

## OSTEOSARCOMA PAROSTAL DE BAJO GRADO. EVOLUCIÓN ONCOLÓGICA Y CLÍNICA

JOSÉ I. ALBERGO, GERMÁN L. FARFALLI, MIGUEL A. AYERZA,  
DOMINGO L. MUSCOLO, LUIS A. APONTE-TINAO

*Servicio de Ortopedia y Traumatología, Hospital Italiano de Buenos Aires, Argentina*

**Resumen** El objetivo de este estudio fue analizar una serie de pacientes con osteosarcoma parostal de bajo grado y los resultados de su tratamiento quirúrgico y reconstrucción con un trasplante óseo. Se realizó una búsqueda retrospectiva en nuestra base de datos oncológica entre 1980 y 2010 de todos los pacientes con diagnóstico de osteosarcoma parostal. Se incluyeron para el análisis únicamente los osteosarcomas parostales de bajo grado, tratados quirúrgicamente con cirugía de conservación de miembro y reconstruidos con trasplante óseo cadavérico fresco congelado. Se incluyeron 22 pacientes en el estudio. La edad media de la serie fue de  $32 \pm 11$  años (10-59) y el seguimiento medio de  $93 \pm 69$  meses (8-237). La supervivencia global de los pacientes analizados fue de 91% (IC95%: 79-100) a 10 años. Cuatro pacientes (18%) presentaron una recidiva local de la enfermedad, dos de éstas fueron clasificadas histológicamente como osteosarcoma parostal dediferenciado. Dos pacientes desarrollaron enfermedad a distancia, siendo el pulmón el único sitio de localización. La tasa de supervivencia de las reconstrucciones de la cirugía de conservación de miembro a 10 años fue de 65% (IC95%: 44-86). La supervivencia a largo plazo de los pacientes con osteosarcoma parostal de bajo grado es superior al 90%. La resección quirúrgica con márgenes amplios debe ser el tratamiento de elección y la reconstrucción biológica es una alternativa válida.

**Palabras clave:** osteosarcoma parostal, trasplante osteoarticular, supervivencia, recurrencia local

**Abstract** *Low grade parosteal osteosarcoma. Clinical and oncological outcomes.* The objective of the study was to analyze a group of patients with low grade parosteal osteosarcoma treated with limb salvage surgery and reconstructed with bone allograft. A retrospective review from our oncologic data base between 1980 and 2010 was done and all patients with diagnosis of low grade parosteal osteosarcoma, treated with limb salvage surgery and reconstructed with allograft were included. Twenty-two patients were included for the analysis. The mean age was  $32 \pm 11$  years (10-59) and the mean follow-up  $93 \pm 69$  months (8-237). Ten year overall survival of the series was 91% (95%CI: 79-100). Four patients developed local recurrence, 2 of them histological classified after the resection dedifferentiated parosteal osteosarcoma. Two patients developed distant recurrence, being the lung the only site of metastasis. Ten year limb salvage reconstruction survival was 65% (95%CI: 44-86). Long term survival rate in low grade parosteal osteosarcoma is over 90%. Surgical resection wide margin should be the elective treatment and biological limb salvage reconstruction is a good alternative.

**Key words:** parosteal osteosarcoma, allograft reconstruction, overall survival, local recurrence

El osteosarcoma parostal (OP) es una entidad infrecuente, representando aproximadamente entre 1 y 5% del total de los osteosarcomas<sup>1,2</sup>. Su localización principal es a nivel de las metáfisis de huesos largos, siendo la cortical posterior del fémur distal el sitio más afectado<sup>3</sup>. El pronóstico de este grupo de tumores suele ser más favorable que el del osteosarcoma convencional, presentando una supervivencia superior al 80% a 5 años<sup>4</sup>. Si bien la mayoría de los osteosarcomas parostales son de bajo grado histológico, hasta un 30% pueden presentarse como de alto grado o dediferenciados<sup>5-7</sup>. La cirugía de conservación

de miembro con márgenes amplios es el tratamiento de elección y la terapia adyuvante pre o post operatoria se reserva únicamente para los tumores de alto grado<sup>8</sup>. El osteosarcoma parostal pertenece al grupo de osteosarcomas superficiales, sin embargo su extensión puede alcanzar la cavidad endomedular. La invasión medular como factor pronóstico oncológico es controvertida<sup>9,10</sup>.

El objetivo de este estudio es describir una serie de pacientes con osteosarcoma parostal de bajo grado y los resultados de su tratamiento quirúrgico y reconstrucción con trasplantes óseos.

Recibido: 16-III-2015

Aceptado: 6-VIII-2015

**Dirección Postal:** José Ignacio Albergo, Potosí 4032, 1199 Buenos Aires, Argentina

e-mail: nachoalbergo@hotmail.com

### Materiales y métodos

Se realizó una búsqueda retrospectiva en nuestra base de datos oncológica entre 1980 y 2010 identificándose a todos

los pacientes con diagnóstico histológico de osteosarcoma parosteal. Se incluyeron para el análisis únicamente los tumores de bajo grado, tratados quirúrgicamente con cirugía de conservación de miembro y reconstruidos con trasplante óseo cadavérico congelado y con un seguimiento mínimo de 24 meses para los pacientes vivos. Se excluyeron todos los pacientes que fueron inicialmente tratados en otro centro (n: 2) o reconstruidos con trasplante autólogo (n: 3). En todos los casos se realizó biopsia preoperatoria en quirófano o bajo guía tomográfica, confirmación histológica del diagnóstico por anatomía patológica y resección quirúrgica en bloque asociado a una reconstrucción biológica del defecto óseo. Se optó por un trasplante intercalar en aquellos donde se pudo conservar al menos 1 cm de superficie articular, y por trasplante osteoarticular para aquellos en que la resección incluía la epífisis. Los márgenes postquirúrgicos de las piezas resecaadas fueron analizados y se los clasificó como amplios (más de 1 cm), marginales (menos de 1 cm) o intralesionales.

Las complicaciones postquirúrgicas fueron registradas y se clasificó el fracaso de las reconstrucciones de la cirugía de conservación de miembro de acuerdo a la clasificación de Henderson, la cual divide las fallas reconstructivas en causas mecánicas (Henderson 1, 2, 3) y no mecánicas -infección o recidiva tumoral- (Henderson 4, 5)<sup>11</sup>.

La supervivencia de los pacientes de la serie y de las reconstrucciones fue determinada según el método de Kaplan-Meier a través del programa StatView (version 5.0.1 Cary, NC, USA). La prueba t no paramétrica fue utilizada para la valoración de los factores pronósticos. Se consideró estadísticamente significativa  $p < 0.05$ .

## Resultados

Un total de 22 pacientes fueron incluidos en el estudio. La edad media de la serie fue de  $32 \pm 11.5$  años (10-59) y el seguimiento medio de 117 meses (4-244). Diecinueve pacientes (19/22) eran mujeres. La localización más frecuente fue a nivel de fémur distal (n: 16) seguido por tibia proximal (n: 2), fémur diafisario (n: 1), tibia diafisaria (n: 1), húmero proximal (n: 1), húmero diafisario (n: 1). En 15 pacientes la técnica de reconstrucción elegida fue con un trasplante intercalar, y en 7 con un trasplante osteoarticular (Tabla 1). Resultados oncológicos: La supervivencia global de los pacientes analizados fue de 91% (IC95%: 79-100) a 5 - 10 años y la supervivencia libre de eventos de 76% (IC95%: 58-94). (Figs. 1 y 2).

Los márgenes de las resecciones quirúrgicas fueron: amplios en 15 pacientes, marginales en 6 e intralesional en un paciente, en el que se realizó una ampliación de los márgenes de la resección posterior a la confirmación de márgenes contaminados.

Cuatro pacientes presentaron una recidiva local de la enfermedad: 2 a nivel óseo y 2 en partes blandas, siendo la tasa de recidiva en nuestra serie de 4/22. En 2 pacientes se realizó una resección quirúrgica de la recidiva (conservando el trasplante), en uno se debió realizar resección asociado a un nuevo trasplante y en otro la amputación fue el tratamiento de elección. Dos (2/22) de la recidivas locales fueron clasificadas histológicamente como de

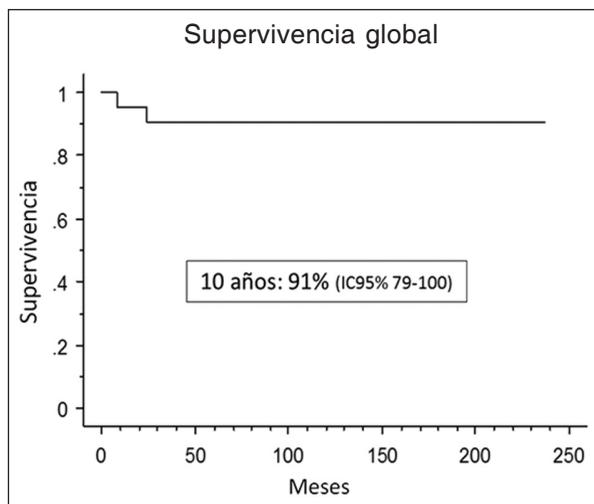


Fig. 1.- Supervivencia global de la serie según análisis Kaplan-Meier. Pacientes vivos al final del seguimiento: 19.

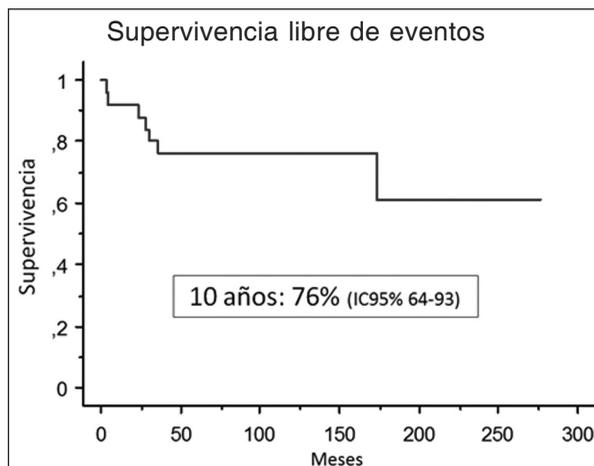


Fig. 2.- Supervivencia libre de eventos de la serie según análisis Kaplan-Meier. Pacientes libres de enfermedad al final del seguimiento: 15.

alto grado (osteosarcoma parosteal desdiferenciado) y se asoció tratamiento quimioterápico adyuvante.

Dos (2/22) pacientes desarrollaron enfermedad a distancia, siendo el pulmón el único sitio de localización (uno con recurrencia local de osteosarcoma parosteal desdiferenciado). Se indicó tratamiento adyuvante para estos pacientes, pero en ningún caso se realizó resección quirúrgica de las metástasis. Ambos habían fallecido al final del seguimiento (2/22).

La tasa de supervivencia a diez años de las reconstrucciones de la cirugía de conservación de miembro de la serie fue de 62% (IC95% 41-83). Las reconstrucciones intercalares presentaron una supervivencia significativamente superior a los trasplantes osteoarticulares: 80% (IC95: 60-100) vs. 29% (IC95%: 5-62) a 10 años ( $p = 0.05$ ) (Fig. 3). El número total de fracasos de reconstrucción de

la cirugía de conservación de miembro fue de 8: 1 Henderson 2B (pseudo artrosis), 2 Henderson 3A (fractura del trasplante), 3 Henderson 4A (infecciones tempranas) y 2 Henderson 5 (recidiva tumoral) (Tabla 1).

Cinco de los pacientes (5/22) analizados presentaban invasión medular. En nuestra serie no ha resultado

la invasión medular un factor de pronóstico oncológico negativo ( $p = 0.4$ )

### Discusión

El osteosarcoma parostal representa una entidad poco frecuente, con un mejor pronóstico oncológico que el osteosarcoma convencional. Afecta principalmente a huesos largos y tiene predilección por la cortical posterior del fémur distal<sup>11, 12</sup>. La resección quirúrgica con márgenes amplios es el tratamiento de elección para este grupo de pacientes. Sin embargo, el crecimiento extra compartimental que los caracteriza hace las resecciones quirúrgicas complicadas, especialmente a nivel del hueco poplíteo por su cercanía al paquete vasculonervioso<sup>3, 8</sup>.

Si bien se lo ha considerado históricamente como sarcoma de bajo grado y lento crecimiento, hasta un 25% de los osteosarcomas parostales son clasificados histológicamente de alto grado o desdiferenciados<sup>6, 9</sup>. El Instituto Rizzoli ha presentado una serie de 120 osteosarcomas parostales, 29 (24%) del tipo desdiferenciados y de los cuales un tercio se diagnosticaron luego de una recidiva local<sup>9</sup>. Particularmente, hemos analizado solo OP de bajo grado; sin embargo, dos pacientes (2/22) de nuestra serie presentaron una recidiva local con diagnóstico de OP desdiferenciado<sup>13</sup>.

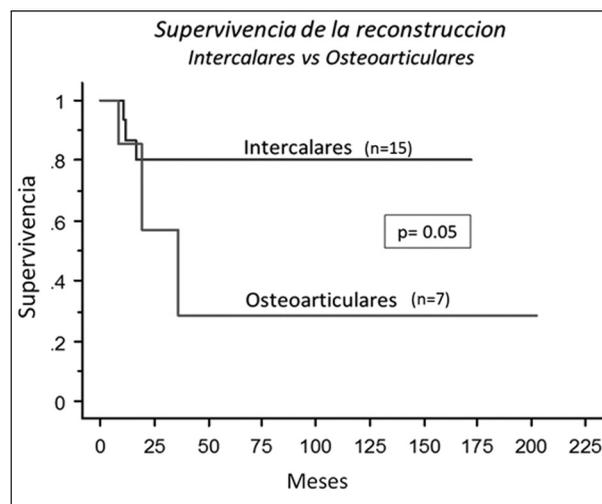


Fig. 3.- Supervivencia de la cirugía de conservación de miembro según análisis Kaplan-Meier. Trasplante intercalares (n: 15) vs. trasplante osteoarticular (n: 7).

TABLA 1.- Características de los pacientes trasplantados

Nº de caso	Año de trasplante	Edad	Sexo	Localización	Tipo de (Henderson)	Márgenes	Fracaso (meses)	Invasión-medular	Estado	Seguimiento (meses)
1	1980	39	F	Fémur distal	OA	Amplio	2B	NO	VSE	237
2	1981	32	F	Húmerodiafisario	IC	Amplio	-	NO	VSE	219
3	1982	29	M	Fémur distal	OA	Marginal	3A	NO	VCE	244
4	1986	32	F	Fémur distal	OA	Marginal	-	NO	MOC	201
5	1988	35	M	Fémur distal	OA	Amplio	4A	NO	VSE	141
6	1988	49	F	Fémur distal	IC	Amplio	-	NO	VSE	144
7	1988	59	F	Fémur diafisario	IC	Amplio	4A	SI	MPE	4
8	1989	52	F	Fémur distal	IC	Amplio	-	NO	VSE	112
9	1991	34	F	Fémur distal	IC	Amplio	-	NO	VSE	172
10	1993	26	F	Fémur distal	OA	Marginal	5	SI	MPE	6
11	1994	27	F	Fémur distal	IC	Amplio	-	NO	VSE	121
12	1995	22	F	Fémur distal	IC	Amplio	-	NO	VSE	129
13	1995	28	F	Tibia proximal	IC	Marginal	4A	NO	VCE	177
14	1998	17	F	Fémur distal	IC	Amplio	-	SI	VSE	120
15	2000	41	F	Tibia proximal	IC	Intralesional	-	SI	VSE	110
16	2000	37	F	Fémur distal	IC	Amplio	-	NO	VSE	94
17	2001	10	F	Fémur distal	IC	Amplio	-	NO	VSE	60
18	2002	34	M	Tibia diafisis	IC	Marginal	-	SI	VSE	76
19	2004	24	F	Fémur distal	OA	Amplio	3A	NO	VSE	62
20	2005	19	M	Fémur distal	IC	Amplio	5	NO	VCE	59
21	2005	38	F	Fémur distal	IC	Marginal	-	NO	VSE	50
22	2006	21	F	Fémur distal	OA	Amplio	-	NO	VSE	45

OA: trasplante osteoarticular; IC: trasplante intercalares; VSE: vivo sin enfermedad; VCE: vivo con enfermedad; MPE: muerte por enfermedad; MOC: muerte por otra causa

La invasión medular como factor pronóstico oncológico continúa en debate. Se ha asociado a crecimiento agresivo del osteosarcoma parostal, y un factor pronóstico negativo para la supervivencia de los pacientes<sup>9, 10</sup>. Okada et al, en su serie de 226 osteosarcomas parostales (22% de los pacientes con invasión medular) no han encontrado asociación significativa entre dicha característica y un peor pronóstico oncológico<sup>14</sup>. Hay que tener en consideración que las series publicadas sobre osteosarcoma parostal contemplan un periodo de tiempo muy amplio, superior a los 25 años, y que los estudios de imágenes disponibles en la actualidad podrían incrementar la precisión diagnóstica, aumentando la incidencia de invasión medular por parte de este tipo de sarcomas<sup>13, 14</sup>.

Con respecto a la reconstrucción con trasplantes frescos congelados, la supervivencia a 10 años de nuestra serie fue del 62%, resultando la infección temprana y la fractura del trasplante las dos causas de falla más frecuentes. Los trasplantes intercalares han presentado resultados significativamente superiores a los trasplantes osteoarticulares en términos de supervivencia ( $p = 0.05$ ) con un índice de fracaso notoriamente inferior. La reconstrucción con endoprótesis, supone una alternativa a los trasplantes osteoarticulares, permitiendo una recuperación rápida de la actividad y buenos resultados funcionales en este grupo de pacientes<sup>4</sup>.

Conocemos las limitaciones de nuestro estudio por tratarse de una serie retrospectiva con un bajo número de casos y amplio periodo de estudio. Sin embargo, se trata de una enfermedad sumamente infrecuente y escasamente informada en nuestro medio.

La supervivencia global del osteosarcoma parostal de bajo grado fue superior al 90% y la supervivencia libre de enfermedad del 76% a 10 años. La tasa de recurrencia local del 18% (4/22). La resección quirúrgica con márgenes amplios debe ser el tratamiento de elección y la reconstrucción biológica con trasplantes óseos es una alternativa válida.

**Conflicto de intereses:** Ninguno para declarar

## Bibliografía

1. Unni KK, Dahlin DC, Beabout JW, Ivins JC. Parosteal osteogenic sarcoma. *Cancer* 1976; 37: 2466-75.
2. Dwinnell LA, Dahlin DC, Ghormley RK. Parosteal (juxtacortical) osteogenic sarcoma. *J Bone Joint Surg Am* 1954; 36-A: 732-44.
3. Lewis VO, Gebhardt MC, Springfield DS. Parosteal osteosarcoma of the posterior aspect of the distal part of the femur. Oncological and functional results following a new resection technique. *J Bone Joint Surg Am* 2000; 82-A: 1083-8.
4. Kavanagh TG, Cannon SR, Pringle J, Stoker DK, Kemp HB. Parosteal osteosarcoma-treatment by wide resection and prosthetic replacement. *J Bone Joint Surg Am* 1990; 72-B: 959-65.
5. van Oven MW, Molenaar WM, Freling NJ, et al. Dedifferentiated parosteal osteosarcoma of the femur with aneuploidy and lung metastases. *Cancer* 1989; 63: 807-11.
6. Wold LE, Unni KK, Beabout JW, Sim FH, Dahlin DC. Dedifferentiated parosteal osteosarcoma. *J Bone Joint Surg Am* 1984; 66: 53-9.
7. Encinas-Ullán CA, Ortiz-Cruz EJ, Barrientos-Ruiz I, et al. Parosteal osteosarcomas: unusual findings. *Rev Esp Cir Ortop Traumatol* 2012; 56: 281-5.
8. Enneking WF, Springfield D, Gross M. The surgical treatment of parosteal osteosarcoma in long bones. *J Bone Joint Surg Am* 1985; 67: 125-35.
9. Bertoni F, Bacchini P, Staals EL, Davidovitz P. Dedifferentiated parosteal osteosarcoma: the experience of the Rizzoli Institute. *Cancer* 2005; 103: 2373-82.
10. Temple HT, Scully SP, O'Keefe RJ, Katapurum S, Mankin HJ. Clinical outcome of 38 patients with juxtacortical osteosarcoma. *Clin Orthop Relat Res* 2000; 373: 208-17.
11. Henderson ER, O'Connor MI, Ruggieri P, et al. Classification of failure of limb salvage after reconstructive surgery for bone tumours: a modified system including biological and expandable reconstructions. *Bone Joint J* 2014; 96-B: 1436-40.
12. Han I, Oh JH, Na YG, et al. Clinical outcome of parosteal osteosarcoma. *J Surg Oncol*. 2008; 97: 146-9.
13. Campanacci M, Picci P, Gherlinzoni F, Guerra A, Bertoni F, Neff JR. Parosteal osteosarcoma. *J Bone Joint Surg Br* 1984; 66: 313-21.
14. Okada K, Frassica FJ, Sim FH, et al. Parosteal osteosarcoma. A clinicopathological study. *J Bone Joint Surg Am* 1994; 76: 366-78.

----

II

Para dialogar,  
preguntad primero:  
después...escuchad.

Antonio Machado (1875-1939)

Poesía. Nuevas canciones (1917-1930). CLXI Proverbios y cantares.  
Buenos Aires: Losada, 1979, Decimosexta edición, p 213