

РЕЦИДИВИ АНЕВРИЗМАЛЬНИХ КІСТ КІСТОК У ДІТЕЙ ТА ПІДЛІТКІВ: ФАКТОРИ, ЩО ВПЛИВАЮТЬ НА ЇХ РОЗВИТОК

А. П. Крись-Пугач, Ю. М. Гук, В. В. Григоровський, А. В. Рославцев
ДУ “Інститут травматології та ортопедії НАМН України”, м. Київ

RECURRENCES OF ANEURYSMAL BONE CYST IN CHILDREN AND TEENAGERS: FACTORS INFLUENCING ON ITS DEVELOPMENT

A. P. Kryś-Pubach, Yu. M. Guk, V. V. Hryborovskiy, A. V. Roslavtsev

It is reported about retrospective analysis of clinical and radiographic picture of disease in 164 patients with aneurysmal bone cysts (ABC). In 38 patients there was a disease recurrence. The correlation between recurrence rate and patient's sex (male-female), age, focus shape according to W. F. Enneking, focus kind according to R. Saranna was to be found.

Key words: recurrence, sex, age, cyst.

РЕЦИДИВЫ АНЕВРИЗМАЛЬНЫХ КИСТ КОСТЕЙ У ДЕТЕЙ И ПОДРОСТКОВ: ФАКТОРЫ, ВЛИЯЮЩИЕ НА ИХ РАЗВИТИЕ

А. П. Крись-Пугач, Ю. Н. Гук, В. В. Григоровский, А. В. Рославцев

Представлен ретроспективный анализ клинико-рентгенологической картины заболевания у 164 пациентов с аневризмальными кистами костей (АКК), среди которых рецидив заболевания возник у 38. Установлена зависимость частоты развития рецидивов АКК от пола и возраста пациентов, от форм очагов по W. F. Enneking и типов по R. Saranna.

Ключевые слова: рецидив, пол, возраст, киста.

Вступ

Відповідно до сучасної класифікації хвороб МКХ-10 *аневризмальна кіста кістки* (АКК) належить до групи захворювань “Інші порушення кісткової щільності та структури” (М 85.5), що пояснюється нез’ясованими етіологією та патогенезом.

Сьогодні, за визначенням ВООЗ, АКК — це пухлиноподібне ураження кісткової тканини, з нез’ясованими етіологією та патогенезом, що являє собою літичний осередок з експансивним ростом, який складається із заповнених кров’ю комірочок різного розміру, відокремлених одна від одної сполучнотканинними перетинками, які у свою чергу містять кісткові трабекули, тканини остеїду та гігантські остеокластоподібні клітини [1–3, 5, 7, 11–13].

Незважаючи на майже двовікову історію дослідження кіст кісток, результати лікування хворих на АКК, на жаль, не задовольняють потреб сучасної медицини через велику кількість рецидивів, які вимагають додаткових хірургічних втручань, погіршують кінцеві функціональні результати лікування, значно пролонгують у часі термін лікування, соціально дезадаптують пацієнтів та призводять до інвалідності дітей та підлітків [6, 7].

За визначенням деяких авторів, рецидив АКК — це подальше прогресування патологічного процесу після хірургічного лікування (збільшення об’єму), лізис трансплантата або повторне виникнення осередку більше ніж на третину первинно ураженої ділянки кістки [6, 7, 15].

На превеликий жаль, жоден з існуючих методів лікування не гарантує пацієнту повного одужання. За даними

G. Bollini et al., С. P. Gibs et al., А. М. Vergel De Dios, P. P. Lin et al. та ін., рецидиви АКК розвиваються у 10–59% усіх випадків захворювання та виникають у 95% випадків у перші 24 міс. після лікування [2, 4, 6, 8].

Мета роботи — установити залежність частоти розвитку рецидивів АКК після хірургічного лікування від віку і статі пацієнтів та клініко-рентгенологічних характеристик осередків АКК.

Матеріали і методи

Дослідження базується на ретроспективному аналізі клініко-рентгенологічної картини захворювання у 164 хворих на АКК, що лікувалися в клініці “Ортопедії та травматології дитячого віку” ДУ “ІТО АМНУ” за період з 1985 по 2010 р.

Вік пацієнтів — від 1 до 18 років. Для встановлення залежності частоти розвитку рецидивів АКК від віку, всі пацієнти в нашому дослідженні були розподілені на чотири вікових групи:

- *I група* — до 5 років (14 хворих);
- *II група* — 6–10 років (48 хворих);
- *III група* — 11–15 років (67 хворих);
- *IV група* — понад 16 років (35 хворих).

За статеву ознакою дещо переважали пацієнти жіночої статі — 85 дівчат та 79 хлопців.

Усім пацієнтам була виконана внутрішньокісткова резекція патологічного осередку з наступною пластикою залишкових порожнин одним з видів пластичного матеріалу або без неї.

Рецидиви захворювання після хірургічного лікування констатовано у 38 пацієнтів (21 — дівчина, 17 — хлопців).

Усі діагнози АКК верифіковані гістологічно.

Для створення статистично однорідних груп спостереження всі пацієнти були розподілені на дві групи:

- до *першої групи* увійшли хворі, яким після видалення патологічних осередків пластика залишкових порожнин не виконувалася;
- до *другої групи* — хворі, яким після видалення патологічних осередків виконувалася пластика залишкових порожнин одним із видів трансплантатів.

Результати та їх обговорення

Під нашим спостереженням знаходилося 164 хворих з АКК, у тому числі 38 хворих з рецидивом АКК після їх хірургічного лікування.

Статистичний аналіз результатів дослідження був проведений за загальноприйнятою методикою для рівномірного розподілення випадкових величин.

Ми з'ясували можливі причинно-наслідкові зв'язки частоти рецидивування АКК у хворих після їх видалення і встановили залежність: від статі, від віку, від клініко-рентгенологічних особливостей осередків АКК

1. Залежність частоти розвитку рецидивів АКК від статі

У літературі, на жаль, трапляються лише поодинокі повідомлення про залежність розвитку рецидивів від статі пацієнтів. Так, K. Basarir et al. вказує на незначну перевагу рецидивів захворювання у пацієнтів чоловічої статі — у дослідженні авторів співвідношення розвитку рецидивів АКК у хлопчиків та дівчаток було 5:4 [7].

Нами була досліджена залежність рецидивування АКК від статі хворих. Кількість та частота розвитку рецидивів АКК у хворих залежно від статі наведені в табл. 1.

Як видно з табл. 1, у нашому дослідженні стать суттєво не впливала на частоту розвитку рецидивів АКК.

Так, серед 31 дівчинки, яким видалили патологічні осередки без пластики залишкових порожнин, рецидиви виникли у 7 (22,58%), а серед 55 дівчаток, яким була виконана пластика залишкових порожнин, рецидиви виникли у 14 (25,45%).

Серед 27 хлопчиків, яким не виконували пластику, рецидиви виникли у 6 (22,22%), а серед 51 хлопчика, яким була виконана пластика, — в 11 (21,56%).

2. Залежність частоти розвитку рецидивів АКК від віку

Літературні дані про залежність частоти рецидивування АКК від віку пацієнтів не однозначні.

Так, J.L. Biesecker et al. повідомляють про тенденції значно підвищеного коефіцієнта рецидиву у дітей молодших за 15 років порівняно з пацієнтами більш старшого віку [1].

C.P. Gibb et al. також стверджують, що рецидиви АКК значно частіше виникають у пацієнтів віком від 1 до 10 років [6].

У дослідженнях A.A. Freiberg et al. рецидиви захворювання у пацієнтів молодше 10 років виникали у 3 рази частіше ніж у більш старших [3].

K. Basarir et al. вважають, що віковий показник є важливим прогностичним критерієм розвитку рецидивів і вказують на те, що у пацієнтів молодше 10 років частота розвитку рецидивів збільшується до 71%, а у пацієнтів молодше 5 років вона сягає 75% [7].

З іншого боку, J. Cottalorda et al. та J.P. Dormans et al. вважають, що вік пацієнтів не впливає на частоту розвитку рецидивів [11, 15].

Таким чином, чітких даних стосовно залежності частоти розвитку рецидивів АКК від віку пацієнтів у літературі не має.

Кількість та частота розвитку рецидивів АКК у пацієнтів різних вікових груп у нашому дослідженні наведені в табл. 2.

Дані табл. 2 свідчать, що незалежно від застосування пластики залишкових порожнин частота виникнення рецидиву АКК була значно вища у хворих більш молодших вікових груп. Так, рецидив виник:

- у *I групі*:
 - серед 4 хворих без пластики залишкових порожнин — у 3 (75%);
 - серед 10 хворих з пластикою — у 5 (50%);
- у *II групі*:
 - серед 16 хворих без пластики залишкових порожнин — у 5 (31,25%);
 - серед 32 хворих з пластикою — у 10 (31,25%);
- у *III групі*:
 - серед 26 хворих без пластики залишкових порожнин — у 4 (15,38%);
 - серед 41 хворого з пластикою — у 7 (17,07%);
- у *IV групі*:
 - серед 12 хворих, без пластики залишкових порожнин — в 1 (8,33%);
 - серед 23 хворих з пластикою — у 3 (13,04%) хворих.

Таблиця 1

Кількість та частота розвитку рецидивів АКК залежно від статі пацієнтів

Стать пацієнтів	Хірургічне видалення тканин патологічного осередку АКК							
	без пластики залишкової порожнини			із пластикою залишкової порожнини				
	Число хворих	Рецидиви		Метод та фактичне значення χ^2 -критерію при порівнянні частот	Число хворих	Рецидиви		Метод та фактичне значення χ^2 -критерію при порівнянні частот
абс.		%	абс.			%		
Жіноча	31	7	22,58	Порівняння частот "дівчата — хлопці" за методом χ^2 $\chi^2 = 12,078$ ($p < 0,01$)	55	14	25,45	Порівняння частот "дівчата — хлопці" за методом χ^2 $\chi^2 = 0,2201$ НВ
Чоловіча	27	6	22,22		51	11	21,56	
Усього:	58	13	22,41		106	25	23,56	

Примітка. p — ймовірність помилки при порівнянні частот; НВ — статистично не вірогідно.

Кількість та частота розвитку рецидивів АКК у пацієнтів різних вікових груп

Вік пацієнтів, роки	Хірургічне видалення тканин патологічного осередку АКК							
	без пластики залишкової порожнини			з пластикою залишкової порожнини				
	Число хворих	Рецидиви		Метод та фактичне значення χ^2 -критерію при порівнянні частот	Число хворих	Рецидиви		Метод та фактичне значення χ^2 -критерію при порівнянні частот
абс.		%	абс.			%		
До 5	4	3	75,00	Порівняння частот “<5–11–15 років” за методом χ^2 з поправкою Йейтса $\chi^2 = 6,887$ ($p < 0,01$)	10	5	50,00	Порівняння частот “<5–11–15 років” за методом χ^2 з поправкою Йейтса $\chi^2 = 4,844$ ($p < 0,05$)
6–10	16	5	31,25		32	10	31,25	
11–15	26	4	15,38		41	7	17,07	
Понад 16	12	1	8,33		23	3	13,04	
Усього:	58	13	22,41		106	25	23,58	

Примітка. p — ймовірність помилки при порівнянні частот.

3. Залежність частоти розвитку рецидивів АКК від клініко-рентгенологічних особливостей осередків АКК

Для систематизації даних спостереження та встановлення залежності частоти розвитку рецидивів захворювання від клініко-рентгенологічних особливостей патологічних осередків АКК усі вони були розподілені на (модифіковані нами) клініко-рентгенологічні типи за W.F. Enneking та топографо-рентгенологічні типи за R. Saranna [9, 11, 13].

J. Cottalorda et al. та K. Basarir et al. вважають, що розподілення осередків АКК на типи за W.F. Enneking та R. Saranna є важливим прогностичним критерієм. Дослідники стверджують, що активні та агресивні типи кіст за W.F. Enneking та центральні типи кіст за R. Saranna мають значно підвищений коефіцієнт розвитку рецидиву захворювання порівняно з неактивними та периферичними типами АКК. Так, у дослідженні K. Basarir et al. 77% рецидивів припадало саме на агресивні та активні типи за W.F. Enneking та 75% — на центральні типи за R. Saranna [7, 11, 13].

Уперше, враховуючи клінічні особливості та рентгенологічну картину уражень кісток, W.F. Enneking розробив так звану “поетапну організуючу систему”, у якій виділяв 5 типів ураження — неактивні ураження, активні ураження, агресивні ураження, високо диференційовані та низько диференційовані пухлини. Але до доброякісних пухлин та пухлиноподібних уражень скелета, у тому числі АКК, автор відносив лише перші 3 форми [12].

Нами була вдосконалена класифікація W.F. Enneking шляхом більш детального урахування клінічних проявів захворювання та морфологічних особливостей патологічних тканин осередків. Згідно з доповненою класифікацією виділено такі **типи АКК**:

1. *Неактивні ураження* — кісти, які мають безсимптомний перебіг, діагностуються випадково, не призводять до розширення контура кістки.

Морфологічно характеризуються мінімальною мезенхімальною реакцією та запаленням.

Рентгенологічно відмічається сформована періостальна оболонка та виражена зона склерозу на межі ураження та незміненої кістки.

2. *Активні ураження* — викликають незначний больовий симптом, призводять до витончення кортикального шару, розширення контуру кістки.

Рентгенологічно характеризуються наявністю невираженої періостальної оболонки та чіткої межі між патологічним осередком та незміненої кістки без зони склерозу.

3. *Агресивні ураження* — супроводжуються вираженим больовим симптомом, відчуттям дискомфорту, збільшенням об'єму ураженого сегмента та частими патологічними переломами. Ці патологічні осередки швидко збільшуються в об'ємі, імітуючи картину запалення, призводять до деструкції кісткової та хрящової тканини, а в деяких випадках навіть уражують фасції.

Морфологічно визначається виражена мезенхімальна реакція тканин та ознаки запалення.

Рентгенологічно — повністю відсутні ознаки реконструктивного остеогенезу, періостальна оболонка та межі осередку не візуалізуються.

Кількість та частота розвитку рецидивів захворювання у пацієнтів з різними клініко-рентгенологічними типами АКК за W.F. Enneking наведені в табл. 3.

Як видно з табл. 3, рецидиви захворювання виникали частіше у хворих з *активними* та *агресивними типами* кіст.

Так, серед 39 хворих з *активними* кістами, яким не робили пластики залишкових порожнин, рецидиви виникли у 8 (20,51%), а серед 70 хворих з тим же типом кіст, яким була виконана пластика, рецидиви виникли у 17 (24,28%).

У хворих з *агресивними типами* кіст рецидиви виникали дещо частіше. Так, серед 12 хворих, яким видалили осередки без пластики залишкових порожнин, рецидиви виникли у 4 (33,33%), а серед 25 хворих з *тим же типом кіст*, яким була виконана пластика, рецидиви виникли — у 7 (28%).

При *неактивних типах* АКК рецидиви виникали рідше. Так, серед 7 хворих, яким видалили осередки без пластики залишкових порожнин, — в 1 (14,28%), і в 11 хворих, яким була виконана пластика залишкової порожнини, — в 1 (9,09%).

Базуючись на аналізі даних рентгенографії, R. Saranna et al. розробили топографо-рентгенологічну класифікацію захворювання, у якій залежно від локалізації

Таблиця 3

Кількість та частота розвитку рецидивів залежно від типу АКК за W. F. Enneking

Тип АКК за Enneking	Хірургічне видалення тканин патологічного осередку АКК							
	без пластики залишкової порожнини			з пластикою залишкової порожнини				
	Число хворих	Рецидиви		Метод та фактичне значення χ^2 -критерію при порівнянні частот	Число хворих	Рецидиви		Метод та фактичне значення χ^2 -критерію при порівнянні частот
абс.		%	абс.			%		
Неактивна	7	1	14,28	Порівняння частот “неактивна – активна” методом χ^2 з поправкою Йейтса $\chi^2 = 0,1462$ (НВ)	11	1	9,09	Порівняння частот “неактивна – активна” методом χ^2 з поправкою Йейтса $\chi^2 = 1,2698$ (НВ)
Активна	39	8	20,51		70	17	24,28	
Агресивна	12	4	33,33		25	7	28,00	
Усього:	58	13	22,41		106	25	23,58	

Примітка. НВ – статистично не вірогідно.

та поширенні патологічного процесу автори виділяють **5 типів АКК** (I, II – центральні; III–V – периферичні) [10, 14].

Ми вдосконалили класифікацію R. Saranna, шляхом урахування даних комп’ютерної та магніторезонансної томографій (рис.):

- I тип – центрально розташоване вогнище кістки в метафізарній ділянці кістки, яке не змінює нормальний контур кістки або призводить до незначного “вздуття” кістки;
- II тип – кіста розташована центрально, уражує всю метафізарну ділянку кістки, характеризується вираженим експансивним ростом та значним потоншенням кортикального шару;
- III тип – кіста має ексцентрично розташований осередок у метафізарній ділянці кістки, який не змінює нормальний контур кістки або призводить до його незначного “вздуття”;
- IV тип – підокістно розташований ексцентричний осередок, який уражує метафізарну ділянку кістки, характеризується експансивним ростом та призводить до незначної ерозії кортикального шару;
- V тип – ексцентричний осередок, який починається періостально, з часом, призводить до руйнування кортикального шару та розповсюдження процесу в м’які тканини.

Кількість та частота розвитку рецидивів захворювання у пацієнтів з різними клініко-рентгенологічними типами АКК за R. Saranna наведені в табл. 4.

Як видно з табл. 4, у пацієнтів з *центральними типами* АКК рецидив виникав значно частіше. Так, серед:

- 11 хворих з *I типом* АКК, яким хірургічне видалення патологічного осередку було без пластики залишкової порожнини, – у 3 (27,27%);
- 27 хворих з *I типом* АКК, з пластикою залишкової порожнини, – у 6 (22,22%);
- 36 хворих з *II типом* АКК, яким не виконувалася пластика, – у 9 (25,00%);
- 59 хворих з *II типом* АКК, з пластикою залишкової порожнини – у 16 (27,11%).

При *периферичних типах* АКК показники коефіцієнтів частоти виникнення рецидивів були значно меншими. Так, серед:

- 8 хворих з *III типом* АКК, яким хірургічне лікування було виконане без пластики, рецидив розвинувся в 1 (12,50%);
- 13 хворих з *III типом* АКК і пластикою залишкової порожнини – у 2 (15,38%);
- 2 хворих з *IV типом* АКК без пластики порожнини рецидиви не спостерігалися;
- 6 хворих з *IV типом* АКК і пластикою залишкової порожнини рецидив виник в 1 (16,66%);
- 2 хворих з *V типом* АКК в обох групах рецидивів не було.

Ураховуючи літературні дані та наш власний досвід, ми вважаємо, що молодий вік пацієнтів (<10 років), наявність активних чи агресивних типів АКК за W.F. Enneking та центральних типів за R. Saranna є важливими

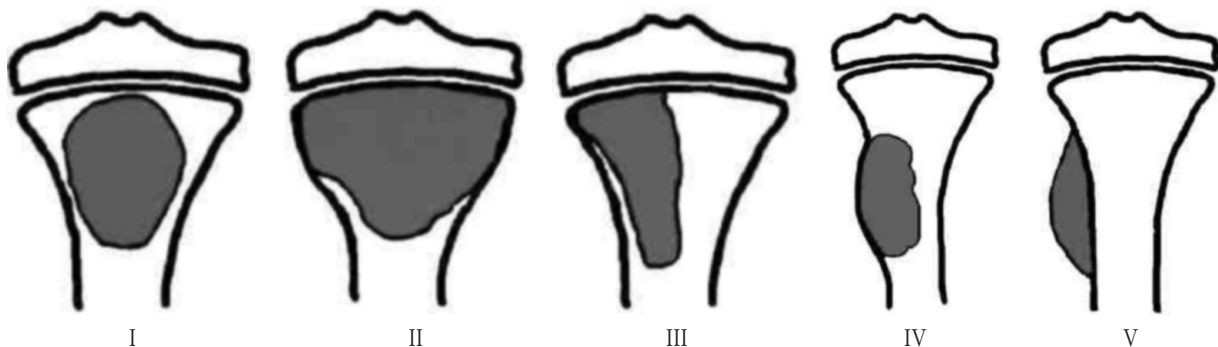


Рис. Топографо-рентгенологічна класифікація R. Saranna (1985) (опис у тексті)

Таблиця 4

Кількість та частота розвитку рецидивів залежно від типу АКК за R. Саранна

Тип АКК за Саранна		Хірургічне видалення тканин патологічного осередку АКК							
		без пластики залишкової порожнини				з пластикою залишкової порожнини			
		Число хворих	Рецидиви		Метод та фактичне значення χ^2 -критерію при порівнянні частот	Число хворих	Рецидиви		Метод та фактичне значення χ^2 -критерію при порівнянні частот
абс.	%		абс.	%					
Центральні	I	11	3	27,27	Порівняння частот "II–III тип" методом χ^2 з поправкою Йейтса $\chi^2 = 0,5823$ (НВ)	27	6	22,22	Порівняння частот "II–III тип" методом χ^2 з поправкою Йейтса $\chi^2 = 0,7822$ (НВ)
	II	36	9	25,00		59	16	27,11	
Периферичні	III	8	1	12,50		13	2	15,38	
	IV	2	—	—		6	1	16,66	
	V	1	—	—		1	—	—	
Усього:		58	13	22,41		106	25	23,58	

Примітка. НВ — статистично не вірогідно.

прогностичними критеріями щодо розвитку рецидивів захворювання після їх хірургічного лікування.

На нашу думку, при сукупності вищезазначених факторів існує потреба попереджати батьків дитини про досить високу вірогідність рецидиву АКК після її хірургічного видалення.

Висновки

1. Стать пацієнтів не впливає на частоту розвитку рецидивів АКК.
2. Рецидиви захворювання розвиваються значно частіше у хворих більш молодших вікових груп. Частота виникнення рецидивів суттєво не відрізняється у групах хворих, яким застосовували або не застосовували пластику залишкових порожнин.
3. Частота рецидивів захворювання у хворих обох груп спостереження залежить від клініко-рентгенологічних особливостей осередків кіст, так, вона вища саме при активних та агресивних формах АКК за W.F. Enneking та при центральних типах за R. Саранна.

Література

1. Aneurysmal bone cysts : a clinicopathologic study of 66 cases / Biesecker J.L., Marcove R.C., Huwos A.G. [et al.] // Cancer. — 1970. — Vol. 26. — P. 615–625.
2. Aneurysmal bone cyst : A clinicopathologic study of 238 cases / Vergel De Dios A, M., Bond J.R., Shives T.C. [et al.] // Cancer. — 1992. — Vol. 69. — P. 2921–2931.
3. Aneurysmal bone cyst in young children / Freiberg A.A., Loder R.T., Heidelberg K. P [et al.] // J. Pediatr. Orthop. — 1994. — Vol. 14. — P. 86–91.

4. Aneurysmal bone cyst in children : analysis of twenty-seven patients / Bollini G., Jouve J.L., Cottalorda J. [et al.] // J. Pediatr. Orthop. — 1998. — Vol. 7. — P. 274–285.
5. Aneurysmal bone cyst. A population based epidemiologic study and literature review / Leithner A., Windbager R., Lang S. [et al.] // Clin. Orthop. — 1999. — Vol. 363. — P. 176–179.
6. Aneurysmal bone cyst of the extremities. Factors related to local recurrence after curettage with high-speed burr / Gibbs C.P., Hefele M.C., Peabody T.D. [et al.] // J. Bone Jt Surg. — 1999. — Vol. 81. — P. 1671–1678.
7. Aneurysmal bone cyst recurrence in children : A review of 56 patients / Basarir K., Piskin A., Guglu B. [et al.] // J. Pediatr. Orthop. — 2007. — Vol. 27. — P. 938–943.
8. Aneurysmal bone cysts recur at juxtaphyseal location in skeletally immature patients / Lin P.P., Brown C., Raymond A.K. [et al.] // Clin Orthop Relat Res. — 2008. — Vol. 466, № 3. — P. 722–728.
9. Aneurysmal bone cyst of the pelvis : A challenge in treatment : Review of the literature / Bajracharya S., Prasad Kbanal G., Sundas A. [et al.] // J. Orthop. Surg. — 2008. — Vol. 8, № 1.
10. Capanna R. Unicameral and aneurysmal bone cysts / Capanna R., Campanacci D. A, Manfrini M. // Orthop. Clin. North. Am. — 1996. — Vol. 27. — P. 605–614.
11. Cottalorda J. Aggressive aneurysmal bone cyst of the humerus in a child / Cottalorda J., Kobler R., Lorge F. // Rev. Chir. Orthop. — 2004. — Vol. 90. — P. 577–580.
12. Enneking W.F. A system of staging musculoskeletal neoplasm / Enneking W.F. // Clinical. Orthop. Relat. Res. — 1985. — № 1. — P. 9–24.
13. Epidemiology of aneurysmal bone cyst in children : a multicenter study and literature review / Cottalorda J., Kobler R., Gauzy J.S. [et al.] // J. Pediatr. Orthop. — 2004. — Vol. 13-B. — P. 389–394.
14. Juxtaepiphyseal aneurysmal bone cyst / Capanna R., Springfield D.S., Biagini R. [et al.] // Skeletal. Radiol. — 1985. — Vol. 13. — P. 21–25.
15. Surgical treatment and recurrence rate of aneurysmal bone cyst in children / Dormans J.P., Hanna B.G., Johnston D.R. [et al.] // Clin. Orthop. — 2004. — Vol. 421. — P. 205–211.