

Case Report

Iterative Fracture of the Humerus in an Essential Bone Cyst (Case Report)

Abdessamad El hassani^{1*}, Ibrahim Hassani¹, Abdelkoddouce Jellali¹, Jihad Radi¹, Tayeb Bentayeb², Kamal Lahrach^{1,3}, Amine Marzouki^{1,3}, Abderrahmane Afifi^{2,3}, Fawzi Boutayeb^{1,3}

¹Orthopedic and Trauma Surgery Department A, CHU HASSAN II, FEZ, Morocco

²Pediatric Trauma-Orthopedics Department, CHU HASSAN II, FEZ, Morocco

³Faculty of Medicine and Pharmacy of Fez, Sidi Mohamed Ben Abdellah University, FEZ Morocco

Article History

Received: 04.01.2021

Accepted: 16.01.2021

Published: 30.01.2021

Journal homepage:

<https://www.easpublisher.com>

Quick Response Code



Abstract: The essential bone cyst is a benign lytic lesion, which is mainly observed during growth. It is located near a growth cartilage, on the metaphyseal side. The most frequent locations are the upper extremity of the humerus and femur. Essential bone cysts are asymptomatic, apart from pathological fractures due to weakening of the bone. The spontaneous evolution of the cyst is towards diaphyseal migration, at the cost of several fractures. We report the case of a 16-year-old child who presented with an iterative fracture of the humerus on an essential bone cyst, having migrated in the diaphyseal position and treated surgically. Through our work, we want to focus on the predictive factors of recurrence and illustrate through a case study, the diagnostic and therapeutic approach of the essential bone cyst.

Keywords: Essential bone cyst, Pseudotumor, Pathological fracture, Benign tumor, Minimally invasive treatment, Osteosynthesis.

Copyright © 2021 The Author(s): This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution 4.0 International License (CC BY-NC 4.0) which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium for non-commercial use provided the original author and source are credited.

INTRODUCTION

Le Kyste Osseux Essentiel est la troisième lésion osseuse par ordre de fréquence durant la période de croissance, après les fibromes non ossifiants et les exostoses ostéogéniques. Il ne représente par contre que 3 % environ des tumeurs osseuses primitives biopsiées [1, 2]. C'est la lésion ostéolytique la plus fréquente et la principale cause de fractures pathologiques des os longs chez l'enfant [3].

Nous décrivons un cas d'une fracture pathologique itérative de l'humérus chez un enfant de 16 ans traité par embrochage centromédullaire type ECMES. La comparaison aux données de la littérature nous a permis de mettre l'accent sur la particularité du siège de cette lésion ainsi que les critères de récurrence.

PATIENT ET OBSERVATION

Le patient H.M est âgé de 16 ans ayant été victime, il y a 5 ans, d'une fracture pathologique de la métaphyse proximale de l'humérus suite à une chute d'une hauteur estimée à un mètre avec réception sur son bras gauche. La radiographie avait montré une fracture de l'extrémité supérieure de l'humérus sur lésion ostéolytique cloisonnée et un amincissement cortical en regard (Figure-1). Sur le plan thérapeutique, il avait bénéficié d'un traitement chirurgical par embrochage

centromédullaire élastique stable (ECMES) (Figure-2), avec initialement une bonne évolution radio-clinique et une consolidation du foyer de fracture et comblement partiel du kyste. L'évolution était marquée par la migration de la broche en position diaphysaire, à la radiographie de contrôle à 24 mois (Figure-3).

L'histoire actuelle est marquée par un deuxième traumatisme, suite à une chute de sa hauteur, avec point d'impact au niveau du même bras occasionnant chez lui une douleur avec impotence fonctionnelle totale. L'examen clinique trouve une attitude traumatisée du membre supérieur gauche avec déformation du bras sans ouverture cutanée et une douleur à la palpation et à la mobilisation, un examen vasculo-nerveux sans particularité notamment pas de paralysie du nerf radial. Le bilan radiologique objective une fracture pathologique itérative de l'humérus sur la broche centromédullaire avec déplacement de cette dernière en extra médullaire à travers le foyer et migration en position diaphysaire sous l'effet de la croissance (Figure-4). Le patient avait bénéficié d'un traitement chirurgical sous anesthésie générale, en position décubitus dorsale, avec reprise de l'ancienne voie d'abord et ablation de la broche dans un premier temps, et dans un deuxième temps, une réduction du foyer de fracture par manœuvre externe puis ostéosynthèse à foyer fermé par un triple embrochage

par des broches de Métezeau type Hackethal. Avec un contrôle post opératoire satisfaisant (Figure-5).



Fig-1: Radiographie standrd montrant une fracture de l'extrémité supérieure de l'humérus sur kyste osseux essentiel



Fig-2: Radiographie standrd post opératoire après traitement par embrochage centromédullaire élastique stable (1 seule broche)



Fig-3: Radiographie standrd post-opératoire de contrôle à 24 mois



Fig-4: Radiographie standrd montrant une fracture itérative sur matériel d'ostéosynthèse avec migration diaphysaire de lésion kystique



Fig-5: Radiographie standard post opératoire après traitement par embrochage centromédullaire élastique stable (3 broches de Metzeau)

DISCUSSION

Le kyste osseux essentiel (KOE) ou encore appelé kyste osseux simple ou solitaire n'est pas à proprement parler une tumeur mais plutôt une pseudotumeur [4]. C'est une lésion osseuse lytique à contenu liquidien généralement uniloculaire, se situant le plus souvent en territoire métaphysaire [4, 5]. Elle occupe selon les études le 3ème rang après les fibromes non ossifiant et les exostoses. Il ne représente par contre que 3% environ des tumeurs osseuses primitives biopsiées [1, 2]. Le KOE est fréquent chez l'enfant et l'adulte jeune avec une prédominance masculine de 2 ou 3 pour un. Il touche préférentiellement les os longs, et en premier lieu l'humérus proximal puis le fémur proximal, ces deux localisations représentent plus de 80 % des cas [3, 4]. L'histoire naturelle du kyste évolue en quatre stades : naissance, expansion, latence et guérison [3]. La guérison peut se faire soit spontanément, soit après une fracture [6, 7].

En radiographie standard, l'aspect du KOE est souvent caractéristique et ne nécessite pas d'exploration complémentaire [5]. L'aspect est celui d'une lésion : radiotransparente, modérément expansive, bien limitée, centrée, de forme allongée dans l'axe longitudinal de

l'os, le plus souvent uniloculé, avec des marges finement ostéocyclées et un amincissement cortical en regard [5]. En cas de fracture, on peut voir un petit fragment osseux déclive qui a migré grâce au contenu liquidien du kyste, ce signe du « Fallen fragment » est considéré par certains comme pathognomonique [5].

La fracture constitue la principale complication et survient dans environ 75 % des cas chez l'enfant [8]. Cette fracture consolide de manière normale et dans des délais normaux. En revanche, elle peut entraîner la guérison du kyste, mais le plus souvent il y a persistance de la lésion (85% des cas) avec un taux de récurrence qui varie de 8 à 30% [9].

Certains index ont été développés pour prédire le risque de fracture itérative, mais leur utilisation en pratique courante est peu pertinente [4, 5]. Parmi ces différents paramètres : L'index kystique de Kaelin et Mac Ewen [10, 11], le pourcentage d'occupation [12], l'extension longitudinale du kyste [13], l'amincissement cortical [5] et l'activité du kyste [14], pour laquelle la plupart des auteurs distinguent le KOE actif : métaphysaire adjacent à l'épiphyse sans l'envahir et le KOE inactif ou latent : séparé d'au moins 0.5 cm de l'épiphyse la plus proche par un os normal [15, 16]. Les facteurs prédictifs de récurrence étaient l'âge du patient ≤ 5 ans ($p = 0,014$), kyste du côté droit ($p = 0,01$), plus grand kyste ($p = 0,039$), kyste multiloculaire ($p = 0,004$) et fracture sans impaction ($p = 0,04$) [17]

Dans la série de Teoh, les fractures impactées étaient moins susceptibles de se reproduire. Les fractures à haute énergie sont plus susceptibles d'être associées à la pseudarthrose en raison de la perturbation du stimulus ostéo-inductif. Avec l'impaction, le kyste devient effacé avec une perturbation de la structure du kyste par raccourcissement et cicatrisation. Dans les fractures non impactées, les kystes ont tendance à maintenir leur volume et sont à risque de refracture [17]. Chez notre patient la cause de la récurrence de la fracture était la persistance de la lésion kystique avec un caractère multiloculé ainsi que l'inefficacité de la broche d'ostéosynthèse qui est devenue courte du fait de la migration de la lésion ostéolytique due à la croissance.

Au membre supérieur particulièrement l'humérus, la fracture consolide le plus souvent sans problème par traitement orthopédique [18]. Les fractures très déplacées ou instables peuvent faire l'objet d'un enclouage centromédullaire élastique stable (ECMES). En cas de fracture itérative, un ECMES permet aussi de renforcer l'os [18]. Avec une bonne évolution dans 65% des cas., Cette méthode chirurgicale a donné un taux de guérison de 94% dans la série de Roposch *et al.*, [19] et 100% de guérison dans la série de Knor et coll [20]. C'est ce que nous avons réalisé dans notre cas.

Historiquement, le traitement initial du KOE consistait en un curetage du kyste et comblement par greffe. Le taux de récurrence atteignait 35 % à 64 % des cas, nécessitant une nouvelle procédure chirurgicale ouverte [21]. Cette option chirurgicale est assez agressive pour une tumeur bénigne et est grevée d'un taux de complications important [24]. Actuellement, un curetage mini-invasif peut être proposé [23].

Avant l'introduction des injections de stéroïdes, le curetage et la greffe osseuse étaient considérés comme un traitement définitif pour les KOE. Les taux de récurrence ont varié de 20 à 45% [17], selon l'utilisation d'un traitement adjuvant tel que les greffes / substituts osseux. Le curetage seul a un risque plus élevé de réfracture.

En 1974, Scaglietti *et al.*, ont proposé l'injection percutanée d'acétate de méthylprédnisolone [24]. Des publications récentes remettent cette vieille technique à l'honneur du fait de sa simplicité, son faible coût et d'un taux de succès acceptable. Cette technique semble particulièrement adaptée aux kystes essentiels huméraux et à ceux situés au niveau de la fibula ou au niveau des petits os tubulaires. La plupart du temps, de multiples injections sont nécessaires [25, 26].

En ce qui concerne les Méthodes biologiques, des publications sur les injections intrakystiques isolées de poudre d'os déminéralisée, de moelle osseuse ou de substituts osseux sont contradictoires [27]. Ces produits sont plutôt à retenir comme adjuvants au curetage [4].

L'association du curetage, de la décompression, du comblement par substitut osseux, à l'injection de moelle osseuse ou de poudre d'os déminéralisée permettrait d'obtenir une nette amélioration des taux de guérison en une seule procédure [5]. Il ne paraît pas possible de conseiller l'un ou l'autre des moyens de comblement [5]. La priorité pour le traitement des fractures pathologiques sur kyste osseux essentiel est de traiter la fracture d'abord et ensuite la lésion, et ceci du fait que dans 10 à 30% des cas, ces kystes guérissent après un ou plusieurs épisodes fracturaires [28].

CONCLUSION

Le KOE est une lésion pseudo-tumorale d'évolution bénigne qui touche essentiellement les enfants entre 5 et 15 ans, et qui n'est pas douloureuse en l'absence de complications. Les fractures répondent bien au traitement orthopédique. Ni la chirurgie ni Les injections de stéroïdes atteignent un taux de réussite de 100%. Les KOE devraient être laissés seuls sauf s'il est symptomatique. Si le curetage est réalisé, des greffes ou des substituts osseux doivent être utilisés. Un traitement plus agressif pourrait être indiqué pour les fractures non impactées afin de minimiser le risque de récurrence.

Conflits d'intérêt: Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêts.

Contribution des Auteurs

El Hassani Abdessamad: Contribution à la prise en charge diagnostique et thérapeutique du patient, rédaction de l'article et revue de la littérature.

Ibrahim Hassani, Abdelkoddouche Jellali, Jihad Radi, Kamal Lahrach, Amine Marzouki, Tayeb Bentayeb, Abderrahmane Afifi, Fawzi Boutayeb: Contribution à la prise en charge diagnostique et thérapeutique du patient.

REFERENCES

1. Garceau, G. J, & Gregory, C. F. (1954). Solitary unicameral bone cyst. *Journal of Bone and Joint Surgery*, 36A, 267-280.
2. Filipe, G., & Lefevre, P. Kystes osseux essentiels: Les tumeurs osseuses de l'appareil locomoteur: Tumeurs et dystrophies bénignes, 2.6.1-1-6 et A1-A3.
3. Kaelin, A. (1995). Kystes essentiels des os. In Cahiers d'enseignements de la SOFCOT. Paris: Expansion Scientifique Française; 167-179.
4. Docquier, P. L., & Schubert, T. (2015). Kyste Osseux solitaire. *Encycl Med Chir. Elsevier-Masson SAS*; 31-490-A-10.
5. Mascard, E. (2014). Kystes osseux : kyste osseux essentiel et kyste osseux anévrysmal. Conférences d'enseignement. Elsevier Masson SAS.
6. Docquier, P. L., & Delloye, C. (2011). Kyste Osseux essentiel. *Encycl Med Chir. Elsevier-Masson SAS*; 14-767.
7. Wilkins, R. M. (2000). Unicameral bone cysts. *J Am Acad Orthop Surg*. 8: 217-24.
8. Chrestian, P., & De Billy, B. (2002). Guide Illustré des Fractures des membres de l'enfant. Sauramps médical éditions (Montpellier), 148-154.
9. De Mattos, C. B. R., Binitie, O., & Dormans, J. P. (2012). Pathological fractures in children. *Bone Joint Res*. 1(10):272-280.
10. Kaelin, A. J., MacEwen, G. D. (1989). Unicameral bone cysts. Natural history and the risk of fracture. *Int Orthop*. 13: 275-82.
11. Vasconcellos, D. A., Yandow, S. M., Grace, A. M., Moritz, B. M., Marley, L. D., & Fillman, R. R. (2007). Cyst index: a nonpredictor of simple bone cyst fracture. *Journal of Pediatric Orthopaedics*, 27(3), 307-310.
12. Ahn, J. I., & Park, J. S. (1994). Pathological fractures secondary to unicameral bone cysts. *International orthopaedics*, 18(1), 20-22.
13. Kanellopoulos, A. D., Mavrogenis, A. F., Papagelopoulos, P. J., & Soucacos, P. N. (2007). Elastic intramedullary nailing and DBM-bone marrow injection for the treatment of simple bone cysts. *World journal of surgical oncology*, 5(1), 1-8.

14. Neer, C. S., Francis, K. C., Johnston, A. D., & Kiernan Jr, H. A. (1973). Current concepts on the treatment of solitary unicameral bone cyst. *Clinical Orthopaedics and Related Research*®, 97, 40-51.
15. Urakawa, H., Tsukushi, S., Hosono, K., Sugiura, H., Yamada, K., Yamada, Y., ... & Nishida, Y. (2014). Clinical factors affecting pathological fracture and healing of unicameral bone cysts. *BMC Musculoskeletal Disorders*, 15(1), 1-9.
16. Charles S Neer, I. I., Francis, K. C., Marcove, R. C., Terz, J., & Carbonara, P. N. (1966). Treatment of unicameral bone cyst: a follow-up study of one hundred seventy-five cases. *JBJS*, 48(4), 731-745.
17. Teoh, K. H., Watts, A. C., Chee, Y. H., Reid, R., & Porter, D. E. (2010). Predictive factors for recurrence of simple bone cyst of the proximal humerus. *Journal of Orthopaedic Surgery*, 18(2), 215-219.
18. De Mattos, C. B. R., Binitie, O., & Dormans, J. P. (2012). Pathological fractures in children. *Bone & joint research*, 1(10), 272-280.
19. Raposch, A., Saraph, V., & Lin hard, W. E. (2000). Flexibl intramedullary mailing for the bones. *J Bone joint surg Am*. 82: 1447-53.
20. Knorr, P., Schmittenbecher, P. P., & Dietz, H. G. (1996). Die Behandlung pathologischer Frakturen der langen Röhrenknochen im Kindesalter mittels elastisch stabiler Markraumschienung. *Der Unfallchirurg*, 99(6), 410-414.
21. Sung, A. D., Anderson, M. E., Zurakowski, D., Hornicek, F. J., & Gebhardt, M. C. (2008). Unicameral bone cyst: a retrospective study of three surgical treatments. *Clinical orthopaedics and related research*, 466(10), 2519-2526.
22. Campanacci, M., Capanna, R., & Picci, P. (1986). Unicameral and aneurysmal bone cysts. *Clinical orthopaedics and related research*, (204), 25-36.
23. Hunt, K. J., Bergeson, A., Coffin, C. M., & Randall, R. L. (2009). Percutaneous curettage and bone grafting for humeral simple bone cysts. *Orthopedics*, 32(2):89.
24. Scaglietti, O., Marchetti, P. G., & Bartolozzi, P. (1979). The effects of methylprednisolone acetate in the treatment of bone cysts. Results of three years follow-up. *The Journal of bone and joint surgery. British volume*, 61(2), 200-204.
25. Wright, J. G., Yandow, S., Donaldson, S., Marley, L., & Simple Bone Cyst Trial Group. (2008). A randomized clinical trial comparing intralesional bone marrow and steroid injections for simple bone cysts. *JBJS*, 90(4), 722-730.
26. Flont, P., Kolacinska-Flont, M., & Niedzielski, K. (2013). Factors predictive of positive response to steroid therapy in simple bone cysts: an old trick that still works. *International orthopaedics*, 37(8), 1519-1525.
27. Canavese, F., Wright, J. G., Cole, W. G., & Hopyan, S. (2011). Unicameral bone cysts: comparison of percutaneous curettage, steroid, and autologous bone marrow injections. *Journal of Pediatric Orthopaedics*, 31(1), 50-55.
28. Ortiz, E. J., Isler, M. H., Navia, J. E., & Canosa, R. (2005). Pathologic fractures in children. *Clinical Orthopaedics and Related Research*®, 432, 116-126.

Cite this article: Abdessamad El hassani *et al* (2021). Iterative Fracture of the Humor in an Essential Bone Cyst (Case Report). *East African Scholars J Med Surg*, 3(1), 13-17.