejercido dentro de los límites del dolor, es aumentado progresivamente hasta la recuperación funcional plena.^(1, 2, 12-14)

Indometacina: Puede prevenir la MOC, es su dosis habitual de 25 mg cada 8 horas v.o. por 21 días. Mecanismo: disminuye la producción de prostaglandinas inflamatorias en la lesión, efectos antiosteoclásticos e inmunomoduladores, al inhibir la producción de IL-1, IL-6 y TNF- α , además de disminuir la capacidad presentadora de antígenos en macrófagos.^(1, 14-16) También se ha descrito la utilización de bifosfonatos, primera y segunda generación, mostrando mejoría sintomática y reducción imagenológica de la lesión.^(12, 13)

Radioterapia: Permite inhibición de la proliferación y diferenciación de células osteoprogenitoras en osteoblastos. Dosis inferiores a 1.000 cGy han demostrado ser efectivas.^(16, 17)

Cirugía: Contraindicada en la fase aguda. Se indica cuando la lesión alcanza la madurez: el paciente no presenta sintomatología aguda, las fosfatasa alcalinas se encuentran en rango normal y la imagenología

gía demuestre madurez de la lesión. Se recomienda realizar resección tisular hasta conseguir la reestructuración anatómica y funcional del segmento comprometido, con énfasis en la prevención de pérdidas sanguíneas durante el procedimiento. ^(12, 13, 17)

Se presenta un caso típico de MOC, en quien se realizaron los procedimientos diagnósticos y terapéuticos antes citados, en concordancia con lo analizado en la literatura, logrando una favorable respuesta al manejo médico-quirúrgico combinado y sin recurrencias tras dos años de estricto seguimiento. Podemos concluir, con base a lo expuesto en este reporte, que es de suma importancia la sospecha clínica de esta entidad en pacientes con factores de riesgo, donde el diagnóstico y tratamiento oportunos permiten mejorar su calidad de vida y prevenir la recurrencia de esta enfermedad.

Esta investigación no contó con financiamiento de ningún tipo.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. King JB. Post-traumatic ectopic calcification in the muscles of athletes: a review. *Br J Sports Med* 1998; 32:287-90.
2. Quek ST, Unger A, Cassar-Pullicino VN, Roberts SNJ. Case studies in diagnostic imaging: A self-limiting tumor. *Ann Rheum Dis* 2000; 59:252-6.
3. Parikh J, Hyare H, Saifuddin A. The imaging features of post-traumatic myositis ossificans, with emphasis on MRI. *Clin Radiol* 2002 Dec; 57(12):1058-66.
4. Hurvitz EA, Mandac BR, Davidoff G, Johnson JH, Nelson VS. Risk factors for heterotopic ossification in children and adolescents with severe traumatic brain injury. *Arch Phys Med Rehabil*. 1992 May; 73(5):459-62.
5. Schultzel MM, Johnson MH, Rosenthal HG. Bilateral deltoid myositis ossificans in a weightlifter using anabolic steroids. *Orthopedics* 2014 Sep; 37(9):e844-7.
6. Nishio J, Nabeshima K, Iwasaki H, Naito M. Non-traumatic myositis ossificans mimicking a malignant neoplasm in an 83-year-old woman: a case report. *Journal of Medical Case Reports* 2010; 4:270.
7. Hendricks HT, Geurts AC, van Ginneken BC, Heeren AJ, Vos PE. Brain injury severity and autonomic dysregulation accurately predict heterotopic ossification in patients with traumatic brain injury. *Clin Rehabil* 2007 Jun; 21(6):545-53.
8. Louise Lau Simonsen, Stig Sonne-Holm, Michael Krasheninnikoff, Aase W. Engberg, Symptomatic heterotopic ossification after very severe traumatic brain injury in 114 patients: Incidence and risk factors, *Injury* 2007; Vol 38, Issue 10: 1146-50.
9. Sodl JF, Bassora R, Huffman GR, Keenan MA. Traumatic myositis ossificans as a result of college fraternity hazing. *Clin Orthop Relat Res*. 2008 Jan; 466(1):225-30.
10. Herti S, Devaux B, Gattfossé M, et al. Myosite ossificante circunscrite. *Rev Med Int* 2008; 295:5337-411.
11. Tyler P. The imaging of myositis ossificans. *Semin Musculoskeletal Radiol* 2010; 14(2):201-16.
12. Medina-Gálvez N, et al. Actualización sobre el diagnóstico y tratamiento de la osificación heterotópica. *Rehabilitación (Madr)* 2008; 42(1):34-43.
13. Balmaceda C, y cols. Miositis Osificante Circunscrita. *Rev. chil. reumatol* 2012; 28(1):59-63.
14. Frederick S. Kaplan, et al. Las calcificaciones heterotópicas. *J Am Acad Orthop Surg* 2004; 12:116-25.
15. Moore KD, et al. Indomethacin versus radiation therapy for prophylaxis against heterotopic ossification in acetabular fractures: a randomised, prospective study. *J Bone Joint Surg Br* 1998 Mar; 80(2):259-63.
16. D. Knelles et al. Prevention of heterotopic ossification after total hip replacement. A prospective, randomised study using acetylsalicylic acid, indomethacin and fractional or single-dose irradiation. *J Bone Joint Surg* 1997; 79-B:596-602.
17. Shin Sj. Myositis Ossificans after a Trigger Point Injection. *Clin Orthop Surg* 2011; 3(1):81-5

Correspondencia: Dr. Sergio Benavente C.
E-mail: dr.sbenavente@gmail.com
Dirección: Avda. San Sebastián 476 Depto. 401 B.
Lomas de San Sebastián, Concepción.