



Miositis osificante neurogénica del músculo iliaco: reporte de caso

Neurogenic myositis ossificans of the iliac muscle: a case report

Luis Felipe Medina-Gómez,^{*,‡,§} Adán de Jesús Aldana-Cetina,^{*,‡} Alejandra Juárez-Oseguera^{*}

^{*}Servicio de Cirugía Ortopédica y Traumatología. Hospital General Dr. Agustín O'Horán. Mérida, Yucatán, México; [‡]Facultad de Medicina. Universidad Autónoma de Yucatán. Mérida, Yucatán, México; [§]ORCID: 0009-0009-0906-6632.

Resumen

Introducción: la miositis osificante es un tipo de osificación heterotópica (OH) que involucra principalmente al tejido muscular. La osificación heterotópica es un proceso patológico, que consiste en la formación de tejido óseo extraesquelético; se presenta en ciertas situaciones como traumatismo o lesiones neurológicas, que en algunos casos limita la movilidad del segmento corporal involucrado. El objetivo de este artículo es presentar el caso de un paciente con miositis osificante en el músculo iliaco derecho secundario a una lesión medular. **Presentación del caso:** hombre de 23 años con secuelas de una lesión medular no reciente secundaria a una fractura de C6, que presentó miositis osificante del músculo iliaco, generando incapacidad a la movilidad pasiva de la cadera derecha, lo que dificultaba a sus cuidadores la higiene y movilización. Fue tratado con éxito mediante una osteotomía y exéresis del tejido óseo aberrante. Posterior a seis meses de seguimiento, el paciente presenta arcos pasivos de movilidad de la cadera completos y sin datos radiográficos de recurrencia. **Conclusiones:** la miositis osificante neurogénica puede llegar a limitar la calidad de vida del paciente. Es importante conocer las opciones profilácticas para los casos en etapas iniciales, así como terapéuticas para casos avanzados.

Palabras clave: miositis osificante, osificación heterotópica, lesión medular, fractura cervical.

Abstract

Introduction: myositis ossificans is a type of heterotopic ossification that mainly involves muscle tissue. Heterotopic ossification is a pathological process, which consists of the formation of extraskelatal bone tissue, it occurs in certain situations such as trauma or neurological injuries, which in some cases limits the mobility of the involved body segment. The objective of this article is to present the case of a patient with myositis ossificans in the right iliac muscle secondary to a spinal cord injury. **Case presentation:** 23-year-old male with sequelae of a non-recent spinal cord injury secondary to a C6 fracture, who presented myositis ossificans of the iliac muscle, generating incapacity for passive mobility of the right hip, which made it difficult for his caregivers his hygiene and mobilization. He was successfully treated with an osteotomy and excision of the aberrant bone tissue. After six months of follow-up, the patient presents complete passive ranges of hip mobility and no radiographic evidence of recurrence. **Conclusions:** neurogenic myositis ossificans can limit the patient's quality of life. It is important to know the prophylactic options for cases in the initial stages as well as therapeutic options for advanced cases.

Keywords: myositis ossificans, heterotopic ossification, spine injury, cervical fracture.

Abreviaturas:

AINE = antiinflamatorios no esteroideos.
OH = osificación heterotópica.
MO = miositis osificante.

Correspondencia:

Luis Felipe Medina-Gómez
E-mail: merkhum@gmail.com

Recibido: 15-01-2024. Aceptado: 25-04-2024.

Introducción

La osificación heterotópica (OH) es un proceso patológico complejo en el que se desarrolla una metaplasia de tejido óseo extraesquelético en tejidos blandos, como músculos, tendones y tejidos periarticulares como cápsulas y ligamentos, etcétera.^{1,2}

Citar como: Medina-Gómez LF, Aldana-Cetina AJ, Juárez-Oseguera A. Miositis osificante neurogénica del músculo iliaco: reporte de caso. Orthotips. 2024; 20 (3): 174-179. <https://dx.doi.org/10.35366/116342>

El término miositis osificante (MO) se utiliza en aquellos casos de OH que no son de origen genético y en los cuales el músculo es el tejido principalmente involucrado.²

La OH puede clasificarse en tres grandes categorías según su origen: las que se deben a alteraciones genéticas, las que aparecen después de un evento traumático y las de tipo neurogénico que se generan en aquellos pacientes con una lesión neurológica.^{3,4}

En las formas genéticas, como su nombre lo indica, existe una alteración genética en la que se forma tejido óseo extraesquelético debido a la activación anormal de la osteogénesis, pero se desarrolla a través de procesos similares a los eventos que ocurren durante la formación normal del hueso, por lo que el tejido óseo resultante tiene las mismas características que las del tejido óseo esquelético; su manifestación clínica inicia generalmente en población pediátrica y son la forma menos común; existen dos presentaciones genéticas, la fibrodysplasia osificante progresiva (FOP) y la heteroplasia ósea progresiva (HOP).^{5,6}

La OH traumática es la más común, es aquella que resulta de una reparación tisular aberrante posterior a un evento traumático, como una fractura, cirugía, traumatismo muscular, luxaciones, quemaduras, etcétera. Su mayor incidencia es en los casos de fracturas y quemaduras. En los casos secundarios a fractura, los siguientes factores se asocian a su presentación: el retraso de la cirugía, la inmovilización de la extremidad posterior a la cirugía, así como un mayor tiempo de inmovilización. Los casos secundarios a cirugías ortopédicas, tienen mayor prevalencia en las artroplastias totales de cadera, para la cual Brooker ha descrito una clasificación radiográfica.⁷⁻⁹

Por último, la OH neurogénica suele presentarse en aquellos pacientes con antecedente de lesión en el sistema nervioso central, como eventos vasculares, traumas cráneo encefálicos, tumores cerebrales o lesiones de la médula espinal, los sitios más comunes para la HO neurogénica son las caderas, los codos, los hombros y las rodillas.^{10,11}

La MO neurogénica fue descrita por primera vez en 1928 por Déjerine y Celier, en pacientes que habían sufrido una lesión de la médula espinal durante la Primera Guerra Mundial.¹¹ La OH neurogénica generalmente ocurre después de lesiones del sistema nervioso central, como lesiones de la médula espinal y lesiones cerebrales, se ha informado que la prevalencia oscila entre 10 y 53%. El mecanismo en que el sistema nervioso regula la formación de OH no ha

sido aclarado del todo, generalmente suele localizarse en tejido blando periarticular.^{11,12}

La manifestación clínica puede variar desde una presentación asintomática hasta un cuadro con deformidad clínica, dolor e importante limitación funcional; un diagnóstico precoz es difícil ya que los signos (como inflamación local, edema periarticular, rigidez e induración de las articulaciones) pueden ser inespecíficos y simular una infección o una enfermedad vascular.^{12,13}

Dentro de los estudios auxiliares del diagnóstico están las radiografías simples, que nos ofrecen un acercamiento diagnóstico inicial, la tomografía computarizada que ha demostrado ser una herramienta preoperatoria que ayuda a disminuir el riesgo de complicaciones quirúrgicas y la resonancia magnética en aquellos pacientes que se encuentran en una etapa clínica inicial; se ha descrito también la determinación de prostaglandina E2 en depuración de orina de 24 horas, dicha medición se considera un marcador confiable para la detección temprana y para valorar la eficacia del tratamiento. Finalmente, el análisis anatomopatológico será el que determine la naturaleza benigna del crecimiento óseo.^{12,14,15}

El tratamiento de la OH suele consistir en manejo conservador con indometacina y fisioterapia para conservar los rangos de movilidad si nos encontramos ante una etapa inicial; sin embargo, en las etapas avanzadas en las que el tejido óseo ha madurado por completo, está indicada la resección quirúrgica siempre que esto represente una mejora en la función, demostrada por la movilidad, los traslados, la higiene y las actividades cotidianas.^{14,15}

Presentación del caso

Se trata de un hombre de 23 años quien fue referido de otro hospital por motivo de una tumoración ósea en cadera derecha en estudio. Acudió a la consulta externa de nuestro hospital; el motivo de consulta fue la incapacidad para la movilización pasiva de la cadera derecha. Entre sus antecedentes se encuentra una fractura de C6 con lesión medular secundaria a un accidente vial dos años antes de la consulta; el paciente requirió manejo quirúrgico por el Servicio de Neurocirugía de nuestra unidad; actualmente cursa con una lesión medular completa establecida con último nivel neurológico en C7. El paciente es dependiente de sus cuidadores para las actividades básicas de la vida diaria. A la exploración física encontramos paciente postrado en decúbito supino, con función

sensitiva y motora abolidas de C8 hacia distal; a nivel de cadera derecha se encontró una tumoración palpable e indurada de aproximadamente 10 cm, la cual no era móvil ni fluctuante, sin datos clínicos de inflamación local. La cadera se encontraba anquilosada con una flexión de 10°, con llenado capilar inmediato.

El paciente acudió a la consulta con estudios de rayos X y tomografía simple de pelvis (Figura 1). En la radiografía anteroposterior de pelvis se observa una lesión blástica a nivel de la cadera derecha de bordes regulares y bien definidos que involucra fémur proximal y fosa iliaca derecha en cadera contralateral datos de osteoartrosis coxofemoral. La tomografía muestra la misma lesión; sin embargo, en un corte sagital, se puede observar que el tejido óseo heterotópico se encuentra confinado al trayecto del musculo iliaco en forma de puente óseo entre la fosa iliaca derecha y el trocánter menor del fémur.

De igual forma, el paciente presentó un reporte de biopsia realizada en el hospital de donde fue referido; el análisis histopatológico dio como resultado hueso trabecular, sin evidencia de neoplasia.

Técnica quirúrgica: preoperatoriamente se realizó análisis de sangre completo, se descartaron ane-

mia y trastornos hemorrágicos. Se realizó valoración preanestésica donde se determinó que el paciente se encontraba en adecuadas condiciones para la cirugía. El procedimiento fue realizado por un cirujano ortopedista adscrito a nuestro Servicio de Ortopedia y tres residentes de la especialidad en ortopedia. Bajo profilaxis antibiótica (ceftriaxona intravenosa: 1 g preoperatorio y 1 g cada 12 horas por tres dosis postoperatorias) y anestesia general balanceada, el paciente se posicionó en decúbito supino. Se realizó incisión cutánea anterior de 10 cm aproximadamente por un abordaje iliofemoral (Smith-Petersen); se identificó y se protegió el nervio cutáneo femoral lateral, se diseco a través del intervalo entre el musculo tensor de la fascia lata y el musculo sartorio; una vez que se accedió al siguiente plano, se identificó tumoración indurada con características macroscópicas de hueso cortical; con ayuda de un osteótomo recto, se realizó la exéresis del tejido óseo, y se regularizó los bordes con ayuda de una pinza gubia, se logró una separación de aproximadamente 10 cm entre los bordes del puente óseo; se irrigó herida con solución salina a 0.9% y se colocó un sistema de drenaje por vacío de tipo fuelle; se afrontó herida con sutura de nylon 2-0.

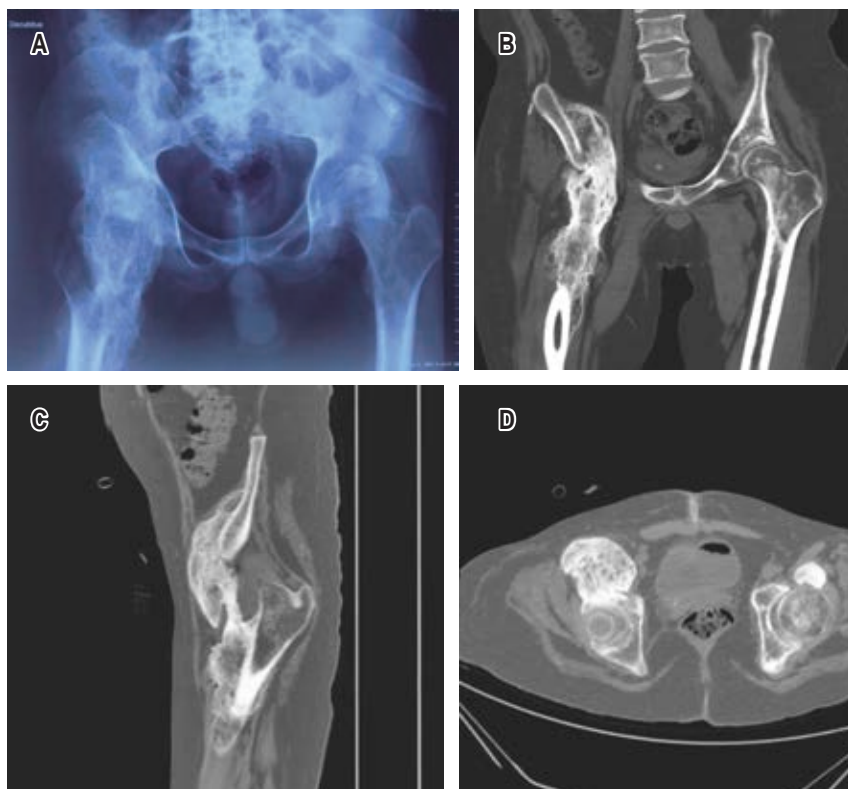


Figura 1:

Estudios de imagen previos a cirugía.

A) Radiografía anteroposterior de pelvis. **B)** Tomografía computarizada simple de pelvis en un corte coronal.

C) Tomografía computarizada simple de pelvis en un corte sagital.

D) Tomografía computarizada simple de pelvis en un corte axial.



Figura 2: Radiografía anteroposterior de pelvis posterior a la cirugía.

La cirugía tuvo una duración de una hora con 50 minutos; el sangrado se cuantificó en 300 ml y no requirió de transfusión de hemoderivados durante ni posterior al evento quirúrgico.

Se tomó una muestra de tejido óseo, la cual se envió al Servicio de Anatomía Patológica, cuyo análisis histopatológico reportó únicamente tejido óseo cortical y trabecular, sin evidencia de neoplasia.

Tras la cirugía, se evaluaron los movimientos, encontrando una movilidad pasiva con extensión de 0° y flexión de cadera de 90°, aducción 10° y abducción de 45°. El sistema de drenaje se retiró 48 horas postquirúrgicas. Como manejo profiláctico se inició indometacina 100 mg cada 24 horas por 14 días iniciando a las 48 horas postquirúrgicas.

El paciente fue revisado transcurridas dos y seis semanas, tres y seis meses. La herida cicatrizó sin ninguna complicación, y los rangos de movilidad se han mantenido durante el seguimiento a seis meses. Se realizó una radiografía anteroposterior. Los controles radiográficos se consideraron adecuados y sin observarse complicaciones (fracturas, datos radiográficos de nueva formación ósea) (*Figura 2*).

Discusión

Presentamos el informe de un paciente joven con miositis osificante del músculo psoas-iliaco, específicamente la porción que corresponde al músculo iliaco, que fue exitosamente tratada mediante una osteotomía y exéresis de tejido óseo heterotópico. Generalmente el manejo de la OH suele ser no quirúrgico, mediante movilización y

manejo farmacológico en sus etapas iniciales. Sin embargo, cuando la OH involucra una articulación, puede llegar a restringir o imposibilitar la movilidad de dicha articulación; en el caso específico del paciente con lesión medular, esta restricción puede dificultar en gran medida la tarea de los cuidadores para la movilización del paciente y también dificultar las actividades de cuidado e higiene, por lo que puede estar indicado el manejo quirúrgico.^{14,15}

La mayoría de los informes de la literatura se limitan a reportes o series de casos. En el 2018, Behery y colaboradores realizaron el reporte de un caso de OH de etiología traumática a quien se le ofreció manejo quirúrgico consistente en exéresis del tejido óseo con un buen resultado posterior a la cirugía. Hammad y asociados publicaron una serie de tres casos clínicos de OH en cadera que fueron tratados con éxito de forma quirúrgica, dos de los casos fueron manejados con exéresis y uno con artroplastia total de cadera; En el caso de nuestro paciente, la osificación fue en tejido periarticular, lo que ocasionó una limitación importante para los rangos de movilidad, similar a los casos descritos previamente, por lo que se decidió tratamiento quirúrgico con exéresis.^{3,14}

Por otra parte, puede existir compromiso de estructuras adyacentes como lo documentaron Choi y colegas, quienes reportan un caso de MO del músculo tríceps que condicionó una neuropatía del nervio ulnar, por lo que también requirió manejo quirúrgico; sin embargo, en el caso de nuestro paciente no se encontraban involucradas estructuras vasculares o nerviosas.¹⁶

Se debe considerar que el manejo quirúrgico no se encuentra exento de complicaciones, como en el caso reportado por Hammad y colaboradores en el cual se produjo una fractura transtrocantérica durante la exéresis, por lo que se realizó una osteosíntesis con sistema DHS, con una adecuada evolución posterior a la cirugía; por lo tanto, se debe realizar una apropiada planificación preoperatoria y se debe de contar con los elementos necesarios para resolver las complicaciones que pudieran presentarse. En el caso de nuestro paciente, la cirugía fue realizada sin ninguna complicación o eventualidad.¹⁴

A pesar de lograr un manejo quirúrgico exitoso con la exéresis completa o casi completa del tejido óseo heterotópico, la cirugía misma se considera un traumatismo en la zona, por lo que uno de los riesgos es la recurrencia de la OH; se han descrito manejos profilácticos ya sea de tipo farmacológico

con antiinflamatorios no esteroideos (AINE) o con radioterapia. En el metaanálisis realizado por Shapira y su grupo se compararon ambas opciones como manejo profiláctico para OH en pacientes sometidos a artroplastia total de cadera y que presentaban un riesgo alto de desarrollar OH; ellos concluyeron que en los pacientes sometidos a artroplastia total de cadera y que presentan un elevado riesgo de OH los AINE tienen una mejor eficacia comparado con la radioterapia como profilaxis, no habiendo diferencia entre aquellos AINE selectivos y no selectivos de la ciclooxigenasa 2. Debido a que la evidencia respalda el uso de profilaxis para evitar la recurrencia de la OH, en nuestro paciente se implementó un esquema de profilaxis farmacológica con indometacina vía oral, y se realizó un seguimiento periódico para evaluar la posible recurrencia.¹⁷⁻²⁰

Esta patología, por ser poco común, puede representar un reto en cuanto a su diagnóstico y tratamiento, por lo tanto, ante la presencia de factores predisponentes se deberá sospechar para lograr un diagnóstico oportuno. Es importante apoyarse de los estudios de imagen como la tomografía, para una adecuada planificación preoperatoria y así reducir el riesgo de complicaciones; por último, se deben considerar las modalidades disponibles de profilaxis para reducir el riesgo de recurrencia.^{2,11,20}

Conclusiones

El abordaje diagnóstico y terapéutico de este tipo de lesiones es complejo. Siempre es importante considerar como diagnóstico diferencial algún proceso neoplásico, el cual deberá ser descartado antes de realizar algún tipo de tratamiento quirúrgico. El manejo quirúrgico es una opción aceptable y segura en los pacientes que se verán beneficiados de la cirugía; en aquellos con limitación de los rangos de movilidad, dolor, afección a estructuras vasculares o nerviosas adyacentes, realizar siempre una adecuada planificación preoperatoria para disminuir el riesgo de complicaciones, contemplar el uso de profilaxis posterior a la cirugía si consideramos que el paciente presenta algún riesgo de recidiva.

Agradecimientos

Al Servicio de Cirugía Ortopédica y Traumatología, Hospital General Dr. Agustín O'Horán y a la Facultad de Medicina, Universidad Autónoma de Yucatán.

Referencias

1. Xu Y, Huang M, He W, He C, Chen K, Hou J, et al. Heterotopic ossification: Clinical features, basic researches, and mechanical stimulations. *Front Cell Dev Biol.* 2022; 10: 770931. doi: 10.3389/fcell.2022.770931.
2. Meyers C, Lisiecki J, Miller S, Levin A, Fayad L, Ding C, et al. Heterotopic ossification: A comprehensive review. *JBMR Plus.* 2019; 3 (4): e10172. doi: 10.1002/jbm4.10172.
3. Behery OA, Dai AZ, McLaurin TM. Posttraumatic heterotopic ossification of the hip. *J Orthop Trauma.* 2018; 32 (4): S18-19.
4. Saad A, Azzopardi C, Patel A, Davies AM, Botchu R. Myositis ossificans revisited - The largest reported case series. *J Clin Orthop Trauma.* 2021; 17: 123-127.
5. Sankar R, Gowrishankar K, Viswanathan S. Genetic disorders with heterotopic ossifications. *Indian J Orthop.* 2015; 49 (3): 361-364. doi: 10.4103/0019-5413.156228.
6. Cappato S, Gamberale R, Bocciardi R, Brunelli S. Genetic and acquired heterotopic ossification: A translational tale of mice and men. *Biomedicines.* 2020; 8 (12): 611. doi: 10.3390/biomedicines8120611.
7. Dey D, Wheatley BM, Cholok D, Agarwal S, Yu PB, Levi B, et al. The traumatic bone: trauma-induced heterotopic ossification. *Transl Res.* 2017; 186: 95-111. doi: 10.1016/j.trsl.2017.06.004.
8. Gugala Z, Olmsted-Davis EA, Xiong Y, Davis EL, Davis AR. Trauma-induced heterotopic ossification regulates the blood-nerve barrier. *Front Neurol.* 2018; 9: 408. doi: 10.3389/fneur.2018.00408.
9. Domínguez Gasca LG, Magaña Reyes J, Domínguez Carrillo LG. Calcificación heterotópica de músculos pelvitrocantéreos secundaria a prótesis de cadera. *Acta Med Grupo Ángeles.* 2018; 16 (2): 164-165.
10. Tlaite O, Kaoutar I, Soufiane R, Nabil MB, Ittimad N. Neurogenic myositis ossificans of the hip in a patient with axonal polyneuropathy. *Galician Med J.* 2022; 29 (4): e202248. doi: doi.org/10.21802/gmj.2022.4.8. Available from: <https://ifnmjournal.com/gmj/article/view/E202248>
11. Law-ye B, Hangard C, Felter A, Safa D, Denormandie P, Genet F, et al. Pre-surgical CT-assessment of neurogenic myositis ossificans of the hip and risk factors of recurrence: a series of 101 consecutive patients. *BMC Musculoskelet Disord.* 2016; 17 (1): 433. doi: 10.1186/s12891-016-1294-2.
12. Kim SW, Choi JH. Myositis ossificans in psoas muscle after lumbar spine fracture. *Spine (Phila Pa 1976).* 2009; 34 (10): E367-370.
13. Yoon B-H, Park IK, Sung Y-B. Ankylosing neurogenic myositis ossificans of the hip: A case series and review of literature. *Hip Pelvis.* 2018; 30 (2): 86. doi: 10.5371/hp.2018.30.2.86.
14. Hammad Y, Akiely R, Hajjaj N, Tahboub F, Al-Ajlouni J. The surgical management of the rare neurogenic myositis ossificans of the hip: A report of 3 cases. *J Orthop Case Rep.* 2021; 11 (3): 45. doi: 10.13107/jocr.2021.v11.i03.2082.
15. Vanden Bossche L, Vanderstraeten G. Heterotopic ossification: A review. *J Rehabil Med.* 2005; 37 (3): 129-136. doi: 10.1080/16501970510027628.
16. Choi KH, Park S-G, Baek JH, Lee W, Chang MC. Myositis ossificans causing ulnar neuropathy: a case report. *J Int Med Res.* 2021; 49 (3): 030006052110026.
17. Schneider J, Maffulli N, Eschweiler J, Bell A, Hildebrand F, Migliorini F. Efficacy of ibuprofen and indomethacin as prophylaxis of heterotopic ossification: a comparative study. *Sci Rep.* 2023; 13 (1): 1-8.

18. Georhakopoulos I, Kouloulias V, Kougiountzopoulou A, Platoni K, Antypas C, Liakouli Z, et al. Radiation therapy for the prevention of heterotopic ossification: Efficacy and toxicity of single fraction radiotherapy. *Orthop Rev (Pavia)*. 2020; 12 (2): 8577. doi: 10.4081/or.2020.8577.
19. Ruo Redda MG, De Colle C, Bianco L, Ruggieri A, Nassisi D, Rossi A, et al. Heterotopic ossifications: role of radiotherapy as prophylactic treatment. *Radiol Med*. 2018; 123 (6): 463-468.
20. Shapira J, Yelton MJ, Chen JW, Rosinsky PJ, Maldonado DR, Meghpara M, et al. Efficacy of NSAIDs versus radiotherapy for heterotopic ossification prophylaxis following total hip arthroplasty in high-risk patients: a systematic review and meta-analysis. *Hip Int*. 2022; 32 (5): 576-590.

Conflicto de intereses

La presente investigación no ha recibido ayudas específicas provenientes de agencias del sector público, sector comercial o entidades sin ánimo de lucro. Los autores no tienen ningún conflicto de intereses que declarar.