

DEPARTAMENTO DE ANATOMÍA PATOLÓGICA DE LA C. S. LA FE. VALENCIA

(Jefe de Dpto. Dr. L. VICENTE TAMARIT)

## Equinococosis ósea primaria

### A propósito de cinco casos

E. MAYAYO ARTAL, B. MARTINEZ GARCIA, J. J. TERRADEZ RARO, J. GARCIA CASTELL,  
M. J. MAYOL BELDA y A. FROUFE SANCHEZ

#### RESUMEN

Se presentan cinco casos de equinococosis ósea de afectación exclusiva, destacando una localización costal no frecuente y otra intertrocantérea unilocular, de difícil diagnóstico preoperatorio. Se comentan las características clínicas y radiológicas y la frecuente necesidad de una comprobación anatomopatológica para su diagnóstico, al que se llega de una forma casual o por la aparición de secuelas, su indicación quirúrgica debe ser precoz y su posible diagnóstico siempre presente en las áreas geográficas más o menos endémicas como la muestra.

Descriptores: Equinococosis ósea. Hidatidosis ósea.

#### SUMMARY

Five cases of echinococcosis of the bone are reported, one of them with an uncommon localisation on the rib and another one in the intertrochanterea area, with a problematic diagnosis.

The clinical and radiological signes are considered. An early surgical treatment is advised in all cases as much as possible and the diagnosis will be present in our geographic area where this disease is endemic.

Key words: Echinococcosis of the bone.

#### Introducción

La equinococosis es una enfermedad parasitaria conocida desde antiguo y bastante difundida, cuya tasa de incidencia se encuentra relacionada con la ganadería y especialmente la de tipo lanar. En España es elevada y similar a nuestra zona de trabajo, siendo de un 5'6/100.000 (3). Dado que la parasitación es por vía hemática o más raramente linfática, resulta compren-

sible la gran afectación de hígado y de pulmón (80·94 por 100 de todos los casos), siendo para los demás órganos sensiblemente inferior y especialmente para hueso oscila entre el 0'41 y el 2 por 100 dependiendo de autores (1, 4, 5, 6, 8, 9, 11). Se distribuye según orden de frecuencia en columna vertebral un 41'6 por 100, huesos largos un 26'4 por 100, ilíacos un 16'4 por 100, y los menos afectados son los huesos del cráneo y de los dedos (1, 9).

### Material y métodos

En nuestro medio hospitalario y a lo largo de diez años hemos podido recoger 8 casos de afectación ósea por equinocosis, comprobada mediante estudio anatomopatológico, distribuyéndose 3 en vértebras, 3 en cadera, 1 en fémur y 1 en costilla. De ellos sólo 5 afectaban exclusivamente a hueso y son los que vamos a presentar a continuación.

### Casos clínicos

*Caso núm. 1.* — C. A. C. Mujer de 36 años, que encontrándose previamente bien, presenta desde hace un mes ligeras molestias torácicas y disnea de esfuerzo, que no le impiden dormir. A Rx se aprecia una imagen osteolítica en la pared torácica derecha, por lo

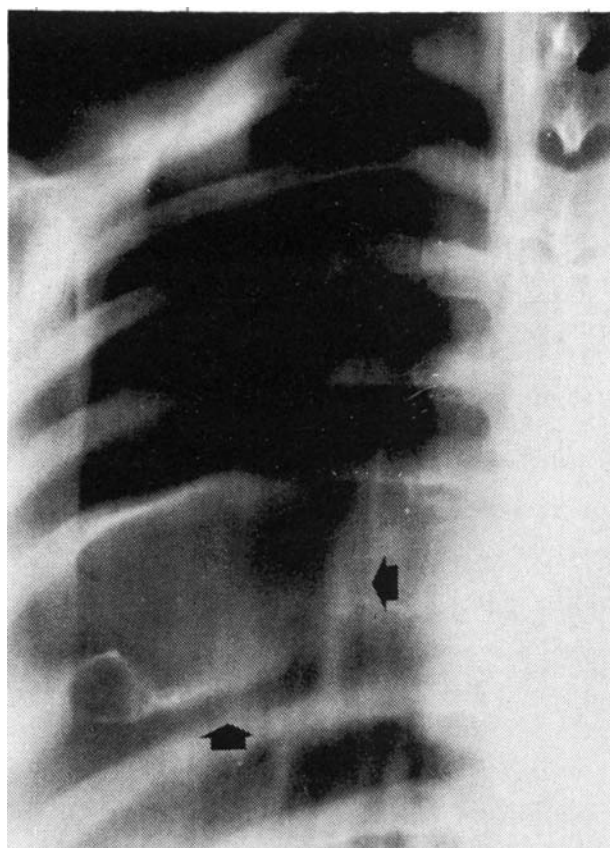


FIG. 1. — Caso núm. 1. Tomografía. Lesión lítica que destruye la séptima costilla y erosiona la sexta.

que su médico de cabecera la remite al hospital. Ingresa con buen estado general, VSG normal, eosinofilia y Casoni positivo. No refiere antecedentes de interés. Espirometría normal. Gammagrafía hepática normal. La radiografía de tórax muestra una destrucción del arco posterior de la séptima costilla derecha, con insuflación de la misma y rechazamiento del contorno inferior de la sexta, la lesión afecta al espacio extrapleurales y es multilocular (fig. 1). El diagnóstico radiológico es compatible con la sospecha clínica de hidatidosis costal. Por lo cual se le practica toracotomía derecha resecando la pared torácica de la sexta y séptima costilla llegando hasta apófisis transversa y cuerpo vertebral, pues se halla erosionado por los quistes, sin apreciarse afectación del canal medular.

El material resecado es enviado a Anatomía Patológica donde se confirma el diagnóstico de hidatidosis costal.

*Caso núm. 2.* — J. P. F. Varón de 16 años, administrativo de profesión y con antecedentes de pleuritis hace diez años. Consulta por dolor en cadera derecha de 3-4 meses de evolución, a raíz de una caída. El dolor era nocturno y cedía con la ingesta de aspirinas, sin limitación de la movilidad. En su analítica destaca una VSG de 26/52, 3 eosinófilos en sangre periférica, fosfatasas alcalinas de 77 U/ml., con Casoni y Weinberg negativos. Radiográficamente se aprecia una imagen osteolítica intertrocantérea (fig. 2) de 2'5 cm de diámetro, con estudio negativo en el resto del esqueleto. Ante la sospecha de tumor (condroblastoma) se le interviene, observándose la lesión limitada por una fina cápsula blanquecina, rellena de material líquido de aspecto arenoso. Se legra la cavidad quística y se rellena con tejido esponjoso de cresta ilíaca. Remitido el material de legrado a nuestro departamento se diagnostica de hidatidosis. Las exploraciones hepáticas y pulmonares no evidenciaron lesión alguna. En el postoperatorio se tiene que reintervenir por dos veces a los 3 y 7 meses de la primera intervención por presentar una fístula supurante y cultivos positivos a pseudomonas, con formación de absceso. Los últimos controles no han mostrado recidiva de la lesión.

*Caso núm. 3.* — C. V. P. Mujer de 66 años, sin antecedentes familiares de interés. En el año 1939 fue operada de pequeña tumoración en región lumbosacra. En el año 1956 le vuel-



FIG. 2. — Caso núm. 2. Lesión a nivel intertrocantéreo derecho.

ve a aparecer otra tumoración del tamaño de un "huevo", en la misma localización, a los siete meses la tumoración se hace fluctuante y se fistuliza. La intervienen poniéndole un injerto de tibia. En el año 1969 sufre un traumatismo en la cadera derecha, que le produce impotencia funcional, por lo que es tratada con onda corta. Un año después ingresa por dolor intenso de una semana de evolución en región inguinal derecha. La radiografía muestra imágenes difusas de osteólisis en hemipelvis derecha y cabeza femoral (fig. 3). En la analítica destaca una VSG alta, con Casoni positivo a los 30 minutos. Se le interviene practicándosele curetaje y remitiendo el material a Anatomía Patológica, confirmando la sospecha clínica de equinococosis. En los estudios sistémicos no se observó otra afectación en ninguno de los órganos de la economía. El postoperatorio es favorable dándosele de alta. Cuatro meses más tarde reingresa con un cuadro séptico, a causa del cual fallece. No se pudo hacer estudio *postmortem*.

*Caso núm. 4.* — E. H. G. Varón de 56 años, que hace doce años comienza con dolores en la cadera izquierda sin darle importancia, cuatro años después los dolores aumentan consultando al médico, que le propone una artrodesis, la que se pospone por sufrir una

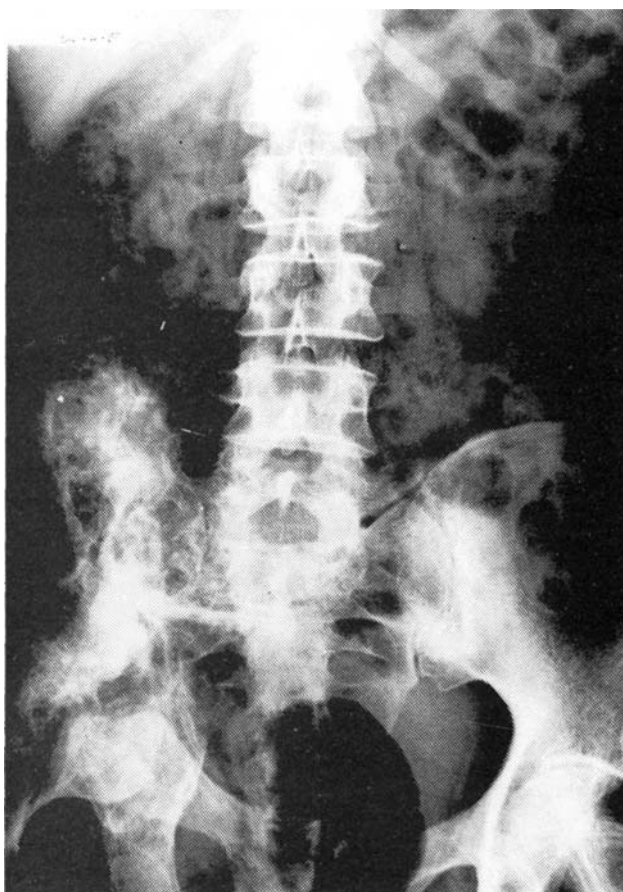


FIG. 3.—Caso núm. 3. Extensas áreas de osteólisis en hemipelvis derecha y cabeza femoral.

hematemesis secundaria a un ulcus péptico. La cadera pierde progresivamente movilidad, llegando a la claudicación. Hace dos años sufre fractura de tercio superior de fémur y a partir de un año, empieza a notar tumora- ciones inguinales que adquieren gran tama- ño, siendo intervenido, quedando las heridas abiertas durante tiempo.

Ingresa en nuestro hospital con dos heri- das fistulizadas, mal estado general, fiebre, alteración del hemograma, anemia y dispro- teïnemia. Radiográficamente se aprecian imá- genes destructivas lacunares en todo el iliaco, destrucción de la cabeza femoral e imágenes ósteolíticas insuflantes en tercio superior de fémur, donde se observa el trazo de la frac- tura que sufrió con anterioridad. No se en- cuentran lesiones hepáticas, pulmonares o renales. Analíticamente las pruebas de Ca- soni y Weinberg son negativas al principio, positivándose con posterioridad, mientras que la cifra de eosinófilos se mantiene en 2. El material expulsado por las fistulas es remi- tido al laboratorio con el diagnóstico de equi- nococosis. Dada la extensión de las lesiones, el mal estado del paciente y las dificultades técnicas que comportaba la intervención, se decide no operarle, dándole tratamiento sin- tomático.

Es de destacar entre los antecedentes fa-

miliares, la existencia de una hermana y un hijo de la misma, afectos e intervenidos por hidatidosis hepática.

*Caso núm. 5.* — M. R. A. Mujer de 67 años, que hace diez años sufrió una fractura de miembro inferior derecho, a consecuencia de una caída, teniendo que ser intervenida y quedándole como secuela un acortamiento de dicho miembro. Ultimamente ha notado una tumoración en muslo derecho de crecimiento paulatino, que le produce dolor intenso.

A la exploración presenta acortamiento a expensas del fémur y tumoración voluminosa de unos 20 x 15 cm de diámetro, ligeramente caliente y enrojecida, sin aspecto de inflama- ción y con edema en toda la pierna. La tu- moración se localiza en cara interna del ter- cio superior de muslo derecho y aparece otro nódulo, más pequeño, sobre iliaco.

Ingresa para estudio, presentando ampo- llas y necrosis plantar, sugestiva de gangrena de pie derecho pero con pruebas bacterioló- gicas negativas. Radiológicamente se eviden- cian a nivel de pelvis grandes imágenes la- cunares de ausencia ósea, que se extienden por toda la pelvis derecha y tercio superior de fémur, acompañándose de gran tumefa- ción de partes blandas, con focos de calcifi- caciones (fig. 4). En los análisis de sangre



FIG. 4. — Caso núm. 4. Masiva afectación de hemipelvis derecha y cabeza femoral, con focos de calcificación extraóseos.

tiene una eosinofilia que oscila entre 0 y 2. Destacando un Casoni positivo a los 30 minutos y a las 24 horas, mientras que el Weinberg dio negativo. Se le interviene amputándole la pierna derecha a nivel de tercio superior y se le biopsia iliaco para estudio anatomopatológico, con posterior informe de equinocosis. El postoperatorio fue paulatinamente hacia un empeoramiento, falleciendo al poco tiempo de la intervención. Tampoco se pudo conseguir la autopsia por negativa de la familia.

### Comentarios

La afectación ósea suele limitarse a un solo hueso, pudiéndose extender por vecindad a otros, pero no se acepta el origen multicéntrico de la enfermedad. Resultando las articulaciones un freno para la extensión del proceso. Ante la parasitación, el hueso se comporta pasivamente no ofreciendo más resistencia que la propia de su estructura mecánica, lo que obliga a progresar al proceso por las mallas del tejido esponjoso, dando lugar a brotes diverticulares y lenta evolución, con formación de múltiples quistes de pequeño tamaño, sin adventicia fibrosa y escasa reacción inflamatoria periférica (fig. 5) a diferencia de las demás localizaciones parenquimatosas.

Radiológicamente muestran unas características bastantes orientadoras, si no diagnósticas, destacando los siguientes rasgos.

1. Imágenes osteolíticas múltiples o únicas.
2. Conservación de la cortical y sólo en

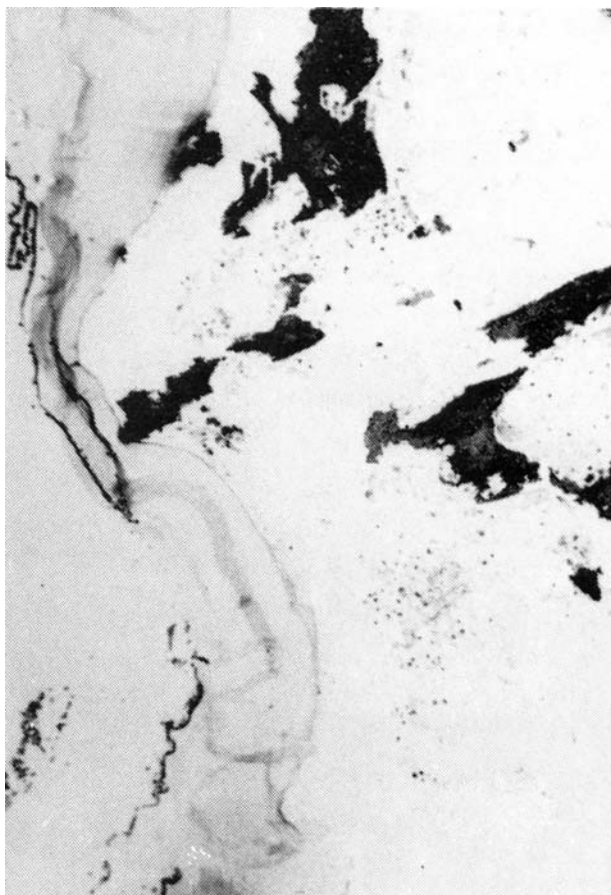


FIG. 5. — Membranas hidatídicas, con capa germinal (arriba) y trabéculas desvitalizadas sin reacción inflamatoria. X 200.

fases tardías adopta aspecto de «hueso insuflado». 3. Ausencia de reacción perióstica. 4. Falta de osteoporosis regional. Siendo tan sólo el signo de Bado, que aparece después de una fractura diafisaria, patognomónico.

Dan escasa sintomatología, por lo que hay que hacer diagnóstico diferencial con procesos inflamatorios y algunos tumores.

Caso	Edad	Sexo	Localización	Casoni	Weinberg	Eosinófilos	V. S. G.	Evolución	Sintomatología
1	36	H	7. <sup>a</sup> costilla	posit.		—	norm.	1 mes	dol. tx. disnea
2	16	V	Intertrc.	—	—	3	26/52	3-4 m.	dolor tumorc. fistula
3	66	H	Cadera	+ 30'			alta	30 a.	dolor
4	56	V	Cadera	(—) inic. + post. + 30'	(—) inic. + post.	2	alta	12 a.	dolor
5	67	H	Cadera	+ 24 h	—	0-2	alta	10 a.	fractura

Analíticamente no presentan alteraciones características, siendo la eosinofilia ligeramente elevada en algunos casos y sólo existe leucocitosis cuando hay fistulizaciones o comunicación con partes blandas. Los tests inmunológicos tampoco son del todo concluyentes, sino sólo orientadores (tabla adjunta).

De los casos presentados, los de cadera eran de larga evolución, con imágenes osteolíticas multiquísticas radiológicamente y con afectación a más de un hueso, sin grandes problemas diagnósticos. El de localización costal supone una rareza por su ubicación, ya que en una revisión de PANAHÍ (10) hasta 1978 tan sólo se habían publicado 38 casos primarios de costilla en Occidente y correspondería según BONAKDARPOUR (2) al tipo radiológico de lesión lítica insuflante con o sin trabeculación. El otro caso de localización intertro-

cantérea, presentaba una lesión unilocular y se daba en un varón joven, lo que dificultó mucho su diagnóstico clínico-radiológico y sólo se pudo llegar a un diagnóstico por la histología. Teniendo en cuenta estos dos puntos, se puede pensar que el proceso tenía una evolución corta ya que no hemos encontrado referido en la literatura revisada, la presentación en edades tan jóvenes y la presentación uniuística en hueso a este nivel. La evolución de estos casos va relacionada con el grado de extensión del proceso, ya que los de corta historia, han tenido una recuperación excelente después del tratamiento quirúrgico y los otros tres casos de evolución más larga, con masiva afectación ósea, sus complicaciones fueron graves.

En todos los casos presentados hemos identificado membranas con capa externa laminada, capa interna germinativa y vesículas hijas con escolex (fig. 6). Mientras que no había una manifiesta reacción fibrosa y la reacción inflamatoria era muy escasa o prácticamente nula, aun en proximidad de tejido óseo necrótico (fig. 5). Y en los casos que presentaron fistulización, la reacción inflamatoria se hizo muy acusada, acompañándose de una afectación clínica más expresiva.

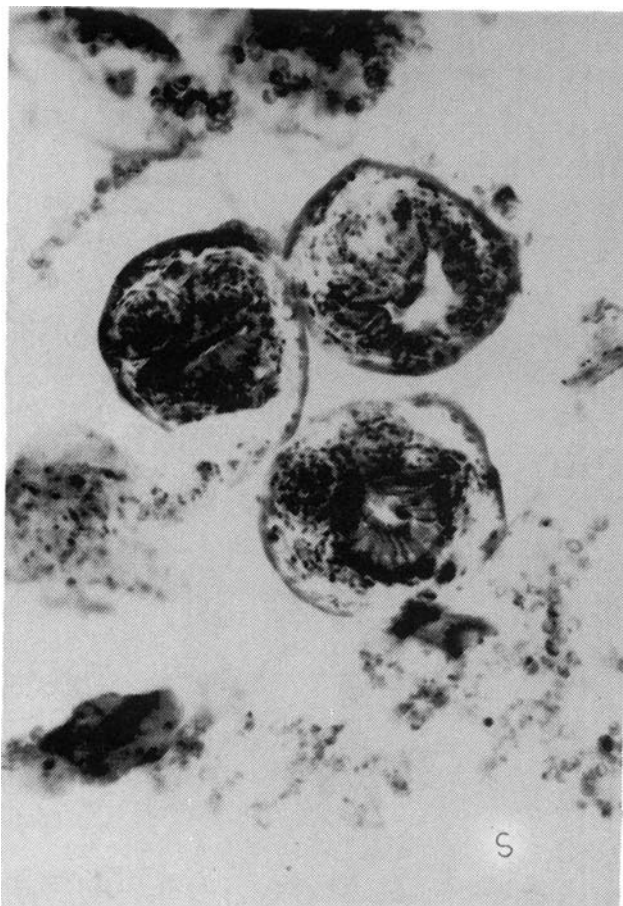


FIG. 6. — Hidátides hijas en las que se ven los ganchos del escolex. X 1.000.

## BIBLIOGRAFIA

- 1 ARAGONÉS, M. A.; ORNILLA, E.; ARSUGA, A.; GARCÍA-JULIÁN, G. (1976): Localización sacra de la hidatidosis. Presentación de dos casos. *Problemas diagnósticos. Rev. Esp. Reum.*, vol. 3, n.º 1.
- 2 BONAKDARPOUR, A.; ALIZADEH, Y. F.; MAGHSSOUDI, H.; SHASIAT, S. y LEVY, W. (1973): Costal echinococcosis. *Amer. J. Roentgen. Rad. Ther. Nucl. Med.*, 118, 371.
- 3 CORTINA GREUS, P. y LLATES ESCRIG, D. (1972): Estudio epidemiológico de la hidatidosis en Valencia. *Rev. San. Hig. Pub.*, 46, 691.
- 4 HERRERA RODRÍGUEZ, A. y VICENTE THOMAS, J. (1974): Hidatidosis coxofemoral. *Rev. Esp. de Cir. Ost.*, 9, 391-398.
- 5 LAGUÍA, M. y GASCÓ, J. (1974): Hidatido-

- sis ósea. Problemas diagnósticos. *Rev. Esp. de Cir. Ost.*, 9, 399-404.
- 6 MOLINO TRINIDAD, C.; SALVADOR AZNAR, A.; EGUIDAZU ELOSÚA, I.; COMAS CASTELL, S. y BARDAJI GARRIDO, J. (1979): Hidatidosis costal. *Rev. Clin. Esp.*, tomo 30, 153.
- 7 MONAJATI, A.; ZARRABI, M. y SHAFFI, M. (1976): Primary costal echinococcosis with spine involvement. *British Journal of Radiology*, 49, 555-556.
- 8 MUÑOZ, J. R.; ROTA, M. A.; FUENTES, F.; AGUIRRE, J. M.; PORTOLÉS, A. y GARCÍA-JULIÁN, G. (1978): Equinococosis ósea de la pelvis. *Rev. Ortop. Traum.*, 22 IB, n.º 1.
- 9 NAVARRO IZQUIERDO, A. y PEREDA GARCÍA, J. M. (1974): Hidatidosis ósea de la pelvis. *Rev. Clin. Esp.*, tomo 135, n.º 4.
- 10 PANAHI, F. (1978): Echinococose costale. Rapport d'un cas et revue de la literature. *Sem. Hôp. Paris*, 54, n.º 43-44, 1.389-1.392.
- 11 RULL GONZÁLEZ, M.; CORTÉS MORENO, A. y VALLADARES RIVERA, R. (1980): Hidatidosis sacra. *Hospital general*, Vol. XX, núm. 1.
- 12 TORRES-RODRÍGUEZ, J. M.; GUI SANTES, J. A. y YARZABAL, L. A. (1980): Hidatidosis: nuevos conceptos sobre una antigua enfermedad. (2.ª parte). *Med. Clin.* (Barcelona), 74, 287.
- 13 TÉLLEZ DE PERALTA, F. J.: Hidatidosis de la columna vertebral dorsal. *Cirug. Esp.* Vol. XXV, n.º 4, 335. Jul.Ag. 1971.

Dirección: Dr. EMILIO MAYAYO ARTAL.  
Dpto. Anatomía Patológica. C. S. "La Fe".  
Valencia.