

# Revista Española de Cirugía Ortopédica y Traumatología

Cirugía Ortopédica y Traumatología

SECOT

2 2016

CIRCURA CONTROLLA CONTROL

www.elsevier.es/rot

## **ORIGINAL**

# Pronóstico y tratamiento de las acrometástasis: estudio observacional de 35 casos tratados en un único centro



V. Machado\* y M. San-Julian

Departamento de Cirugía Ortopédica y Traumatología, Clínica Universidad de Navarra, Pamplona, España

Recibido el 14 de enero de 2018; aceptado el 3 de mayo de 2018 Disponible en Internet el 7 de julio de 2018

#### PALABRAS CLAVE

Acrometástasis; Metástasis óseas distales; Tratamiento quirúrgico; Supervivencia

#### Resumen

Objetivo: Existe cierta contradicción en la literatura acerca del tumor primario que se asocia con más frecuencia a las acrometástasis, así como acerca de su pronóstico y tratamiento. El objetivo de nuestro trabajo es determinar la localización más frecuente de las acrometástasis, el tumor primario más frecuente según su localización y evaluar las opciones quirúrgicas en función de la supervivencia estimada.

Métodos: Hemos realizado un estudio retrospectivo de los pacientes diagnosticados de acrometástasis en nuestra institución. Se recogieron variables epidemiológicas, así como información acerca de tumor primario y número, localización, síntomas y tratamiento de las acrometástasis. Resultados: Se revisaron 35 acrometástasis en 21 pacientes: 4 en miembros superiores y 31 en miembros inferiores, siendo la tibia el hueso más frecuentemente afectado (n = 13). El tumor primario que con más frecuencia produce acrometástasis en miembros inferiores es el hipernefroma (19%); en los miembros superiores, sin embargo, el pulmón fue más frecuente (25%). Once pacientes fallecieron (52%), de los cuales 10 tenían metástasis en múltiples localizaciones. La media de supervivencia fue de 42 meses desde el diagnóstico de las acrometástasis.

Conclusión: Las acrometástasis se observan con más frecuencia en las extremidades inferiores, y el tumor primario más frecuente es el hipernefroma, seguido del de pulmón. El tratamiento de las acrometástasis depende del pronóstico del paciente, por lo que es esencial un abordaje multidisciplinar. La media de supervivencia en nuestra serie no implica un peor pronóstico de las acrometástasis, especialmente si son únicas, por lo que es factible considerar opciones quirúrgicas como la resección amplia y reconstrucción.

© 2018 SECOT. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Correo electrónico: vmachado@unav.es (V. Machado).

<sup>\*</sup> Autor para correspondencia.

V. Machado, M. San-Julian

#### **KEYWORDS**

Acrometastases; Distal bone metastases; Surgical treatment; Survival

# Prognosis and treatment of acrometastases: Observational study of 35 cases treated in a single institution

#### **Abstract**

*Objective:* There is a degree of contradiction in the literature about the primary tumour that is most frequently associated with acrometastases, as well as their prognosis and treatment. The aim of this study is to determine the most frequent location of the acrometastases, the most frequent primary tumour according to its location, and to evaluate the surgical options according to the estimated survival.

*Methods*: A retrospective study on patients diagnosed with acrometastases. The primary tumour, as well as the number, location, symptoms and treatment of the acrometastases and survival rate were collected.

Results: 35 acrometastases in 21 patients were reviewed: 4 in the upper limbs and 31 in the lower limbs; the tibia was the most frequently affected bone (N=13). The primary tumour that most frequently produced acrometastases in the lower limb was hypernephroma (19%). In the upper limb lung tumour was more frequent (25%). Eleven patients died (52%); 10 of them had concomitant multiple metastases. The mean survival was 42 months from the diagnosis of acrometastases.

Conclusion: Acrometastases are more frequently seen in the lower extremities and the most frequent tumour was hypernephroma followed by lung. The treatment of acrometastases depends on the prognosis of the primary tumour, so a multidisciplinary approach is essential. The mean survival in our series did not imply a poorer prognosis for acrometastases, so it is feasible to consider surgical options such as wide resection and reconstruction. A unique acrometastases is a good prognosis signal.

© 2018 SECOT. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

# Introducción

Las metástasis óseas son el proceso oncológico más frecuente de los huesos. La afectación del esqueleto axial es más frecuente que la del esqueleto apendicular. Dentro de la afectación de huesos largos las metástasis óseas distales al codo y la rodilla, o acrometástasis, son las menos frecuentes de todas; representan apenas entre un 0,1% y 7% de todas las metástasis óseas¹-5. En general, cuanto más distal es un hueso, menor cantidad de médula ósea roja contiene, por ello, es menos frecuente su afectación6.

El término «acrometástasis» se emplea indistintamente en la literatura para referirse a «metástasis óseas de la región distal de las extremidades»<sup>7</sup>, o en algunos casos se emplea solamente para aquellas metástasis que afectan a la muñeca o huesos de manos y pies<sup>8–11</sup>. Sin embargo, la mayoría de los artículos definen las acrometástasis expresamente como metástasis óseas distales al codo y la rodilla<sup>2,4,5,12–14</sup>, como es nuestro caso.

Se ha descrito en la literatura que el tumor primario que con más frecuencia produce acrometástasis es el de pulmón<sup>1,2,4,9,12-15</sup>. Sin embargo, en algunas series de acrometástasis de miembros inferiores el primario más frecuente es el de riñón<sup>6,7</sup>. El hueso con más frecuencia afectado por las acrometástasis es la tibia<sup>1,5</sup>.

Se considera que la afectación de huesos distales supone un factor de mal pronóstico para los pacientes, ya que implica una gran diseminación de la enfermedad. La supervivencia media descrita es de 3-9 meses desde el diagnóstico de la metástasis distal<sup>3,6,7,9,13,14</sup>, con peores resultados para los pacientes sin tumor primario conocido<sup>7</sup>.

El objetivo de este estudio es determinar cuál es la localización más frecuente de las acrometástasis, cuál es el tumor primario que se asocia con más frecuencia a metástasis distales al codo y la rodilla y valorar las diferentes opciones quirúrgicas de las acrometástasis según la supervivencia estimada de los pacientes.

# Material y métodos

Realizamos un estudio retrospectivo de pacientes afectos de metástasis óseas distales al codo y la rodilla, diagnosticados o tratados en el departamento de cirugía ortopédica y traumatología de nuestro centro desde 1988 hasta 2016, con un tiempo medio de seguimiento de 28 meses (3-121 meses). El tratamiento de cada paciente se individualizó tras la oportuna valoración multidisciplinar.

Se recogieron variables epidemiológicas e información acerca del tumor primario, así como la localización de las metástasis distales, número de metástasis, síntomas previos al diagnóstico, intervalo entre el diagnóstico del tumor primario y el diagnóstico de la metástasis distal, tratamiento de la acrometástasis y tiempo de supervivencia desde el diagnóstico de la metástasis distal.

El análisis estadístico se llevó a cabo mediante el test exacto de Fisher para comparar proporciones y el test de Welch para comparar medias, con el programa STATA 12.0,

**Tabla 1** Pacientes afectos de metástasis únicas o múltiples, localización de las acrometástasis según el caso y tumores primarios responsables de las acrometástasis

Caso	Sexo	Metástasis única o múltiples <sup>a</sup>	Localización acrometástasis	Tumor primario
1	M	Múltiples	Tibia (proximal)	Mama
2	Н	Única	Astrágalo	Pulmón
3	Н	Múltiples	Calcáneo	Melanoma
4	Н	Única	Calcáneo	Hipernefroma
5	Н	Única	Primer metacarpiano	Pulmón
6	Н	Múltiples	Tibia (tercio medio), astrágalo, calcáneo, 2 cuñas, escafoides, cuboides, 4 metatarsianos	Próstata
7	Н	Múltiples	Tibia (distal)	Linfoma
8	M	Múltiples	Tibias (tercio medio) (2)	Hipernefroma
9	Н	Única	Primera cuña	Pulmón
10	Н	Múltiples	Tibia (distal)	Vejiga
11	M	Única	Peroné	Colon
12	M	Múltiples	Cúbito	Tiroides
13	M	Múltiples	Tibia (proximal)	Mieloma
14	Н	Múltiples	Tibia (tercio medio)	Mieloma
15	Н	Múltiples	Calcáneo, tibia (tercio medio)	Adamantinoma
16	M	Única	Tibia (tercio medio)	No filiado
17	M	Múltiples	Calcáneo	Endometrio
18	Н	Múltiples	Tibia (tercio medio)	Próstata
19	Н	Múltiples	Tibias (distales) (2) y radio	Neuroblastoma
20	Н	Múltiples	Cuarto metatarsiano	Hipernefroma
21	Н	Única	Radio	Linfoma

a Metástasis múltiples óseas o viscerales.

considerando un valor p < 0.05 como estadísticamente significativo.

## Resultados

Nuestra serie consta de 21 pacientes afectos de metástasis óseas distales al codo y a la rodilla. Siete pacientes presentaban metástasis únicas y 14 tenían metástasis múltiples, ya fueran óseas o viscerales. El número total de acrometástasis fue 35: 4 en los miembros superiores (2 en el radio, una en el cúbito y una en el primer metacarpiano) y 31 en los miembros inferiores (13 en la tibia, 5 en el calcáneo, 5 en los metatarsianos, 3 en las cuñas, 2 en el astrágalo, uno en el peroné, uno en el escafoides y uno en el cuboides).

La edad media de los pacientes es de 48 años (rango 8-74 años), aunque la mediana es 55 años. La distribución por sexos muestra un claro predominio masculino: 14 hombres frente a 7 mujeres.

El intervalo entre el diagnóstico del tumor primario y el diagnóstico de la acrometástasis fue de 41 meses (rango 0-150). Siete pacientes no tenían un tumor primario conocido antes del diagnóstico de la acrometástasis; 6 de ellos tenían una metástasis única (p = 0,001), es decir, se encontró una relación estadísticamente significativa entre el inicio de la enfermedad con la metástasis ósea distal y que esta sea una metástasis solitaria.

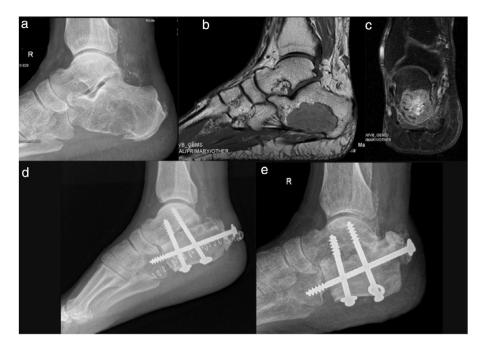
El principal síntoma referido por los pacientes fue dolor (n=13, 62%); 3 de estos pacientes presentaron una fractura patológica (14%). Otros acudieron al notar la presencia de una masa palpable (n=3, 14%). En los 5 restantes (24%) el

diagnóstico se llevó a cabo mediante estudios de extensión ya que, al momento del diagnóstico, los pacientes se encontraban asintomáticos.

Los tumores primarios más frecuentes fueron el de riñón (n=3 pacientes; 4 de las 35 acrometástasis) y el de pulmón (n=3 pacientes; 3 de las 35 acrometástasis). El carcinoma de próstata, aunque se observó solo en 2 pacientes, fue responsable de 12 de las 35 acrometástasis. Los demás tumores primarios se muestran en la tabla 1. El primario que con más frecuencia produjo metástasis distales en el miembro inferior fue el hipernefroma (19%), seguido del adenocarcinoma de pulmón (13%). En el miembro superior, sin embargo, el pulmón fue más frecuente (25%).

El tratamiento que recibieron los pacientes se individualizó en cada caso según la localización de la metástasis y, sobre todo, del pronóstico del tumor primario, siendo lo más frecuente (n = 10) la resección en bloque más reconstrucción con injerto estructural autólogo o heterólogo (figs. 1 y 2). Otras opciones fueron criocirugía y relleno con cemento (n = 2) (fig. 3), enclavado endomedular (n = 1), amputación (n = 1) y abstención (n = 7) desde el punto de vista quirúrgico.

De los 21 pacientes 11 han fallecido (52,4%), 7 se encuentran vivos con enfermedad progresiva y 3 con enfermedad en remisión. De los 11 pacientes fallecidos 10 tenían metástasis múltiples. La supervivencia media de los pacientes fue de 42 meses (1-121 meses), sin diferencias estadísticamente significativas entre pacientes con metástasis únicas y múltiples (p=0,9), aunque esto podría deberse al pequeño tamaño muestral y a la variedad de los pacientes incluidos.



**Figura 1** Radiografía simple (a) y secuencias T1 (b) y T2 (c) de RM, de una metástasis única de hipernefroma en el calcáneo, en un varón de 58 años, tratado mediante resección en bloque y reconstrucción con aloinjerto estructural; (d) 5 años después de la cirugía (e) el paciente es capaz de caminar varios kilómetros al día sin necesidad de muletas.

# Discusión

El diagnóstico de metástasis distales al codo y la rodilla supone un reto importante ya que, debido a su baja frecuencia, muchas veces no se piensa en ellas, en especial cuando no hay un tumor primario conocido<sup>1,8,10,16</sup>. Las acrometástasis pueden ser la primera manifestación de un proceso oncológico hasta en un 10% de los casos<sup>12,14</sup>. En nuestra serie este porcentaje es más alto (33%) debido, probablemente, a que hemos incluido únicamente los casos que han sido diagnosticados o tratados en el departamento de cirugía ortopédica y traumatología, sin considerar aquellos casos que no fueron derivados a nosotros por no estar aconsejado el tratamiento quirúrgico.

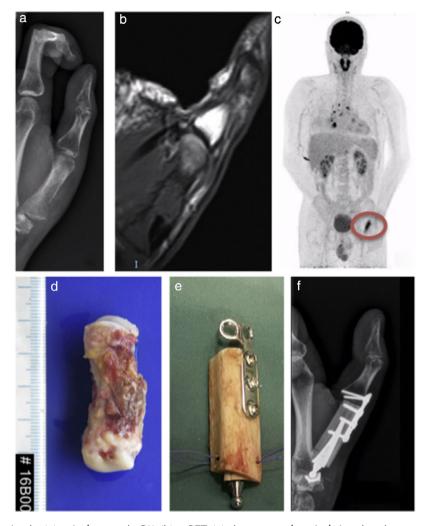
En nuestra serie, al igual que en otras publicadas, como las de Baran<sup>6</sup>, Lamarca<sup>7</sup>, Mavrogenis<sup>12</sup> y Libson<sup>17</sup>, la localización distal a la rodilla se asocia con más frecuencia a tumores infradiafragmáticos; en concreto, en nuestra serie, el hipernefroma fue responsable del 19% de las acrometástasis de los miembros inferiores. Sin embrago, las metástasis distales al codo se asocian con más frecuencia a tumores supradiafragmáticos, como el de pulmón o tiroides. En algunas publicaciones en las que no se especifica si la acrometástasis afecta al miembro superior o inferior, se habla de que el tumor primario que con más frecuencia se asocia a las acrometástasis es el de pulmón (tabla 2).

El tratamiento de las metástasis distales depende del pronóstico del tumor primario, por la tanto, es fundamental un abordaje multidisciplinar. El tratamiento quirúrgico tiene cabida más allá de la osteosíntesis profiláctica o la amputación. Aunque en la literatura se habla de un pobre pronóstico, en el caso de nuestros pacientes se ha optado por la resección en bloque más reconstrucción

con injerto en la mayoría de los pacientes gracias al abordaje multidisciplinar realizado. Es importante evaluar individualmente cada caso, según el número y localización de las metástasis, la respuesta del tumor primario a los tratamientos sistémicos, el estado general del paciente y la funcionalidad que se puede obtener con la cirugía. En concreto, en el caso de metástasis únicas de hipernefroma la resección amplia en bloque, seguida de reconstrucción, aumenta la supervivencia<sup>20</sup>. Asimismo, en el caso de metástasis de cáncer de mama conviene plantear tratamientos que ayuden no solo a aliviar el dolor, sino a disminuir la carga tumoral a la vez que preserven la función de la extremidad, ya que hoy en día son pacientes con una larga supervivencia.

Aunque la amputación es una de las técnicas quirúrgicas más recomendadas en algunas series de metástasis óseas en manos y pies<sup>3,11,21</sup>, no es la única alternativa quirúrgica. Si bien es razonable en el caso de afectación metastásica de falanges, puede producir una gran alteración funcional en el caso de afectación más proximal. Por ello, y teniendo en cuenta la supervivencia observada en nuestra serie, no consideramos la amputación como la técnica de elección; se podría justificar el uso de tratamientos quirúrgicos más conservadores, siempre que no comprometan el pronóstico del paciente, aunque se necesitan estudios con un mayor número de casos para confirmarlo.

Las metástasis óseas distales al codo y la rodilla no necesariamente implican mal pronóstico, especialmente cuando son únicas. En nuestra serie, aunque 11 (52%) de los pacientes han fallecido, su supervivencia media fue de 42 meses desde el diagnóstico de la metástasis distal, siendo esta 6 veces superior a la descrita en la literatura. Esto se explica



**Figura 2** Radiografía simple (a) e imágenes de RM (b) y PET (c) de una metástasis única de adenocarcinoma de pulmón en el primer metacarpiano, en un varón de 35 años, sin primario conocido previo al diagnóstico de metástasis, tratado mediante resección en bloque (d) y reconstrucción con autoinjerto de peroné (e y f). Dos meses después la funcionalidad de la mano es prácticamente normal.



**Figura 3** Radiografía simple anteroposterior y lateral (a y b) y RM (c) de una metástasis ósea en la tibia, en una mujer de 45 años afecta de cáncer de mama con múltiples metástasis óseas, tratada con legrado, criocirugía, relleno con cemento y estabilización con placa (d); (e) 10 años después de la cirugía la paciente es capaz de realizar todas sus actividades cotidianas sin ayuda externa.

por el alto porcentaje de metástasis únicas observadas en nuestra serie, que indica una menor diseminación de la enfermedad.

Dada la poca frecuencia de estas metástasis en comparación con las metástasis óseas axiales, la serie presentada es pequeña, por lo que la evidencia aportada es limitada. Por otro lado, nuestra serie incluye 2 casos con metástasis ósea en la tibia proximal, que no pueden ser considerados estrictamente como acrometástasis. Otra limitación a tener en cuenta en el estudio es que se han incluido únicamente

V. Machado, M. San-Julian

Referencia	N.° (metástasis) <sup>a</sup>	Primario	
Leeson et al. <sup>1</sup> E. superior E. Inferior	57 pacientes (11) (52)	Pulmón (29,8%), mama (17,5%), riñón (14%)	
Afshar et al. <sup>9</sup> E. superior	221 pacientes (221)	Pulmón (34%), gastrointestinal (25%), riñón (10%)	
Stomeo et al. <sup>14</sup> E. superior E. inferior	49 21	Pulmón 34,7% Pulmón 28,6%	
<i>Wu y Guise</i> <sup>15</sup> E. superior	6 pacientes (9)	Mama (33%), pulmón (16,6%)	
Libson et al. <sup>17</sup> E. superior E. inferior	196 94	Pulmón (47%) Riñón (17%), colorrectal (17%)	
Morris et al. <sup>18</sup> E. superior	10	Pulmón 40%, piel (30%), riñón (20%)	
Muñoz-Mahamud et al. <sup>19</sup> E. superior	5	Pulmón (40%)	

casos diagnosticados o tratados en el departamento de cirugía ortopédica y traumatología, sin considerar aquellos que, por criterio del oncólogo, no han sido derivados a nuestro departamento, por lo que puede haber un sesgo en la estimación de la supervivencia.

# Nivel de evidencia

Nivel de evidencia IV.

## Conflictos de intereses

Los autores declaran que no existe conflicto de intereses.

#### Agradecimientos

A la Dra. Blanca Vázquez.

# **Bibliografía**

- 1. Leeson MC, Makley JT, Carter JR. Metastatic skeletal disease distal to the elbow and knee. Clin Orthop. 1986;206:94–9.
- Culleton S, de Sa E, Christakis M, Ford M, Zbieranowski I, Sinclair E, et al. Rare bone metastases of the olecranon. J Palliative Med. 2008:11:1088-91
- 3. Lozić A, Silconi Z, Misljenović N. Metastases to rare locations as the initial manifestation of non-small cell lung cancer: Two case reports. Coll Antropol. 2010;34:609–12.
- 4. Walton ZJ, Holmes RE, Chapin RW, Lindsey KG, Leddy LR. Bronchogenic squamous cell carcinoma with soft-tissue metastasis to the hand: An unusual case presentation and review of the literature. Am J Orthop. 2014;43:324–7.

- Goyal S, Puri T, Gupta R, Suri V, Julka PK, Rath GK. Tibial involvement in breast cancer: Issues in diagnosis and management. Foot. 2010;20:35–8.
- Baran R, Tosti A. Metastatic carcinoma to the terminal phalanx of the big toe: Report of two cases and review of the literature. J Am Acad Dermatol. 1994;31: 259-63.
- Lamarca A, Hindi N, Belda-Iniesta C, de Castro J. Foot pain: Uncommon presentation of lung cancer. BMJ Case Rep. 2012:
- Abrahams TG. Occult malignancy presenting as metastatic disease to the hand and wrist. Skeletal Radiol. 1995;24: 135-7.
- Afshar A, Farhadnia P, Khalkhali H. Metastases to the hand and wrist: An analysis of 221 cases. J Hand Surg Am. 2014;39:923-32.
- Desmanet E, Amrani M, Fievez R. Les acrométastases: A propos de deux cas, Revue de la littérature. Ann Chir Main. 1991:10:154-7.
- 11. Kemnitz MJ, Erdmann BB, Julsrud ME, Jacobs PM, Ringstrom JB. Adenocarcinoma of the lung with metatarsal metastasis. J Foot Ankle Surg. 1996;35:210–2.
- 12. Mavrogenis AF, Mimidis G, Kokkalis ZT, Karampi ES, Karampela I, Papagelopoulos PJ, et al. Acrometastases. Eur J Orthop Surg Traumatol. 2014;24:279–83.
- 13. Sawada R, Shinoda Y, Niimi A, Nakagawa T, Ikegami M, Kobayashi H, et al. Multiple acrometastases in a patient with renal pelvic urothelial cancer. Case Rep Urol 2017;2017:727–31.
- Stomeo D, Tulli A, Ziranu A, Perisano C, de Santis V, Maccauro G. Acrometastasis: A literature review. Eur Rev Med Pharmacol Sci. 2015;19:2906–15.
- Wu KK, Guise ER. Metastatic tumors of the hand: A report of six cases. J Hand Surg Am. 1978;3:271–6.
- 16. Akjouj S, El Kettani N, Semlali S, Chaguar B, Chaouir S, Hanine A, et al. Acrométastase du pouce révélant un adénocarcinome pulmonaire: à propos d'un cas avec revue de la littérature. Chirurgie de La Main. 2006;25:106–8.

- 17. Libson E, Bloom RA, Husband JE, Stoker DJ. Metastatic tumours of bones of the hand and foot. A comparative review and report of 43 additional cases. Skeletal Radiol. 1987;16:387–92.
- **18.** Morris G, Evans S, Stevenson J, Kotecha A, Parry M, Jeys L, et al. Bone metastases of the hand. Ann R Coll Surg Engl. 2017;99:563-7.
- 19. Muñoz-Mahamud E, Combalia A, Carreño A, Arandes JM. Five cases of acrometastasis to the hand from a carcinoma and review of the literature. Hand Surg Rehabil. 2017;36:12–6.
- 20. Ratasvuori M, Wedin R, Hansen BH, Keller J, Trovik C, Zai-kova O, et al. Prognostic role of en-bloc resection and late onset of bone metastasis in patients with bone-seeking carcinomas of the kidney, breast, lung, and prostate: SSG study on 672 operated skeletal metastases. J Surg Oncol. 2014;110: 360-5.
- 21. Healey JH, Turnbull AD, Miedema B, Lane JM. Acrometastases. A study of twenty-nine patients with osseous involvement of the hands and feet. J Bone Joint Surg Am. 1986;68:743–6.