

CASE REPORT

TUMEUR À CELLULES GÉANTES BIFOCALE DU MEMBRE SUPÉRIEUR

M. HAMDI¹, H. BEN AMOR², T. BEN CHAABANE¹, S. KCHELFI¹, L. NOUISRI¹, A. KHELIL¹

SUMMARY : *Multicentric giant cell tumor of bone. Report of a case.*

Multicentric giant cell tumors of bone are rare ; they represent less than 1% of all giant cell tumors.

We report the case of a 35-year-old right-handed man, who presented in 1985 with a giant cell tumor of the upper end of the right humerus. After failure of conservative treatment (curettage and bone grafting), resection-arthrodesis of the shoulder with a free vascularized fibular autograft was performed. Three years later, the patient developed an osteolytic lesion of the lower end of the ipsilateral radius, involving the soft tissues and the wrist joint. He was treated with resection-arthrodesis of the wrist with a free vascularized fibular graft.

The histologic study confirmed the diagnosis of giant cell tumor of similar grade.

After 13 years follow-up, the patient had a satisfactory function of the limb and no recurrence of the tumor was noted.

Keywords : multicentric giant cell tumor ; shoulder ; wrist.

Mots-clés : tumeur à cellules géantes bifocale ; épaule ; poignet.

INTRODUCTION

Les tumeurs à cellules géantes représentent 5 à 10% de l'ensemble des tumeurs primitives des os (19). Les formes à localisations multiples sont très rares et représentent moins de 1% de l'ensemble des tumeurs à cellules géantes (8, 19). En effet, on ne retrouve qu'une trentaine de cas rapportés dans la littérature depuis 1970.

L'origine de ces formes plurifocales reste encore hypothétique.

OBSERVATION

Nous rapportons l'observation d'un patient âgé de 35 ans, sans antécédents pathologiques, qui a consulté au mois de février 1985 pour des douleurs de l'épaule droite rapportées à un traumatisme récent. La radiographie standard a montré une lésion d'ostéolyse à contour géographique, au niveau de la région métaphyso-épiphysaire proximale de l'humérus droit, sans envahissement articulaire ni des parties molles (fig. 1). Le bilan phospho-calcique était normal. Le bilan d'extension loco-régional et à distance était négatif, en particulier la scintigraphie qui n'a pas montré d'autres localisations tumorales.

Il a subi une biopsie-exérèse par curetage de la lésion et un comblement par une autogreffe cortico-spongieuse.

L'examen histologique a conclu à une tumeur à cellules géantes de grade II selon la classification de Jaffé et Lichtenstein. Un traitement adjuvant par injections intra-tumorales de thyrocalcitonine a été poursuivi pendant 2 mois. L'évolution a été marquée par l'extension de la tumeur avec une

¹ Service d'Orthopédie – Traumatologie, Hôpital Militaire Principal d'Instruction de Tunis, Tunisie.

² Institut d'Orthopédie M. T. Kassab, 2010 La Manouba, Tunisie.

Correspondance et tirés à part : H. Ben Amor, Institut d'Orthopédie M.T. Kassab, 2010 La Manouba, Tunisie.



Fig. 1. — La radiographie de l'épaule droite de face montre une lésion d'ostéolyse à contour géographique au niveau de la région métaphyso-épiphysaire supérieure de l'humérus.

destruction complète de l'extrémité supérieure de l'humérus au bout d'un an. Il a été réopéré par résection large de l'extrémité supérieure de l'humérus, emportant un segment de 18 cm, avec reconstruction par un péroné libre et une arthrodèse scapulo-humérale en position de fonction.

L'examen histologique de la pièce de résection a conclu à une tumeur à cellules géantes de même grade qu'à la première biopsie.

L'évolution a été favorable avec une bonne incorporation du greffon et une fusion de l'arthrodèse au bout de 4 mois.

Trois ans après, le patient a reconsulté pour une tuméfaction douloureuse du poignet droit avec, à la radiographie standard, une tumeur ostéolytique, cloisonnée, de l'extrémité inférieure du radius droit avec envahissement des parties molles et de l'articulation radio-carpienne, évoquant une deuxième



Fig. 2. — Tumeur lytique de l'extrémité distale du radius droit, découverte trois ans après la localisation humérale.

localisation de tumeur à cellules géantes (fig. 2). Il a été traité par résection carcinologique de l'extrémité inférieure du radius et reconstruction par une autogreffe de péroné libre avec un apport spongieux et une arthrodèse du poignet. L'étude histologique de la pièce de résection a confirmé le diagnostic de tumeur à cellules géantes de grade II.

Au recul de 13 ans, le membre supérieur droit a une fonction satisfaisante. L'épaule a une mobilité en abduction de 60° dans la scapulo-thoracique, le coude a une mobilité normale et le poignet est ankylosé en position de fonction. La radiographie montre une excellente incorporation de la greffe et l'absence de récurrences locales (fig. 3, 4).

La scintigraphie osseuse n'a pas montré de zones d'hyperfixation à distance.



Fig. 3. — Au recul de 13 ans, la radiographie de l'épaule montre une arthrodesè fusionnée, un greffon péronier hypertrophié et l'absence de récidence.



Fig. 4. — Au recul, le poignet est fusionné en bonne position.

DISCUSSION

Les localisations multiples des tumeurs à cellules géantes, qu'elles soient simultanées ou successives, sont exceptionnelles : elles représentent moins de 1% des cas (8, 9) et plusieurs grandes séries de tumeurs à cellules géantes (7, 12, 14) n'en rapportent aucun cas.

Sur le plan étiopathogénique, les formes multifocales peuvent être primitives d'emblée ou secondaires à une extension locale ou à des métastases (8, 13, 16). On peut exclure chez notre patient l'hypothèse de l'extension locale suite à une fracture pathologique ou à une contamination peropératoire (8, 19), puisqu'il s'agirait dans ces cas d'enva-

hissement loco-régionaux et non de formes bifocales. Par ailleurs, dans notre observation et dans la quasi totalité des autres cas décrits, les différentes localisations tumorales étaient séparées par des segments squelettiques et/ou des articulations saines.

L'apparition des différentes localisations tumorales se fait fréquemment de façon successive dans le temps, avec des délais variables allant de quatre mois à 16 ans et demi (8, 16). Seuls quatre cas sont de découverte simultanée (10). Une fois sur deux, la deuxième localisation est apparue au moins deux ans après le traitement de la première tumeur, ce qui est en faveur de localisations métastatiques plutôt que de formes primitives d'emblée (8).

Ces formes plurifocales ont plusieurs caractères communs avec les formes isolées des tumeurs à cellules géantes. Ce sont des lésions de l'adulte jeune, de siège métaphyso-épiphysaire atteignant le plus souvent le genou et l'extrémité inférieure du radius (8, 16, 18). Leur expression clinique et l'aspect radiologique sont également identiques.

D'autre part, l'atteinte des os de la main et du pied dans les tumeurs à cellules géantes multifocales serait plus fréquente (8, 11, 16).

Cummins *et al.* (8) pensent également qu'elles touchent une population plus jeune, puisque l'âge moyen des cas rapportés est de 23 ans et demi avec des extrêmes de 10 et 62 ans, et 75% des ces patients ont moins de 25 ans au moment de la découverte de la première tumeur (2, 3, 8, 11, 16, 17, 18, 20, 21).

Le diagnostic de certitude doit être histologique au niveau des différents foyers, puisque de nombreuses pathologies osseuses métaboliques, infectieuses, dystrophiques ou tumorales peuvent avoir des localisations squelettiques multiples (8, 16, 21).

Le traitement des tumeurs à cellules géantes multifocales est identique à celui des formes isolées. Le traitement conservateur (infiltration à la thyrocalcitonine, curetage-comblement) représente la méthode de choix pour les tumeurs limitées sans envahissement loco-régional, mais le taux de récurrence est élevé et varie de 25 à 40% (19). La thyrocalcitonine a été proposée dès la fin des années quatre-vingt comme méthode de traitement des tumeurs à cellules géantes des os (1). Le protocole actuellement pratiqué à Tunis (5) dure globalement trois mois et demi et comporte, après confirmation diagnostique par la biopsie, quatre étapes successives. D'abord, on réalise un curetage chirurgical complet suivi de l'injection intra-focale de 100 à 200 UI de thyrocalcitonine selon le volume de la cavité tumorale. La deuxième phase consiste à injecter quotidiennement en IM 100 UI de thyrocalcitonine pendant 15 jours, temps de cicatrisation cutanée. Ensuite, on réalise pendant un mois un lavage-rinçage percutané quotidien de la cavité tumorale, suivi en fin de séance par l'injection intra-focale de 100 à 200 UI de thyrocalcitonine. Enfin, les injections intra-musculaires sont reprises

pendant deux mois. Ben Amor *et al.* (5), sur une série de 19 tumeurs à cellules géantes traitées par ce protocole entre 1993 et 1997 et revues au recul minimum de deux ans, n'ont rapporté que 5 échecs (26%). Ils ont remarqué que les récurrences ont été observées pour des tumeurs avec une extension épiphysaire importante et quand le curetage était incomplet.

La résection-arthrodèse, par contre résout le problème carcinologique mais avec la nécessité de reconstruire le segment squelettique (4). Parmi les différents greffons proposés, on peut citer le péroné libre, utilisé pour la première fois en 1952 par Lawson (13) au niveau du radius distal. En 1979, Campanacci *et al.* (7) ont rapporté 3 cas de tumeurs à cellules géantes de l'extrémité inférieure du radius traitées par cette technique avec de bons résultats. Plus récemment, Murray et Schafly (15) ont rapporté une série de 18 patients, parmi lesquels 5 ont nécessité une reprise pour consolider le greffon et 3 ont présenté une fracture du greffon. Lackman *et al.* (12) dans une série de 12 patients, ont eu 2 pseudarthroses et 1 fracture du greffon, mais le résultat fonctionnel restait très satisfaisant, puisque 85% des patients n'avaient aucune douleur. L'adjonction d'une greffe spongieuse complémentaire permet de réduire le risque de fracture du greffon et de pseudarthrose aux extrémités du montage.

L'évolution des formes multifocales de tumeurs à cellules géantes est caractérisée par la possibilité d'apparition de nouvelles localisations, puisque 18 des 30 cas décrits avaient plus de deux localisations tumorales, dont trois avaient respectivement 9, 10 et 11 localisations différentes (2, 17). Wu *et al.* (21), ont rapporté l'observation d'une patiente qui a développé une localisation au niveau de l'extrémité distale du radius gauche, douze ans après le traitement d'une tumeur à cellules géantes de la selle turcique.

RÉFÉRENCES

1. Abdelkefi M. M., Meddeb T. K., Siala M., Kassab M. T. Traitement non invasif des tumeurs à cellules géantes des os ; à propos de 10 cas. *Encycl. Méd. Chir. Instantanés médicaux. Appareil locomoteur* 14999, 5, 1992.

2. Averill R. M., Smith R. J., Campbell C. J. Giant-cell tumors of the bones of the hand. *J. Hand Surg.*, 1980, 5-A, 39-49.
3. Begue Th., Garcon P., Roy-Camille R. Tumeur à cellules géantes du radius : résection-reconstruction par greffe de péroné vascularisé. *Rev. Chir. Orthop.*, 1990, 76, 583-586.
4. Ben Amor H., Zouari M., Zehi K., Karray S., Litaïem T., Douik M. Tumeurs à cellules géantes de l'extrémité inférieure du radius traitées par résection-arthrodèse. *Acta Orthop. Belg.*, 1998, 64, 41-46.
5. Ben Amor H., Kallel S., Ksibi H., Zouari M., Karray S., Litaïem T., Douik M. Le nouveau protocole à la thyrocalcitonine dans le traitement des tumeurs à cellules géantes. Communication particulière au 4^{ème} congrès maghrébin de chirurgie orthopédique. Alger, 24-26 Octobre 2000.
6. Campanacci M., Laus M., Boriani S. : Resection of the distal end of the radius. *Ital J. Orthop. Traumatol.*, 1979, 5, 145.
7. Campanacci M., Baldini N., Boriani S., Sudanese A. A. Giant cell tumor of bone. *J. Bone Joint Surg.*, 1987, 69-A, 106-114.
8. Cummins C. A., Scarborough M. T., Enneking W. F. Multicentric giant cell tumor of bone. *Clin. Orthop.*, 1996, 322, 245-252.
9. Dahlin D. C., Cupps R. E., Johnson E. W. Giant cell tumor : a study of 195 cases. *Cancer*, 1970, 25, 1061-1079.
10. Deburge A., De Grandmaison P. Tumeur à cellules géantes bifocale. Un cas. *Rev. Chir. Orthop.*, 1980, 66, 323-326.
11. Hindman B. W., Seeger L. L., Stanley P. Multicentric giant cell tumor : Report of five new cases. *Skeletal Radiol.*, 1994, 23, 187-190.
12. Lackman R., Mc Donald D. J., Becken Baugh R. D., Franklin H. S. Fibular reconstruction for giant cell tumor of the distal radius. *Clin. Orthop.*, 1987, 218, 232-238.
13. Lawson T. L. Fibular transplant for osteoclastoma of the radius. *J. Bone Joint Surg.*, 1952, 34-B, 74.
14. Méary R., Merle d'Aubigné, Toméno B., Sedel L. Tumeurs à cellules géantes. 85 observations suivies. *Rev. Chir. Orthop.*, 1975, 61, 391-413.
15. Murray J. A., Schlafly B. Giant-cell tumors in the distal end of the radius : treatment by resection and fibular autograft interpositional arthrodesis. *J. Bone Joint Surg.*, 1986, 68-A, 687.
16. Peimer C. A., Shiller A. L., Mankin H. J., Smith R. J. Multicentric giant cell tumor of bone. *J. Bone Joint Surg.*, 1980, 62-A, 652-656.
17. Sim F. H., Dahlin D. C., Beabout J. W. Multicentric giant-cell tumor of bone. *J. Bone Joint Surg.*, 1977, 57-A, 1052-1060.
18. Sybrandy S., De La Fuente A. A. Multiple giant cell tumor of bone. Report of a case. *J. Bone Joint Surg.*, 1973, 55-B, 350-356.
19. Toméno B., Forrest M. Tumeurs à cellules géantes. Cahiers d'Enseignement de la SOFCOT. Expansion Scientifique Française, Paris, 1990, 31-50.
20. Torngerg D. N., Dick H. M., Johnston A. D. Multicentric giant cell tumor in the long bones. A case report. *J. Bone Joint Surg.*, 1975, 57-A, 420-422.
21. Wu K. K., Ross P. M., Mitchell D. C., Sprague H. H. Evolution of a case of multicentric giant cell tumor over a 23 year period. *Clin. Orthop.*, 1986, 213, 279-288.

SAMENVATTING

M. HAMDI, H. BEN AMOR, T. BEN CHAABANE, S. KCHELFI, L. NOUISRI, A. KHELIL. Dubbele lokalisatie van een reuscellentumor in het bovenste lidmaat.

Plurifocale reusceltumoren van het bot zijn zeldzaam (1% van alle reusceltumoren).

Het artikel beschrijft een geval van een 35-jarige rechts handige man die in 1985 voor een lokalisatie in de proximale humerus werd gezien. Een conservatieve curettage en botopvulling faalde en een resectie-arthrodesis van de schouder met een vrije gevasculariseerde fibula-autogreffe werd uitgevoerd.

Drie jaar later werd hij teruggezien met een osteolytische tumor van de ipsilaterale distale radius, met aantasting van het polsgewricht en weekdeel zwelling. De behandeling bestond in resectie-arthrodesis van de pols bij middel van een vrije gevasculariseerde fibula-autogreffe.

13 jaar later was er geen herhal en patiënt had een bevredigende lidmaat functie.

RÉSUMÉ

M. HAMDI, H. BEN AMOR, T. BEN CHAABANE, S. KCHELFI, L. NOUISRI, A. KHELIL. Tumeur à cellules géantes bifocale du membre supérieur.

Les formes plurifocales de tumeurs à cellules géantes des os sont très rares ; elles représentent moins de 1% de l'ensemble des tumeurs à cellules géantes.

Nous rapportons l'observation d'un patient droitier, âgé de 35 ans, admis en février 1985 pour une tumeur à cellules géantes de grade II de l'extrémité supérieure de l'humérus droit, découverte fortuitement. Après l'échec d'un traitement conservateur par curetage-comblement, il a subi une résection-reconstruction par une greffe de péroné et une arthrodèse scapulo-humérale. Trois ans plus tard, le patient a été réadmis pour une deuxième localisation tumorale au niveau de l'extrémité inférieure

du radius homolatéral. Il a subi une résection-arthrodèse du poignet droit avec reconstruction par une greffe de péroné.

Au recul de 13 ans, le membre supérieur droit a une fonction satisfaisante et on n'a pas noté de récurrence locale ni d'autres localisations tumorales.

Après revue de la littérature, nous rappelons les caractéristiques épidémiologiques, cliniques et évolutives de ces formes plurifocales, dont la pathogénie reste encore discutée.