

# IST DIE EMBOLISATION EINE EFFEKTIVE METHODE IN DER THERAPIE ANEURYSMATISCHER KNOCHENZYSTEN?

Dr. C. Campbell<sup>1</sup>, apl. Prof. Dr. R. Aschenbach<sup>2</sup>, Prof. Dr. H-J. Mentzel<sup>3</sup>, Prof. Dr. F. Eckoldt<sup>1</sup>, Dr. I. Alhussami<sup>1</sup>

1) Klinik für Kinderchirurgie 2) Institut für Diagnostische und Interventionelle Radiologie 3) Sektion Kinderradiologie, Institut für Diagnostische und Interventionelle Radiologie

## 1. Krankheitsbild Aneurysmatische Knochenzyste (AKZ):

- Tumorähnlicher, durch Bindegewebssepten unterteilter Hohlraum, metaphysär exzentrisch gelegen v.a. in langen Röhrenknochen, häufig lokal aggressiv

- Ätiologie a. e. Translokation TRE17/USP6 mit unterschiedlichen USP6-Fusionsgenen für Osteolyse und Neovaskularisation verantwortlich (Fusionspartner u.a. CDH11, TRAP150, ZNF9, OMD, COL1A1) (Hiemcke-Jiwa et al., 2020)

- Prävalenz 0.14:100.000/Jahr; zumeist 5 – 20 Jahre, Häufigkeitsgipfel in der frühen Pubertät, 2% primärer Knochenläsionen (van Geloven et al., 2023)

- Verursacht Schmerzen, Schwellung, gelegentlich pathologische Frakturen; asymptomatische Verläufe sind möglich

- Diagnostik: Röntgen in 2 Ebenen, MRT kontrastverstärkt und diffusionswichtig, Histologie

- Unterschiedlichste therapeutische Ansätze (En-bloc-Resektion, Curettage, Einbringen demineralisierter Knochenmatrix, Instillation von Polidocanol o.Ä.) zeigten bisher wechselnde Rezidivraten von 10-50% (Deventer et al., 2021; Jasper et al., 2021)

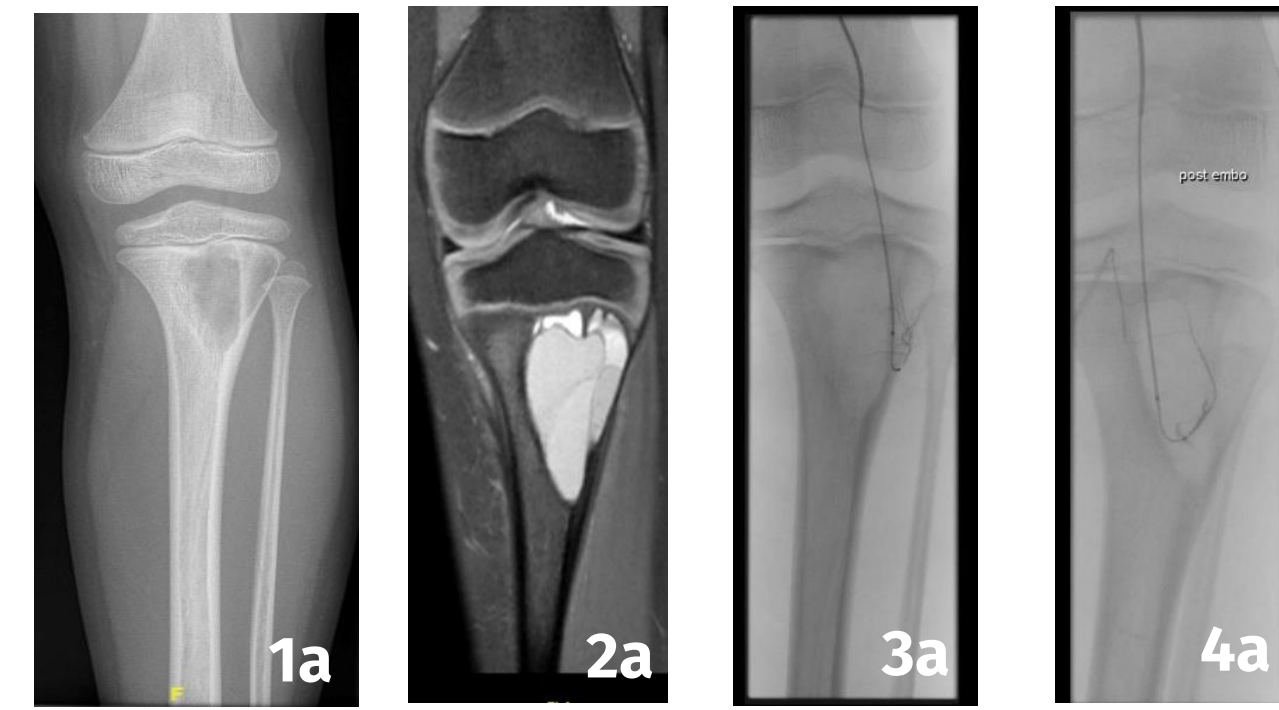
## 2. Fallberichte – Möglichkeiten und Grenzen einer Embolisation in der Therapie der AKZ

**A**  
- 8-jähriger Junge (\*2011), Vorstellung mit intermittierend, v.a. nach Belastung auftretenden Schmerzen des linken Unterschenkels, Erstdiagnose aneurysmatische Knochenzyste in Röntgen + MRT

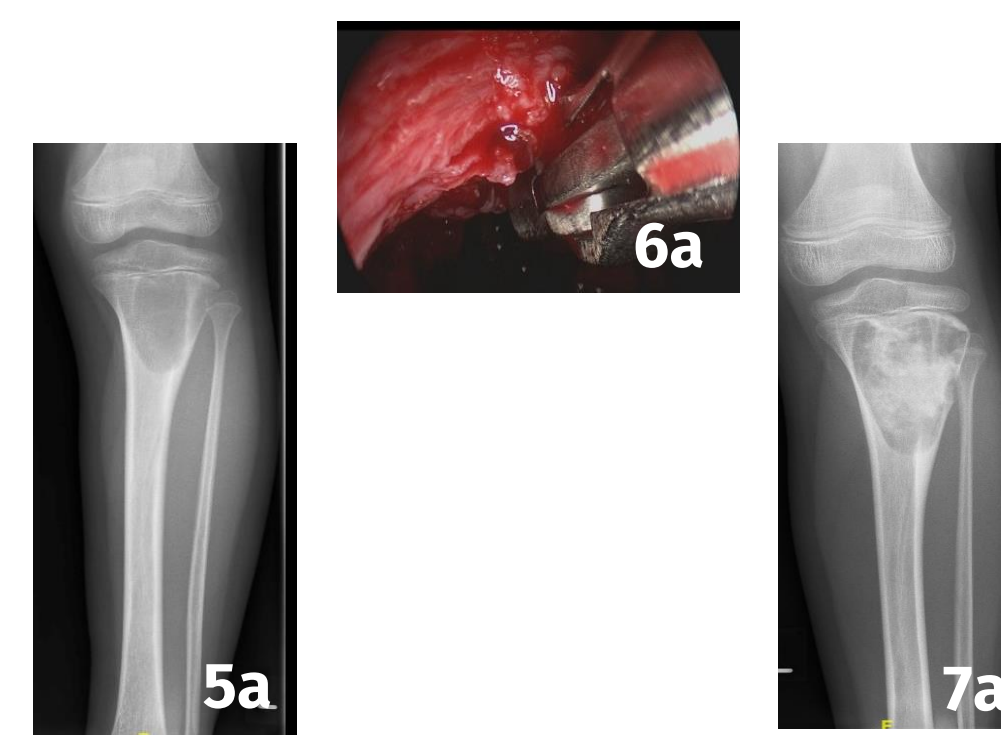
- 11/2020 Angiografie, Embolisation mit 0,3ml Embozene 250µm (Ramus ATA), kein Ansprechen nach 3 Monaten

- Curettage und histologische Sicherung (02/2021)  
- Erneut kein Ansprechen klinisch und radiografisch, daher 06/2021 Re-Curettage (endoskopisch) und Einbringen demineralisierter Knochenmatrix

- Seitdem beschwerdefrei



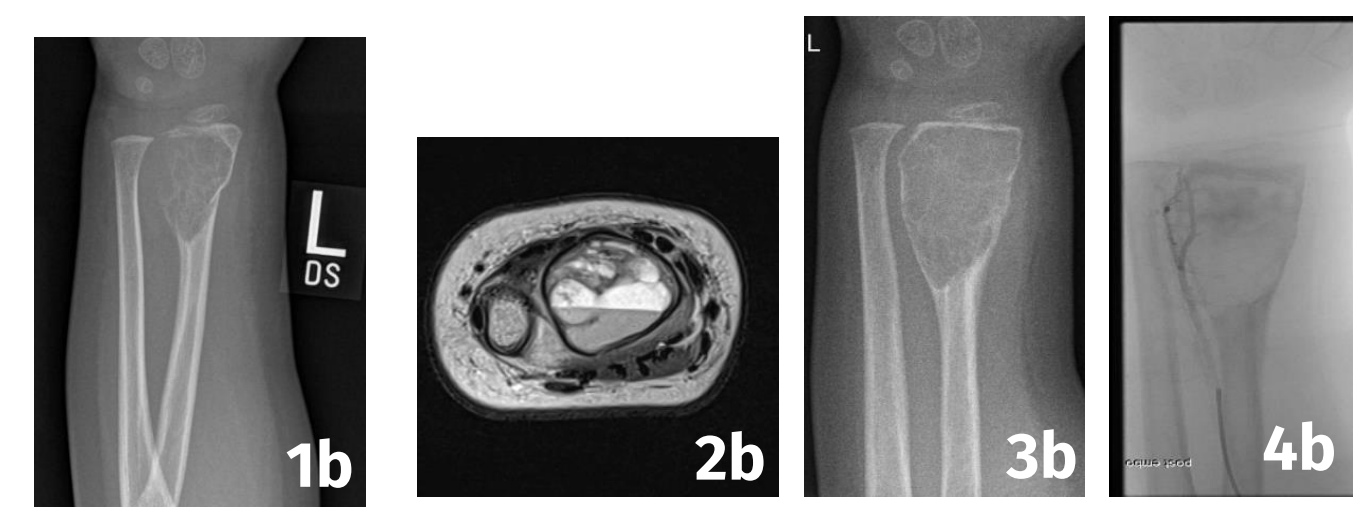
1a/2a - 10/2020; 3a/4a - 11/2020; 5a - 02/2021; 6a - 06/2021; 7a - 09/2021



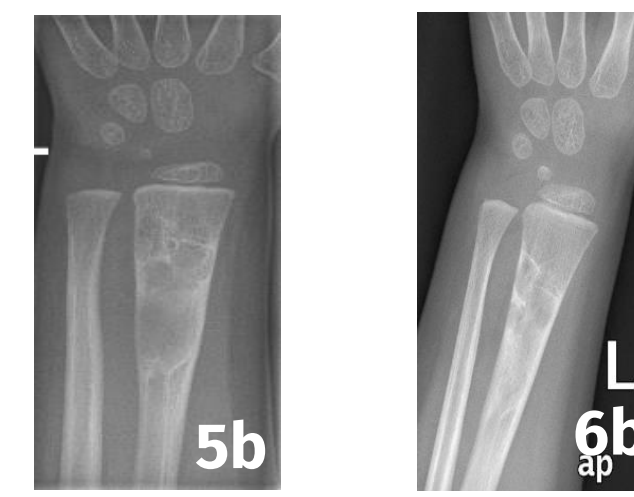
**B**  
- 2-jähriger Junge (\*2017), pathologische Fraktur mit zystischer Raumforderung des linken Radius, a. e. AKZ in Röntgen und MRT; histologische Sicherung 02/2020

- 06/2020 Angiografie, Embolisation mit 0,8ml Embozene 250µm unter Erhalt der Epiphysenperfusion (Feedergefäß aus A. interossea)

- Progrediente Durchbauung radiografisch bei rückläufiger Klinik bereits nach wenigen Monaten



1b - 12/2019; 2b - 01/2020; 3b - 04/2020; 4b - 06/2020; 5b - 12/2020; 6b - 05/2021



**C**  
- 3-jähriger Junge (\*2019), Vorstellung bei Wulstfraktur des Unterarms rechts und nebenbefundlich lytische Veränderungen des Radius

- Nach Frakturheilung progrediente zystische Raumforderung, im MRT a. e. AKZ

- 01/2023 erneute pathologische Fraktur nach Bagateltrauma

- Nach Abheilung erfolgt die Angiografie 03/2023: aus jeder Position kräftige Kollateralen in die Hohland, daher keine Embolisation und Planung eines operativen Vorgehens



1c - 06/2022; 2c - 12/2022; 3c und 4c - 01/2023; 5 - 03/2023

## 3. Embolisation zur Therapie der AKZ – Literatur

Insgesamt sehen wir sehr begrenzte Literatur: zur Behandlung primärer AKZ durch Embolisation im Kindes- und Jugendalter untenstehende Tabelle zu wesentlichen Fallserien bzw. retrospektive Studien.

Zusammengefasst ist die selektive arterielle Embolisation (wie auch in den beispielhaft oben dargestellten Fällen) eine in ausgewählten Fällen, zum geeigneten Zeitpunkt und in geübter Hand sichere und effektive Methode; dabei können mehrere Interventionen in Folge für eine erhöhte Ausheilungswahrscheinlichkeit sorgen (Rossi et al., 2017) – ein ggf. notwendig werdendes operatives Eingreifen zum späteren Zeitpunkt wird hierdurch nicht erschwert.

Zahlreiche retro- und prospektive Studien zeigen den Wert der SAE auch als kombinierte Methode präoperativ im Rahmen (spinaler) AKZ insbesondere zur Blutungskontrolle (Jha et al., 2016; Wang et al., 2014; Novais et al., 2014).

	Anzahl der Pat. (Alter in Jahren)	SAE (selektive arterielle Embolisation) mit...	Outcome	Lokalisation	Komplikationen
Amendola et al., 2013	7 (6-41)	Partikel 14x (Tris-Acryl Gelatine Microsphären 100-300µm), Acrylic Glue 11x (Glubran, Lipodiol), 5x beides; 2x zusätzlich Injektion; 1x Coil	8-wöchentlich, 1-7x bis „recurrence-free“	3 HWS, 2 BWS, 2 LWS	-
Henrichs et al., 2015	6 (8-18)	PVA Partikel 355-500µm, 2x Coil	4x Schmerzfreiheit 1x rückläufige neurologische Symptome 3x partielle Konsolidation 2x >1 Embolisation erforderlich	Sakrum	1x bei Schmerzexazerbation nach wenigen Monaten operatives Vorgehen erforderlich
Cheng et al., 2014	9 (11-24)	PVA Partikel 100µm	3-7x im Abstand von jeweils 4-6 Wochen für partielle bis vollständige Konsolidation	Sakrum	1x Paralyse und Hüftschmerz – spontane Regredienz binnen 3 Monaten
Rossi et al., 2017	88 (3-60)  zusätzliche 14 Pat. ohne passendes Feedergefäß bzw. das Rückenmark mit-versorgendes Feedergefäß	N-Butyl- Cyano-Acrylat mit 33% Lipidol	72 (82%) schmerzfrei und bildgebend Konsolidierung  - 50 nach 1x - 17 nach 2x - 5 nach 3x SAE;  Rezidive häufiger im Alter <15y, Läsion >6cm	36 Becken 29 Untere Extremität 18 Wirbelsäule 10 Thorax 9 obere Extremität	2x Hautnekrosen mit Notwendigkeit plastischer Eingriff  1x persistierende Parästhesie N. ischias 1x Pseudoaneurysma A. fem.
Boriani et al., 2001	4 (11-17)	?	2 Pat. 1x SAE, 2 Pat 2x SAE; 3 von 4 Pat. Konsolidierte Läsion, 1x OP zusätzlich zur Ausheilung erforderlich	2 HWS 2 LWS	-

Amendola L, Simonetti L, Simoes CE, Bandiera S, De Iure F, Boriani S. Aneurysmal bone cyst of the mobile spine: the therapeutic role of embolization. Eur Spine J. 2013 Mar;22(3):533-41. doi: 10.1007/s00586-012-2566-7. Epub 2012 Nov 8. PMID: 23135793; PMCID: PMC3585637.  
Boriani S, De Iure F, Campanacci L, Gasbarrini A, Bandiera S, Biagini R, Bertoni F, Picci P. Aneurysmal bone cyst of the mobile spine: report on 41 cases. Spine (Phila Pa 1976). 2007 Jan 1;26(1):27-35. doi: 10.1097/00007632-200701010-00007. PMID: 17148642.  
Cheng Z, Peng X, He W. Arterial embolization of primary sacral aneurysmal bone cyst. Chin Med J (Engl). 2014;127(9):1785-7. PMID: 24791892.  
Deventer N, Deventer N, Goshager G, de Vaal M, Vogt B, Budny T. Current strategies for the treatment of solitary and aneurysmal bone cysts: A review of the literature. J Bone Oncol. 2021 Jul 20;30:100384. doi: 10.1016/j.jbo.2021.100384. PMID: 34367902; PMCID: PMC8226748.  
Henrichs MP, Beck L, Goshager G, Streiburger A, Koehler M, Heindel W, Hardes J, Vieth V. Selective arterial embolisation of Aneurysmal Bone Cysts of the Sacrum: a promising Alternative to Surgery. Rofo. 2016 Jan;188(1):53-9. doi: 10.1055/s-0041-106069. Epub 2015 Dec 22. PMID: 26695847.  
Hiemcke-Jiwa LS, van Gorp JM, Fisher C, Creytens D, van Diest PJ, Flucke U. USP6-Associated Neoplasms: A Rapidly Expanding Family of Lesions. Int J Surg Pathol. 2020 Dec;28(8):816-825. doi: 10.1177/1066896920938878. Epub 2020 Jul 8. PMID: 32635781.

Jasper J, van der Heijden L, van Rijwijk CSP, van de Sande MAJ. Efficacy of Sclerotherapy With Polidocanol (Ethoxysclerol) in Primary Aneurysmal Bone Cysts in Children and Adolescents. J Pediatr Orthop. 2021 Apr 23. doi: 10.1097/BPO.0000000000001839. Epub ahead of print. PMID: 33902222.  
Jha R, Sharma R, Rastogi S, Khan SA, Jayaswal A, Gamanagatti S. Preoperative embolization of primary bone tumors: A case control study. World J Radiol. 2016 Apr 26;8(4):378-89. doi: 10.4239/wjr.v8.i4.378. PMID: 27158424; PMCID: PMC4840195.  
Novais EN, Zimmerman AK, Lewallen LW, Rose PS, Sim FH, McIntosh AL. Functional outcomes and quality of life following surgical treatment of aneurysmal bone cysts of the pelvis in children. J Child Orthop. 2014 May;8(3):281-8. doi: 10.1007/s11832-014-0588-x. Epub 2014 May 11. PMID: 24817630; PMCID: PMC4142887.  
Rossi G, Mavrogenis AJ, Facchini G, Bartalena T, Rimondi E, Andreone A, Durante S, Angelini A, Errani C. How effective is embolization with N-2-butyl-cyanoacrylate for aneurysmal bone cysts? Int Orthop. 2017 Aug;41(8):1685-1692. doi: 10.1007/s00264-016-3364-3. Epub 2016 Dec 8. PMID: 27933423.  
van Geloven TPC, van der Heijden L, Lubben MK, Campanacci DA, Döring K, Dammerer D, Badr T, Hazra M, Beltrami G, Kraus T, Schneider P, Solo-Montoya C, Linke M, Tizoc M, Coppa V, de Witte PB, van de Sande MAJ. EPOS Study Group. Do's and Don'ts in Primary Aneurysmal Bone Cysts of the Proximal Femur in Children and Adolescents: Retrospective Multicenter EPOS Study of 79 Patients. J Pediatr Orthop. 2023 Jan 1;43(1):32-45. doi: 10.1097/BPO.0000000000002023. Epub 2022 Sep 14. PMID: 36102541; PMCID: PMC9746336.  
Wang C, Liu X, Jiang L, Yang S, Wei F, Wu F, Liu Z. Treatments for primary aneurysmal bone cysts of the cervical spine: experience of 14 cases. Chin Med J (Engl). 2014;127(23):4082-6. PMID: 25430453.