

# Osteoid osteom kot vzrok šepanja zaradi bolečin v kolku

Prikaz primera /  
Case report

## Hip pain and limping due to osteoid osteoma

Mateja Kladnik Rifel, Blaž Mavčič,  
Gašper Markelj

### Izvleček

Pomembna skupina bolezni, na katere moramo pomisliti ob pojavu bolečine v kolku s posledičnim šepanjem, so novotvorbe kosti. Pogosto gre za benigne novotvorbe, med katere uvrščamo tudi osteoid osteom kot primarni benigni kostni tumor, ki se najpogosteje pojavlja v otroškem in mladostniškem obdobju. Zanj je značilna klinična slika hude in naraščajoče nočne bolečine v področju prizadete kosti, ki odgovori na zdravljenje z acetilsalicilno kislino ali nesteroidnimi protivnetnimi zdravili. Diagnostična slikovna preiskava je računalniška tomografija, histopatološka potrditev pa za potrditev diagnoze ni nujna. Zdravljenje je konzervativno in kirurško, ob nepopolni odstranitvi žarišča pa se bolezen lahko ponovi. Predstavljamo primer triletnega dečka z osteoid osteomom v področju kolka.

**Ključne besede:** bolečina, kolk, novotvorbe kosti, osteoid osteom, slikovno diagnosticiranje, otrok.

### Abstract

Bone neoplasms are an important group of diseases that need to be considered when evaluating a child with hip pain and limping. Benign tumours are the most common. Osteoid osteomas are benign skeletal neoplasms most commonly seen during childhood and adolescence. Patients are affected with nocturnal pain, which is usually severe and progressing and is typically alleviated by salicylates and other nonsteroidal anti-inflammatory drugs. Computed tomography is the diagnostic modality of choice. Treatment options are conservative and surgical. The case of a three-year-old boy with osteoid osteoma of the hip is presented.

**Key words:** hip, pain, bone neoplasms, osteoma, osteoid, diagnostic imaging, child

Benigne novotvorbe kosti	Maligne novotvorbe kosti	Tumorjem podobne kostne lezije
osteohondrom (eksostoza)	osteosarkom	neosificirajoči fibrom
osteoid osteom	Ewingov sarkom	anevrizmalna kostna cista
enhondrom		solitarna kostna cista
hondroblastom		fibrozna displazija
osteoblastom		eozinofilni granulom
gigantocelični tumor kosti		

TABELA 1: NAJPOGOSTEJŠI OTROŠKI PRIMARNI KOSTNI TUMORJI IN TUMORJEM PODOBNE KOSTNE LEZIJE (POVZETO PO 1).

TABLE 1: MOST COMMON CHILDHOOD PRIMARY BONE TUMOURS AND TUMOUR-LIKE BONE LESIONS (ADOPTED ACCORDING TO 1).

## Uvod

V otroštvu je akutna bolečina v kolku s posledičnim šepanjem pogost razlog za obisk zdravnika. Po izključitvi nujnih stanj, kot so okužbe in poškodbe, so vzroki šepanja lahko ortopedske bolezni, revmatološke bolezni in kostni tumorji. Na slednje pomislimo predvsem ob anamnestičnem podatku o bolečinah ponoči in v mirovanju ter ob radiološko vidni kostni leziji ali patoloških zlomih (1–3).

Med primarnimi kostnimi tumorji so benigne spremembe veliko pogostejše od malignih. V Tabeli 1 poleg primarnih kostnih tumorjev navajamo tudi druge tumorjem podobne kostne lezije, ki sicer niso prave kostne novotvorbe, a jih v literaturi pogosto omenjajo skupaj z benignimi tumorji kosti (1).

Sekundarni kostni tumorji so pri otrocih redki. Najpogostejši so zasevki nevroblastoma, mehkotkivnih tumorjev in limfoma (1, 4).

V nadaljevanju predstavljamo primer dečka z diagnozo osteoid osteom,

ki je za osteohondromom drugi najpogostejši benigni kostni tumor pri otrocih (1).

## Osteoid osteom

Osteoid osteom je benigni tumor kosti, ki se najpogosteje pojavlja pri mladostnikih in mladih odraslih, pogosteje pri moškem spolu. Gre za osteoplastno neoplazmo, ki običajno ne napreduje in predstavlja 10–12 % vseh benignih tumorjev kosti ter 2–3 % primarnih kostnih tumorjev (1, 5).

V centralnem delu tumorske spremembe – nidusu – je veliko osteoplastov, ki tvorijo nemineraliziran osteoid. Osteoid osteom se pojavlja skoraj izključno kot solitarna lezija, ki je navadno manjše velikosti (1,5–2 cm), okrogle ali ovalne oblike in ostro razmejena od okolne sklerotične kosti. Prvenstveno se pojavlja kortikalno v področju diafiz in metafiz dolgih cevastih kosti udov (> 50 % v golenici in stegenici). V 10–20 % je prizadeto vretence, najpogoste-

je v lumbalnem predelu, kar se lahko kaže s klinično sliko reverzibilne skolioze (1, 5, 6).

Težave se navadno začnejo kot močna lokalizirana in topa bolečina, ki se pojavlja predvsem ponoči in v mirovanju ter se postopno povečuje. Lezije, ki vzniknejo v sklepah ali tik ob njih, so najpogostejše v področju kolka in lahko povzročijo sinovitis (5–7).

Za osteoid osteom je značilno olajšanje bolečine že po majhnem odmerku salicilatov ali nesteroidnih protirevmatskih zdravil (NSAR), kar je posledica zavore encima ciklooksigenaza-2. V nidusnih osteoplastih so odkrili visoko izražanje ciklooksigenaze-2. Njena encimska produkta prostaglandin E2 in prostaciklin povzročata lokalno vnetje in vazodilatacijo ter posredno vplivata tudi na nastanek reaktivne skleroze ob žarišču in okolnih mehkotkivnih sprememb (4–8).

Na rentgenski (RTG) sliki največkrat vidimo zadebelitev in sklerozo kostni- ne okoli litične svetline nidusa. Slikov-

na preiskava izbire za prepoznanje nidusa in njegovo natančno umestitev je računalniška tomografija (CT), kombinacija CT s scintigrafijo kosti z radioaktivno označenim tehnejem (SPECT-CT) pa s potrditvijo solitarne lezije občutljivost preiskave še poveča. Z magnetnoresonančnim slikanjem (MRI) lahko natančneje prikažemo okolne reaktivne mehko tkivne spremembe (4–6).

Pri naravnem poteku osteoid osteomi večinoma spontano regresirajo v 6–15 letih, ob uporabi NSAR pa se to obdobje skrajša za 2–3 leta. Za kirurško zdravljenje se odločimo pri večini pediatričnih bolnikov ter pri odraslih bolnikih s hudimi bolečinami in neodzivnostjo na zdravila ali z resnimi neželenimi učinki ob jemanju NSAR. Možnosti odstranitve žarišča so odprt kirurški poseg s popolno odstranitvijo tumorja ali CT/MRI vodena perkutana odstranitev z radiofrekvenčno (RF) ablacijo ali lasersko fotokoagulacijo. Po odstranitvi žarišča bolečine praviloma v dveh tednih izzvenijo, postopno pa se nekoliko zmanjša tudi kostna zadebelitev. V primeru nepopolne odstranitve tumorskega tkiva se lahko simptomi in znaki ponovijo (5–7).

## Klinični primer

Skoraj 3-letni deček je obiskal urgentno ambulanto zaradi šepanja in bolečin v levi nogi, ki so vztrajale tri tedne po udarcu v levo koleno ob padcu in bile bolj izrazite ponoči. Klinični pregled je bil brez posebnosti, rentgenska slika levega kolena pa ni razkrila znakov sveže poškodbe. Ob kontrolnem pregledu čez teden dni so bile bolečine omejene na levi kolk, šepanje pa je postalo bolj izrazito. Na rentgenski sliki medenice in kolkov patoloških sprememb niso ugotavljali, ultrazvočni (UZ) pregled levega kolka pa je prikazal sinovitis z manjšim izlivom v levem kolku. Zaradi suma na prehodni sinovitis kolka so svetovali počitek in uvedli zdravljenje z NSAR v

protibolečinskem odmerku, po čemer so se bolečine sicer hitro, a le prehodno umirile. Zaradi vztrajanja težav je deček opravil magnetnoresonančno slikanje (MRI) levega kolka, ki je pokazalo žariščno spremembo v področju metafize leve stegenice z okolnim edemom mehkih tkiv. Kontrolno rentgensko slikanje (RTG) medenice je na istem mestu prikazalo intertrohanterno osteolitično lezijo s premerom 1,5 cm in omejeno s tankim sklerotičnim robom. Zaradi izključitve malignega procesa smo opravili dodatne preiskave. RTG prsnega koša in UZ trebuha nista pokazala posebnosti. Na dinamični scintigrafiji okostja je bilo vidno povečano kopičenje radiofarmaka samo v področju solitarne lezije v vratu leve stegenice.

Za opredelitev opisane lezije v kolku so opravili biopsijo, ki je pokazala nespecifične vnetne spremembe. Tumorskih celic ni bilo videti, mikrobiološke preiskave pa so ostale negativne. Po prejetju izvidov vseh preiskav in izključitvi maligne etiologije je bil deček zaradi suma na kronični rekurentni večžariščni osteomielitis (*angl.* chronic recurrent multifocal osteomyelitis, CRMO) napoten na nadaljnjo obravnavo.

Ves čas od pojava težav je bil deček brez povišane telesne temperature, vrednosti vnetnih kazalnikov pa so bile ob večkratnih kontrolnih pregledih v mejah normalnih vrednosti. Deček je za ustrezen protibolečinski učinek postopno potreboval čedalje višje in pogostejše odmerke NSAR. Po prejetju odmerka so bolečine hitro in povsem popustile, medtem ko je bil protibolečinski učinek paracetamola bistveno manjši.

Glede na dotedanji klinični potek s hitrim in odličnim odzivom na zdravljenje z NSAR ter ponovnim pregledom izvidov slikovnega diagnosticiranja so postavili sum na osteoid osteom, kar so dodatno potrdile značilne spremembe posnetka CT preiskave.

Tri mesece po prvem pregledu so opravili s CT vodeno perkutano radiofre-

kvenčno ablacijo (RFA) z odvzemom tkiva. S histološkim pregledom tkiva so ponovno izključili rakavo bolezen, sprememb, značilnih za osteoid osteom, pa v vzorcu ni bilo zaznati.

Pri dečku se je po posegu klinično stanje hitro izboljšalo, zato ni več potreboval NSAR. Tri tedne po operaciji so se ponovno pojavile bolečine s šepanjem, zato so RFA ponovili. Več mesecev po drugem posegu deček ostaja brez simptomov.

## Razpravljanje

Šepanje otroka z akutno bolečino v kolku je vedno alarmanten znak, ki najprej zahteva izključitev poškodbe in akutnega vnetja sklepa. V širokem naboru vzrokov je najpogostejši prehodni sinovitis kolka. Ob ultrazvočnih znakih sinovitisa, pri katerem po eno do dvotedenskem počitku ne pride do izrazitega izboljšanja, je potrebna nadaljnja obravnavo. Čeprav je pojavnost kostnih tumorjev v zgodnjem otroštvu nizka, moramo med diferencialnodiaognostičnimi možnostmi vedno pomisliti tudi nanje (1–3).

Osteoid osteom je redek vzrok bolečin v udih v otroštvu. Pri našem bolniku so se težave pojavile bolj zgodaj, kot je značilno za bolezen. Pri 85 % bolnikov se bolezen izrazi med 5. in 24. letom starosti. Če je osteoid osteom umeščen v bližini kolka (kot v našem primeru), se bolezen lahko kaže s klinično sliko sinovitisa kolka, tj. s preneseno bolečino v kolenu, bolečino v sklepu, fleksijsko kontrakturo, omejeno gibljivostjo, antalgicnim položajem in šepanjem (5, 6).

Ob prvih slikovnih preiskavah na rentgenskih posnetkih medenice in kolka značilnih sprememb ni bilo videti in so postale zaznavne šele po stopnjevanju težav. V 25 % osteoid osteoma ni mogoče videti na klasični rentgenski sliki (1). Če se nahaja znotraj sklepa (npr. v vratu stegenice), kostne reakcije okoli radiolucentnega nidusa

zaradi odsotnosti periosta ni. Slikovno diagnosticiranje osteoid osteoma je pogosto oteženo tudi zaradi pridruženih vnetnih sprememb (periostalna reakcija, hipertrofija sinovije, izliv v sklep, edem kostnega mozga in mehkih tkiv), ki lahko spominjajo na spremembe ob osteomielitisu ali malignem tumorju kosti (npr. Ewingov sarkom). MRI natančnega prikaza nidusa zaradi majhnosti in neposredne bližine kostnine ne omogoča, a smo v našem primeru z MRI lezijo vsaj okvirno umestili (4–6). Po izključitvi onkoloških in infektivnih vzrokov smo zaradi nespecifičnih mehkih tkivnih sprememb na posnetku MRI in neznačilnega histološkega izvida postavili sum, da so težave povezane s CRMO.

CRMO je predvsem v zadnjem obdobju pogosteje prepoznana vnetna bolezen kosti, ki se najpogosteje pojavlja pri otrocih in se kaže s bolečino v prizadeti kosti. Za razliko od osteoid osteoma so pri tej bolezni navadno prisotni tudi splošni znaki in simptomi, v laboratorijskih izvidih pa ugotavljamo povišane vrednosti vnetnih parametrov in sedimentacije eritrocitov. S slikovnimi preiskavami odkrijemo praviloma multiple kostne lezije, predvsem v metafizah dolgih kosti, ključnici in vretencih. Začetno klinično prezentacijo s solitarno lezijo smo videli pri 54 % bolnikov, a je po podrobnejšem slikovnem diagnosticiranju ob prvih simptomih in značilnih boleznih imelo le eno lezijo samo 10 % bolnikov s CRMO. Deček je sicer izpolnjeval večino meril za postavitev diagnoze, a so ob solitarni leziji in histološkem izvidu za postavitev diagnoze CRMO potrebne tudi povišane vrednosti vnetnih parametrov (9). Tudi značilno hiter in dober odziv na zdravljenje izključno z NSAR je bolj značilen za osteoid osteom.

Osteoid osteom smo potrdili s CT preiskavo, ki bi jo bilo smiselno v diagnostičnem postopku uporabiti prej. Končna postavitev diagnoze osteoid osteom je bila pri našem bolniku v

primerjavi s podatki iz literature kljub vsemu hitra, k čemur je verjetno pripomoglo tudi naglo poslabševanje dečkovih težav. Čas do postavitve diagnoze je bil po podatkih raziskave, opravljene na populaciji otrok, pri kar 43 % otrok daljši od 6 mesecev (7).

V zadnjem obdobju agresivno kirurško zdravljenje nadomeščamo z manj invazivnimi metodami zdravljenja, ki imajo primerljivo uspešnost in manj pridruženih tveganj. Histopatološka ocena vzorcev, pridobljenih z minimalno invazivnimi posegi, je v primerjavi z vzorci, odvzetimi pri klasičnih operacijah, zaradi toplotne deformacije in fragmentacije pogosto otežena. Delež histopatološko potrjenih diagnoz osteoid osteom je zato manjši. Ob značilni klinični sliki osteoid osteoma in tipičnih spremembah, vidnih s slikovnimi preiskavami, histopatološka potrditev za postavitev diagnoze ni nujna, a je pomembna zaradi izključitve drugih malignih ali agresivnih benignih kostnih tumorjev (10, 11).

## Zaključek

Boleče šepanje je pri otroku pogosta težava, ki ima lahko številne vzroke. Nujna stanja zahtevajo pravočasno prepoznanje in takojšnje zdravljenje. Ključna sta natančna anamneza in temeljit klinični pregled, na njuni podlagi pa se nato odločamo za nadaljnje laboratorijske in slikovne preiskave. Čeprav so kostne novotvorbe redke, jih moramo upoštevati v diferencialni diagnozi. Rentgenska slika bolečega predela pogosto prikaže solitarno lezijo z radiološkimi značilnostmi, ki nas že lahko usmerijo k pravilni diagnozi. Nadaljnje slikovne preiskave skupaj z morebitnim odvzemom vzorcev za histopatološki pregled pomagajo pri postavitvi končne diagnoze.

Izrazit odziv na zdravljenje z NSAR nas poleg značilne klinične slike lahko hitreje usmeri k diagnozi osteoid osteom.

## Literatura

1. Kliegman R, et al. Nelson Textbook of Pediatrics. 20th edition. Philadelphia: PA: Elsevier; 2016.
2. Pomeranz AJ, Sabins S, Busey SL, Kliegman RM. Pediatric Decision-Making Strategies. 2nd edition. Philadelphia: Elsevier, 2016.
3. Butenko T, Blazina Š. Pristop k otroku s težavami s sklepi. Slov Pediatr 2016; 23: 197–207.
4. Wyers MR. Evaluation of pediatric bone lesions. Pediatr Radiol 2010; 40: 468–473.
5. Iyer RS, Chapman T, Chew FS. Pediatric bone imaging: diagnostic imaging of osteoid osteoma. AJR Am J Roentgenol 2012; 198: 1039–1052.
6. Noordin S, Allana S, Hilal K, et al. Osteoid osteoma: Contemporary management. Orthop Rev 2018; 10(3): 7496.
7. May CJ, Bixby SD, Anderson ME, Kim YJ, Yen YM, Millis MB, Heyworth BE. Osteoid Osteoma About the Hip in Children and Adolescents. J Bone Joint Surg Am. 2019; 101(6): 486–493.
8. Goto T, Shinoda Y, Okuma T, Ogura T, Tsuda Y, et al. Administration of nonsteroidal anti-inflammatory drugs accelerates spontaneous healing of osteoid osteoma. Arch Orthop Trauma Surg. 2011; 131(5): 619–25.
9. Roderick MR, Shah R, Rogers V, Finn A, Ramanan AV. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis (CRMO) - advancing the diagnosis. Pediatr Rheumatol Online J. 2016; 14(1): 47.
10. Laredo JD, Hamze B, Jeribi R. Percutaneous biopsy of osteoid osteomas prior to percutaneous treatment using two different biopsy needles. Cardiovasc Intervent Radiol 2009; 32(5): 998–1003.
11. Ghanem I. The management of osteoid osteoma: updates and controversies. Curr Opin Pediatr. 2006; 18: 36–41.

**Mateja Kladnik Rifel, dr. med.**

Zdravstveni dom Celje, Celje, Slovenija

**izr. prof. dr. Blaž Mavčič, dr. med.**

Ortopedska klinika, Univerzitetni klinični center Ljubljana, Ljubljana, Slovenija

**asist. Gašper Markelj, dr. med.**

**(kontaktna oseba / contact person)**

Služba za alergologijo, revmatologijo in klinično imunologijo

Pediatrična klinika

Univerzitetni klinični center Ljubljana

Bohoričeva ulica 20, 1000 Ljubljana, Slovenija

e-naslov: gasper.markelj@kclj.si

prispelo / received: 11. 8. 2019

sprejeto / accepted: 30. 8. 2019