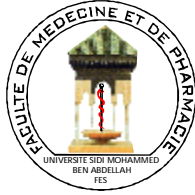


UNIVERSITE SIDI MOHAMMED BEN ABDELLAH  
FACULTE DE MEDECINE ET DE PHARMACIE  
FES



Année 2012

Thèse N° 156/12

# LE KYSTE OSSEUX ANEVRYSMAL (A propos de 04 cas)

THESE

PRESENTEE ET SOUTENUE PUBLIQUEMENT LE 10/12/2012

PAR

Mme. BOUAYAD NAJOUA

Née le 13 Septembre 1986 à Fès

POUR L'OBTENTION DU DOCTORAT EN MEDECINE

MOTS-CLES :

Kyste osseux anévrysmal - Résection - Masquelet

JURY

M. HIDA MOUSTAPHA.....	PRESIDENT
Professeur de Pédiatrie	
M. AFIFI MY ABDRAHMANE.....	RAPPORTEUR
Professeur agrégé de Chirurgie pédiatrique	
M. EL MRINI ABDELMAJID.....	} JUGES
Professeur de Traumatologie-orthopédie	
M. BOUARHROUM ABDELLATIF.....	
Professeur agrégé de Chirurgie Vasculaire Périphérique	

# PLAN

Introduction .....	4
Historique .....	7
Etiopathogénie et Génétique .....	10
Histoire naturelle .....	13
Matériels et Méthodes .....	16
A-Observations .....	17
B-Résultats .....	32
1. Epidémiologie .....	32
2. Le diagnostic.....	33
3. Le traitement .....	36
4. Evolution.....	36
Discussion .....	38
A-Epidémiologie.....	39
B-Diagnostic positif.....	40
I. Aspect clinique.....	40
II. Aspect radiologique .....	41
III. Etude anatomopathologique .....	48
C- Diagnostic différentiel .....	52
D- le traitement .....	56
I. La guérison spontanée.....	56
II. Le traitement chirurgical .....	56
1. kyste des os longs à distance du cartilage de croissance.....	56
2. kyste des os longs au contact du cartilage de croissance .....	64
3. Cas particulier concernant le kyste osseux anévrysmal	
du rachis. ....	67
III.les autres moyens thérapeutiques :.....	68

1. La radiothérapie.....	68
2. L'embolisation .....	69
3. Les injections intra kystiques .....	71
E- L'influence des différents facteurs (hors traitement) sur la survenue des récidives .....	73
Conclusion.....	75
Résumés .....	78
Bibliographie.....	82

# INTRODUCTION

Considérée autrefois comme une variété de tumeur à cellules géantes et décrite pour la première fois en 1942 par Jaffe et Lichtenstein [1], le kyste osseux anévrysmal a été définie par l'O.M.S. en 1972 comme une « lésion bénigne, ostéolytique, expansive, survenant le plus souvent dans la métaphyse des os longs, les vertèbres, les os plats, constituée de multiples lacunes hématiques séparées par des cloisons conjonctives porteuses d'ostéoclastes et d'une ostéogénèse réactionnelle »

Il s'agit d'une lésion rare puisqu'elle ne représente que 1 à 4% des tumeurs osseuses bénignes. Elle siège principalement sur la métaphyse des os longs et survient presque exclusivement chez le sujet jeune avec une légère prédominance féminine. Son étiopathogénie reste inconnue.

Le diagnostic de KOA n'est pas toujours évident car l'aspect en radiologie standard peut parfois être confondu avec certaines formations kystiques bénignes ou malignes, et en particulier avec le sarcome anaplasique de forme télangiectasique. Bénigne histologiquement, cette lésion comporte néanmoins un pronostic d'une certaine gravité d'une part, par sa localisation, sa taille et la proximité du cartilage de conjugaison qui posent des problèmes thérapeutiques, et d'autre part, par la fréquence de ces récurrences locales.

Le kyste osseux anévrysmal pose des problèmes diagnostique et thérapeutique relativement difficiles, car cette maladie revêt des visages divers dans des tranches d'âge fort différentes et selon la localisation, ceci explique l'absence d'attitude consensuelle.

De nombreuses attitudes sont possibles depuis l'abstention thérapeutique jusqu'à la résection en bloc ou même l'amputation dans certains cas très particuliers.

Notre travail repose sur l'étude de dossier de 4 enfants atteints d'un kyste osseux anévrysmal et pris en charge dans le service de traumatologie et orthopédie pédiatrique de CHU Hassan II de Fès durant la période entre 2007 et 2011.

Le but de cette étude est de relater l'expérience de notre service et de proposer à travers cette dernière ainsi qu'à travers une revue de la littérature un savoir faire face aux difficultés diagnostiques et thérapeutiques posées par cette pathologie.

# HISTORIQUE



Le kyste anévrysmal des os est une dystrophie osseuse bénigne et habituellement solitaire.

Considérée pendant longtemps comme une variante des tumeurs à cellule géantes, la notion de kyste anévrysmal est une acquisition relativement récente en pathologie osseuse ; c'est une entité anatomo-pathologique isolée et définie par H.L JAFFE [1] et L.LICHTENSTEIN [2] en 1942 et qui se présente comme « une cavité kystique gorgée de sang, soufflant l'os excentriquement et séparée des parties molles par une très fine coque osseuse » ; sa bénignité, son tableau clinique et ses images radiologiques permettent alors de poser le diagnostic de haute probabilité dans 60 à 80% des cas et font d'elle une lésion sans mystère. Cependant, le complément histologique de la définition de NEZLOFEN [3] en 1960 précise « l'existence de travées conjonctives dans lesquelles sont présentes des myéloplaxes et des lamelles ostéoides d'origine métaplasique » ce qui estompe déjà cette apparente simplicité.

A s'en tenir aux classifications de 1971 des tumeurs bénignes et dystrophies pseudo-tumorales des os, le kyste anévrysmal trouvera sa place dans les tumeurs non spécifiques développées à partir de tissu non squelettogènes; il s'y trouve à côté de l'angiome osseux, mais leurs caractères anatomiques, radiologiques et leurs expressions histologiques sont si différents que le désir de leur trouver une parenté aussi logique que celle d'un fleuve et ses rives ne peut se tolérer. Elle peut l'être d'avantage avec certains kystes essentiels osseux, intégrés dans les dystrophies pseudo-tumorales à caractère ostéolytique, mais reste entier le problème nosologique fondamental des rapports du kyste anévrysmal avec la tumeur à myéloplaxes, classées dans les tumeurs spécifiques développées aux dépens des tissus squelettogènes à prédominance ostéoclastique.

Les contradictions du raisonnement scientifique restent surprenantes. C'est précisément du cadre complexe des kystes essentiels et angiomes de l'os, et plus encore des tumeurs à cellules géantes qu'a été « extrait » par JAFFE [1], le kyste osseux anévrysmal. En reprenant ses conclusions montrant que la constatation de cellules multi-nucléées ne suffisait pas à établir le diagnostic de tumeur à cellules géantes (anciennes tumeurs à myélopaxes, il faut tenir compte en particulier des notions d'âge et de localisation.

Presque dans le même temps, EDLING[4] en 1966 envisage de nouveau un rapprochement pathogénique entre kyste anévrysmal, kyste essentiel et tumeur à cellules géantes dont les différences seraient essentiellement macroscopiques et dépendantes de la topographie métaphysaire, diaphysaire ou épiphysaire. Une conception pathogénique unitaire des ces lésions osseuses où la cellule géante multinucléée est présente, ne serait pas possible à entrevoir. En fait une telle nosologie n'améliore en rien la connaissance étiologique de ces tumeurs, et risque plutôt d'ajouter une possible confusion.

# ETIOPATHOGENIE ET GENETIQUE

Le kyste anévrysmal est un processus hyperplasique, réactif à une hémorragie sous-périostée ou intra-osseuse. Il s'agit d'une lésion pseudotumorale provoquée par des altérations hémodynamiques.

Pour LICHENSTEIN [2], GODFREY [5], et CLOUGH [6], des modifications locales hémodynamiques dues à un traumatisme ou des microtraumatismes répétés, seraient le facteur déterminant la formation du kyste osseux anévrysmal par oblitération veineuse ou par développement d'un shunt artério-veineux survenant sur un squelette immature hypervascularisé. CAMPANACCI [7] a ainsi rapporté que 25% des kystes osseux anévrysmaux seraient secondaires à un traumatisme.

Pour BURACZEWSKI [8] et DONALDON [9], le kyste osseux anévrysmal serait issu de la croissance d'un os dont le cartilage de croissance aurait une physiologie anormale marquée par une prolifération et une hypertrophie chondrocytaire. Dans ce contexte prolifératif, la néovascularisation épiphysaire intense ferait le lit des malformations artério-veineuses. Aussi, DYER [10] a rapporté que l'expansion du kyste pourrait être issue de la vascularisation qui traverse normalement l'épiphyse. GODFREY [5] a notamment observé que les cellules vasculaires issues de la paroi du kyste s'étendaient, à travers le front d'ossification, le long des vaisseaux pénétrants l'épiphyse. Ceci expliquerait la localisation juxta-épiphysaire préférentielle du kyste osseux anévrysmal.

En 1999, PANOUTSAKOPOULOS [11], en étudiant des aberrations chromosomiques dans 3 cas de kystes osseux anévrysmaux, a récemment identifié 2 loci qui sembleraient contenir des gènes importants pour le kyste osseux anévrysmal. Les dénominateurs communs sont les loci 16q22 et 17q13. Depuis DAL CIN [12] a rapporté la présence de translocations identiques impliquant les loci 16q22 et 17q13 dans le génome de patients présentant la forme « solide » du kyste osseux anévrysmal. VICENZI [13], en 1981, et LEITHNER [14], en 1998, avaient déjà

observé, chacun, un cas familial de kyste osseux anévrysmal primaire chez un père et son fils, survenu au même âge et à la même localisation. POWER [15], en 1996, avait observé un cas de kyste osseux anévrysmal dans une fratrie de jumeaux homozygotes. Récemment, DICAPRIO [16] a décrit un autre cas familial de kyste du rachis, touchant un père et sa fille.

# HISTOIRE NATURELLE

L'histoire naturelle est celle d'une lésion bénigne sans risque métastatique mais avec un potentiel important de destruction locale. Pour BIESECKER [17], il existe un potentiel de croissance rapide entre 6 et 12 semaines avec une destruction osseuse extensive et éventuellement un retentissement sur les parties molles de voisinage.

Le KOA peut devenir très volumineux et le traitement peut alors nécessiter un gros sacrifice osseux. En cas de forme secondaire, le pronostic est celui de la lésion associée.

Pour GODFREY [5], l'histoire naturelle peut être résumée en 3 étapes. Lors de la 1<sup>ère</sup> étape ou étape de genèse, il existe une prolifération du tissu vasculaire dans l'os adjacent au cartilage de conjugaison. Dans la 2<sup>ème</sup> étape ou étape de croissance, l'expansion tumorale peut s'effectuer, soit par l'invasion directe par des cellules vasculaires de la paroi du kyste le long des vaisseaux sanguins, ou soit indirectement par distension passive des espaces vasculaires de la tumeur ou des tissus adjacents à celle-ci. Dans la 3<sup>ème</sup> étape ou étape d'inactivation, la croissance tumorale est freinée ou stoppée par la thrombose ou la fibrose. Ainsi, dans les kystes larges, un thrombus chronique remplit la cavité, entourée par un endothélium, du tissu fibreux et du tissu ostéogénique. Les kystes de volume modéré pourraient se refermer et se recalcifier. Ainsi, MAC QUEEN [18] a observé 2 cas d'évolution spontanée vers la guérison. Les KOA concernés étaient situés sur le bassin mais tous les deux avaient eu une biopsie chirurgicale. CAMPANACCI [7] a décrit aussi 5 KOA sur 166, répartis sur l'ensemble du squelette, qui ont eu un comblement « spontané ». Dans notre expérience, nous n'avons pas observé d'évolution spontanée des KOA, l'évolution s'est faite vers l'augmentation progressive de volume avec présence de troubles fonctionnels justifiant un traitement.

Pour MARCOVE [19] et CAPANNA [20], il semble que l'évolution naturelle des KOA adjacents au cartilage de conjugaison puissent se faire vers une fusion prématurée du cartilage de croissance avec ou sans troubles de croissance du membre (accourcissement ou déviation). Ainsi, dans une série de 11 cas adjacents au cartilage de croissance chez l'enfant, MARCOVE [19] a rapporté 100% de fusion prématurée de la physe pour les 3 KOA qui avaient traversé la physe, sans troubles de croissance. Le fait de traverser la physe n'est pas une condition nécessaire à la fusion du cartilage de conjugaison car, parallèlement, il a observé 3 cas de fusion prématurée pour des KOA qui étaient adjacents à la physe sans la pénétrer. Dans une série de 39 KOA adjacents à la plaque de croissance, CAPANNA [20] a observé 5 cas de fusion prématurée de la physe mais avec des troubles de croissance.



# MATERIELS ET METHODES

Il s'agit d'une analyse d'observations de 4 enfants, âgés de moins de 15 ans, colligés au service de traumatologie-orthopédie pédiatrique du CHU Hassan II de Fès entre 2007 et 2011, nous n'avons retenu que les patients avec un kyste osseux anévrysmal cliniquement, radiologiquement et histologiquement concordant.

## A-Observations

### I-Cas clinique n°1 :

Il s'agit de l'enfant F.R, âgée de 15ans, de sexe féminin, qui consulte pour douleur de la jambe droite.

L'histoire de la maladie remonte à 2mois par l'apparition de douleurs du membre inférieur associées à une impotence fonctionnelle partielle du membre inférieur après un traumatisme minime du même coté. La patiente a bénéficié d'un traitement traditionnel et l'évolution a été marquée par l'apparition d'une tuméfaction du membre qui augmente progressivement de volume. Le tout évoluant dans un contexte d'apyrexie et de conservation de l'état général.

L'examen clinique a trouvé : une boiterie douloureuse non fébrile associée à une tuméfaction de l'extrémité supérieure de la jambe; de consistance ferme, sans signes inflammatoire, avec un genou libre.

La radiographie fig.1(a,b) standard de la jambe a objectivé la présence d'une image ostéolytique, ovalaire, excentrée, métaphysaire de l'extrémité supérieure du tibia, avec amincissement de la corticale, qui est rompue par endroit.

Le diagnostic différentiel avec un kyste osseux essentiel a été posé, d'où la réalisation d'une IRM de la jambe fig.2 (a,b,c) qui a montré une volumineuse masse de signal liquidien, multicloisonnée contenant des septa intra-kystique et présentant un niveau liquide-liquide.

La biopsie chirurgicale était en faveur d'un kyste osseux anévrysmal

La malade a été opérée, et elle a bénéficié après un curetage de la masse kystique d'une greffe du péroné et la crête iliaque. fig. 3(a,b).

L'évolution était favorable avec un recul de 23 mois.

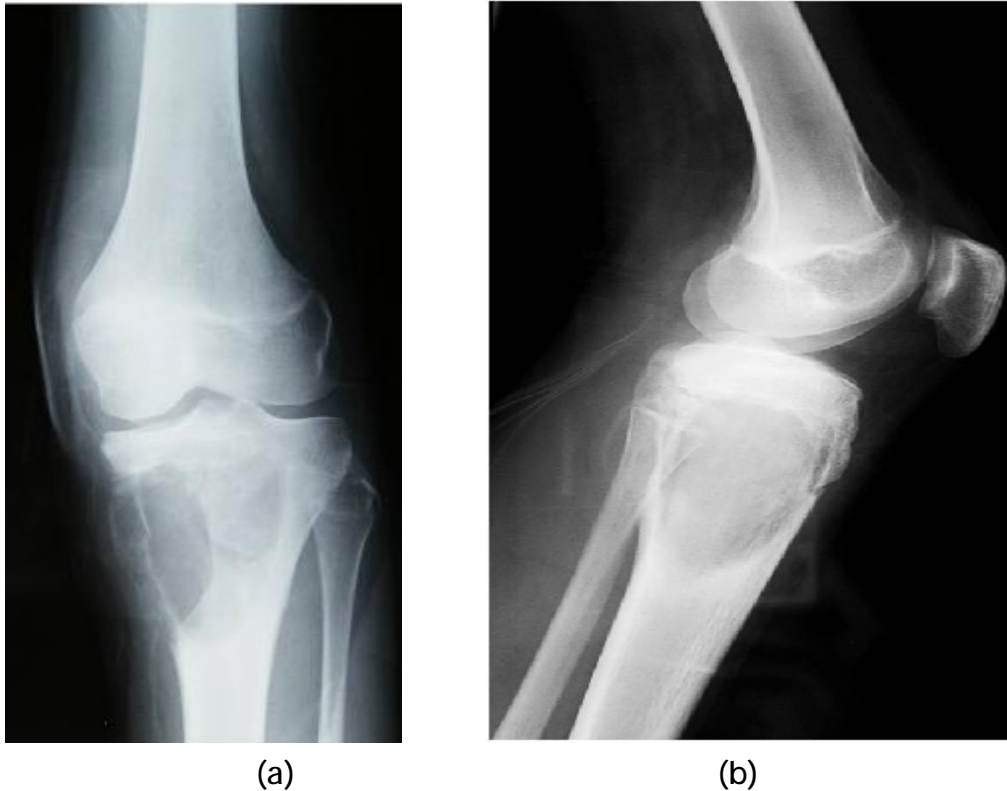


Figure 1 : radiographie standard ; face (a) et profil (b) ; d'un KOA du Tibia proximal montrant une image ostéolytique ; excentrée de la métaphyse, avec amincissement de la corticale, qui est rompue par endroit

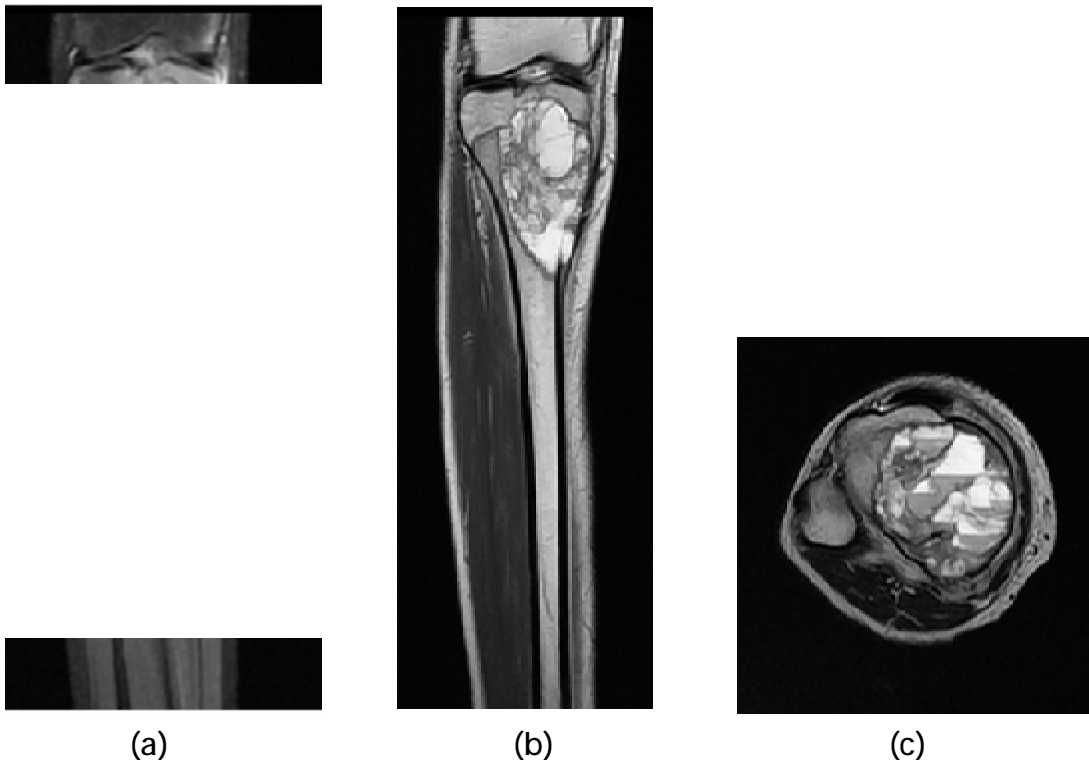


Figure 2 :IRM du Tibia : coupe coronale (a,b) et axiale (c) en (séquences T1 et T2) montrant une lésion de l'extrémité supérieure du tibia de 7 cm de grand axe, bien limitée par un liseré périphérique en hyposignal(en T1 et T2) avec une architecture en logette (septa en hypersignal en T1 traduisant l'hypervascularisation des membranes),et des niveaux hémato-hématiques



(a)



(b)

Figure 3 : radiographie standard, face(a) et profil(b), en postopératoire immédiat montrant le résultat après le curetage et comblement de la cavité kystique par une autogreffe à partir d'un péroné libre et la crête iliaque.

## II-Cas clinique n°2 :

Il s'agit de l'enfant B.M, âgé de 15 ans ; de sexe masculin, qui ne présente aucun antécédent pathologique notable, qui consulte pour une tuméfaction indolore de l'avant pied gauche.

L'histoire de la maladie remonte à un an, par l'apparition d'une tuméfaction, augmentant progressivement de volume, dans un contexte d'apyrexie et de conservation de l'état général.

L'examen a trouvé une masse ferme indolore de l'avant pied, sans signes inflammatoire ni circulation veineuse collatérale (fig.4).

La radiographie standard du pied fig. 5(a,b) a montré une image ostéolytique bien limitée arrondie, corticale amincie, soufflante, non rompue, avec des cloisons intra lésionnelles.

IRM fig.6 (a,b) du pied a révélé la présence des niveaux liquide-liquide.

La biopsie chirurgicale est revenue en faveur d'un KOA.

Le patient a bénéficié d'une résection tumorale complète et comblement de la perte osseuse par du ciment chirurgicale avec stabilisation par une broche axiale, dans un 1<sup>er</sup> temps. puis reprise après 6 semaines pour le repérage de la membrane auto-induite et comblement de la cavité par un greffon à partir de la crête iliaque et des substituts osseux dans un 2<sup>ème</sup> temps, selon la technique de Masquel et fig.7 (a,b) .

Après un recul de 21 mois, le patient ne présente pas de trouble de la marche, avec une parfaite consolidation osseuse sur le contrôle radiologique (fig.8-9).



Figure 4 : aspect clinique de la tuméfaction de l'avant pied gauche

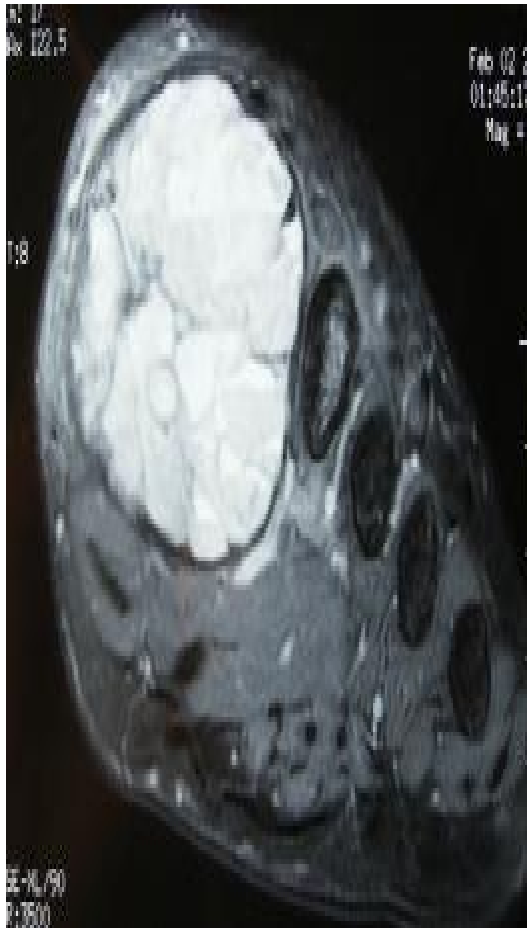


(a)



(b)

Figure 5 : radiographie standard ; face(a) et profil (b); montrant une image ostéolytique du 1<sup>er</sup> métatarse bien arrondie, avec une corticale amincie, soufflante, non rompue et des cloisons intra-lésionnelles.



(a)



(b)

Figure 6 : IRM (séquences T1, T2) en coupe axiale(a) et sagittale(b) de l'avant pied montrant une lésion multi cloisonnée (aspect en bulle de savon), et des septas qui séparent les logettes avec individualisation des niveaux liquide-liquide.



1<sup>er</sup> temps

Figure 7(a) : radiographie standard en postopératoire immédiat montrant la résection complète de la tumeur au niveau du 1<sup>er</sup> métatarse, et la mise en place du ciment chirurgicale.



2<sup>ème</sup> temps

Figure 7(b) : radiographie standard après le 2<sup>ème</sup> temps de masquetelet montrant le comblement quasi complet de la cavité par un greffon à partir de la crête iliaque et substituts osseux.





Figure.8 : aspect clinique après un recul de 21 mois



Figure 9 : aspect en radiographie standard montrant le comblement totale de la cavité kystique après un recul de 21 mois.

### III-Cas clinique n°3 :

Il s'agit de l'enfant A.K, âgée de 15 ans, de sexe féminin, sans antécédents pathologique notable, qui consulte pour des gonalgies droites.

Le début de la symptomatologie remonte à 2 mois par l'apparition de douleur du genou d'intensité modérée, sans autres signes associées, le tout évoluant dans un contexte d'apyrexie et de conservation de l'état général.

L'examen a trouvé une petite tuméfaction de consistance ferme au niveau de la face supéro-externe de la jambe, douloureuse, sans signes inflammatoires en regard.

La radiographie standard (fig.10) de la jambe a révélé une image ostéolytique, bien limitée ; siégeant au niveau de la tête du péroné, soufflant la corticale, qui est amincie.

La biopsie chirurgicale était en faveur d'un KOA.

La patiente a bénéficié d'une résection en monobloc de la tumeur osseuse (fig.11), sans reconstruction vue la solidité de la structure restante.

L'évolution en postopératoire a été marquée par l'apparition d'un déficit de la dorsi-flexion du pied, l'EMG était en faveur d'une paralysie du SPE.

L'exploration chirurgicale après 6 mois, a montré l'intégrité du nerf sciatique poplité externe (SPE).

La malade a gardé un steppage; même après la rééducation; sur un recul de 18 mois.

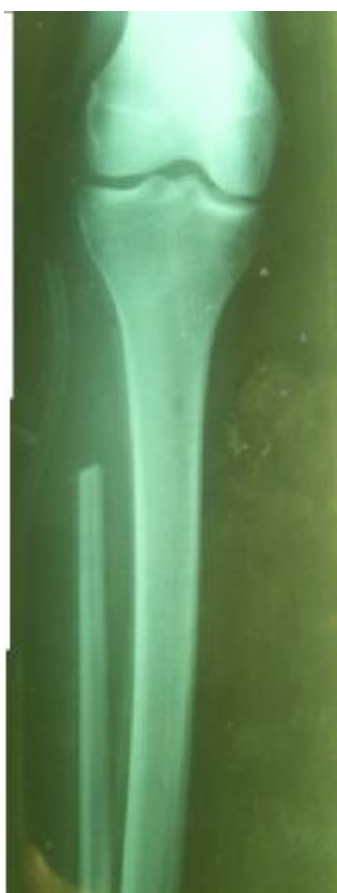


(a)



(b)

Figure 10 : radiographie standard, face(a) et profil (b), montrant une image ostéolytique, bien limitée, siégeant au niveau de la tête du péroné, soufflant la corticale, qui est amincie.



(a)



(b)

Figure 11 : radiographie standard ; face(a) et profil(b), en postopératoire immédiat après résection en monobloc du KOA

#### IV-Cas clinique n°4 :

Il s'agit de l'enfant M.H, âgé de 11 ans, de sexe masculin, sans antécédent pathologique notable, qui consulte pour tuméfaction de la jambe droite.

Le début de la symptomatologie remonte à 1 mois par l'apparition d'une tuméfaction de la jambe, augmentant progressivement de volume, le tout évoluant dans un contexte d'apyrexie et de conservation de l'état général.

L'examen clinique a trouvé une tuméfaction de la région supéro-interne de la jambe, ferme et douloureuse.

La radiographie standard de la jambe (fig.12) a objectivé une image kystique métaphysaire de l'extrémité supérieure du tibia, avec des cloisons intra kystique, sans envahissement des parties molles.

La biopsie chirurgicale était en faveur d'un kyste osseux anévrysmal (fig.13).

La patiente a bénéficié d'un curetage de la cavité kystique avec comblement de la cavité résiduelle par une greffe cortico-spongieuse à partir de la crête iliaque (fig.14).

L'évolution était favorable sur un recul de 4 ans.

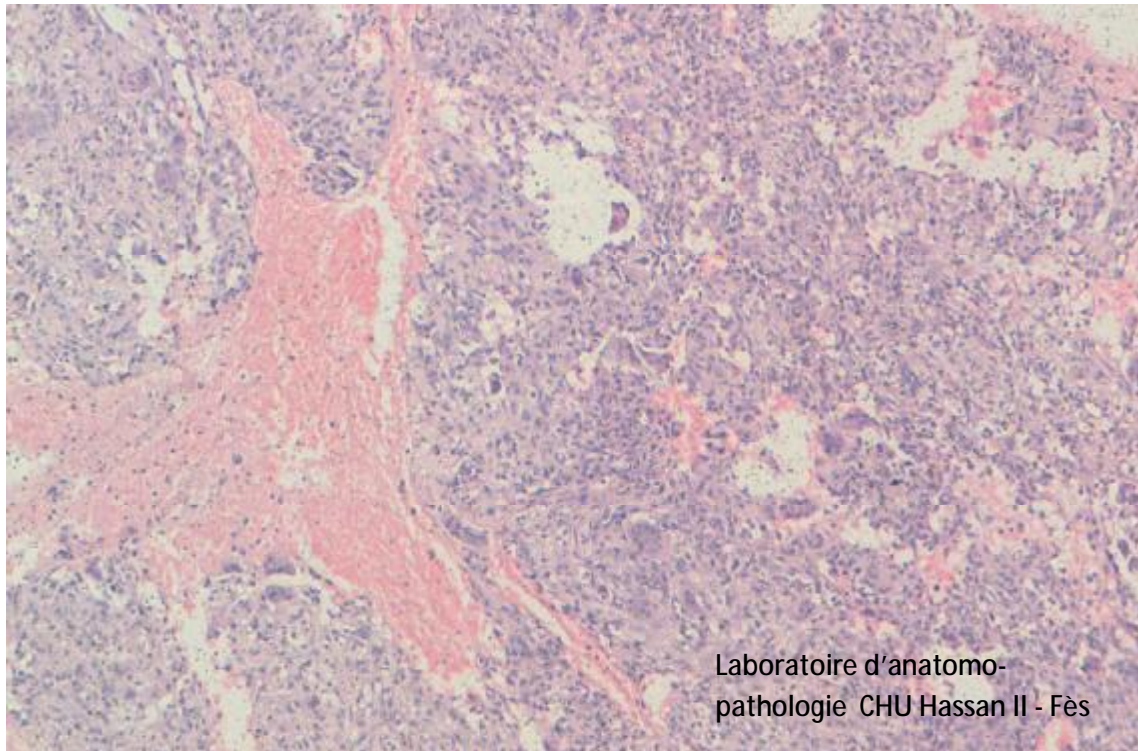


(a)



(b)

Figure 12 : radiographie standard, face(a) et profil (b), montrant une image kystique métaphysaire du tibia proximal, avec des cloisons intra kystique, sans envahissement des parties molles.



Laboratoire d'anatomo-  
pathologie CHU Hassan II - Fès

Figure 13 : aspect microscopique d'un KOA, montrant les travées régulières dissociées par un tissu fibreux dense remanié par des plages d'histiocytes, avec l'existence de plusieurs fentes vasculaires bordées de cellules endothéliales.



(a)



(b)

Figure 14 : radiographie standard, face (a) et profil (b), après un recul de 3 mois, montrant le comblement quasi complet de la cavité kystique.

Tableau 1 : fiche d'exploitation selon l'âge, le sexe, la symptomatologie et les classifications radiologiques de CAPANNA[20] et de CAMPANACCI [7]

Cas/N° dossier	Sexe	Age (en année)	Année	Début Sp	Découverte	Localisation	Type	Grade
1 (702/11)	F	15	2011	2 mois	FP	Ext sup Tibia	III	2
2 (200/11)	M	15	2011	1 an	TU	1 <sup>er</sup> Métatarse	II	2
3 (438/11)	F	15	2011	2 mois	TU + DI	Ext sup péroné	I	2
4 (756/07)	M	11	2007	1 mois	TU + DI	Ext sup Tibia	II	2

DI : douleur ; FP : fracture pathologique ; TU : tuméfaction

Tableau 2 : tableau récapitulatif selon le traitement et l'évolution

CAS	Traitement	Evolution	Recul (mois)
1	Curetage+greffe	FAV	23
2	Résection + reconstruction	FAV	21
3	Résection complète	Paralysie du SPE	18
4	Curetage + greffe	FAV	48



## B-Résultats :

### 1. Epidémiologie :

La série comprenait 2 filles et 2 garçons avec un sexe ratio de 1.

La moyenne d'âge était de 14 ans (extrêmes de 11 à 15 ans).

Aucun cas familial n'a été enlevé.

Le kyste osseux anévrysmal était localisé 3 fois sur les os longs (02 cas sur tibia et 01 cas sur le péroné), dans 1 cas le kyste osseux anévrysmal était retrouvé sur le 1<sup>er</sup> métatarse.

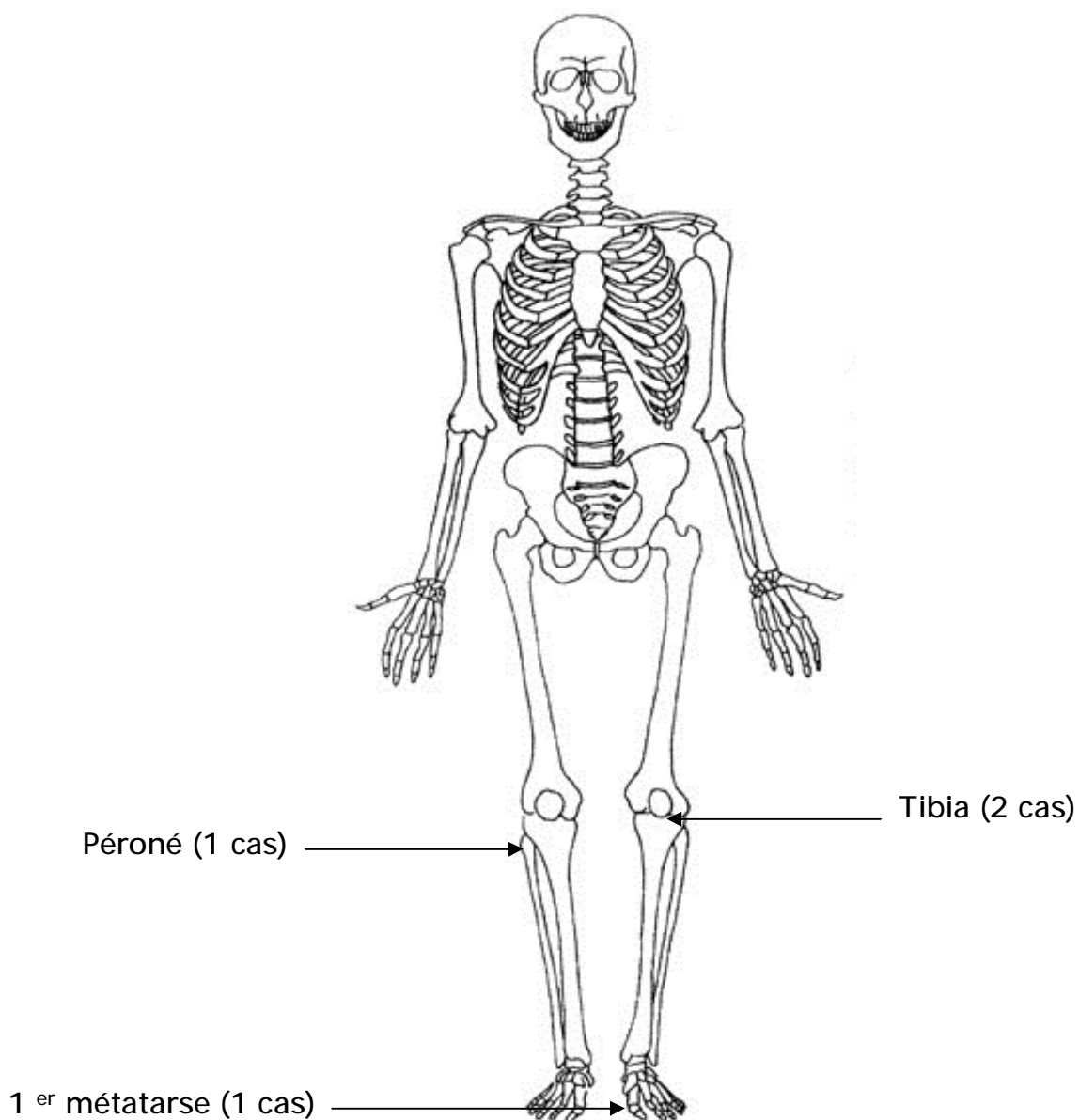


Figure 15 : Différentes localisations du kyste dans notre série

## 2. Le diagnostic :

### a) la présentation clinique :

Le délai diagnostique était en moyenne de 4 ,2 mois (variant de 1 à 12 mois).

Le motif de consultation était la tuméfaction dans 1 cas, une fracture pathologique dans 1 cas, dans 2 cas une association d'une tuméfaction avec la douleur ; en aucun cas la découverte n'a été fortuite.

### b) la radiographie standard :

Nous avons classé les différents cas selon les critères radiologiques standards de CAMPANACCI[7] (tableau 3) .ainsi, nous avons eu un seul cas portant un KOA de type I, 02 cas de type II et un cas de type III. Par ailleurs les critères de CAPANNA[20] (tableau 4) ont permis de classer les kystes osseux anévrysmaux en lésion latente, active ou agressive. Dans notre étude tous les cas étaient des lésions actives.

Tableau 3 : classification radiologique de CAMPANACCI[7]

Type	Localisation	Centrage	Profil osseux	Modification corticale	Extension dans les parties molles
I	Centrale	Centré	Inchangé	+/- amincissement	Non
II	centrale	Centré	Très expansu	+/- amincissement	Non
III	centrale	Excentré	+/- expansu	+/- amincissement voire disparition localisée	Non
IV	Sous-périostée	Excentré	Expansion sous-périostée	amincissement	Non
V	Sous-périostée	Excentré	Expansion sous-périostée	Disparition effraction corticale	Oui

Tableau 4 : classification radiologique selon CAPANNA [20]

Garde	Type de lésion	Critères radiologique
1	Latente	Liseré ostéosclérotique dense et à contours nets, sans expansion ni déformation osseuse
2	Active	Liseré ostéosclérotique à contours irréguliers, flous, avec expansion ou déformation osseuse
3	Agressive	Liseré ostéosclérotique incomplet à bords flous, avec destruction corticale, +/- extension aux parties molles

c) le scanner et l'IRM :

Le couple clinique et radiologie standard n'ont pas pu éliminer d'autres lésions dans 2 cas, d'où l'indication de l'IRM dans notre étude. Elle a objectivé un niveau liquide-liquide intra kystique.

Aucun patient n'a bénéficié d'un scanner.

d) la biopsie :

Dans tous les cas, la biopsie chirurgicale a été effectuée.

e) l'étude anatomopathologique (figure 13) :

Dans les comptes rendus histologiques, l'aspect retrouvé était : «Tissu avec travées régulières dissociées par un tissu fibreux plus ou moins dense remanié par des plages d'histiocytes et quelques vaisseaux éctasiques ; existence de plusieurs

fentes vasculaires bordées de cellules endothéliales régulières, la paroi du kyste est faite de lymphocytes, de petites fentes vasculaires et de très nombreuses cellules géantes ».

### 3. Le traitement :

#### a. traitement chirurgical :

Les 4 cas de notre étude ont été traités chirurgicalement (tableau 2).

02 patients ont eu un curetage-comblement. Dans le 1<sup>er</sup> cas, le comblement a été effectué par une autogreffe cortico-spongieuse à partir de la crête iliaque et d'un péroné libre. Chez le 2<sup>ème</sup> cas, la greffe a été faite uniquement à partir de la crête iliaque.

01 cas a bénéficié d'une résection avec reconstruction osseuse selon la technique de Masquelet. Le patient qui avait un kyste osseux anévrysmal localisé sur l'extrémité supérieure du péroné (cas n°3) a eu une résection complète sans reconstruction.

#### b. traitement complémentaire :

Aucun patient n'a bénéficié de traitement complémentaire : radiothérapie, injection de corticostéroïde ou d'Ethilbloc et sclérothérapie à l'alcool ; ils ne sont pas utilisés dans notre service.

### 4. Evolution

#### a- Les résultats au dernier recul:

Le recul était en moyenne de 27 ,5 mois (avec extrêmes de 18 à 48 mois).

Le résultat a été jugé bon chez 3 patients qui étaient satisfaits du traitement et ne présentaient pas de troubles fonctionnels, ni troubles de croissance; et le cartilage de conjugaison est resté fertile.

Dans 1 cas, il a été jugé mauvais (cas n°3) d'après la classification d'ENNEKING [21].

Nous n'avons observé aucun cas de récurrence.

b- Complications :

Une seule complication a été observée après traitement chirurgical :

- Une paralysie du SPE après résection complète de l'extrémité supérieure du péroné, dont l'exploration chirurgicale après 6 mois n'a pas objectivé de lésion macroscopique du SPE. la patiente a gardé un steppage malgré plusieurs séances de rééducation.

Aucune fracture ni infection n'ont été observées en postopératoire.

Tableau 5 : Résultat fonctionnel au dernier recul des patients non perdus de vue, ayant un recul supérieur à 1 an selon la classification d'ENNEKING[21].

Résultat	Critères	Nombre de patients
Bon	Aucun signe fonctionnel, patient satisfait, aucun préjudice selon le patient et l'examineur.	3
Moyen	Aucun signe fonctionnel, patient satisfait, aucun préjudice ou signe fonctionnel selon l'examineur.	0
Mauvais	Présence d'un signe fonctionnel, patient satisfait, aucun préjudice esthétique ou fonctionnel selon le patient ou l'examineur.	1

# DISCUSSION

## A. Epidémiologie :

Le kyste anévrysmal est une lésion rare représentant moins de 4% des tumeurs bénignes de l'os; il est deux fois moins fréquent que la tumeur à cellules géantes, et quatre à sept fois plus rare que l'ostéosarcome [14,22,23], il existe une légère prédominance féminine et le kyste apparaît 3 fois / 4 avant l'âge de 20 ans et 9 fois sur 10 avant l'âge de 30ans, GINSBURG [24] rapporte un cas néo-natale de kyste anévrysmal du radius; et les cas familiaux sont exceptionnels [25].

L'âge est donc un élément de diagnostic de valeur, c'est une affection de l'adolescence et surtout une lésion de l'enfance.

Dans un article récent où il a fait une revue de la littérature avec 1002 cas, Leithner [25] rapporte une incidence annuelle de 1,4 pour 1 million d'individus avec un sexe ratio(M /F) de 1,1. La prédominance du sexe est, en effet, contradictoire selon les séries. Si l'on combine les séries de Tillman[26], Biesecker[17], Campanacci[7], Arlet[27], Farsetti[28], Szendroi[29], Vergel De Dios [30], Freiberg [31], Marcove[19], Schreuder[32], Bollini[33] et de Gibbs[34], il existe une prédominance féminine.

Le KOA atteignait le plus souvent les os longs et d'abord le fémur puis le tibia et l'humérus.la localisation la plus fréquente sur les os longs était métaphysaire et métaphysodiaphysaire, volontiers près du genou. L'atteinte diaphysaire était rare ainsi que l'atteinte épiphysaire qui devrait faire remettre en question le diagnostic pour Biesecker[17]. Dans une série de 238 cas, Vergel De Dios[30] a rapporté une atteinte plus fréquente au niveau du rachis cervical ou dorsal qu'au niveau du rachis lombaire ou sacré.

Dans notre travail, aucune atteinte vertébrale n'est retrouvée, les localisations les plus fréquentes sont au niveau du péroné et du tibia.



## B. Diagnostic positif

### I. Aspect clinique:

Les manifestations cliniques ne gardent qu'une valeur d'appel vers la pièce squelettique pathologique.

Si l'expression douloureuse est souvent polymorphe, elle n'a pas le caractère d'emblé alarmant de la douleur ostéocope: elle reste en générale modérée, irrégulière, rarement nocturne, parfois augmentée par l'effort ou la fatigue. C'est sa persistance pendant des semaines qui attire l'attention.

Au niveau du rachis, les tassements vertébraux et les symptômes neurologiques qui en découlent sont fréquents (46%) [35]; des rachialgies, parfois même des radiculalgies ou même les éléments plus ou moins dissociés d'un syndrome paraplégique, s'associant à une rigidité, évoquent d'autant plus une localisation vertébrale, qu'elle apparaissent et évoluent ici très rapidement, témoignent de l'atteinte préférentielle de l'arc postérieur, plus parlante; la symptomatologie des atteintes rachidiennes est spécifique en ce sens qu'en dehors des douleurs, une scoliose symptomatique ou une fracture pathologique peuvent être le mode de découverte. La neuro-agressivité est plus le faite de lésion de l'arc postérieur bombant dans le canal rachidien que d'un tassement corporéal antérieur. Tout aussi banaux, troubles de la marche et boiterie gardent au moins le mérite de réclamer un examen complet.

Ces manifestations douloureuses précèdent habituellement la découverte de la tuméfaction ; parfois révélatrice ; modérée, de consistance assez dure, elle fait corps avec l'os et respecte les parties molles. Elle n'est ni fluctuante, ni pulsatile. Parfois un aspect inflammatoire inhabituel peut égarer: chaleur et rougeur locale, léger œdème soulignant une amyotrophie mineure de moindre utilisation, mais sans adénopathie satellite. Si sa lente évolution reste de règle, une soudaine

augmentation ne surprend pas, surtout dans l'enfance où elle est plutôt évocatrice. Le kyste anévrysmal enfin, entièrement latent, peut rester une découverte et une surprise d'examen radiologique.

Dans 72% des cas pour CAMPANACCI [7], le temps écoulé depuis le début des symptômes jusqu'au diagnostic est inférieur à 6 mois. Dans 25% des cas les symptômes initiaux sont rattachés par le patient à un traumatisme. Enfin, bien que le kyste soit ostéolytique et souvent amincisse les corticales, les fractures pathologiques comme mode de découverte sont beaucoup moins fréquentes que pour le kyste essentiel de l'os et ne représenteraient que 10%. Dans notre étude 1 cas a été diagnostiqué après fracture pathologique.

Ainsi, la douleur et surtout la tuméfaction sont des symptômes principaux non spécifiques. Souvent (30% des cas), on relève un traumatisme comme élément déclenchant. Parfois, les kystes peuvent atteindre des dimensions considérables et prendre l'allure d'une tumeur maligne.

## II. Aspect radiologique:

### a) La radiographie standard :

Les signes radiologiques varient avec la taille de la lésion et sa localisation:

Lorsqu'il est petit, le kyste anévrysmal apparaît sous la forme d'une lacune homogène ostéolytique excentrée, à limites précises et régulières. Dans les formes les plus étendues, il s'agit encore d'une lacune géographique pouvant dépasser 6cm dans sa plus grande dimension, à tendance expansive, qui se manifeste par une soufflure de l'os d'une façon excentrée. La corticale est érodée, amincie et parfois même détruite. Cette portion excentrée, lorsqu'elle est vue en tangence, peut dès lors apparaître comme une fine toile d'araignée dans les parties molles en regard de la lésion, se raccordant à la lacune à chacune de ses extrémités. La lésion présente

souvent un aspect trabéculé témoignant de la présence d'arêtes périphériques et non de cloisons osseuses intra-lésionnelles.

Un épaississement du périoste peut quelque fois se voir dans ces formes; il reste habituellement plein, régulier et de type bénin. Côté tissu osseux spongieux, les limites sont souvent nettes, mais sans condensation marginale. Dans les petits os et os courts, la tendance excentrique n'est souvent pas apparente, car elle est centrale et assez rapidement l'extension osseuse est telle que tout l'os paraît soufflé, augmentée de volume.

Certaines localisations sont très superficielles, à tel point que TILLMAN[26] considère qu'il y a deux variétés de kyste anévrysmal ; l'un à point de départ intra-osseux qui souffle l'os, l'autre superficiel, érodant le cortex vers la cavité médullaire et soulevant le périoste. C'est dans cette variété que l'on peut observer en tangence de fines images réticulées en dentelle, simulant une réaction périostée en spicules, et que l'on peut voir au point de raccordement de la tumeur avec la zone saine un éperon de Codman. Ces formes superficielles seraient peut être consécutives à un traumatisme; aucun cas n'a été observé dans notre étude.

En 1985, CAPANNA et Al [36,37] ont proposé une classification, utilisée ensuite par d'autres auteurs [38,39], basée sur cinq types morphologiques différents (tableau 3) :

-Type 1 : le kyste occupe la partie centrale de l'os, la corticale est normale ou légèrement soufflée mais non rompue. Ce type est habituellement observé aux métaphyses ou aux zones métaphyso-diaphysaires des os longs; c'est la forme la plus habituelle dans l'os spongieux.

(Un seul patient dans notre série, cas N°3).

-Type II : la lésion intéresse tout un segment osseux qui est le siège d'une importante tuméfaction avec corticale amincie. Cette variété se voit en général aux

métaphyses ou aux zones métaphyso-diaphysaires des os longs de petit calibre (péroné, radius, cubitus) ou des os tubulaires (métacarpes, métatarses), endroits où le kyste peut concerner rapidement toute la largeur de l'os. C'est aussi le type le plus fréquemment observé sur les os plats.

Ce type radiologique a été observé chez 2 patients (cas N°2 et 4).

-Type III : ce sont des kystes excentrés, habituellement de siège ne touchant qu'une seule corticale, en ne provoquant en général que peu de modifications du contour osseux.

Dans de tels cas, on ne peut exclure l'hypothèse que le kyste soit né en zone sous-périostée, et que par la suite il détruit la fine corticale osseuse et le spongieux sous-jacent. Ultérieurement, le périoste (qui ne se décolle pas facilement de la corticale dans de telles régions du fait de la présence d'insertions capsulotendineuses) reforme un fourreau osseux qui peut donner une fausse impression d'origine centrale du kyste.

Un seul patient dans notre série, avait un kyste anévrysmal de type III (cas N°1).

-Type IV : ce sont des formes rares, l'origine clairement sous périostée, qui érodent la face superficielle de la corticale.

Initialement, le soulèvement périosté n'est visible qu'à l'angiographie ou à l'imagerie par résonance magnétique (IRM). Par la suite, il va s'ossifier. Cette variété est presque exclusivement observée dans les rares formes diaphysaires, là où le périoste se décolle facilement et où la corticale est relativement épaisse

- Type V : il s'agit encore de kystes sous-périostés mais qui s'épandent vers les parties molles ou vers l'intérieur de l'os en détruisant la corticale. Cette variante s'observe dans les zones métaphyso-diaphysaires, là où le périoste est facilement décollable mais où la corticale est fine.

Dans notre étude, on n'a trouvé aucun patient avec un kyste osseux anévrysmal de type IV ni V.

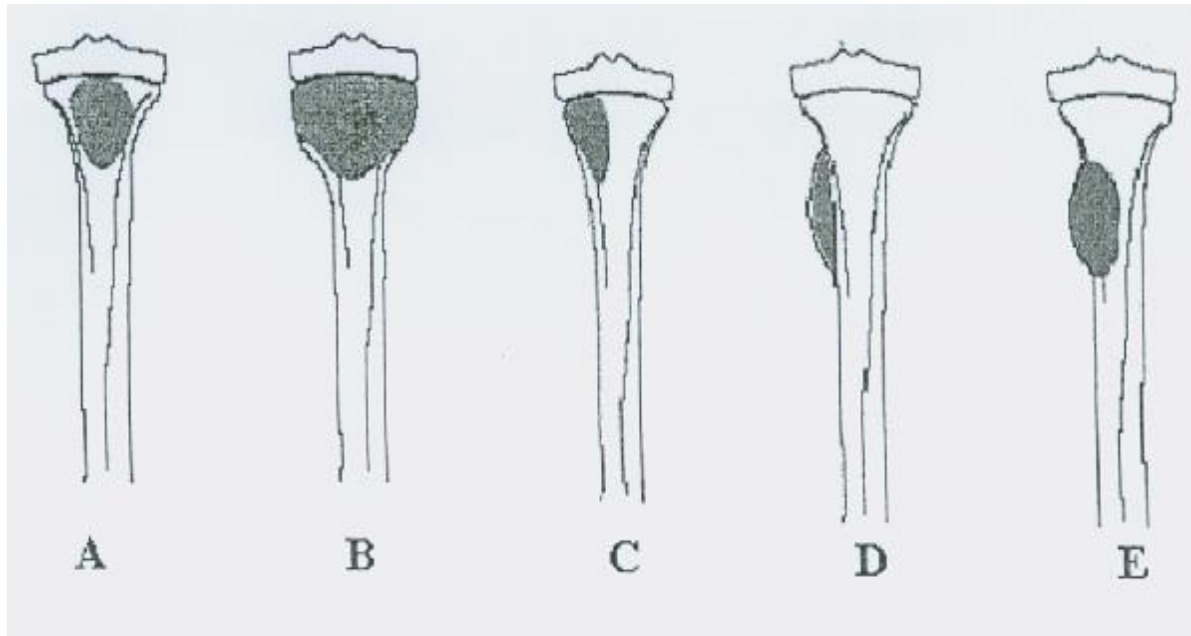


Figure 16 : Les 5types morphologiques du kyste osseux anévrysmal

A=type 1: central, bien contenu dans l'os

B= type II: central, soufflant

C= type III : excentré, intra osseux

D= type IV : sous périosté, externe

E = type: V : sous périosté, intra et extra osseux

Dans les localisations rachidiennes ou sur les os plats, le kyste anévrysmal manifeste au maximum son caractère expansif, la lacune kystique à tendance à s'étendre tout au long du contour de l'os, soulevant et « ballonnissant » le cortex (il s'agit d'un trouble de modelage de l'os). Certaines formes particulièrement agressives peuvent ne pas respecter les limites naturelles de la vertèbre qui a servi de point de départ et s'étendre par érosion aux os voisins, plusieurs vertèbres pouvant ainsi être détruites.

#### Evolution radiologique du kyste anévrysmal de l'os: phases évolutives

Le kyste anévrysmal présente plusieurs phases évolutives aux caractéristiques différentes:

- à la phase initiale, il apparaît sous la forme d'une lésion purement ostéolytique de siège souvent excentré ou même sous-périosté, et donc rarement intramédullaire. La corticale peut être amincie ou détruite. Le périoste peut être décollé et repoussé vers les parties molles sans présenter de réaction d'ostéogenèse. Les limites entre kyste et parties molles ne sont pas visibles. Le bord interne de la cavité est irrégulier, peu net, simulant parfois une lésion maligne. Cette phase est définie « agressive ».

- à la phase intermédiaire, est observée une réaction ostéoformatrice du périoste qui souligne le contour du kyste sous forme d'un fin liseré d'os néoformé d'aspect initialement discontinu, puis de plus en plus net. Du côté diaphysaire du décollement périosté, on peut voir se constituer un triangle de CODMAN. Les limites intra osseuses de la lésion sont assez nettes, présentant un fin liseré d'os réactionnel; par la suite apparaissent de fins septas ou crêtes pariétales endo-osseuses. Le kyste peut atteindre un volume considérable, soufflant et déformant la pièce osseuse. Cette phase est dite « active ».

- à la phase tardive ou de réparation, les bords de la lésion et les septa endosseux deviennent de plus en plus scléreux et épais. Les contours sont nets et bien individualisés, avec une bordure dense vers l'intérieur de l'os et un fourreau osseux périosté en direction des parties molles. Le kyste peut partiellement s'ossifier, formant un os trabéculaire immature (frosted glass) et/ou diminuer lentement de dimensions. Cette phase est dite « inactive » ou « latente »; elle est observée dans les rares cas de guérison spontanée ou bien à la suite d'un traitement radiothérapeutique, d'une embolisation ou de stimuli ostéo-inducteurs.

b) La tomодensitométrie (TDM) :

Elle peut être utilisée pour mieux étudier la lésion surtout lorsque l'anatomie osseuse est complexe (rachis, bassin). L'interruption de la corticale, si elle existe, est bien visible mais sans anomalie dans les parties molles adjacentes, ceci témoignant de la présence d'un périoste intact. Elle décèle parfois un niveau liquide témoignant d'un contenu hémorragique.

Le liquide déclive sanglant est plus dense, il faut prendre soin auparavant de maintenir le patient en clinostatisme (c'est-à-dire maintenir le patient en position couchée) [40].

Ces niveaux ne sont absolument pas spécifiques et peuvent s'observer dans d'autres tumeurs bénignes ou malignes comme l'ostéosarcome ou l'hémangiome osseux.

La TDM peut être utile lorsque l'aspect clinique et radiologique standard ne permet pas d'éliminer une tumeur maligne. Dans ce cas la TDM permet de préciser l'extension locorégionale de la tumeur; au niveau du rachis elle permet d'apprécier l'extension intra-canaulaire et paravertébrale.

Dans notre série, aucun patient n'a bénéficié d'une TDM.

### c) L'imagerie par résonance magnétique(IRM) :

Elle met en évidence une lésion bien limitée, avec un liseré périphérique de bas signal, de nombreuses logettes délimitées par des septas ; les septas intrakystiques, avec leur aspect en bulle de savon, la lésion est bien mise en relief par la fixation du gadolinium. Les niveaux liquidiens sont mieux visibles qu'en TDM [41].

Le sang à l'intérieur des lacunes kystiques est détecté par un fort signal en T2.

Les niveaux liquides ne sont pas spécifiques du kyste anévrysmal, pouvant aussi être observés dans d'autres tumeurs à forte composante vasculaire (ostéosarcome télangiectasique, kyste anévrysmaux secondaires) [42,26]. Selon certains auteurs ils sont mieux évalués par l'échographie que par la TDM. Les niveaux liquides sont fréquemment observés lors de la phase intermédiaire ou finale (88% des cas), alors qu'ils sont habituellement absents au stade initial ou lorsque le kyste a été remanié par des biopsies ou de précédentes interventions chirurgicales.

Un point important réside en l'absence de modification de la moelle osseuse périlésionnelle et des parties molles adjacentes.

Dans certains cas aucune structure kystique n'est reconnaissable par les moyens d'imagerie. Il s'agit de kystes osseux anévrysmaux dit solides, leur diagnostic radiologique est difficile voir impossible.

Dans notre étude, deux cas ont pu bénéficier de l'IRM, qui était évocatrice au diagnostique.

### d) L'angiographie :

Ne montre pas d'importants pédicules vasculaires mais plutôt un fin réseau de petits vaisseaux avec blush diffus et persistance prolongée du produit de contraste à l'intérieur du kyste. Il n'y a jamais de malformation artérielle ou de shunt artérioveineux, mais des anomalies veineuses lors de la phase tardive ont été rapportées.



#### e) La scintigraphie osseuse au technétium.

Montre une fixation forte en périphérie de la lésion, tandis que la zone centrale est peu ou pas fixante.

#### f) Place de la ponction et de la biopsie pré thérapeutique.

Le contenu typique du kyste osseux anévrysmal observé chirurgicalement est un liquide hématique non coagulable; cependant, ce liquide peut être séreux ou séro-hématique dans quelques rares cas ce qui correspond au contenu d'un kyste osseux essentiel [33,43]. Etant non spécifique, le recueil d'un liquide hématique à la ponction ne suffit pas à affirmer le diagnostic du kyste osseux anévrysmal. Si l'on veut le confirmer, une étude anatomopathologique s'impose. La biopsie préthérapeutique paraît alors indispensable en cas de suspicion de lésion maligne au scanner ou à l'IRM et en cas de lésion atypique ou douteuse, surtout si cette lésion devait avoir un traitement local. Il ne faut pas hésiter non plus à réaliser une biopsie du « second regard » devant une lésion atypique, agressive ou récidivante précocement après traitement chirurgical. En raison du nombre important de faux négatifs lors des biopsies au trocart (1 cas dans la série de BOLLINI [33] et 12 cas dans la série de PAPAGELOPOULOS [35]) il est préférable de réaliser cette biopsie chirurgicalement afin de ramener à l'histologiste suffisamment de matériel analysable.

### III- Etude anatomopathologique :

C'est un temps fondamental dans le diagnostic positif du KOA

#### 1. Aspect macroscopique:

Contrairement au tableau radio clinique parfois agressif et pseudo malin, l'aspect macroscopique d'un kyste anévrysmal est plutôt rassurant.

Bien souvent, la fragmentation du tissu et sa dissociation par l'hémorragie ne permet pas de reconnaître pour le pathologiste les critères morphologiques et la structure anévrysmatique macroscopique du KOA. Ainsi Rigault [44], en 1972, a décrit cette lésion comme une masse de couleur violacée, limitée par une mince coque périostée. Cette coque périostée est clivable et se laisse facilement effondrer découvrant un liquide hématique. Pour Daudet [45], ce sang ne contient pas de caillots et « sourd des parois du kyste sans jaillir ». On note également la présence, dans cette cavité, d'un tissu charnu, friable, contenant des spicules osseux.

Cet aspect perd ses caractères spécifiques dès lors que le KOA est remanié par une intervention ou irradié. Pour Nezeloff [3], l'effondrement de la coque périostée découvre alors « une masse hétérogène de mastic vieilli ».

Dans certains cas, le kyste anévrysmal est rempli d'un tissu charnu (ayant les caractéristiques précédemment décrites) mais d'aspect plus compact, c'est-à-dire sans septum ni lacune. C'est le kyste anévrysmal dit « solide » (ou granulome de réparation à cellules géantes).

## 2. Aspect microscopique: (Figure 13)

Seul l'examen microscopique de plusieurs coupes permet au pathologiste de trouver des éléments caractéristiques. Jaffe et Lichenstein[1] ont été les premiers à décrire l'aspect microscopique du KOA dont les caractères spécifiques ont permis de faire de cette lésion une entité.

Microscopiquement, l'aspect d'« éponge gorgée de sang » est très évocatrice pour Mazabraud [46]. Le KOA est formé de larges espaces vasculaires, vides ou remplis de sang libre, bordés parfois de cellules endothéliales qui, pour Nezeloff [3], correspondent à des fibroblastes aplatis du tissu de soutien ne constituent pas un endothélium vrai. Ces espaces vasculaires peuvent représenter la quasi-totalité de la tumeur ou au contraire être accompagnés par un abondant tissu très cellulaire

rappelant une tumeur à cellules géantes.

Les lacunes vasculaires sont séparées par de larges travées de tissu conjonctif contenant des fibroblastes, des histiocytes et des capillaires, ainsi que des fibres collagènes et hyalines. Ces cloisons sont le siège de foyers hémorragiques interstitiels autour desquels se groupent des cellules géantes plurinucléées, retrouvées de façon constante dans notre étude.

Le processus de régénération osseuse est mis en évidence, pour Combelles [47], par la présence dans le tissu de soutien de lamelles ostéoides grêles, métaplasiques entourées d'ostéoblastes et ostéoclastes. Il faut noter que l'importance du stroma fibreux et surtout la présence de travées osseuses métaplasiques de structure « tissée » et non pas « lamellaire », bordées de fibroblastes et non d'ostéoclastes, pourrait faire évoquer, pour Levy[48], Forest[49] et Diercks[50], le diagnostic de dysplasie fibreuse.

Dans le stroma, on retrouve 2 types de cellules allongées, les unes ayant une activité macrophagique intense avec des dépôts d'hémosidérine témoignant de cette activité, les autres ayant un rapport nucléo-cytoplasmique élevé ?

Pour Ruitter[43], l'étude de l'activité mitotique donnerait une bonne appréciation de l'agressivité de la lésion et de son potentiel de récurrence.

En définitive, la forme typique, histiocyto-giganto-cellulaire du KOA, est définie microscopiquement par l'association de plusieurs éléments : lacunes vasculaires, cellules géantes plurinucléées et dépôts d'hémosidérine.

### 3. Aspects évolutifs :

A partir d'une classification radio-morphologique, CAPANNA [20] propose de classer les kystes osseux anévrysmaux en trois grades :

- Les KAO inactifs: la lésion est bien délimitée, présente une réaction osseuse de la sclérose à sa partie profonde et une ossification sous

périostée continue à sa partie superficielle. La lésion montre de nombreux «pseudo septa » osseux.

- Les KAO actifs: la lésion n'est pas bordée en profondeur par une réaction de sclérose osseuse et en superficie l'ossification sous périostée présente n'est pas continue. On n'observe pas de pseudo septa.
- Les KAO agressifs: aspect d'ostéolyse uniforme sans limite visible en profondeur comme en superficie.

Cette classification permet à CAPANNA [20], de montrer que toutes les récurrences dans sa série de 121 cas se sont produites pour les formes actives ou agressives sans qu'il n'y ait de différence statistiquement significative entre ces deux formes.

L'appréciation de l'évolutivité des kystes anévrysmaux se complique lorsque l'on sait qu'ils peuvent guérir spontanément. Dans les publications présentant de telles évolutions, il faut faire la part entre les séries où une biopsie a été réalisée [51] avec diagnostic anatomo-pathologique du kyste anévrysmal et guérison secondaire. Dans ces cas, la biopsie peut être considérée comme venant interférer avec l'histoire naturelle. Dans les publications où aucune anatomo-pathologie n'a été faite [31,44], le diagnostic peut toujours être discuté mais les cas présentés sont très explicites et montrent bien la guérison spontanée possible du kyste osseux anévrysmal.

En effet, les cas rapportés de guérison spontanée concernent pour l'essentiel des patients âgés, excepté les deux cas de MAC QUEEN [18] et le cas de RIGAULT [44] qui concernait un enfant de 4ans présentant un kyste osseux anévrysmal de la deuxième vertèbre cervicale.

A l'opposé, FREIBERG [31] souligne l'agressivité avec un risque de récurrence élevé chez l'enfant de moins de 10 ans.

## C. Diagnostic différentiel:

Dans la majorité des cas, le diagnostic est facile. L'âge jeune, l'existence d'une douleur ou d'une tuméfaction, la localisation métaphysaire, l'aspect radiologique soufflant et trabéculaire, la présence de logettes en nid d'abeille et de niveaux liquide-liquide en IRM, sont souvent très évocateurs du diagnostic.

### 1. Le kyste osseux essentiel:

Dans certaines localisations, l'extrémité supérieure de l'humérus, le bassin et l'extrémité proximale du fémur, il est souvent difficile de distinguer le kyste osseux anévrysmal du kyste osseux essentiel sur la radiographie standard, surtout lorsque le kyste osseux essentiel est fissuré ou fracturé. (Tableau 6)

DAUDET [45], et FOREST [49] ont insisté sur les difficultés de différencier les kystes osseux anévrysmaux, des kystes osseux essentiels remaniés par des fractures pathologiques. Pour TILLMAN [26], le prolongement des travées de cellules géantes et des cavités à travers ou au sein de la couche sous-périostique serait un élément distinctif entre le kyste osseux anévrysmal et le kyste essentiel. En outre, BIESECKER [17], BONAKDARPOUR [52] et FOREST [49] ont observé des kystes osseux anévrysmaux secondaires associés à un kyste osseux essentiel ce qui dans ce cas ne facilite pas la distinction.

**Tableau 6** : Eléments de diagnostic différentiel entre kyste osseux essentiel  
et kystes anévrysmaux

	Kyste osseux	Kyste anévrysmal
Siège	Humérus et fémur proximal	Variable
Contenu	Sérum	Sang
Radiologie		
Définition des limites	Plus importante	Moins importante
Expansion corticale	Moins fréquente	Plus fréquente
IRM		
Niveau liquide/liquide	Non	Oui
Septa	Peu abondant (cavité +/- unique)	Nombreux (bulle de savon)
Signal	Intermédiaire en T1, élevé en T2	Bas en T1, élevé en T2
Croissance	De la métaphyse vers la Diaphyse	De la diaphyse vers la Métaphyse
Invasion épiphysaire	Moins fréquente	Plus fréquente
Evolution	Lente	Rapide

## 2. Le sarcome télangiectasique :

Devant un kyste osseux anévrysmal rapidement évolutif et agressif, le principal diagnostic différentiel est le sarcome télangiectasique. TILLMAN [26] a souligné que 2 observations auraient pu faire croire au sarcome. En effet, à faible grossissement (x50), le sarcome ne présente que d'étroites bandes prolifératives de cellules formant des cloisons entre les lacs sanguins. Anaplasiques, ces cellules ne sont pas clairement identifiables en tant que telles à ce grossissement; elles ne sécrètent que de rares lamelles ostéoides dans les cloisons intravasculaires. L'aspect au fort grossissement (x175) a permis de redresser le diagnostic en individualisant les cellules anaplasiques. Pour VERGEL DE DIOS [30], il convient de regarder avec scepticisme un diagnostic différentiel histologique.

## 3. L'angiome osseux:

Il siège électivement sur les vertèbres, la voûte crânienne et plus accessoirement sur les os longs et exceptionnellement sur les os plats; ses aspects radiologiques sont évocateurs, au moins sur le corps vertébral qui prend un aspect tigré, ou peigné très suggestif. Sur la voûte, une lacune contient volontiers des travées radiées en rayons de soleil. Seul le rare angiome des os longs garde un aspect en bulle de savon; outre l'allure macroscopique gorgée de sang, très hémorragique, parfois pulsatile, la signature histologique, révèle des lacunes vasculaires, mais bordées d'un endothélium complet, érodant de très rares travées osseuses. Les cellules géantes sont absentes.

#### 4. Fibrome chondromyxoïde :

C'est une lésion lytique métaphysaire excentrée pouvant simuler un kyste anévrysmal, d'autant qu'il survient dans la même tranche d'âge. Cependant, cette tumeur, qui détruit parfois la corticale sans la souffler, a souvent des limites polycycliques et des cloisonnements d'aspect bulleux. L'IRM montre l'absence de cloison et de contenu liquide. L'anatomie pathologique permet facilement de distinguer les deux entités.

#### 5. Tumeur à cellules géantes:

Les critères du diagnostic différentiel sont:

- L'âge des patients: toutes les lésions ostéolytiques métaphysaires au contact du cartilage de croissance sont, sauf cas exceptionnel, des kystes anévrysmaux ou des fibromes histiocytaires ;
- l'aspect macroscopique : la tumeur à cellules géantes est plus molle que le kyste anévrysmal (qui est plus riche en stroma collagène) ; elle se détache mal des parois de la cavité;
- l'aspect anatomopathologique il met en évidence, dans la tumeur à cellules géantes, des zones charnues contenant des cellules mononuclées typiques, des cellules géantes multi nucléés sur un fond de tissu fibreux peu abondant. Un tel aspect est d'ailleurs présent dans les kystes anévrysmaux solides (dit aussi «Granulomes de réparation à cellules géantes»),

En définitive, le diagnostic du kyste osseux anévrysmal repose sur un faisceau d'argument, sur la confrontation des données cliniques, radiologiques et histologiques.



## D. Le traitement:

La chirurgie constitue le principal traitement dans le kyste osseux anévrysmal, comme il existe une méconnaissance sur l'origine et le développement de ce dernier, de nombreux moyens thérapeutiques ont été proposés en alternative ou en complément au traitement chirurgical.

### I. La guérison spontanée:

Des cas de guérison spontanée ont été rapportés. Cette éventualité ne représente pas plus de 3 % des cas. Cette guérison spontanée fait souvent suite à un acte chirurgical minime (biopsie). Elle est plus fréquente chez l'adulte et dans les localisations pelviennes (branches ilio- et ischiopubiennes) [7, 44,53]. On assiste au remplacement progressif de l'ostéolyse par un tissu osseux trabéculaire amorphe (ayant un aspect en « verre dépoli ») tandis que le volume apparent de la lésion s'atténue. Cette évolution peut également être observée après radiothérapie.

Dans notre étude, l'aspect clinique et radiologique ne permettait pas de s'abstenir sur le plan thérapeutique, vu l'absence de cas de kyste osseux anévrysmal latent.

### II. Traitement chirurgical:

#### 1- Kyste osseux des os longs à distance du cartilage de croissance

##### a. Le curetage:

*a-1 Modalités, complications et taux de récurrences du curetage avec ou sans comblement par autogreffe:*

RIGAULT [44] et CAMPANACCI [7] ont précisé que le curetage devait être le plus complet possible et devait emporter au maximum les parois du kyste jusqu'à se retrouver en os sain ce qui correspond à une véritable « saucérisation » du kyste.

Ainsi, il conseille de réaliser le curetage par fenêtre corticale large permettant d'avoir un accès étendu au contenu du kyste.

Dans la littérature, le taux de fracture secondaire après curetage, avec ou sans comblement, semble faible. Dans une série de 95 cas, TILLMAN [26] n'a pas observé de fracture secondaire dans les 65 cas traités par curetage avec ou sans comblement. Il a par ailleurs rapporté 2 cas d'épiphysiodèse iatrogène ayant entraîné un genu varum, sans préciser le type de traitement chirurgical primaire employé. Dans une série pédiatrique de 27 cas, BOLLINI [33] a rapporté 2 cas d'épiphysiodèse, l'un après curetage comblement d'une lésion métaphysaire proximale du tibia et l'autre, après curetage d'une lésion épiphysaire de l'extrémité supérieure de l'humérus.

Le taux de récurrence après curetage avec ou sans comblement est très variable dans la littérature en raison des différences de distribution en âge, sexe et localisation du kyste osseux anévrysmal, et oscille autour de 30% (tableau 6 annexe page 80). Le curetage est associé à un taux de 29% pour TILLMAN [26], 59% pour VERGEL DE DIOS [30], 71% pour FREIBERG [31] (5 récurrences sur 7 cas), 59% pour MARCOVE [19] et 41 % pour BOLLINI [33].

Dans les récurrences, FREIBERG [31] pense qu'il est possible de répéter le curetage-comblement quand la résection n'est pas faisable.

*a-2 Modalités, complications et taux de récurrences du curetage avec adjuvant chimique (cryothérapie ou phénolisation)*

Le curetage associé à la phénolisation ou la cryothérapie ont été utilisés par plusieurs auteurs pour stériliser la partie restante de la paroi du kyste. CAPANNA [20] et SCHILLER [54] ont rapporté 12,5 et 20% de récurrences après curetage et phénolisation, ils ont attribué les récurrences à l'action superficielle de l'agent cytotoxique et à son impossibilité à pénétrer la périphérie de la zone de résection chirurgicale.

La cryothérapie consiste à pulvériser de l'azote liquide dans la cavité résiduelle après curetage. GAGE [55] a étudié expérimentalement l'action cytotoxique de la cryochirurgie et a prouvé l'action cautérisante, circonférentiellement ostéonécrosante et fibrosante du froid. MALAWER [56] a rapporté l'action thrombotique de la cryothérapie et l'oblitération endartérielle qui stopperaient les perturbations hémodynamiques locales et qui permettraient ainsi le comblement du kyste osseux anévrysmal. BIESECKER [17], et MARCOVE [19] et SCHREUDER [32] ont observé 12,9% de récurrences sur 85 cas après curetage-cryochirurgie. Il semble cependant que le risque de fracture après cryochirurgie soit non négligeable puisque MARCOVE [19] et SCHREUDER [32] sur 85 cas ont observé 7% de fractures secondaires après cryochirurgie. Ils ont aussi rapporté le risque d'embolie gazeuse qui a été à l'origine du décès d'un patient.

En définitive, les curetages associés à un traitement local adjuvant semblent grevés d'un taux supérieur de morbidité par rapport au curetage avec ou sans comblement par autogreffe, sans apporter de gain en matière de récurrence.

#### *a-3 Modalité du curetage-cimentation.*

De la même façon, l'utilisation du ciment après curetage est basée sur son effet thermique. GAGE [55] a montré expérimentalement qu'une température de 50°C était nécessaire pour avoir un effet cytotoxique, ce qui pouvait être obtenu à 2,5mm d'épaisseur en os spongieux et à 2,5mm d'épaisseur en os cortical. Dans une série de 5cas, OZAKI [57] a rapporté son expérience du curetage-cimentation. Dans 4 cas, le ciment a été remplacé par une autogreffe osseuse entre 3 et 20 mois après la 1ère intervention, ce qui a pu biaiser les résultats. Un seul cas a cependant récidivé à 17 mois et a été repris avec succès par la même technique. Le ciment reste cependant plus utilisé chez l'adulte.

Le comblement et la reconstruction sont inutiles dans certaines localisations: fibula, côtes, branches ilio et ischio-pubiennes et l'arc postérieur vertébral car la résection ne compromet pas la solidité de la structure restante.

Dans la littérature, le taux de fracture secondaire après curetage, avec ou sans comblement semble faible. Les seules fractures secondaires décrites après curetage l'ont été après cryochirurgie (MARCOVE [19] et SCHREUDER [32]). TILLMAN [26] n'a pas observé de fracture secondaire après curetage-comblement par autogreffe ni après curetage simple d'ailleurs.

Dans la littérature, TILLMAN [26] et Biesecker [17] n'ont pas trouvé de différences significatives en matière de récurrence, avec ou sans comblement. En excluant les cas qui ont reçu une radiothérapie, TILLMAN [26] a observé un cas (soit 20%) de récurrences après curetage sans comblement (sur 6 cas) et 8 cas (soit 32%) de récurrence après curetage comblement (sur 31cas). Etant donné la différence numérique entre les effectifs, il paraît cependant difficile de conclure sur l'influence du comblement sur l'incidence des récurrences. Par ailleurs Biesecker [17], avait montré que le caractère autologue ou homologue du comblement osseux n'avait pas d'influence sur le taux de récurrence. De plus il n'a pas trouvé de différence significative suivant le caractère complet ou incomplet du renseignement par autogreffe.

Dans notre étude, 2 cas ont bénéficié d'un curetage avec comblement par autogreffe.

En définitive, trois attitudes sont possibles. Premièrement la greffe peut être effectuée de principe devant tout kyste anévrysmal. Deuxièmement, elle peut sembler mécaniquement nécessaire dans les kystes de volumes importants. Troisièmement, elle peut être simplement rassurante pour le chirurgien dans les kystes faibles à modérés. Il semble probable que, plus que la qualité de la greffe et

du remplissage qui deviennent relativement aléatoires à partir d'un certain volume du kyste, la qualité du curetage soit l'élément principal dans la guérison comme l'a montré RUITER [43]. De plus, le comblement des kystes de faible volume (inférieur à 50 mm de grand axe) serait plus rassurant pour l'opérateur que mécaniquement utile ou indispensable pour la récurrence.

#### b. La résection:

La résection osseuse garantit une excision complète. Pour CAMPANACCI [7], elle constitue le traitement de choix dans certaines localisations: la fibula, les côtes, les branches ilio et ischio-pubiennes et l'arc postérieur vertébral. L'excision est en général sous-périostée dans les formes centrales et partielles segmentaire dans les formes latéralisées. BOLLINI [33] affirme qu'il n'est pas nécessaire de passer à plus de 5 millimètre de la limite du kyste. Par ailleurs, les possibilités de régénération osseuse existent chez l'enfant. Dans sa série, CAMPANACCI [7] a observé un cas de reconstruction ad integrum de la fibula après résection sous-périostée et greffe de son extrémité distale.

CAMPANACCI [7], COLE [58], FREIBERG [31], GIBS [34] et VERGEL DE DIAS [30] n'ont observé aucune récurrence après excision.

L'exérèse du kyste osseux anévrysmal est la solution théoriquement la plus satisfaisante mais la localisation et la taille du kyste ne permettent pas toujours de l'utiliser sans dommage et sans risque. Dans une étude faite en France en 2001 à la faculté de médecine de Lariboisière Saint Louis, sur une série de 45 cas de kystes osseux anévrysmaux, dans un cas de récurrence (localisation métaphyso-épiphysaire distale du fémur) qui avait été traité initialement ailleurs par curetage comblement,

**Tableau 7 : les taux de récives en fonction des différents types de traitement chirurgical**

Auteur/année	Curetage								Résection		Recul moyen (mois)
	Radiothérapie		Comblement		Cryothérapie		Cimentation		N	R	
	N*	R**	N	R	N	R	N	R			
BIESECKER[17] 1970	-	-	44	26	7	1	-	-	8	0	60%>60
Bollini [33] 1998	-	-	12	5	-	-	-	-	-	-	60
Campanacci [7] 1986	15	3	91	19	-	-	-	-	47	0	84
Cole [58]1986	1	0	18	7	-	-	-	-	6	0	>24
Clough [6] 1973	2	0	15	8	-	-	-	-	3	0	79
Freiberg [31] 1994	-	-	7	5	-	-	-	-	-	-	>24
Gibbs [34] 1999	-	-	34	4	-	-	-	-	6	0	87
Koskinen [59] 1995	1	0	14	2	-	-	-	-	5	0	54
Kreicbergs [60] 1985	-	-	21	8	-	-	-	-	-	-	>24
Van loon [61] 1995	-	-	8	3	-	-	-	-	1	0	102
Marcove [19]1995	-	-	44	26	51	9	-	-	-	-	85
Necker-EM 2001	-	-	20	4	-	-	1	0	12	0	111
Nobler 1968	1	0	18	6	-	-	-	-	8	2	-
Ozaki [57] 1996	-	-	5	1	-	-	5	1	4	0	55
Rizzo [63] 1999	-	-	12	3	-	-	-	-	-	-	24
Ruiter [43] 1968)	-	-	82	28	-	-	-	-	21	4	80%>24
Slowick [62]1968	-	-	5	1	-	-	-	-	4	0	83
Szendroi [29]1992	-	-	26	7	-	-	-	-	22	0	>24
Tillman [26] 1968	1	0	24	8	-	-	-	-	20	2	-
Vergel DD [30] 1992	12	2	124	27	-	-	-	-	17	0	>24
schreuder [32] 1997	-	-			27	1	-	-	-	-	47
Total	-										
N*	36		661		85		6		204		
%	3.6		67.2		8.6		0.6				
R**		5		204		11		1		9	
Taux de récive	14		30.8		13		16.6		4.4		
Note Etude	-	-	2	0	-	-	1	0	1	0	>18

N\* : nombre de patients

R\*\* : nombre de récive

### c. Technique de Masquelet

La reconstruction de segments osseux diaphysaires représente toujours un défi majeur dans la conservation des membres quelle que soit l'étiologie de la perte de substance osseuse. Les deux procédés les plus répandus sont le transfert osseux vascularisé (fibula) et la méthode de transfert segmentaire selon Ilizarov. L'autogreffe osseuse n'est pas conseillée quand la perte de substance dépasse 4 à 5 cm. Au-delà de 6 cm, les greffes osseuses autologues subissent un phénomène de résorption même dans un environnement musculaire bien vascularisé

[64,65]. Depuis 1986, A.C Masquelet a élaboré le concept de membrane induite afin de reconstruire de très grandes pertes de substance avec de l'autogreffe osseuse non vascularisée [66].

#### c-1 Principes techniques

La reconstruction requiert 2 étapes opératoires distinctes :

- la première intervention consiste en un débridement radical suivi d'une réparation des parties molles par lambeau si nécessaire, avec mise en place systématique d'une entretoise en ciment dans la perte de substance osseuse ;
- la seconde intervention est réalisée 6 à 8 semaines plus tard une fois la cicatrisation des parties molles acquise. L'entretoise est enlevée, mais la membrane induite par le ciment est laissée en place. La cavité est alors comblée par des fragments d'os spongieux prélevés à partir des crêtes iliaques. Toutefois, lorsque la quantité de greffe n'est pas suffisante, un substitut osseux (en général de l'os d'origine bovine déminéralisé) est ajouté à la greffe selon un ratio qui ne dépasse pas 1 sur 3.

### c-2 Détails techniques

Plusieurs détails techniques doivent être soulignés :

- lors du premier temps opératoire, le ciment doit engainer les extrémités osseuses afin de permettre la réalisation d'une véritable décortication lors du second temps opératoire ;
- à la jambe, le ciment est appliqué au contact de la fibula pour obtenir ultérieurement une reconstruction très solide et l'équivalent d'une greffe intertibiopéronière. Dans les reconstructions du membre inférieur, l'appui total est habituellement autorisé vers le 6e mois sous protection du fixateur externe. La fixation externe est dynamisée pendant 1 mois et enlevée au terme d'un mois supplémentaire.

Entre 1986 et 1999, une série (35 cas) de reconstructions diaphysaires a été réalisée pour des pertes de substance segmentaires allant de 5 à 24 cm [65,66]

La consolidation osseuse, impliquant une marche normale sans protection, était acquise en un temps moyen de 8,5 mois après la greffe (6 à 17 mois).

Au cours des années 1990, les résultats surprenants ont incité à entreprendre des études fondamentales et expérimentales pour élucider le rôle de la membrane induite par l'entretoise en ciment. L'une des principales interrogations concernait notamment l'absence constatée de résorption de l'autogreffe quelle que fût l'importance de la reconstruction.

### c-3 La membrane induite

Initialement, le rôle assigné à l'entretoise en ciment était d'éviter un comblement de la perte de substance osseuse par du tissu fibreux et de préserver, de la sorte, l'espace nécessaire à la reconstruction. De plus, comme la plupart de nos cas cliniques étaient des pseudarthroses suppurées, l'entretoise était considérée comme un excellent témoin de l'absence de récurrence infectieuse après 2 mois. En



réalité, le rôle principal du ciment est biologique par son action d'induction d'une membrane à corps étranger.

La première étape fut de confirmer le rôle de la membrane. Une étude expérimentale réalisée à l'Institut AO de Davos permit d'affirmer que la membrane évitait la résorption de l'os spongieux et, de plus, avait un effet positif sur la consolidation de l'autogreffe [67].

La seconde étape fut de préciser le rôle de la membrane en évaluant ses caractéristiques histologiques et biochimiques.

La conclusion fut la suivante : la membrane est très richement vascularisée dans toutes ses couches. La face endoluminale (celle qui est en contact avec le ciment) est un épithélium pseudosynovial tandis que la face externe est faite de myofibroblastes et de collagène. Fait essentiel, la membrane sécrète des facteurs de croissance ; une haute concentration de VEGF et de TGF Béta 1 a été observée lors de la deuxième semaine après la mise en place du ciment, tandis que la BMP2 est à son plus haut niveau à la 4e semaine [68]

Finalement, des extraits de membranes ont montré leur capacité à stimuler la prolifération de cellule cicatricielles et leur différenciation en lignée ostéoblastique. L'expérience clinique montrait que l'os spongieux à l'intérieur de la membrane n'était pas soumis au processus de résorption.

## 2- kyste osseux des os longs au contact du cartilage de croissance

Le traitement le plus pratiqué reste le curetage. Il est pour Forest [49] le procédé de choix au niveau des os longs dont il faut respecter la continuité. Il est important de conserver dans les localisations métaphysaires, le cartilage de conjugaison pour éviter les troubles de croissance secondaires. Selon la taille de la cavité résiduelle on peut greffer ou non. Pour Arlet [27] il ne paraît pas souhaitable de remplir la cavité résiduelle d'os spongieux en cas de bourrage, mais de disposer

des greffons cortico-spongieux en étai après avoir perforé les coques. Les pourcentages de récurrences après curetage vont de 28 % pour Arlet [27] à 60% pour Biesecker [17].

Le taux de récurrences après curetage étant élevé, la résection reste la solution théoriquement la plus satisfaisante. Mais la localisation du kyste en limite l'indication : pas toujours facile au niveau des os longs si la tumeur jouxte le cartilage de croissance. Pour Server-Perez [69] la résection ne se justifie que si elle n'implique pas de diminution fonctionnelle. Elle serait donc à pratiquer sur des os grêles comme le péroné, la clavicule ou les côtes et en cas de récurrences multiples. Le pourcentage très important des récurrences en cas de curetage et les bons résultats après résection nous incitent à étendre les indications de ces dernières. Nous préconisons des résections sous-périostées dans les formes centrales et les résections segmentaires partielles dans les formes latéralisées. Il ne nous semble pas nécessaire que la résection passe à plus de 5 mm de la limite du kyste. La récurrence peut survenir dans une résection faite prudemment au contact du cartilage de croissance. Les lésions au contact de ce cartilage posent des problèmes thérapeutiques très difficiles. Soit le curetage est large et le risque d'épiphysose est important, soit le curetage est prudent et le risque de récurrence est grand. Ce curetage prudent s'effectue à la curette à distance du cartilage de croissance puis au tampon monté à son contact pour ne pas le léser. Il faut absolument respecter la virole péri-chondrale et c'est à son niveau que le «curetage peut être insuffisant et source de récurrence. Nous pensons que chez l'enfant, surtout s'il est jeune, il faut absolument préserver le cartilage au risque de voir apparaître une récurrence par curetage insuffisant. Ces enfants seront surveillés et il sera plus facile de traiter une éventuelle récurrence prise à un stade précoce qu'une épiphysose.

Quand une greffe complémentaire est nécessaire elle ne doit pas s'appuyer sur le cartilage de croissance mais sur le front d'ossification qui en provient. Elle est donc toujours réalisée à une petite distance de ce cartilage.

Au contact du cartilage de croissance, nous avons eu deux cas de KOA de l'extrémité supérieure du tibia à localisation métaphysaire. Dans le cas n° :1 on a procédé à un curetage prudent au contact du cartilage de croissance associé à une greffe à partir du péroné libre et la crête iliaque. Le cas n° :4 a bénéficié d'un curetage avec comblement par une greffe corticospongieuse à partir de la crête iliaque. Les suites post opératoires étaient simples et n'ont pas présenté d'épiphyso-dèse ou d'inégalité de membre, le cartilage de croissance est resté fonctionnel.

La localisation métaphysoépiphysaire du kyste et l'importance de la résection à effectuer pour passer en os sain, n'ont pas permis d'effectuer une reconstruction osseuse contraignant ainsi la mise en place d'une prothèse. Dans la littérature aucun cas de reconstruction prothétique n'a été rapporté dans ce cadre. La localisation proximale sur l'humérus peut aussi poser des problèmes de reconstruction. RANDALL [70] a rapporté les difficultés rencontrées lors de la reconstruction, sur 8cm, de l'extrémité supérieure de l'humérus d'un enfant de 11ans qui présentait une localisation métaphyso-épiphysaire; après un recul de 17ans, il avait observé une récupération fonctionnelle complète avec une restitution de l'extrémité supérieure de l'humérus et une incorporation des greffons.

TILLMAN [26] a par ailleurs rapporté 2 cas d'épiphyso-dèse iatrogène ayant entraîné un genu varum, sans préciser le type de traitement chirurgical primaire employé. Dans une série pédiatrique de 27 cas, BOLLINI [33] a rapporté 2 cas d'épiphyso-dèse, l'un après curetage comblement d'une lésion métaphysaire proximale du tibia et l'autre, après curetage d'une lésion épiphysaire de l'extrémité

supérieure de l'humérus. Le comblement et la reconstruction sont inutiles dans certaines localisations: fibula, côtes, branches ilio et ischio-pubiennes et l'arc postérieur vertébral car la résection ne compromet pas la solidité de la structure restante.

### 3-Cas particulier du kyste osseux anévrysmal du rachis

Dans les localisations vertébrales pour ONIMUS [71], la chirurgie d'exérèse est indiquée dans 3 circonstances: devant la présence de troubles neurologiques, lorsque l'exérèse totale est possible au moment de la biopsie en particulier en cas d'atteinte de l'arc postérieur et enfin devant une destruction vertébrale complète imposant une reconstruction vertébrale. Si le traitement chirurgical est retenu, il doit répondre à 3 impératifs selon VERBIEST [72] : l'excision totale du tissu pathologique, la décompression médullaire, la reconstruction et la stabilisation du rachis. La reconstruction est réalisable par un greffon osseux postérieur ou antérieur selon la voie d'abord. La stabilisation peut être réalisée chez l'enfant par un plâtre ou par une ostéosynthèse en cas d'instabilité ou de déstabilisation.

Même si la résection en bloc paraît être la meilleure solution théorique pour éviter les récurrences, dans les principales séries de la littérature. De KLEUVER [73],

BORIANI [74] et PAPAGELOPOULOS [35], lui préfèrent une chirurgie moins invasive d'exérèse intralésionnelle et la majorité des lésions peut être abordée par voie postérieure. L'extension dans le corps vertébral ou les pédicules peut être traitée par voie antérieure si nécessaire. Dans une série de 52 cas de kystes osseux anévrysmaux du rachis, PAPAGELOPOULOS [35] a rapporté que l'extension tumorale avait nécessité dans 6 cas un abord antérieur et dans 4 cas un double abord antérieur et postérieur. La majorité des cas était abordée par voie postérieure. Une arthrodèse a été nécessaire dans 13 cas et une instrumentation dans 7 cas. Il n'a pas observé plus de récurrences dans les voies postérieures que dans les voies antérieures.

A l'inverse, De KLEUVER [73] a rapporté que l'abord postérieur était associé à un taux supérieur de récurrences (5 récurrences sur 18 cas) par rapport à la voie antérieure (1 récurrence sur 2 cas). Pour lui, l'abord postérieur est insuffisant pour pratiquer l'exérèse complète de la lésion dans le corps vertébrale. Enfin, il faut noter que le taux de récurrence après curetage intralésionnel avec ou sans comblement osseux est identique aux autres localisations et varie de 10 à 60% selon les séries.

### III. Autres moyens thérapeutiques :

#### 1. La radiothérapie:

Les résultats de la radiothérapie sont variables dans la littérature. En 1968, NOBLER rapportait que la radiothérapie donnait des résultats supérieurs à la chirurgie en matière de récurrence dans le traitement du kyste osseux anévrysmal. Sur 2 patients irradiés, 1 seul avait nécessité une seconde irradiation. La dose variait de 1200 à 3600 Gray. Avec des reculs de 2 à 30 ans, il n'a pas observé de sarcome radio-induit mais a observé un carcinome ovarien de proximité. A l'inverse, dans une série de 8 cas, CAMPANACCI [7] a rapporté 25% de récurrences après radiothérapie seule.

La radiothérapie a été progressivement abandonnée de première intention par la majorité des auteurs en raison de ses complications en particulier chez l'enfant: la fracture et l'inégalité de longueur pour CAMPANACCI [7], la déviation du rachis pour BORIANI [74], l'atteinte neurologique sévère pour FREIBERG [31] et surtout le sarcome radio-induit pour LICHENSTEIN [2] et TILLMAN [26]. Ainsi ce dernier [26] a rapporté 3 cas de sarcomes radio-induits (dont 2 ont conduit au décès du patient) dans une série de 95 patients où 2 d'entre eux avaient subi une radiothérapie. Au niveau vertébral, dans une série récente de 41 cas, BORIANI [74] a rapporté l'apparition, parfois tardive, d'une déformation axiale du rachis dans 4 cas sur 15

traités par radiothérapie adjuvante au curetage. Deux d'entre eux ont nécessité une correction-fusion. Même si la radiothérapie utilisée comme adjuvant au curetage semble faire diminuer le taux de récurrence. Le rapport bénéfice / risque n'est pas tolérable pour la majorité des auteurs. Pour CAMPANACCI [7], la radiothérapie doit être réservée aux lésions inopérables en raison de leurs localisations ou de contre-indications d'ordre anesthésique du patient.

## 2. L'embolisation:

L'embolisation sélective à visée thérapeutique peut être utilisée seule ou comme adjuvant avant le curetage-comblement; surtout dans des zones d'accès opératoire difficile (pelvis, vertèbres, sacrum) ou de zones où il n'est pas possible de contrôler les pertes sanguines au moyen d'un garrot (ceinture scapulohumérale, fémur proximal).

L'embolisation aurait, à elle seule, la faculté de rendre le kyste inactif (bloquant sa croissance et éliminant sa symptomatologie douloureuse dans 90 % des cas); elle semble bien induire des phénomènes de réparation pour finalement permettre un remodelage osseux. Les signes de reconstruction osseuse débutent au bout de 2 à 4 mois et se terminent au bout de 8 à 12 mois, mais les phénomènes de remodelage sont en fait incomplets et très lents (quelques années). Globalement, l'évolution des kystes après embolisation rappelle celle des kystes irradiés. Cet effet de réparation est particulièrement utile et souhaitable dans les kystes qui soufflent l'os (type II) en phase agressive: même en cas de réponse partielle, l'apparition d'une ossification périphérique facilite une chirurgie ultérieure, rendant alors praticable une intervention de curetage plutôt qu'une résection.

Souvent (chez 70 % des patients), l'embolisation doit être répétée (de deux à quatre fois) avant de pouvoir constater un début de réponse. Une absence de réponse est observée chez 10 % des patients embolisés [75]. Il faut cependant

préciser que l'embolisation n'est pas toujours praticable, soit en raison de l'absence de mise en évidence des vaisseaux afférents (dans les lésions vertébrales), soit parce que le vaisseau afférent du kyste est également un vaisseau nourricier de la moelle épinière. Cette éventualité limite l'application de la méthode à 80 % des kystes traités. Le risque majeur des embolisations sélectives est l'ischémie de structures vitales (viscérales et surtout nerveuses [75]). Pour cette raison, mais aussi afin de prévenir des lésions neurologiques liées à une éventuelle occlusion des vasa nervorum, il est conseillé d'évaluer les potentiels évoqués somatosensitifs avant de pratiquer l'embolisation. Il est aussi recommandé d'effectuer l'embolisation périphérique avec des particules fines (polyvinyl alcool) plutôt qu'avec des spirales de GIANTURCO, ces dernières rendant difficile ou impossible la répétition des embolisations .

Dans une série de 8 patients, GREEN [76] n'a pas observé de récurrence ni de complication après embolisation isolée, mais le recul de la série est faible (3ans). CISNEROS [77], CORY [78], DE CRISTOFARO [79] et MISASI [80] ont démontré l'intérêt de cette technique, parfois itérative, dans les localisations pelviennes, vertébrales ou rapidement évolutives. Ainsi dans une série de 3 cas (dont 2 étaient localisés au bassin et 1 au tibia), avec 2ans de recul, MISASI [80] a observé un comblement complet après 2 embolisations successives.

Dans une série récente de 41 kystes osseux anévrysmaux du rachis avec un recul moyen de 44 mois, BORIANI [74] a rapporté 3 cas sur 4 de comblement complet (localisation sur C2, C5 et L2) après une embolisation supra-sélective. Un cas a récidivé à 1 an et a nécessité une résection-reconstruction. L'embolisation seule constitue, pour lui, en l'absence de fractures pathologiques, de signes neurologiques ou de localisations dorsales, le traitement de première intention des kystes osseux anévrysmaux vertébraux. En outre, il s'assure par l'artériographie, qui

constitue le premier temps de l'embolisation, de l'absence de risque pour la vascularisation médullaire. Il ne recommande pas l'embolisation des localisations dorsales en raison du risque d'ischémie médullaire après embolisation accidentelle de l'artère d'ADAMKIEWICZ.

DE KLEUVER [73] et PAPAGELOPOULOS [35] préfèrent utiliser l'embolisation comme adjuvant en préopératoire, avant le curetage-comblement, pour tenter de diminuer le saignement. Ils conseillent de l'utiliser dans les 48 heures qui précèdent la chirurgie. Ils considèrent l'embolisation seule comme insuffisante voire dangereuse en raison du risque de déstabilisation secondaire du rachis en l'absence d'arthrodèse.

Dans notre étude, l'embolisation n'a été effectuée chez aucun de nos malades

### 3. Les injections intra kystiques:

#### *a) L'injection de corticoïdes et la corticothérapie orale.*

L'administration locale par injection intralésionnelle de corticoïde n'est recommandée par aucun auteur; FRASER [81] a rapporté tout de même une diminution de la taille des kystes osseux anévrysmaux après injection de corticostéroïdes, il a par ailleurs proposé l'administration orale de dexaméthasone.

#### *b) L'injection d'Ethibloc*

A travers une expérience limitée à 2 cas en 1993, ADAMSBAUM [82] a rapporté les résultats préliminaires du traitement par l'injection d'Ethibloc d'un kyste osseux anévrysmal de l'aile iliaque et d'un kyste osseux anévrysmal de l'humérus. Il s'agit d'une solution alcoolisée contenant une protéine végétale issue du maïs. Elle a observé une réaction inflammatoire, à corps étrangers, avec douleur et hyperthermie à 38°C. Après une seule injection, elle a observé une disparition des douleurs en 3 semaines maximum et un comblement du kyste dans les 2 cas. Il faut cependant noter que, d'une part, l'un des deux kystes avait été biopsié, ce qui peut avoir eu



une influence sur le traitement, et que d'autre part, le recul était faible (18 mois).

Elle n'a pas observé de complications au dernier recul. Dans une série récente de 10 cas, GARG [83] a rapporté 70% de comblement complet des kystes osseux anévrysmaux avec un recul moyen de 27 mois. Le diagnostic avait été effectué sans preuves histologiques, sur le contexte clinique, l'aspect radiologique, la présence d'un niveau liquide-liquide au scanner ou à l'IRM et la nature hématique du liquide de ponction avec l'instillation d'Ethibloc. Il a observé 2 réactions locales inflammatoires et un abcès. Par ailleurs, il s'interroge sur l'homogénéité de la distribution des topiques en raison du cloisonnement du kyste osseux anévrysmal.

En outre, il ne recommande pas l'utilisation de l'Ethibloc au niveau du rachis d'une part, en raison du risque de diffusion locale dans le canal rachidien ou dans les tissus paravertébraux, et d'autre part, en raison du risque d'embolisation de vaisseaux médullaires. Selon une étude faite à l'hôpital Necker à Paris en 2001, ils ont injecté à l'Ethibloc, comme traitement de première intention mais après avoir biopsié la lésion, un kyste osseux anévrysmal de l'extrémité proximale de l'humérus d'extension particulièrement rapide. Celui-ci aurait pu certainement être à ciel ouvert mais au prix d'une chirurgie agressive et délabrante. Le kyste osseux anévrysmal s'est comblé de façon complète et aucune récurrence n'a été observée avec un recul de 10ans. Par ailleurs, ils ont observé une réaction inflammatoire locale avec douleur et hyperthermie à 38,5°C après injection intra-kystique d'Ethibloc, en 2<sup>ème</sup> intention, une récurrence de kyste osseux anévrysmal géant de la diaphyse de l'humérus comme alternative à une nouvelle intervention chirurgicale. La lésion kystique est de taille stable et n'a pas évolué avec un recul de 4 ans après injection.

En vérité, en l'absence de séries larges et prospectives et en l'absence de résultats à long terme, il est difficile de conclure sur l'efficacité des injections sur le kyste osseux anévrysmal.

## E - L'influence des différents facteurs (hors traitement) sur la survenue des récurrences:

### I. Facteurs muets sur l'incidence des récurrences:

Dans une série de 66 cas, BIESECKER [17] n'a pas observé d'influence, statistiquement significative, du genre, de la symptomatologie, de la durée préopératoire et de la localisation dans la survenue des récurrences, bien que toutes les récurrences concernaient des femmes avec des localisations aux os longs. Aussi, pour CARLSSON [84] et Rizzo [63], le caractère juxtaépiphysaire du kyste osseux anévrysmal n'est pas un facteur de récurrence, cette dernière varie entre 15% et 21 % dans cette localisation, ce qui est identique aux autres localisations.

BIESECKER [17] et MARCOVE [19] n'ont pas observé de différence en fonction du caractère primaire ou secondaire du kyste osseux anévrysmal. D'autre part, MARCOVE [19] n'a pas observé non plus de différence selon les stades d'activité lésionnelle de CAPANNA [20] (tableau 4).

### II. Facteurs susceptibles d'augmenter la survenue des récurrences:

Plusieurs facteurs ont été décrits comme pouvant augmenter la survenue des récurrences. BIESECKER [17], COLE [58], FREIBERG [31], GIBBS [34] et TILLMAN [26] ont observé que le jeune âge était un facteur de risque de récurrence. Dans une série de 95 patients, TILLMAN [26] a ainsi observé un taux de récurrence de 32% avant 15ans contre 12% après 15ans. COLE [58] a observé 54% de récurrences chez l'enfant âgé de 5 à 14ans. Dans une série de 40 patients, GIBBS [34] a observé un taux de récurrence significativement supérieur chez les patients de moins de 15ans et chez les patients qui n'avaient pas encore fusionné leur cartilage de croissance. A l'extrême, Freiberg [31] a rapporté un taux de récurrence proche de 100% après curetage-comblement des

kystes actifs ou agressifs de l'enfant. BIESECKER [17] a mis en évidence que l'âge (inférieur à 15ans) combiné à la taille du kyste (supérieure à 5cm) étaient associés, de façon significative, à un taux plus important de récurrences. Par ailleurs pour RUITER [43], l'index mitotique élevé constitue un facteur de récurrence.

Enfin la localisation semble être un facteur controversé dans la survenue des récurrences. En effet, contrairement à BIESECKER [17] et à RUITER [43] qui n'ont pas mis en évidence de différence significative entre les localisations, TILLMAN [26] et VERGEL DE DIOS [30] ont observé un taux supérieur de récurrences parmi les kystes situés sur les os longs (30% sur 27 cas pour TILLMAN [26]) par rapport aux kystes rachidiens (18% sur 2 cas pour TILLMAN [26]).

# CONCLUSION

Le kyste osseux anévrysmal est une lésion bénigne assez rare; il s'agit d'une dystrophie osseuse pseudo-tumorale.

Le kyste osseux anévrysmal est une entité de diagnostic souvent difficile.

La présence de plusieurs niveaux liquide-liquide au scanner et surtout à l'IRM est devenue une aide précieuse au diagnostic.

L'aspect radiologique, la distribution topographique, l'allure macroscopique et l'interprétation histologique restent pourtant un ensemble indissociable pour poser le diagnostic de certitude, il est pratiquement impossible d'éliminer une tumeur maligne avant la biopsie.

Outre le problème diagnostic que pose le kyste osseux anévrysmal, il y a celui du choix thérapeutique.

En effet la prise en charge des tumeurs de l'appareil moteur obéit à des règles qui devraient éviter certaines erreurs engageant parfois le pronostic vital et souvent le pronostic fonctionnel. La biopsie obéit elle aussi à des règles strictes dont le non respect peut compromettre le traitement et la conservation du membre, elle doit être faite par le chirurgien qui assurera l'exérèse et impérativement après le bilan radiologique afin de ne pas perturber l'interprétation des images.

La simple surveillance-abstention basée sur la rare régression spontanée du kyste osseux anévrysmal ne se justifie pas.

L'orientation thérapeutique doit être centrée lorsque la localisation le permet, sur une thérapeutique chirurgicale la plus complète possible, dans les limites « d'une agressivité raisonnable ». La radiothérapie a été abandonnée en raison de la fréquence et de la sévérité de ses complications. Les autres traitements locaux ne constituent pas un traitement de première intention et sont réservés aux lésions difficilement accessibles à la chirurgie ou en préopératoire devant une lésion agressive et très hémorragique.

Le traitement chirurgical retenu est un curetage avec comblement au niveau des os longs et des vertèbres, avec ostéosynthèse en cas de fragilité; une résection pour les os accessoires (péroné, côtes, épineuses, etc ....) est suffisante; et enfin une résection avec reconstruction est préconisée pour les cas où le simple curetage serait insuffisant.

Bien que le kyste osseux anévrysmal soit une tumeur bénigne, il n'est point exempt cependant de récurrences locales, ces dernières se voient d'avantage lorsque l'exérèse a été incomplète.

# RESUMES

# RESUME

A travers ce travail, nous avons analysé les résultats cliniques et radiologiques d'une série rétrospective de 4 kystes osseux anévrysmaux primitifs chez l'enfant et l'adolescent, traités et suivis au CHU HASSAN II de Fès, colligés sur une période de 4 ans entre 2007 et 2011.

La moyenne d'âge était de 14 ans; aucun cas familial n'a été observé; le délai diagnostique était en moyenne de 4,2mois. Le kyste osseux anévrysmal était localisé sur les os longs dans 3 cas, dans 1 cas sur le 1<sup>er</sup> métatarse. Le motif de consultation était la tuméfaction dans 1 cas, une fracture pathologique dans 1 cas, la présence d'une association de douleur et tuméfaction 2 cas.

Sur le plan diagnostique, l'aspect clinique et la radiographie standard n'ont pas permis à eux seuls de poser le diagnostic dans 2 cas, qui ont alors bénéficié d'une IRM. La biopsie a été effectuée dans tous les cas, l'étude anatomopathologique était alors compatible avec un kyste osseux anévrysmal.

Les 4 cas ont été traités chirurgicalement, 2 cas par curetage avec comblement par autogreffe. Une résection en monobloc a été réalisée dans 2 cas, dont un cas a bénéficié d'une reconstruction.

Une seule complication postopératoire a été observée; atteinte du SPE ; aucune fracture ni infection n'ont été observées en post opératoire.

Le recul était de 18mois (avec des extrêmes entre 12 et 26mois); les résultats ont été jugés bons dans 3 cas; mauvais dans 1 cas d'après la classification d'ENNEKING.

Aucun patient n'a présenté une récurrence après traitement chirurgical.



## SUMMARY

Through this work, we analyzed the clinical and radiological results of a retrospective series of aneurysmal bone cysts four primitive in children and adolescents treated and monitored in the hospital University Hassan II of Fez, collected over a period of 4 years between 2007 and 2011.

The average was 14 years of age; any family was observed,

The time to diagnosis was 4.2 months on average. The aneurysmal bone cyst was located on the long bones in 3 cases, in 1 case on the first metatarsal. The reason for consultation was swelling in one case, a pathological fracture in 1 case, the presence of a combination of pain and swelling 2 cases.

On the diagnosis, clinical features and radiographs did not alone establish the diagnosis in 2 patients, who then underwent MRI. Biopsy was performed in all cases, pathological then consistent with aneurysmal bone cyst.

4 cases were treated surgically, 2 cases by curettage with autograft filling. En bloc resection was performed in 2 cases, one case received reconstruction.

One postoperative complication was observed, reaching the SPE, no fracture or infection were observed postoperatively.

The follow-up was 27 months (with extremes of 18 and 48mois) results were considered good in 3 cases, and bad 1 case according to the classification of ENNEKING.

No patient presented a recurrence after surgical treatment.

## ملخص

خلال هذه الدراسة، قمنا بتحليل المعطيات السريرية والتصويرية لسلسلة مكونة من 4 حالات لأطفال مصابين بالكييس العظمي الأدمي في قسم جراحة العظام والمفاصل للأطفال بالمستشفى الجامعي حسن الثاني بفاس. خلال الفترة الممتدة ما بين 2007 و 2011.

المعدل السنوي لمرضانا هو 14 سنة ، ولم نلاحظ أية حالة عائلية. المدة المتوسطة التي تسبق التشخيص هي 4.2 شهر.

كان تموضع الكييس العظمي الأدمي على العظام الطويلة في 3 حالات، ومرة في الوظيف الأول لمشط القدم.

سبب الاستشارة الطبية، الكسر المرضي في حالة واحدة، الورم في حالة واحدة، مع اشتراك الألم والورم في حالتان.

التظاهرات السريرية والتصوير بالأشعة لم يتمكنوا وحدهم في حالتان من التشخيص، فكان التصوير التفسيري ضروري.

ثم التشريح الدقيق لعينات عند جميع الحالات، الدراسة التشريحية أكدت التشخيص. جميع مرضانا، ثم علاجهم بالجراحة، حالتان بالتجريف مع ردم بطعم ذاتي، أخذت من العرف الحرقفي. في حالة واحدة ثم بثر أحادي الكتلة بدون إعادة التشبيد، وأكملت الجراحة في حالة بوضع الاسمنت الجراحي.

لوحظت مضاعفة واحدة وهي شلل العصب المأبضي الخارجي.

- معدل التراجع كان 27 شهرا (ما بين 18 و 48 شهرا)، وكانت النتائج جيد في 3

حالات ومتوسطة في حالة واحدة حسب تصنيف أنكيك.

لم نلاحظ أي حالة انتكاسة.

# **BIBLIOGRAPHIE**

[1] Jaffe HL, Lichenstein L,

Solitary unicameral bone cyst with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis.

Arch surg 1942,' 44: 1004-25.

[2] Lichentein L.

aneurysmal bone cyst: observations on fifty cases. J Bone Joint sur} [Am] 1957,' 39-A.

[3] Nezloff C., Michel J., D'amato J.,

Le kyste anévrysmal de l'os: principaux caractères anatomoradiologiques. Rev Chir orthop. 1960,' 46(3) : 369-383.

[4] EDLING ,NILE.P.G :

Dysfibroplasia of bone.Am.j.Roontgegnol.89 :1246-1249 ;1963.

[5] Godfrey LW, Bresham GA.

The natural history of aneurysmal bone cyst.Proc R Soc Med 1959,' 52:900-5.

[6] Clough JR, Priece CH.

Aneurysmal bone cyst: pathogenesis and long term results of treatment. Clin orthop 1973,' 97: 52-63.

[7] Campanaeei M. Capanna R. Picci P.

Unicameral and aneurysmal bone cysts. Clin. Or th op. 1986, 204, 25-36.

[8] Buraezewski J., Dabska M.

Pathogenesis of aneurysmal bone cyst, relationship between the aneurysmal bone cyst and fibrous dysplasia of bone. *Cancer* 1971; 28: 597-604.

[9] Donaldson WF.

Aneurysmal bone cyst " J bone Joint Surg [Am] 1962; 44- A 25-36.

[10] Dyer R., Stelling CB, Fechner RE.

Epiphyseal extension of an aneurysmal bone cyst. *AmJ Roentgenol* 1981; 137: 172-3.

[11] Panoutsakopoulos G., Pandis N., Kyriazoglou J., Gustafson P., Mertens F., Mandahl N.,

*Genes Chromosomes cancer* 1999; 26(3) :265-6.

[12] Dal Cin P., Kozakewich HP, Goumnerova L, Mankin HJ.,  
Rosenberg AE., Fletcher JA.

Variant translocations involving 16q22 and 17q13 in solid variant and extraosseous forms of aneurysmal bone cyst. *Genes Chromosomes Cancer* 2000; 28(2): 233-4.

[13] Vicenzi G

Familial incidence in two cases of aneurysmal bone cyst. *Ital J Orthop traumatol* 1981; 7:345-52.

[14] Leithner A., Windhager R., Kainberger F., Lang S.

*Eur J Radiol* 1998; 29 (1): 28-30.

[15] Power R.A., Robbins PD, Wood DJ.

Aneurysmal bone cyst in monozygotic twins a case reports. J

Bone Joint Surg [Br] 1996; 78-B: 323-4.

[16] Di Caprio MR., Murphy MJ, Camp RL.

Aneurysmal bone cyst of the spine with familial incidence. Spine 2000; 25(12):

1589-92.

[17] Biesecker JL, Marcove RC, Huvos AG, Mike V.

Aneurysmal bone cysts. A clinicopathologic study of 66 cases. cancer 1970;26:615-25.

[18] Mac Queen MM., Chalmers J., Smith GD.,

Spontaneous healing of aneurysmal bone cyst : a report of nvo cases. JBone Joint

Surg [Br] 1985; 67-B; 310-2.

[19] Marcove R.C., Sheth D.S. Takemeto S., Healey J.H.

The treatment of aneurysmal bone cyst, 1995, 311, 157-163.

[20] Capanna R., Albisinni V., Picci P.,

Aneurysmal cyst of long bones. Ital J orthop Traumatol 1985; 4:

25-36.

[21]Enneking WF,Dunham W,Gebhardt MC, Malawar M, Pritchard DJ. A system for the functional evaluation of reconstructive procedures after surgical treatment of tumors of the musculoskeletal system. Clin orthop 1993;286:241-6

[22] Dahlin DC., Besse BE JR., Pugh DG, Chomley RK.

Aneurysmal bone cyst, Radiology 1995; 64:56 -65.

[23] Windhager R., lang S., Kainberger F.

Die aneurysmaltische Knochenzyste. Orthopöde 1995; 24: 57-64.

[24] Ginsbourg LD.,

Congenital aneurysmal bone cyst ; Radiology, 1974, 110, 175-176.

[25]Leithner A, Windhager R, Lang S, Haas OA, Kainberger F, Kotz R. Aneurysmal bone cyst. A population based epidemiologic study and literature review. Clin orthop 1999;363:176-9

[26] Tillman BP., Dahlin DC., Lipscomb PR., Stewart JR.

Aneurysmal bone cyst an analysis of ninety-five cases. Mayo clinic Proc. 1968; 43, 478-95.

[27]. ARLET V, RIGault P, PADOVANI JP et al : Le kyste anévrysmal des os chez l'enfant. Rev Chir Orthop, 1987, 73, 337-348.

[28]Faresetti P, Tudisco C, Rosa M, Pentimalli G, Ippolito E. Aneurysmal bone cyst : long term follow-up of 20 cases. Arch Orthop Traum Surg 1990;109:221-3

[29]Szendroi M, Cser I, Konya A, Renyi-Vamos A.

Aneurysmal bone cyst: review of 52 primary and 16 secondary cases. Arch orthop Traum Surg 1992;111:318-22.

- [30] Vergel De Dios AM., Bond JR., Shives TC., McLeod RA, Unni KK. Aneurysmal bone cyst : a clinicopathologic study of 238 cases. *Cancer* 1992; 69: 2921-31.
- [31] Freiberg AA., Loder RT., Heidelberger KP., Hensinger RN. Aneurysmal bone cyst in young children; *J Pediatr. Orthop.* 1994, 14,86-91.
- [32] Schreuder HWB., Veth RPH., Pruszezynsky M., Lemmens JAM., Koops HS., Molenaar WM. Aneurysmal bone cysts treated by curettage, cryotherapy and bone grafting. *J Bone Joint Surg.* 1997, 79 B(1) 20-25
- [33] Bollini G., Jouve JL, Cottalorda J, Petit P, Panuel M, Jacquemier M. Aneurysmal bone cyst in children: analysis of twenty-seven patients. *J Pediatric Orthop.* 1998, B7, 274-285.
- [34] Gibbs CP., Hefele MC., Peabody TD., Montag AG., Aithal V., Simon MA. Aneurysmal bone cyst of the extremities. Factors related to local recurrence after curettage with high-speed burr. *J Bone Joint Surg (AM)* 1999, 81-A(12): 1671-1678.
- [35] Papagelopoulos PJ., Currier BL., Shaughnessy WJ., Sim FH., Ebersold MJ., Bond JR., Unni KK. Aneurysmal bone cyst of the spine: management and outcome. *Spine*; 1998; 23(5) : 621-8.



- [36] Capanna R., Albisinni D., Calderoni P., Campanacci M., Springfield DS.  
Aneurysmal bone cyst of the spine Bone Joint Surg Am 1985; 67/ 527-533.
- [37] Capanna R., Springfield DS., Bizagini R., Ruggieri P., Guiti A.  
Juxtaepiphyseal aneurysmal bone cyst. Skeletal Radio 1985; 13 : 21-25.
- [38] Capanna R., Campanacci M., Manfrini M,  
Unicameral aneurysmal bone cyst. Pediatr Orthop Oncol 1996; 27 : 605- 614.
- [39] Dabska M., Buraczewski J.  
Aneurysmal bone cyst, Cancer 1969, 23, 371-389.
- [40] Munk PL., Helms CA., Hoti RG., and al.  
MR imaging of aneurysmal bone cyst A.JR 1989, 153,99-101.
- [41] Davies AM., Gassar-Pullicino VN., Grimer RJ.,  
The incidence and significance of fluid-fluid levels on computed tomography of osseous lesions Br J Radio 1992; 65: 193-198.
- [42] Vilanova JC., Dolz JF., Maestro DE., Leon JL., Aparicio A., Aldoma J., et al  
MR imaging of a malignant schwannoma and an osteoblastoma with fluid-fluid levels.  
Report of two cases. Eur Radiol, 1998; 8: 1359-1362.
- [43] Ruitter DJ., Van Rijssel TG., Van der Velde EA.  
Aneurysmal bone cysts: a clinicopathological study of 105 cases. Cancer 1977,  
39,2231-9.

[44] Rigault P., Beneux J., desvignes P.

Le kyste anévrysmal des os chez l'enfant; à propos de 16 cas ANN. Pédiatr. 1972, 19,223-234.

[45] Daudet M., Marion J., Faysse R., Vauzelle JL., Baulieu J., Redouillat J., Lapras C.

Le kyste osseux anévrysmal chez l'enfant. Ann Chir. In! 1971, 12(1) : 7-34.

[46] Mazabraud A.

Anatomie pathologique osseuse tumorale. Paris : Springer-Verlag France, 1994 :335-52.

[47] Combelles G, Delcambre B, Madelain M, Clarisse J, Krivosic I, Christiaens JL.

Le kyste anévrysmal rachidien. Neurochirurgie 1983 ;29(1) :1-11.

[48] Levy WM, Miller AS, Bonakdarpour A, Aegerter E.

Aneurysmal bone cyst secondary to other osseous lesions. Am J Clin Pathol 1975;63:1-8.

[49] Forest M., Le Charpentier Y., Carlioz A., Abelaner R., Tomeno B., Postel M., Morer P., Kerboull M.

Le kyste osseux anévrysmal : maladie ou symptôme; Nouv Presse Med 1977, 32, 2889-90.

[50] Diercks R.L, Sauter A.J.M, Mallens W.M.C.

Aneurysmal bone cyst in association with fibrous dysplasia. J Bone Joint Surg., 1986, 68B, 144-146.

[51] Malghem J., Maldague B., esselinkx W., and Al.

Spontaneous healing of aneurysmal bone cyst J Bone Joint Surg, 1989, 71B, 645-650.

[52] Bonakdarpour A, Levy WM, Aegerter E.

Primary and secondary aneurysmal bone cyst: a radiological study of 75 cases.

Radiology 1978; 126: 75-83.

[53] Saglik Y., Kapidoglu MT., Guzel B.

Spontaneous regression of aneurysmal bone cyst. Arch Orthop. Truma Surg. 1993,

112, 203-204.

[54] Schiller CH, Ritschl P, Windhager R, Kropej D, Kotz R.

The incidence of recurrence in phenol-treated and non-phenol-treated bone cavities following intralesional resection of non malignant bone tumors. Z Orthop 1989;127:398-401.

[55] Gage AA., Green GW., Neiders ME., Emmings FG.

Freezing bone without excision: an experimental study of bone-cell destruction and manner of regrowth in dogs. JAMA 1966,196, 770774.

[56] Malawer MM., Marks MR., Mc Chesney D.

The effect of cryosurgery and polymethylmethacrylate in dogs with experimental bone defects comparable to tumor defects. Clin Orthop 1988, 226, 767-769.

[57] Ozaki T., Hillman, Lindner N., Winkelmann W.

Aneurysmal bone cysts in children. J Cancer Res Clin Oncol 1996. 122, 767-769.

[58] Cole WG.

Treatment of aneurysmal bone cyst in childhood; *Pediat. Orthop.* 1986, 6, 326-329.

[59] Koskinen EV, Visuri TI, Holmstrom T, Roukkula MA.

Aneurysmal bone cyst : evaluation of resection and curettage in 20 cases. *Clin orthop* 1976;118:136-46 .

[60] Kreicberg A, Lonnqvist PA, Nilsson B.

Curettage of benign lesions of bone: factors related to recurrence. *Int Orthop* 1985;8:287-94.

[61] Van Loon CJ, Veth RP, Pruszczynski M, Lemmens JA, Van Horn JR.

Aneurysmal bone cyst: long term results and functional evaluation. *Acta Orthop Belg* 1995;61:199-204

[62] Slowick FA, Campbell CJ, Kettelkamp DB.

Aneurysmal bone cyst: an analysis of thirteen cases. *J bone Joint Surg[Am]*1968;50-A:1142-51.

[63] Rizzo M., Dellaero DT, Harrelson JM., Scully SP.

Juxtaepiphyseal aneurysmal bone cysts. *Clin Orthop.* 1999, 364, 205-212.

[64] Masquelet AC, Fitoussi F, Bégué T, Muller GP. Reconstruction des

os longs par membrane induite et autogreffe spongieuse *Ann Chir Plast Esthet* 2000;45:346-53.

[65]. Masquelet AC, Fitoussi F, Bégué T, Muller GP. Reconstruction des os longs par membrane induite et autogreffe spongieuse Ann Chir Plast Esthet 2000;45:346-53

[66]. Masquelet AC. Muscle reconstruction in reconstructive surgery: soft tissue repair and long bone reconstruction Langenbecks Arch Surg 2003;388:344-6.).

[67].Klaue K, Anton C, Knothe U, Ramplodi E, Masquelet AC, Perren SM. Biological implementation of "in situ" induced autologous foreign body membranes in consolidation of massive cancellous bone grafts orthopaedic proceedings. J Bone Joint Surg 1993;79B (suppl II):236.).

[68]. Pelissier P, Masquelet AC, Bareille R, Mathoulin-Pelissier S, Amedée J. Induced membrane secrete growth factors including vascular and osteoinductive factors and could stimulate bone regeneration. J Orthop Res 2004;22:73-9.).

[69] SERVER-PEREZ F, GOMEZ-BONSFILS X, MATEO-MONTANES X : Kyste osseux anévrysmal : révision de 20 cas. Acta Orthop Belg, 1980, 46, 272-288

[70] Randall RL., Nork SE., James PJ.

Aggressive aneurysmal bone cyst of the proximal humerus: cases report. Clin Orthop 2000. 370,212-218.

[71] Onimus M., Belot V., Vauzelle JL., Belot V.

À propos d'un cas de kyste osseux anévrysmal du rachis. Rev Chir Orthop 1984, 70, 335-341.

[72] Verbiest H.

Giant-cell tumors and aneurismal bone cyst of the spine. J Bone Joint Sur}, 1965, 47, B, 699-713.

[73] De Kleuver M., Van der Heul RO., Veraart BE.

Aneurysmal bone cyst of the spine: 31 cases and the important of surgical approach. J pediatr Or th op 1998, B7, 286-92.

[74] Boriani S., Lure F., Campanaeci L., Gasbarrini A., Bandiera S., Biagini R., Bertoni F., Pied P.

Aneurysmal bone cyst of the mobile spine: report on 41 cases. Spine 2001, 26, 27-35.

[75] De Rosa GP., Grasianni GP., Scott J.,

Arterial embolisation of aneurysmal bone cyst of the spine J. Bone Joint Surg. Am 1990, 72, 777.

[76] Green JA., Bellemore MC., Marsden FW.

Embolization in the treatment of aneurysmal bone cysts. J Pediatric Orthop 1997, 17(4), 440-3.

[77] Ciseneros AJ., Gomez CH., Benedicto FC.

Aneurysmal bone cyst of the ischium, In Orthop 1985; 9, 49-54.

[78] Cory DA., Fritsh SA., Cohen MD.

Aneurysmal bone cyst : imaging findings and embolotherapy. Am J Roentgenol 1989. 153: 369-73.

[79] De Cristofaro R., Biagini R., Boriani S.

Selective arterial embolization in the treatment of aneurysmal bone cyst and angiona ofbone. Skeletal Radiol1992, 21, 523-7.

[80] Misasi N., Cigala F., Cozzolino F.

Selective arterial embolisation in aneurysmal bone cyst. Int Orthop 1982, 6, 123-8.

[81] Fraser PK., Coates CJ., Cole WG.

An angiostatic agent in treatment of a recurrent aneurysmal bone cyst. J Pediatr Orthop 1993, 13, 668-71.

[82] Adamsbaum C., Kalifa G., Seringe R., Dubousset J.

Dierct ethibloc injection in benign bone cysts: preliminary report onfour patients. Skeletal Radiol1993, 22, 317-20.

[83] Garg NK., Carty H., Walsh HPJ., Dorgan .rc., Bruce CE.

Percutaneous Ethilbloc injection in aneurysmal bone cysts. Skeletal Radiol2000, 29, 211-216.

[84] Carlson DH., Wilkinson RH, Bhakkaviziam A.

Aneurysmal bone cysts in children? Am J Roentgenol 1972, 116, 644-669.