

Xantoma óseo costal primario

Catalina Poggi¹, Noelia M. Espejo¹, Pablo Roitman², Marianela E. Crespo Arizmendi³ y Agustín Dietrich¹

1. Servicio de Cirugía General. Hospital Italiano de Buenos Aires. Buenos Aires, Argentina

2. Servicio de Anatomía Patológica. Hospital Italiano de Buenos Aires. Buenos Aires, Argentina

3. Servicio de Clínica Médica. Hospital Italiano de Buenos Aires. Buenos Aires, Argentina

RESUMEN

El xantoma óseo primario es una entidad clínica extremadamente infrecuente. Afecta en mayor proporción a hombres jóvenes, con mayor presentación en huesos planos del esqueleto axial. Esta patología puede aparecer en forma aislada (primaria) o secundaria (asociada a trastornos endocrinológicos y metabólicos como la hiperlipidemia). La causa secundaria siempre debe investigarse y descartarse, certificando normolipidemia. El abordaje terapéutico del xantoma debe adecuarse a las características de la lesión, su ubicación y la afectación de las estructuras vecinas.

Presentamos el caso de una paciente de sexo femenino sin antecedentes de relevancia, con hallazgo incidental de lesión lítica costal por tomografía computarizada. Debido al riesgo de fractura e imposibilidad de descartar malignidad se realizó resección de cuerpo de quinta costilla derecha guiado por videotoracoscopia. El estudio histopatológico informó: cavidad medular con infiltrado de macrófagos espumosos y numerosos cristales de colesterol, confirmando el diagnóstico de xantoma óseo.

Palabras clave: xantoma óseo, histiocitos, hiperlipidemia, normolipidemia, toracoscopia videoasistida.

Primary Costal Bone Xanthoma

ABSTRACT

Primary bone xanthoma is an exceptionally infrequent clinical entity. It predominantly affects young men, with a higher occurrence in flat bones of the axial skeleton. This pathology can present in an isolated (primary) form or as secondary, associated with endocrinological and metabolic disorders such as hyperlipidemia. It is always necessary to investigate and rule out the secondary cause to certify normolipidemia. The therapeutic approach should be tailored to the lesion characteristics, location, and neighboring structures' affectation.

We present the case of a female patient with no significant history who had an incidental finding of a costal lytic lesion on computed tomography. Due to the risk of fracture and the inability to rule out malignancy, we performed a resection of the body of the fifth right rib, guided by video-assisted thoracoscopic surgery. The histopathological study reported a medullary cavity with infiltration of foamy macrophages and numerous cholesterol crystals, confirming the diagnosis of bone xanthoma.

Key words: bone xanthoma, histiocytes, hyperlipidemia, normolipidemia, video-assisted thoracoscopy.

Autora para correspondencia: noelia.espejo@hospitalitaliano.org.ar, Espejo NM.

Recibido: 20/11/23 Aceptado: 25/05/24 En línea: 19/06/24

DOL: <http://doi.org/10.51987/revhospitalbares.v44i.315>

Cómo citar: Poggi C, Espejo NM, Roitman P, Crespo Arizmendi ME, Dietrich A. Xantoma óseo costal primario. Rev. Hosp. Ital. B. Aires. 2024;44(2):e0000315

CASO CLÍNICO

Paciente de sexo femenino de 57 años, con antecedente de hipertensión arterial, con normolipidemia (colesterol total 200 mg/dL, triglicéridos 167 mg/dL), que asistió a una consulta con el equipo de cirugía torácica, derivada por un hallazgo incidental de una lesión costal en tomografía computarizada de tórax, realizada en contexto de traumatismo. Esta se informó como una lesión expansiva lítica de 44 × 12 mm en el quinto arco costal derecho sin invasión de estructuras musculares (Fig. 1). Al interrogatorio, la paciente negaba dolor, molestias, alteraciones de la mecánica ventilatoria u otra sintomatología asociada. Al examen físico no se encontraba tumoración palpable. Para descartar presencia de otras lesiones asociadas se realizó centellograma óseo corporal total que evidenció una lesión única (Fig. 2). Por otro lado, se efectuó una punción-biopsia percutánea guiada por tomografía cuyo estudio histopatológico informó numerosos macrófagos, células gigantes multinucleadas, depósitos de hemosiderina y cristales de colesterol, sin

presencia de atipia celular, compatible con probable xantoma óseo (XO). Inicialmente, dadas las características de la lesión, se plantearon como diagnósticos diferenciales endocondroma, osteoblastoma, osteosarcoma y enfermedad de Erdheim-Chester.

Por tratarse de una lesión lítica con riesgo de fractura en una paciente joven y sin poder descartar categóricamente malignidad, se decidió su resección quirúrgica. Se realizó resección del cuerpo de la quinta costilla derecha guiada por videotoracoscopia, con márgenes de 3 cm y se envió la pieza a Anatomía Patológica para su estudio diferido. La paciente cursó un posoperatorio sin complicaciones, y se otorgó su alta hospitalaria al quinto día con buen manejo del dolor.

En la anatomía patológica de la lesión, los cortes histológicos mostraron cavidad medular con infiltrado de macrófagos espumosos y numerosos cristales de colesterol. Se observaron además células gigantes multinucleadas, áreas de fibrosis y escasos linfocitos y plasmocitos (Fig. 3) y se arribó al diagnóstico de XO costal.

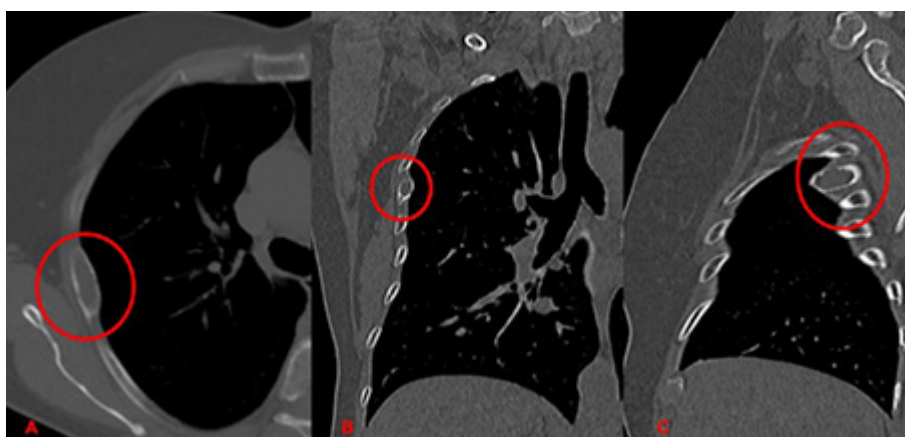


Figura 1. Tomografía computarizada que muestra lesión lítica en sector medio del quinto arco costal derecho. A. Corte axial. B. Corte coronal. C. Corte sagital.



Figura 2. Centellograma con aumento de captación del trazador en lesión del 5.º arco costal derecho.

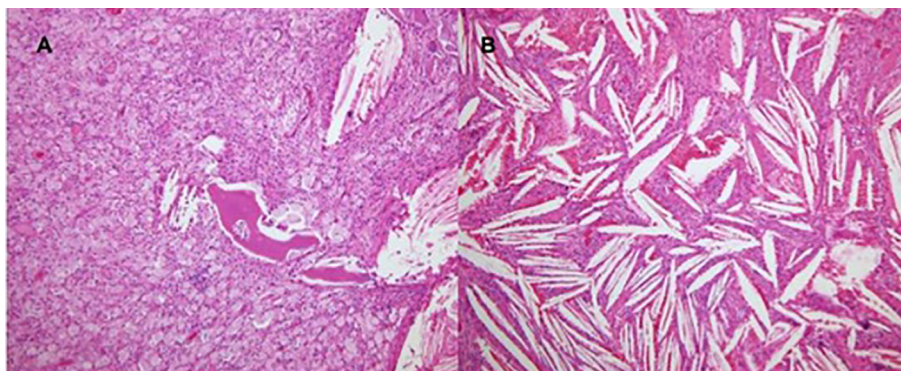


Figura 3. A. Hematoxilina-eosina 10×: se observan espacios medulares ocupados por playas de macrófagos espumosos y cristales de colesterol. B. Hematoxilina-eosina 40×: macrófagos espumosos, con mayor aumento.

DISCUSIÓN

El XO es una patología infrecuente que suele presentarse en pacientes jóvenes de sexo masculino. Estas lesiones se observan frecuentemente en estructuras blandas superficiales, aunque existen escasos informes en la literatura de aparición en estructuras profundas tales como las óseas¹⁻⁶. Los sitios anatómicos más frecuentes de presentación en los informes revisados fueron huesos pelvianos, cráneo, costillas, húmero y vértebras cervicales, con mayor predisposición a la afectación de huesos planos¹. Bertoni y cols. informaron que, de 21 casos, solo 3 se presentaron en parrilla costal. En los textos revisados, las edades de presentación oscilaron entre 7 y 60 años^{1,7}, con una relación hombre-mujer de 2:1, por lo cual existen escasos informes en la literatura de pacientes femeninas como en nuestro caso.

Estas lesiones suelen ser secundarias a enfermedades sistémicas metabólicas, tales como hiperlipidemia; endocrinológicas o sistémicas como la enfermedad de Erdheim-Chester, la granulomatosis de Langerhans o la displasia fibrosa postraumática⁵. También existen casos asociados a traumatismos y fracturas traumáticas. Otra forma de presentación menos frecuente es la primaria, donde estas lesiones se asocian con niveles séricos normales de colesterol y sin otros antecedentes vinculables a la patología, como en nuestro caso del cual se descartaron las causas secundarias que podrían provocarlo.

Con respecto a la presentación clínica de esta patología, en la mayor parte de los pacientes puede asociarse a dolor o sintomatología compresiva relacionada con la ubicación de la lesión; aunque también con menor frecuencia se presenta como un hallazgo incidental en pacientes asintomáticos, como en nuestro caso. La duración media de la sintomatología varía desde 2 semanas a 5 años, con una media de 17,8 meses¹. El diagnóstico imagenológico suele ser complejo y de difícil interpretación. Existen diversos informes que muestran que los XO pueden presentarse en estudios de tomografía computarizada como imágenes isodensas en secuencias

T1 e hiperdensas en secuencias T2^{7,8}, aunque también existen informes donde frecuentemente se presenta como lesiones osteolíticas⁶, tal como ocurrió en el caso presentado en este texto. Ante la sospecha diagnóstica de un XO en imágenes, se sugiere la realización de un centellograma óseo para el estudio de lesiones multifocales y seguimiento posterior¹.

El tratamiento de esta patología puede ir desde el tratamiento conservador hasta cirugías radicales. En el caso del tratamiento médico se halla descrita, para los pacientes con dislipidemia, la reducción de los niveles séricos de colesterol mediante cambios en estilo de vida, dieta hipograsa y uso de fármacos hipolipemiantes como estatinas y ácido quenodesoxicólico, con el concomitante seguimiento semestral con controles radiológicos⁹. Las opciones quirúrgicas varían según la ubicación de la lesión, su tamaño y su relación con las estructuras vecinas. Una vez descartada la patología maligna, en pelvis o tibia están indicados el curetaje e injerto óseo. En otras localizaciones tales como columna vertebral y huesos de base de cráneo se han utilizado terapias adyuvantes como la radiación⁴. En el caso de las lesiones costales, principalmente en aquellas menores de 5 cm, que no comprometen múltiples costillas, partes blandas, pulmón o pleura, existen diversas posibilidades quirúrgicas, siempre respetando márgenes de 2-3 cm¹⁰. En nuestro caso, dado que la lesión no era observable ni palpable, se optó por un abordaje combinado guiado por videotoracoscopia para reconocimiento y marcación de la lesión, con posterior resección por una minitoracotomía, siendo uno de los pocos casos¹¹ en necesitar resección de parrilla costal para su tratamiento definitivo.

CONCLUSIÓN

El xantoma óseo es una condición benigna infrecuente. No es posible llegar a un diagnóstico definitivo basado únicamente en imágenes, por lo que generalmente tiene indicación quirúrgica y es la anatomía patológica la que confirma el diagnóstico. Siempre se debe investigar una

causa secundaria subyacente. El abordaje terapéutico del xantoma debe adecuarse a las características de la lesión, su ubicación y la afectación de las estructuras vecinas.

Contribuciones de autores: Investigación, recursos, tratamiento de datos, revisión de revisión y edición: NEM. Metodología, redacción de manuscrito original: NEM, CP. Conceptualización, administración de proyecto, supervisión: CP, AD. Investigación: CP. Recursos, tratamiento de datos: PR, MC. Análisis formal: PR. Visualización: AD

Conflictos de intereses: los autores declaran no tener conflictos de intereses.

REFERENCIAS

1. Bertoni F, Unni KK, McLeod RA, et al. Xanthoma of bone. *Am J Clin Pathol.* 1988;90(4):377-384. <https://doi.org/10.1093/ajcp/90.4.377>.
2. Marqués Mateo M, Puche Torres M, Miragall Alba L, et al. Primary mandibular bone xanthoma. A case report. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2004;33(8):806-807. <https://doi.org/10.1016/j.ijom.2003.12.006>.
3. Ali S, Fedenko A, Syed AB, et al. Bilateral primary xanthoma of the humeri with pathologic fractures: a case report. *World J Radiol.* 2013;5(9):345-348. <https://doi.org/10.4329/wjrv.5.9.345>.
4. Alden KJ, McCarthy EF, Weber KL. Xanthoma of bone: a report of three cases and review of the literature. *Iowa Orthop J.* 2008;28:58-64.
5. Ortega Hrescak MC, Jerez JM, Arévalo CM y cols. Xantoma intraóseo pelviano: reporte de un caso y revisión de la literatura. *Rev Argent Radiol.* 2014;78(3):161-167. <https://doi.org/10.1016/j.rard.2014.07.005>.
6. Huang CF, Cheng SN, Hung CH, et al. Xanthoma of bone in a normolipidemic child: report of one case. *Acta Paediatr Taiwan.* 2000;41(3):158-160.
7. Asano K, Sato J, Matsuda N, et al. A rare case of primary bone xanthoma of the clivus. *Brain Tumor Pathol.* 2012;29(2):123-128. <https://doi.org/10.1007/s10014-011-0073-x>.
8. Yokoyama E, Ito J, Tokiguchi S, et al. [A case of xanthoma of the skull]. *Rinsho Hoshasen.* 1990;35(9):1057-1060.
9. Ahmed G, Al Dosari M, El-Mahi M, et al. Primary xanthoma of calcaneus bone: case report. *Int J Surg Case Rep.* 2014;5(10):699-702. <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2014.07.016>.
10. Ocakcioglu I, Sayir F. Rib resection using a Gigli saw under thoracoscopic guidance. *Wideochir Inne Tech Maloinwazyjne.* 2019;14(1):126-132. <https://doi.org/10.5114/wiitm.2018.77266>.
11. Mottola E, Adotti F, Pernazza A, et al. Xanthoma of rib: a case report and review of the literature. <https://doi.org/10.21203/rs.3.rs-1561164/v1>.