

INSTITUTO TRAUMATOLÓGICO. — Director: Dr. José Luis Bado.  
Montevideo

## ADAMANTINOMA DE LA TIBIA

*Hebert Cagnoli*

Cirujano asistente

En 1913 Fischer (Frankfurter Ztschr. f. pathol.) describe un tumor epiteliomatoso de la tibia aparentemente similar al adamantinoma del maxilar.

En 1930 Richter describe un segundo caso de tumor óseo epitelial que reproduce las características de los que nacen de un brote dentario primitivo.

En estos últimos diez años se publican en la literatura anglo-americana varios casos de adamantinoma de la tibia, reuniendo en 1939 Rankin, un total de 11 Observaciones.

El adamantinoma del maxilar, neoformación epitelial benigna, sólida o quística, se relaciona por su estructura a los tejidos dentarios normales, embrionarios o adultos.

Según las diversas hipótesis, su origen se puede encontrar:

1º) En órganos del esmalte supernumerarios o gérmenes dentarios que sufren la evolución quística.

2º) En divertículos del epitelio de la mucosa bucal que se incluyen y van a la especialización en epitelio del esmalte.

3º) En los restos paradentarios de Malassez.

Como hacen notar Leriche y Cotte, todas estas teorías muestran que el material celular tiene el mismo origen ectodérmico. Microscópicamente los núcleos epiteliales presentan una composición típica que recuerda el desarrollo embriológico del órgano del esmalte, las células externas son cilíndricas altas a una o varias capas, en correspondencia con células epiteliales estrelladas de

escaso protoplasma, cuyos prolongamientos se entrelazan formando una red. En las mallas del retículo interno existe abundante tejido intercelular, razón por la cual el conjunto recuerda al tejido mucoide.

Tumores epiteliales con las mismas características se han encontrado en la pituitaria y Thoma aporta un raro caso del ovario. En los huesos largos solo se conocían las localizaciones a nivel de la tibia hasta que Anderson y Saunders describen en setiembre de 1942 la primera observación a nivel del cúbito.

En el Instituto Traumatológico hemos tenido ocasión de estudiar un caso de adamantinoma de la tibia que sirve de motivo para esta comunicación.

J. S. 14 años. Ingresó en agosto 13 de 1942. Ficha N° 4672.

*Motivo de la consulta:* Dolor a nivel del tercio medio de tibia izquierda.

*Antecedentes:* Ha sido siempre sano. No hay antecedentes familiares.

*Enfermedad actual:* Hace 4 meses comienza a sentir dolores en el tercio medio de la pierna izquierda, sobre la cara antero-interna de la tibia. Esos dolores aparecían a la presión directa en esa zona o durante la marcha prolongada o la carrera. Poco tiempo después nota a ese nivel discreta tumoración de consistencia ósea, no limitada y sin producir modificaciones en los tejidos vecinos. No recuerda haber recibido ningún traumatismo a ese nivel.

*Examen:* Buen estado general; piel y mucosas de coloración normal. longilíneo, con buen desarrollo corporal de acuerdo a su edad.

Al examen de su pierna izquierda comprobamos a la inspección en el tercio medio, sobre la cara antero-interna de la tibia, ligero engrosamiento difuso que deforma discretamente la región. No hay modificaciones de la piel ni de los tejidos vecinos. No hay atrofia de la pantorrilla.

A la palpación hay aumento del calor local. La piel no adhiere a la tumoración que es difusa y forma cuerpo con la tibia, presentándose como un verdadero engrosamiento de ese hueso. La superficie de la tumoración es lisa e indolora a la presión.

*Radiografía:* Imagen osteolítica del tercio medio de la tibia que "infla" el hueso ligeramente sin romper la cortical. Esta imagen cavitaria es irregular y está limitada en algunas zonas por condensación ósea. No hay reacción perióstica. No presenta esa imagen la clásica transparencia uniforme del quiste óseo y la claridad de esta imagen osteolítica tiene cierta densidad que no es homogénea, como sucede en los quistes óseos que en su interior tienen masas fibrosas. (ver Fig. 1).

*Numeración de glóbulos:* Rojos 4.200.000. Blancos 7.600. Hemoglobina 81 %. *Fórmula leucocitaria:* normal.

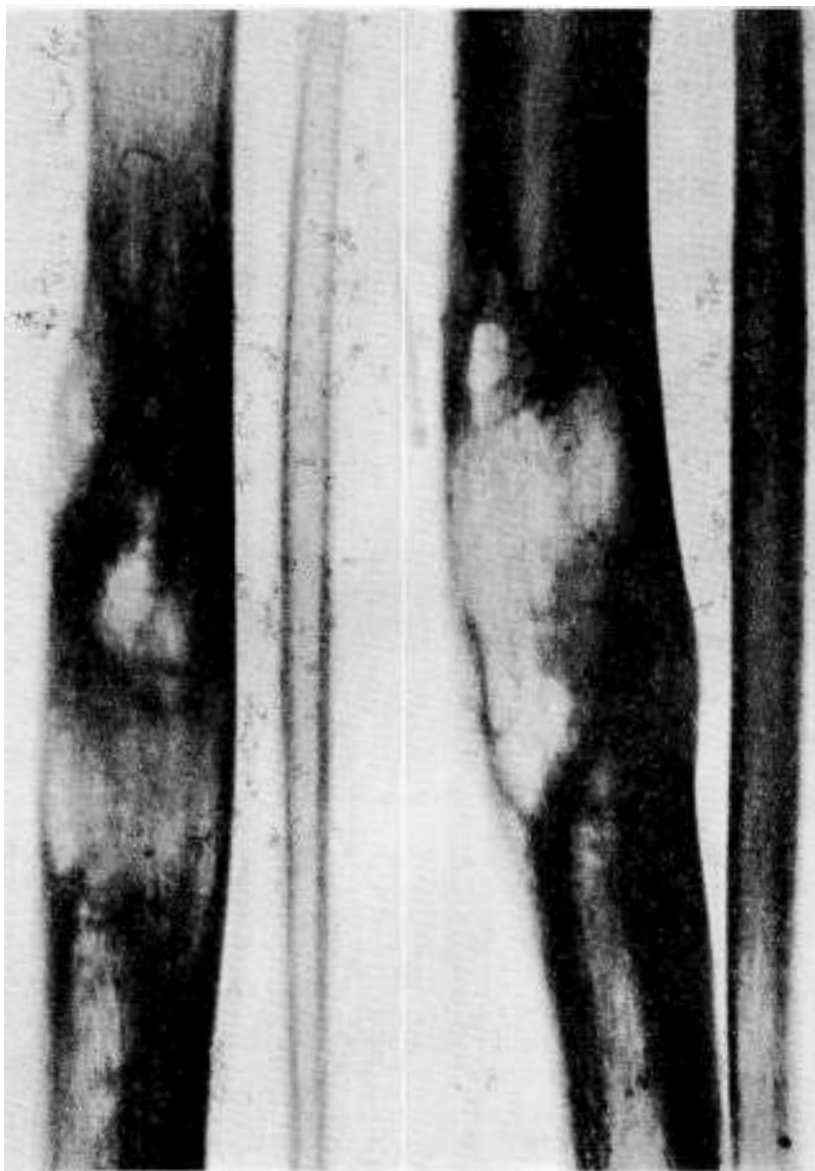


FIG. 1

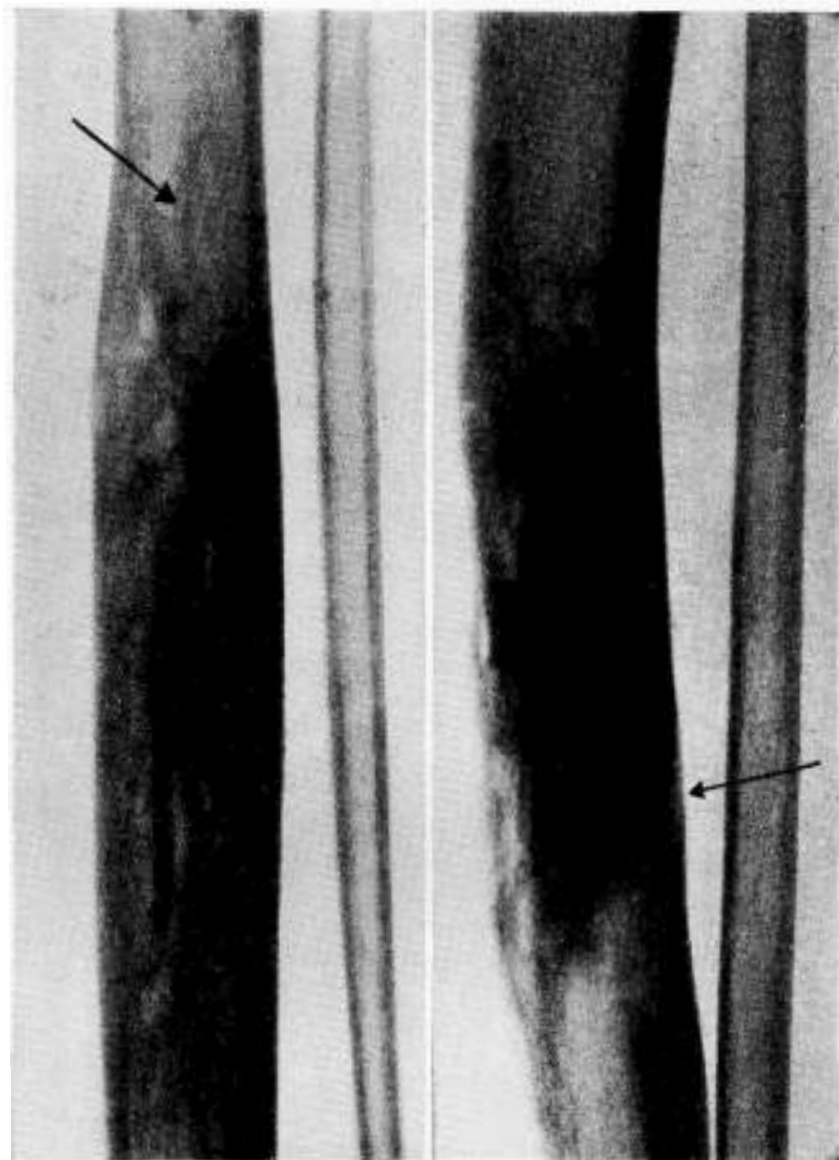


FIG. 2. — Radiografía a los 7 meses de la operación. Las flechas indican dos sitios con imágenes esteolíticas, lo que indicaría que el tumor no ha sido vaciado completamente.

*En síntesis:* La imagen radiográfica por su aspecto recuerda al quiste óseo, pero encontramos en ella algunas particularidades que nos llaman la atención, sobre todo su localización diafisaria, la irregularidad de sus límites, la ausencia de "cáscara" limitante y su infiltración.

*Intervención:* Agosto 19 de 1942. Cirujano: Dr. Bado. Anestesia General, éter y CO<sub>2</sub>. Incisión arciforme a convexidad externa abarcando la lesión tibial. Se llega al periostio que se incinde y se separa del hueso. Con escoplo y martillo se levanta una tapa de la cortical que se presenta reducida a unos milímetros de espesor y cuya cara profunda adhiere al tejido que llena la cavidad. La masa que ocupa esa cavidad es de color blanco grisáceo, de consistencia firme; no tiene ni el aspecto típico del tumor a mieloplaxas ni el de los sarcomas, ni el de las lesiones inflamatorias crónicas del hueso. Cuando se comprime esa masa entre los dedos se tiene una sensación arenosa que indica la existencia de pequeños fragmentos de trabeculas óseas. Se curetea ampliamente la cavidad, vaciándola completamente. Se toman injertos osteoperiosticos de la tibia homóloga y con ellos se rellena la cavidad residual. Cierre del periostio. Sutura del tejido celular y de la piel. Se hace aparato de yeso.

*Post-operatorio:* Normal. Al mes de operado se le renueva el yeso con plantar de marcha. A los tres meses se le retira el enyesado: herida perfectamente cicatrizada. La pierna se presenta sólida y la tibia no duele.

En setiembre 12 de 1942: Calcemia miligr. % 11.99

Fosfatemia 5.71

Fosfatasemia 9.53 unidades Bodanky

En marzo 1° de 1943 lo volvemos a ver: Estado general excelente; no hay dolor en tibia. Radiografía que muestra la incorporación de los injertos y la cavidad del tumor cubierta. Persiste en uno de los extremos una pequeña imagen esteolítica que plantea la posibilidad que el tumor no ha sido aborreado completamente. (Fig. 2).

Calcemia miligr. % 10.40

Fosfatemia 6.30

Fosfatasemia 7.60 unidades Bodansky

La fosfatasemia elevada que comprobamos en ambos exámenes y que se presenta algo menor en el segundo examen, es el índice de la actividad reparadora a nivel de la cavidad llena de injertos.

El Prof. Brachetto Brian de Buenos Aires hizo el estudio histológico del tumor y nos informa que se trata de un adamantinoma de la tibia.

*En resumen:* Se trata pues, de un caso excepcional de adamantinoma de la tibia, tratado por cureteado cuidadoso y relleno de numerosos pequeños y finos injertos osteoperiosticos. A los siete meses de la operación la lesión parece presentarse rellena en casi toda su extensión por los injertos que se han incorporado en su totalidad.

Sin embargo, hay una zona señalada con una flecha en la figura 2, en donde sospechamos pueda recidivar el tumor. En cualquier forma seguiremos la evolución clínico-radiográfica y si se comprobara su progreso recurriremos a la resección seguida de injerto de peroné, intervención que creemos la más indicada cuando es conocida la verdadera naturaleza de la lesión.



FIG. 3. — En este campo se ve una trabécula ósea en vías de lisis por el proceso de osteoclasia. En la periferia la trabécula presenta una orla de osteoblastos.

### **Anatomía patológica.**

Nos encontramos en presencia de un tumor blando pero de consistencia firme; de color blanco grisáceo, esponjoso y que a la presión da una particular sensación arenosa.

Histológicamente a pequeño aumento se ve cantidad de tejido conjuntivo fibroso que constituye la mayoría de la preparación

En su seno se distinguen:

a) Numerosas trabéculas óseas, la mayoría en vías de destrucción por el mecanismo de la osteoclasia, como lo muestra la existencia de imágenes típicas.

b) En otras trabéculas óseas la existencia de un reborde completo de osteoblastos indicaría la existencia de un proceso regenerativo. (Fig. 3).

c) Se observan playas celulares de tejido epitelial de tipo pavimentoso y que se disponen en algunas zonas según la arquitectura especial que corresponde al tejido adamantino. (Fig. 4).

Describiremos las características de cada uno de estos tejidos:

1. *Tejido conjuntivo*. — Tejido conjuntivo vascular de tipo fibroso caracterizado por la escasez relativa de núcleos con abun-

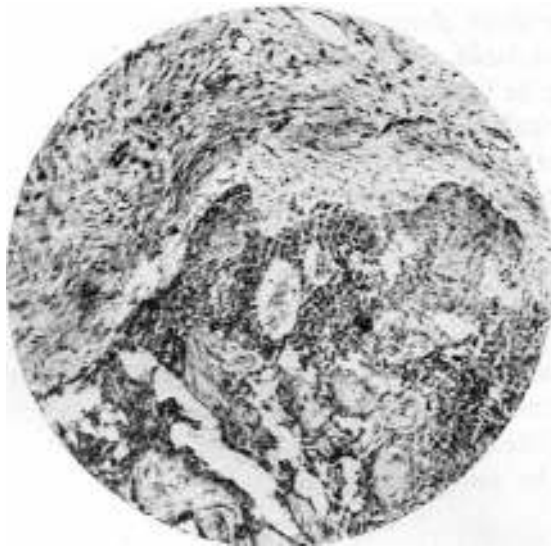


FIG. 4. — Trozo de un nódulo epitelial rodeado de tejido fibroso. En el centro se ve una vesícula adamantina típica.

dante fibra conjuntiva, reconociéndose además los fibrocitos característicos. Llama la atención en este tejido conjuntivo la existencia de una inmaduración de sus vasos. La riqueza vascular es muy grande, lo que está de acuerdo con la característica osteolítica del tumor.

2. *Trabéculas óseas*. — En el seno de esa masa conjuntiva existe abundante cantidad de trabéculas óseas. La mayoría de ellas son pequeñas y en destrucción y el estudio histológico detallado muestra en muchas de ellas Lagunas de Howship con el osteoclasto demoledor. Otras trabéculas son muy pequeñas, como micro-secuestros, lo que explica la sensación arenosa que obteníamos al comprimir el tumor.

En un evidente esfuerzo de reparación, capas de osteoblastos tapizan las trabéculas óseas.

3. *Playas epiteliales.* — En el estroma fibroso descrito hay nódulos epiteliales rodeados por un tejido fibroso rico en células, que demuestra la existencia de un intento de pseudo encapsulación. Al lado de estas playas celulares compactas existen zonas en las cuales pueden encontrarse formaciones vesiculares con un contenido y un continente que recuerdan las vesículas adamantinas. En otras partes se observan vacuolizaciones en el mismo seno de las playas celulares, como si el epitelio estuviera orientado hacia la formación de vesículas que aun no ha llegado a construir.

Las vesículas adamantinas típicas son en este tumor en general escasas; su pared está casi siempre constituida no por el epitelio cilíndrico típico, sino por epitelio pavimentoso estratificado, que corresponde asimismo a uno de los tipos de vesícula adamantina.

Al lado de estas zonas de playas epiteliales pavimentosas y de vesículas, existen otras caracterizadas por presentar el tejido epitelial formando cordones, con filas de células que invaden el estroma vecino y con un carácter hiper Cromático que hace sospechar la existencia de cierto grado de malignidad. (Fig. 5). Sobre este hecho nos llamó la atención el Prof. Brachetto Brian.

### Diagnóstico.

Sólo es posible realizarlo con la ayuda del microscopio. Pero la sospecha clínica debe nacer cuando la radiografía nos muestra una imagen quística diafisaria que se aleja del aspecto típico del quiste óseo, pues la densidad en vez de ser de transparencia uniforme no es homogénea sino que toma el aspecto de una cavidad ósea ocupada por tejido fibroso.

Las características macroscópicas del tumor comprobadas en el acto operatorio nos pueden permitir, con bastante posibilidad, plantear el diagnóstico de adamantinoma y es a la sensación arenosa al tacto a la que le adjudicamos gran valor.

En los varios casos publicados se ha planteado el diagnóstico de quiste óseo, tumor a células gigantes, mieloma, absceso de Brodie y hasta el de sarcoma. Pero en todos los casos ha sido el microscopio el que ha hecho el diagnóstico.



**Características clínicas.**

Los enfermos consultan o por dolor o por tumefacción, relacionando habitualmente la existencia de un traumatismo anterior.

La radiografía muestra una imagen osteolítica que en la mayor parte de los casos ha sido tomada por un quiste óseo. Pero existen algunas características particulares que llaman la atención: falta en unos casos, la transparencia habitual que es carac-

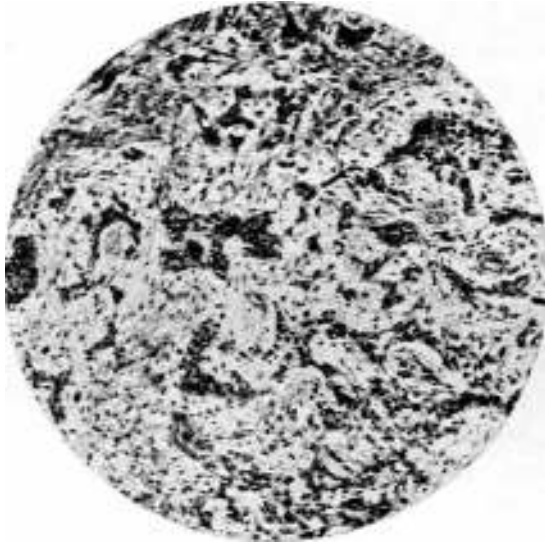


FIG. 5. — Zona donde el tejido epitelial forma cordones con células de marcado hiperchromatismo lo que obliga a sospechar la existencia de cierto grado de malignidad.

terística del quiste óseo; otras veces, como en la observación de Rankin, la cortical ósea se presenta rota en algunos puntos. En otros casos la imagen es similar a la de un tumor a células gigante, pero se distingue de él por la localización diafisaria. No hay ninguna reacción alrededor de la zona de osteolisis ni a nivel del periostio.

Las características evolutivas son similares a las del adamantinoma del maxilar: tumor benigno que a veces adquiere caracteres de malignidad, sin dar metástasis, siendo siempre esa malignidad de tipo local.

**Etiopatogenia.**

Las discusiones que se han planteado alrededor de este punto sólo muestran nuestra ignorancia.

Dos puntos son los que exigen ser aclarados: el origen y la localización.

1º *El origen.* — Hay dos teorías que se aceptan actualmente:

1. Fischer los explica debido a la existencia de restos celulares de origen fetal que van a ser activados por una causa desconocida, a menudo un trauma, para formar uno de estos tumores.

2. Ryrie cree que los tumores se originan en las células basales que son llevadas e implantadas bajo el periostio por un trauma.

Son conocidos los casos de tumores epiteliales de la tibia que se originan por implantación cutánea. Casini presenta un caso de adamantinoma de tibia iniciándose en correspondencia con una vieja fístula consecutiva a un foco osteomielítico de la tibia, datando de 48 años. Este autor que aporta caso tan interesante a favor de la hipótesis de Ryrie, cree que los elementos epiteliales no tienen tal poder de diferenciación como para formar el órgano adamantino; serían pues estos tumores adamantino-símiles y no adamantinomas.

2º *La localización.* — ¿Por qué esa predilección por la tibia? Se ignora por completo el motivo. Los partidarios de la teoría de la implantación celular de Ryrie ven en la localización en la tibia y en el único caso conocido del cúbito, un hecho de importancia a favor de esa hipótesis, pues ambos huesos son superficiales y se encuentran en parte sólo cubiertos por piel.

Pero debemos recordar que la tibia es de los huesos largos el mejor vascularizado y en él la médula roja persiste aun en el estado adulto. Los restos celulares de origen fetal encontrarían en este hueso excelentes condiciones para la reactivación celular y la diferenciación epiteliomatosa.

**Tratamiento.**

Son tumores de baja radiosensibilidad por lo que la radioterapia, ya como único tratamiento o como coadyuvante a la terapéutica quirúrgica es completamente ineficaz.

El tratamiento es quirúrgico y exige la extirpación completa de la lesión.

Como el diagnóstico, en los casos publicados sólo se ha hecho anatomopatológicamente, el tratamiento realizado habitualmente ha sido el curetaje. Este debe ser completo, pues si es incompleto no sólo deja elementos celulares activos sino que es el mejor excitante que pueden recibir las células que quedan y entonces sí que la recidiva se produce a breve plazo. En casi todos los casos tratados por el vaciamiento con cureta y relleno o no con injertos, la recidiva ha sido fatal y ha aparecido en tiempos que varían entre los dos meses y los años.

El tratamiento de elección es la resección del trozo de tibia enfermo, seguida de injerto óseo de la tibia homóloga o del peroné vecino.

En algunos casos el cirujano se vió obligado a llegar a la amputación.

Agradecemos al Prof. Bracheto Brian y Br. Jorge De Vecchi la valiosa colaboración anatomo-patológica que nos han prestado.

#### BIBLIOGRAFIA

- ANDERSON Y SAUNDERS. — *Surg. Gyn. and Obst.* Set. 1942. Pág. 351.  
 BELL LINCOLN. — *British J. Surg.*, p. 81, Julio 1942.  
 BAKER AND HAWKSLEY. — *British J. Surg.* XVIII. Pág. 415. 1930-31.  
 CASINI (A.). — *Il policlinico (sez chir)*. V. XLII. Junio 1935, Pág. 838.  
 HOLDEN AND GRAY. — *J. Bone and Joint Surg.* Abril 1934. Pág. 401.  
 REHBOCK AND BARBER. — *J. Bone and Joint Surg.* Enero 1938. Pág. 187.  
 RANKIN JOHN. — *J. Bone and Joint Surg.* Abril 1939. Pág. 425.  
 WOLFORT AND SLOAM. — *J. Bone and Joint Surg.* Oct. 1938. Pág. 1011.

#### DISCUSIÓN

**Prof. Stajano.** — Me felicito de haber oído la comunicación del Dr. Cagnoli porque se trata de una localización excepcional de un tumor que es corriente y conocido en su lugar de implantación normal, o sea en el maxilar. Es una colaboración interesante porque nos ilustra respecto a la existencia de estos tumores. Del punto de vista del diagnóstico no los tenemos en cuenta dada su rareza y su excepcionalidad. Estoy de acuerdo en que se debe recurrir a la resección, por lo que he podido ver en los adamantinomas maxilares con la práctica del curetaje. No voy a insistir sobre el aspecto radiográfico. Su nula reacción ósea y su escaso poder metastasiente. Tenemos un caso de tumor adamantino del maxilar que se le

hicieron 10 curaciones sucesivas; con abordaje del tumor y curetaje y sin embargo, diez veces recidivó in situs. Se le hizo luego una hemirresección del maxilar. Ese enfermo curó temporariamente e hizo una recidiva de un tumor adamantino por debajo de la arcada zigomática en forma tal, que levantaba el músculo temporal. Hicimos una resección completa del tumor sin recidiva hasta hoy. Ese enfermo fué tratado últimamente con la reparación del maxilar con injerto de costilla y está actualmente en buenas condiciones. Es pues muy interesante la comunicación del Dr. Cagnoli, porque nos trae a colación el estudio de los adamantinomas fuera de su lugar normal.

**Dr. Cagnoli.** — Agradezco al Prof. Stajano los conceptos que nos ha brindado. En nuestro caso como no se tenía el diagnóstico pre operatorio, la intervención ha sido incompleta. Al enfermo lo seguimos vigilando para buscar el momento de la recidiva y hacer la operación indicada, que es la resección del trozo de tibia con injerto de peroné. En estos días, hemos leído en la bibliografía inglesa una nueva localización de adamantinoma al nivel del fémur.