



1 **Reconstruction d'une phalange totale par greffe chondrale libre**
 2 **non vascularisée après échec de sclérothérapie d'un kyste anévrismal**

3 **Total replacement of a middle phalanx by free non-vascularized chondral**
 4 **graft, after failure of sclerotherapy for treatment**
 5 **of an aneurysmal bone cyst**

6 A. Salon ^{a,d,*}, J. Rémi ^a, F. Brunelle ^b, J.L. Drapé ^c, Ch. Glorion ^a

7 ^a Service d'orthopédie infantile, hôpital Necker-Enfants-Malades, 147, rue de Sèvres, 75015 Paris, France

8 ^b Service de radiologie infantile, hôpital Necker-Enfants-Malades, 147, rue de Sèvres, 75015 Paris, France

9 ^c Service de radiologie, hôpital Cochin, 27, rue du Faubourg Saint-Jacques, 75679 Paris cedex 14, France

10 ^d Clinique de la main, 36 bis, rue Nicolo, 75116 Paris, France

12 Ce cas a été présenté à la Sofcot le 10 novembre 2004 à la session du GEOP

14 **Résumé**

15 Nous présentons un traitement original de kyste anévrismal d'une phalange moyenne de médius chez un adolescent. Révélé par une
 16 fracture pathologique à l'âge de 11 ans, le diagnostic histologique de ce kyste a été confirmé par curetage biopsique. Deux tentatives de
 17 sclérothérapie, l'une à l'alcool pur, l'autre à l'Éthibloc® ont échoué et l'atteinte de la phalange était totale et évolutive. Il a été nécessaire de
 18 recourir à la résection en-bloc, posant le problème de la reconstruction totale, diaphysaire et biépiphysaire, d'une phalange moyenne chez un
 19 adolescent de 13 ans. Une greffe chondrale libre, façonnée sur mesure dans le cartilage de la crête iliaque de l'enfant, a été introduite de façon
 20 atraumatique. À six mois la mobilité des articulations interphalangiennes était proche de la normale et les radios successives montraient une
 21 métaplasie osseuse complète de la greffe chondrale au recul de 20 mois. Les interlignes sont remodelés et congruents, sur les radios et l'IRM.
 22 Les méthodes de reconstruction partielle, diaphysaire ou épiphysaire, libres ou vascularisées sont discutées. Les greffes libres de phalanges
 23 d'orteil sont la comparaison la mieux adaptée, puisqu'il s'agit de remplacer une phalange totale, mais nous n'avons pas retenu cette dernière
 24 solution en raison de l'inadéquation de taille sur une main normale. Dans ce cas particulier pédiatrique, la greffe chondrale libre a permis de
 25 rétablir la longueur et une fonction quasi normale, avec un remodelage diaphysaire et articulaire. Ce cas ouvre la discussion sur le rôle des
 26 hémicapsules saines, du périoste ou du périchondre, dans la survie des greffons non vascularisés.

27 © 2005 Publié par Elsevier SAS.

28 **Abstract**

29 We treated an eleven year-old boy for an aneurysmal bone cyst of the middle phalanx of the long finger. Diagnosis was established after
 30 total curettage. The tumor involved the whole phalanx and grew steadily after two attempts at sclerotherapy (with absolute alcohol and
 31 Ethibloc®). After two years, en-bloc resection had to be performed, and raised the problem of reconstructing a complete finger phalanx with
 32 its proximal and distal epiphyses. A free cartilaginous graft from the non-ossified iliac crest was shaped to the exact dimensions of the phalanx
 33 and set in its place, with minimal damage to the surrounding tissues during dissection and fixation. By six months an almost normal range of
 34 motion was achieved in the PIP (10 to 90°) and DIP (5 to 30°) joints and radiographs showed complete metaplasia of the chondral graft into
 35 an ossified phalanx at 20 months follow-up. The joint spaces also remodelled, and this was confirmed with MRI scanning. Reports on partial
 36 replacement of diaphysis or epiphyses in the digits are discussed, but the only valid comparison of total phalanx replacement is free toe

* Auteur correspondant. 11, rue de Siam, 75116 Paris, France.

Adresse e-mail : salon@noos.fr (A. Salon).

37 phalanx grafting. We did not choose this solution in a normal hand because of the length discrepancy between finger and toe phalanges. This
 38 case shows that, in this particular paediatric situation, the free non-vascularised transfer of a chondral graft restored excellent function, with
 39 remodelling of the phalanx and joint spaces of the finger.
 40 © 2005 Publié par Elsevier SAS.

41 **Mots clés :** Kyste anévrysmal ; Éthibloc® ; Transfert articulaire libre ; Transfert de phalange ; Sclérothérapie

42 **Keywords:** Aneurysmal bone cyst; Ethibloc®; Free transfer; Joint transfer; Phalangeal transfer

43

44 Nous présentons un cas de reconstruction après exérèse
 45 en-bloc complète d'une deuxième phalange d'annulaire chez
 46 un garçon de 13 ans et demi. La phalange était envahie par un
 47 volumineux kyste anévrysmal (KA) malgré un curetage biop-
 48 sique et deux séances de sclérothérapie, à l'alcool pur et à
 49 l'Éthibloc®. La greffe de phalange libre a été taillée sur mesure
 50 dans le cartilage de la crête iliaque de l'adolescent et greffée
 51 sans apport vasculaire, en respectant strictement les éléments
 52 tendineux et les hémicapsules saines. Le doigt a récupéré avant
 53 le sixième mois une mobilité IPP de 10 à 90° et IPD de 5 à
 54 30°, stable et indolore au recul de 20 mois. Le suivi radiolo-
 55 gique et IRM montre la métaplasie osseuse de la greffe chon-
 56 drale et le remodelage des surfaces articulaires proximale et
 57 distale. À l'occasion de ce cas original, les diverses possibi-
 58 lités de reconstruction ostéoarticulaire à la main, microchi-
 59 rurgicales ou libres sont discutées.

60 1. Présentation du cas et de la technique

61 Chez un adolescent de 11 ans et demi une fracture patho-
 62 logique a été révélatrice d'une lésion ostéolytique étendue de
 63 la phalange intermédiaire de l'annulaire. Sur les clichés ini-
 64 tiaux (Fig. 1), la physe de croissance était encore ouverte et
 65 l'épiphyse proximale n'était pas envahie. Un curetage biop-
 66 sique complet de la diaphyse (mai 2001) a permis d'établir le
 67 diagnostic histologique de kyste anévrysmal. L'évolution s'est
 68 faite vers une fracture itérative et une poursuite évolutive
 69 (Fig. 2), confirmée par IRM (septembre 2001). Après discus-

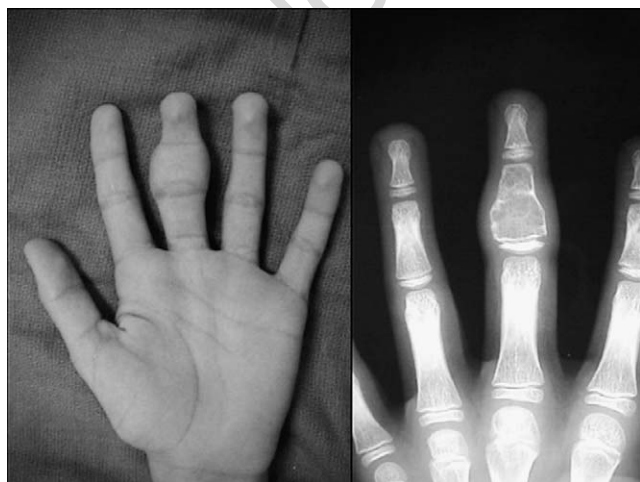


Fig. 1. Aspect clinique et radiologique initial du kyste anévrysmal de phalange intermédiaire de médium chez un adolescent de 11 ans.

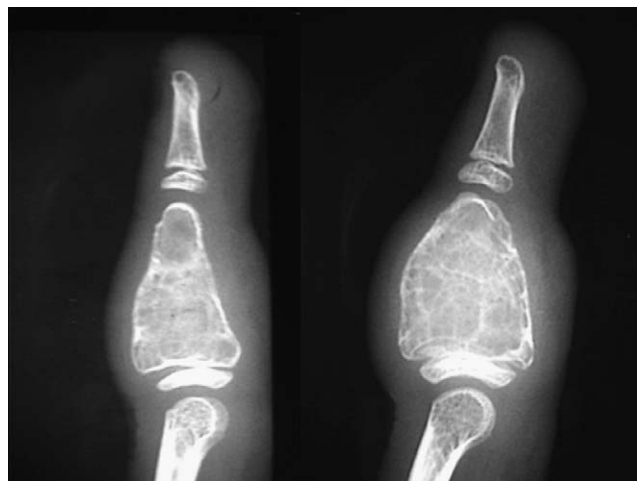


Fig. 2. Évolution radiologique de la zone d'ostéolyse après le curetage biop-sique complet initial.

70 sion pluridisciplinaire, l'indication de sclérothérapie a été rete-
 71 nue en raison de la difficulté de la reconstruction si une exé-
 72 rèse large devait être envisagée. Une première injection à
 73 l'alcool pur (décembre 2001) fut suivie d'une nouvelle réci-
 74 dive, confirmée par IRM. Après une deuxième sclérothérapie
 75 effectuée cette fois à l'Éthibloc® (décembre 2002), la pha-
 76 lange continuait de grossir sans aucune régression de l'ostéo-
 77 lyse radiologique (Fig. 3). La phalange était douloureuse et
 78 l'enroulement un peu limité par le volume tumoral (distance
 79 pulpe-paume de 2 cm). La décision d'exérèse en bloc fut prise
 80 alors que les physes digitales n'étaient pas encore fermées, à
 81 l'âge de 13 ans et demi (avril 2003) avec le consentement
 82 éclairé des parents.

83 L'intervention a été réalisée par voie dorsolatérale en res-
 84 spectant strictement les appareils extenseur et fléchisseur
 85 (Fig. 4). Seule une ténotomie de la bandelette latérale de l'inter-
 86 rosseux a été effectuée en regard de la voie d'abord, et sutu-
 87 rée en fin d'intervention. La phalange tumorale a été clivée
 88 délicatement en extrapériosté en respectant la gaine des flé-
 89 chisseurs et les poulies. La bandelette médiane a été désinsé-
 90 rée avec une collerette de périoste et laissée in situ. Après
 91 arthrotomie proximale et distale, la phalange intermédiaire a
 92 été énucléée en totalité, avec son épiphyse proximale (Fig. 4).
 93 Les hémicapsules saines, les plaques palmaires et les liga-
 94 ments latéraux ont été laissés in situ. La reconstruction a été
 95 réalisée par un parallélépipède de cartilage iliaque alaire,
 96 façonné à la mesure exacte de la phalange, prélevé avec son
 97 périchondre sur deux faces, et une fine lamelle osseuse (mil-
 98 limétrique) sur une face. Les surfaces articulaires ont été

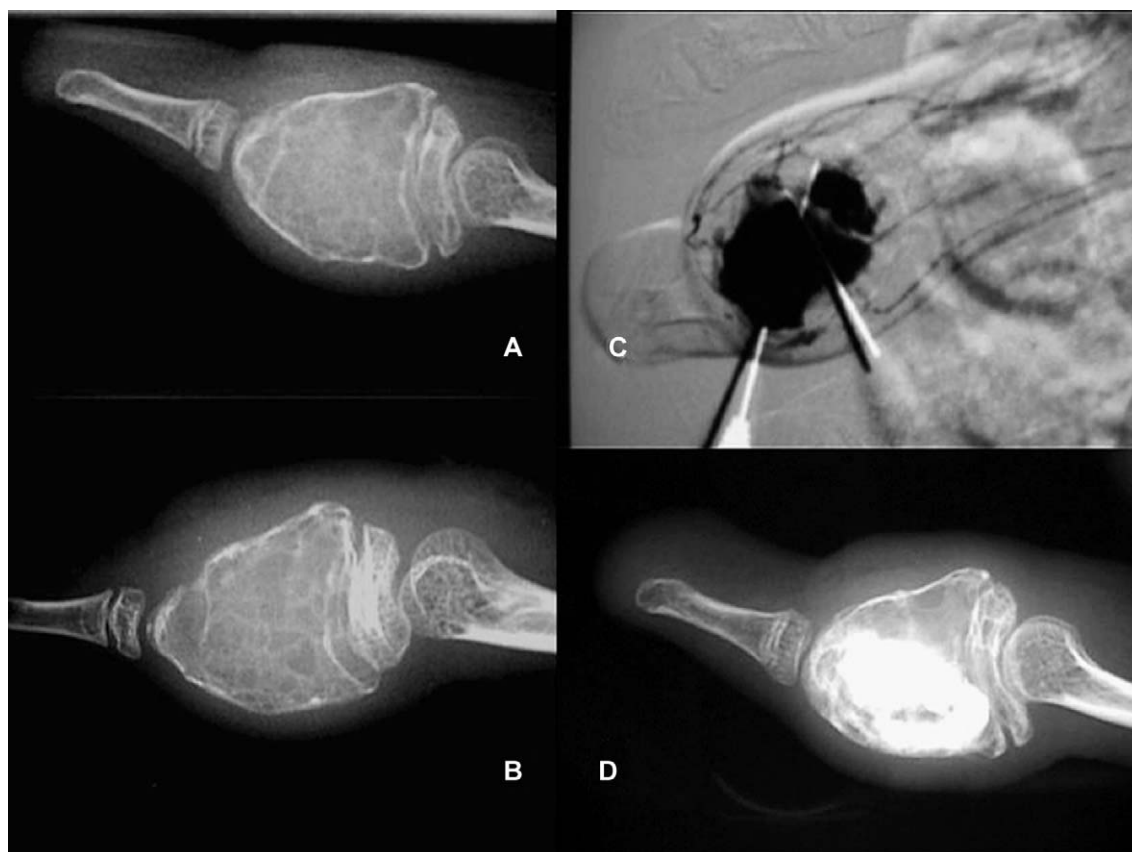


Fig. 3. Poursuite évolutive après sclérothérapie à l'alcool pur (a et b) puis à l'Éthibloc® (c et d).

99 modelées dans le cartilage alaire de façon à être congruentes.
 100 Nous insistons sur le strict respect de la bandelette médiane
 101 dans l'ostéosynthèse. Le brochage axial a été introduit en
 102 va-et-vient par la base de P3, reculé dans la greffe selon son
 103 axe, jusque dans la tête de P1, en plaçant arbitrairement l'IPP
 104 à 30°, sans franchir la corticale postérieure du col de P1
 105 (Fig. 5a). Le greffon a été placé exactement dans le lit de la
 106 phalange énucléée, la plaque palmaire, les éléments capsulo-

ligamentaires et l'insertion de la bandelette médiane ont sim-
 107 plement été apposés au greffon en position physiologique et
 108 leur cicatrisation confiée aux adhérences. La broche axiale a
 109 été relayée à cinq semaines par une attelle segmentaire IPD
 110 en extension dix jours.
 111

En trois mois le jeune homme a récupéré 80 % de sa mobi-
 112 lité actuelle qui est de 10 à 90° sur l'IPP, 5 à 30° sur l'IPD
 113 (Fig. 6). Il a une distance pulpe-pli palmaire distal de 3 cm
 114 en actif, 5 mm en passif. Il est indolore et exempt de récive
 115 à 20 mois. Les radios successives montrent d'abord une hyper-
 116 densité du greffon (Fig. 5b) puis l'ossification diaphysaire et
 117 la phalangisation progressive de la greffe ostéochondrale
 118 (Fig. 5d). Les intervalles articulaires paraissent remodelés et
 119 légèrement pincés. L'IRM faite 13 mois après montre
 120 d'importants remaniements des extrémités articulaires, de
 121 tonalité analogue au tissu fibreux ou chondral (Fig. 7),
 122

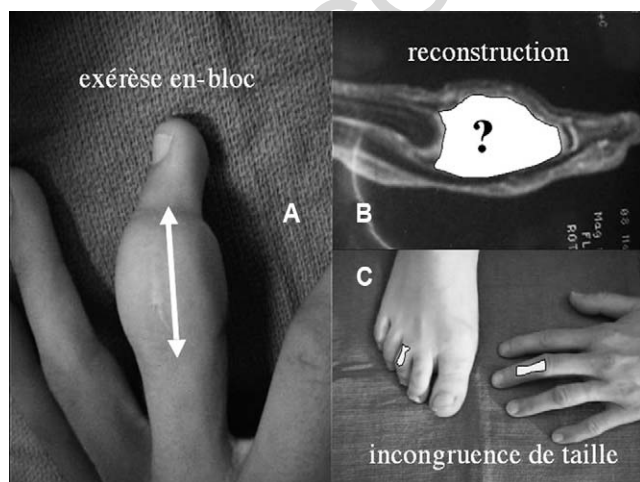


Fig. 4. Aspect préopératoire (a) et limites d'exérèse schématisées sur l'IRM de la résection en-bloc (b). Cette exérèse complète pose un problème de reconstruction car la taille d'une phalange d'orteil n'est pas adaptée à la reconstruction d'une phalange digitale normale (c).

2. Discussion

La découverte d'un kyste anévrysmal (KA) chez un sujet
 124 en croissance n'est pas inhabituelle (75 % surviennent avant
 125 l'âge de 20 ans [1])
 126

Nous avons été confrontés ici à un problème thérapeuti-
 127 que particulier, celui d'une lésion ostéolytique d'emblée éten-
 128 due à toute une phalange, récidivante et évolutive chez un
 129 jeune adolescent non encore mature. De telles lésions sont
 130 rares puisque pour Fuhs 1979 [2], sur 516 KA, 3 % seule-
 131

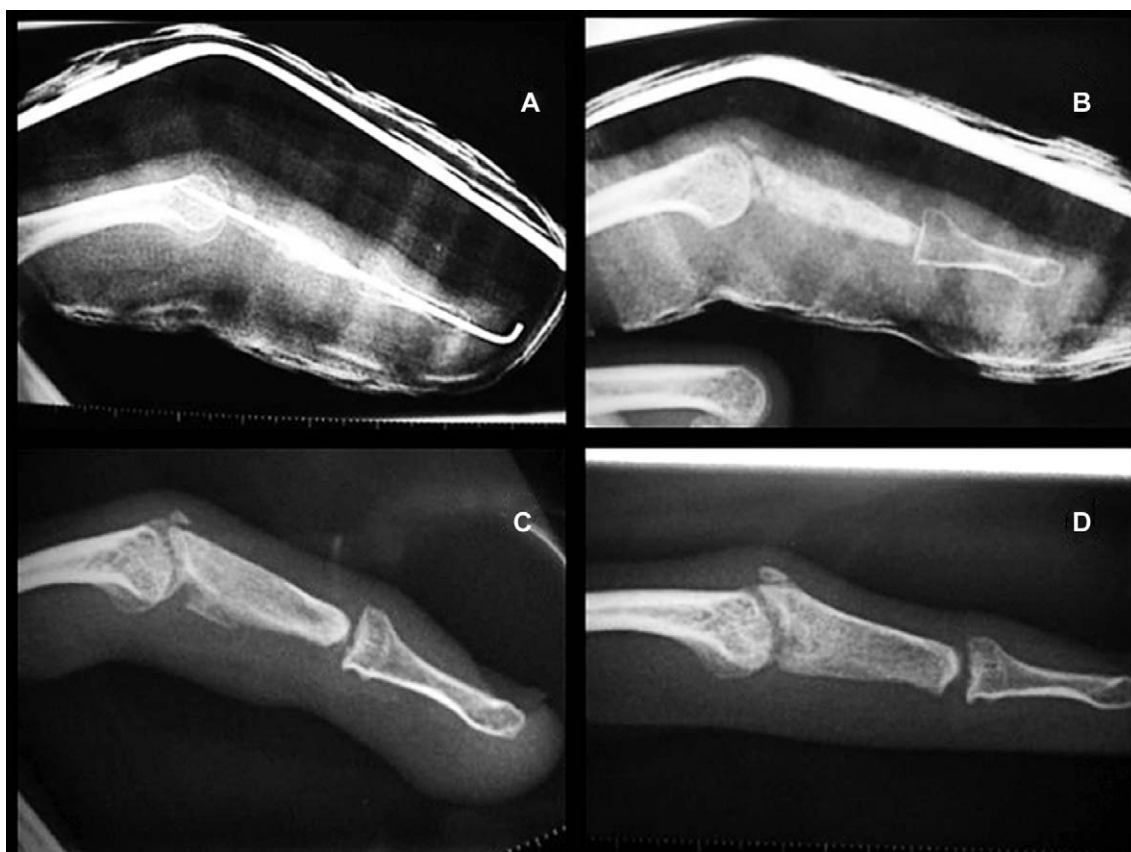


Fig. 5. La greffe chondrale libre est mise en place de façon atraumatique, l'ostéosynthèse épargne l'appareil extenseur (a). Les radios successives montrent la métaplasie osseuse du greffon et le remodelage des articulations interphalangiennes (b, c, d).

132 ment concernent la main, dont la moitié au niveau des pha-
133 langes. Les kystes anévrysmaux ne représentent eux-mêmes
134 que 1 à 5 % de toutes les tumeurs osseuses [3,4]

135 De fait, il n'y a guère dans la littérature qu'une dizaine
136 d'atteintes publiées des phalanges, de traitement disparate.

137 De première intention, nous avons effectué un *curetage*
138 *biopsique* simple pour avoir un diagnostic histologique,
139 sachant toutefois que le curetage des kystes anévrysmaux a
140 un taux de récurrence important, même lorsqu'il est associé à la
141 cryothérapie ou à une greffe osseuse (30 à 60 % [5,3]).

142 La *radiothérapie*, traitement efficace (8 % de récurrences [6])
143 a été de principe récusée en raison de la proximité des pla-
144 ques de croissance et du risque de dégénérescence sarcoma-
145 teuse [7] non acceptable chez un sujet jeune, pour une atteinte
146 périphérique.

147 La décision de *sclérothérapie* a été prise en raison de la
148 difficulté de la reconstruction d'une phalange intermédiaire
149 complète après exérèse. L'alcool pur a été choisi de première
150 intention pour sa meilleure tolérance pour les parties molles,
151 dans une localisation superficielle distale. Une des principa-
152 les justifications de l'Éthibloc® en deuxième choix, est le trai-
153 tement des lésions métaphysaires proches des épiphyses [8]
154 bien qu'il y ait peu de références sur son utilisation à la main.
155 L'enjeu et les aléas de la méthode avaient été acceptés par la
156 famille, mais la réaction inflammatoire (constante chez
157 Adamsbaum [8]) n'a pas été majeure. L'injection, contrôlée
158 sous fluoroscopie n'a pas permis un remplissage complet, ce

qui ne semble néanmoins pas préjuger du résultat de la
méthode [8]

Après le double échec de sclérothérapie, il a fallu se résoudre à une *résection en-bloc*. Il s'agit lorsqu'il est possible du traitement de choix car les récurrences après exérèse large sont quasi nulles [9,4]. Mais cela ne va pas sans envisager une reconstruction.

La principale discussion est donc dans le moyen de cette *reconstruction diaphysaire et articulaire d'une phalange intermédiaire totale* en conservant à la fois la longueur, les mobilités IPP et IPD et si possible les épiphyses (Fig. 4).

Quelques *reconstructions diaphysaires* de phalanges ont été rapportées : greffe d'une baguette d'ulna pour reconstruire une diaphyse de phalange proximale [10] avec au recul un remodelage parfait et une croissance normale ; greffe d'une première phalange de deuxième orteil pour reconstruire une diaphyse de deuxième phalange d'index (avec au recul un flessum de 50° IPP et un flessum IPD [11]). Mais les épiphyses n'étaient pas concernées dans ces observations

Des *reconstructions hémiaarticulaires* par greffe ostéo-chondrale libre, non vascularisée, ont également été rapportées : de façon anecdotique une homogreffe d'épiphyse congelée de P1 chez un garçon de 17 ans avec un recul d'un an [12]. Citons aussi la reconstruction partielle d'IPP par greffe ostéo-chondrale d'une septième côte [13], et d'IPD par greffe chondroépiphysaire de deuxième phalange d'orteil [14] avec de bons résultats sur la mobilité et la croissance. Les greffes arti-

159
160
161
162
163
164
165
166
167
168
169
170
171
172
173
174
175
176
177
178
179
180
181
182
183
184
185

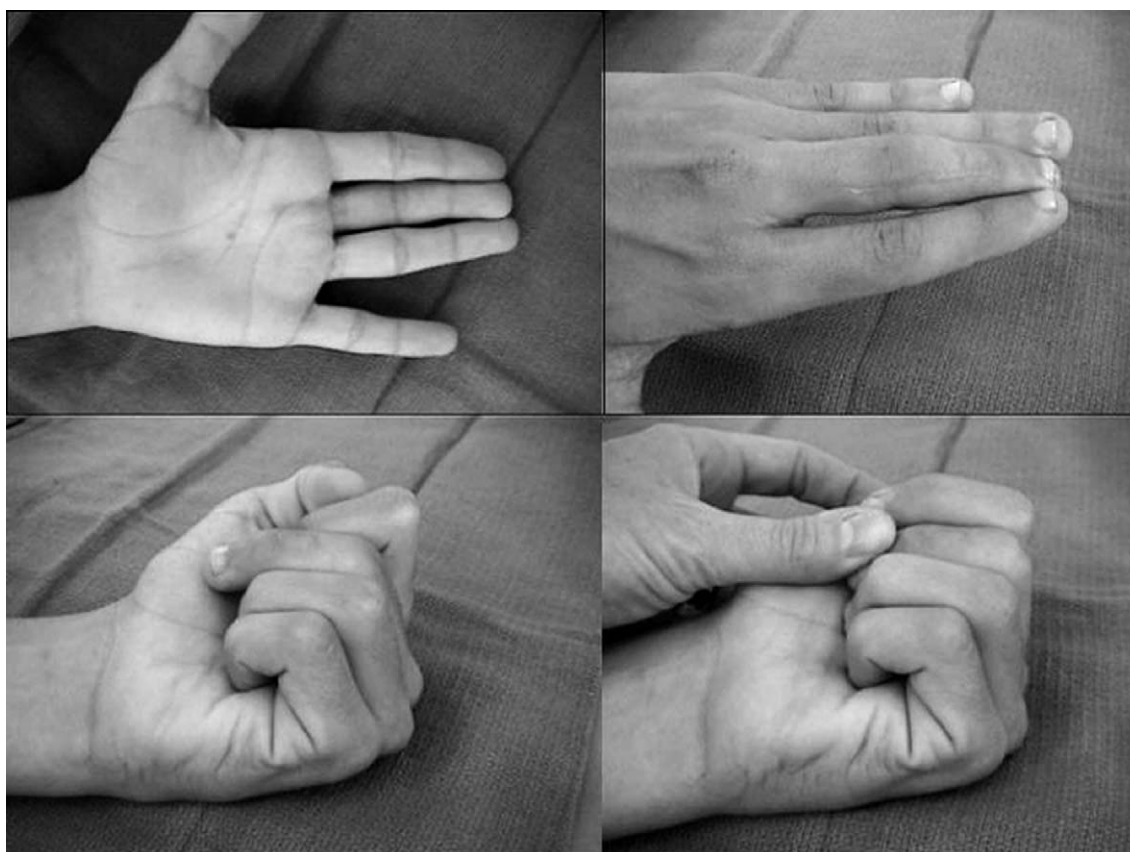


Fig. 6. Mobilités actives et passives en flexion extension à 18 mois. L'accourcissement est de quelques millimètres.

186 culaires vascularisées [15] n'ont pas été utilisées dans ces
187 indications tumorales osseuses et leurs modestes amplitudes
188 articulaires (de l'ordre de 30°, [16,17]) sont à remettre dans
189 le contexte de lésions pluritissulaires traumatiques graves

190 La greffe libre de phalange d'orteil peut sembler résoudre
191 à la fois le problème de la reconstruction diaphysaire et arti-
192 culaire. Il s'agit d'une technique largement admise en patho-
193 logie congénitale [18,19] et aussi appliquée à la reconstruc-
194 tion de tumeurs à cellules géantes [20,21]. Les auteurs
195 observent que malgré l'ischémie liée au principe même de

greffe libre, les phalanges subissent une résorption osseuse 196
tout à fait négligeable. 197

198 Les résultats de ces greffes sont un réel progrès par rap- 198
port à l'amputation ou l'arthrodèse. Cependant chez l'adoles- 199
cent ou le jeune adulte, l'inadéquation de taille est flagrante 200
entre une première phalange d'orteil et une première ou 201
deuxième phalange digitale (Fig. 4c), car il s'agit en patho- 202
logie tumorale de reconstruire une main normale et non des 203
doigts hypoplasiques de symbrachydactylie. 204

205 En cela la greffe libre ostéochondrale taillée à la demande 205
dans le cartilage iliaque alaire de notre patient a l'avantage 206
de régler le problème de longueur. Les surfaces articulaires 207
ont été façonnées « sur mesure » et l'IRM montre un reme- 208
delage des surfaces articulaires (Fig. 7) comparable à celui 209
observé dans les greffes de phalanges [14]. L'excellente mobi- 210
lité à 18 mois de recul, acquise dès le sixième est comparable 211
aux meilleurs résultats de greffe de phalange libre [20]. Les 212
amplitudes articulaires s'expliquent probablement par la 213
revascularisation du greffon mais aussi par la mise en tension 214
physiologique des éléments tendineux par une greffe de 215
dimensions identiques à la phalange excisée. Les deux faits 216
qui nous paraissent marquants dans cette observation pédi- 217
atrique sont d'une part la métaplasie osseuse diaphysaire com- 218
plète et rapide (Fig. 5a-d) du greffon chondral libre, d'autre 219
part l'étonnant remodelage articulaire proximal et distal. Il 220
nous a aussi semblé fondamental, dans la voie d'abord et 221
l'ostéosynthèse, de ne léser aucun élément tendineux 222

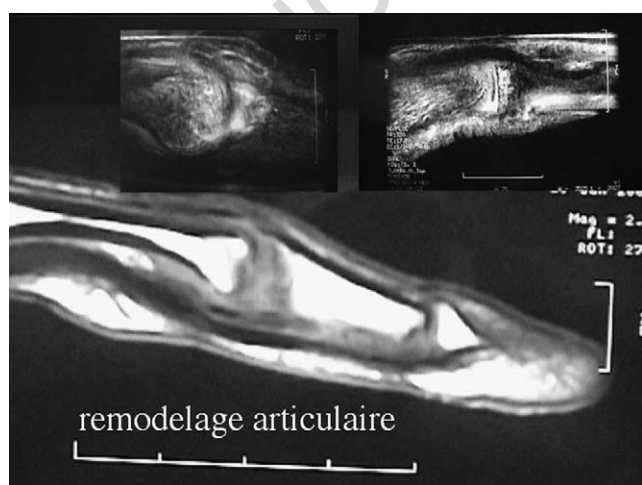


Fig. 7. L'IRM confirme le remodelage diaphysaire et épiphysaire interphalangien. À 13.

223 Cette greffe ostéochondrale libre est à rapprocher des greffes de phalanges d'orteil : même survivance à l'ischémie, que l'on pourrait expliquer par la conservation d'hémicapsules et de production de synoviale sur le versant articulaire receveur et par la présence de périchondre sur deux faces du greffon; même qualité des mobilités avec le recul, même remodelage osseux et articulaire.

230 En revanche, elle s'en distingue par ses grandes dimensions et l'innocuité du prélèvement sur le site donneur. Tous les auteurs reconnaissent en effet que l'accourcissement d'orteil lié au prélèvement d'une première phalange est important et souvent disgracieux [18,19,11]

235 3. Conclusion

236 Plutôt que les techniques connues, pour cet adolescent, la solution originale d'une greffe chondrale libre de grande taille a permis une reconstruction la plus proche sur le plan anatomique et fonctionnel d'une phalange normale, avec ses articulations proximale et distale, et presque sans accourcissement de la chaîne digitale. La technique rapportée ici allie simplicité, innocuité sur le site donneur, absence de risque de rejet. Elle est réservée à l'enfant et à l'adolescent. Les mobilités interphalangiennes et le remodelage osseux et articulaire à moyen terme (recul de 20 mois) se comparent aux résultats des meilleures techniques de reconstruction libres ou vascularisées du moment. Il faut bien sûr rester réservé sur le devenir en terme d'arthrose, et cette technique comme toutes ses sœurs sera mise à l'épreuve des prochaines décennies.

251 Références

- 252 [1] Besse BE, Dahlin DC, Pugh DG, Ghormley RK. Aneurysmal bone
253 cysts : additional considerations. *Clin Orthop Relat Res* 1956;7:93-
254 102.
255 [2] Fuhs SE, Herndon JH. Aneurysmal bone cyst involving the hand : a
256 review and report of two cases. *J Hand Surg* 1979;4(2):152-9.
257 [3] Biesecker JL, Marcove RC, Huvos AG, Mike V. Aneurysmal bone
258 cysts: a clinicopathologic study of 66 cases. *Cancer* 1970;26(3):615-
259 25.

- [4] Burkhalter WE, Schroeder FC, Eversmann WW. Aneurysmal bone
260 cysts occurring in the metacarpals: a report of three cases. *J Hand Surg*
1978;3(6):579-84. 261
[5] Tillman BP, Dahlin DC, Lipscomb PR, Stewart JR. Aneurysmal bone
262 cyst : an analysis of ninety-five cases. *Mayo Clin Proc* 1968;43:478-
263 95. 264
[6] Nobler MP, Higinbotham NL, Phillips RF. The cure of aneurysmal
265 bone cyst. *Radiol* 1968;90(6):1185-92. 266
[7] Vergel de Dios AM, Bond JR, Shives TC, McLeod RA, Unni KK.
267 Aneurysmal bone cyst : a clinicopathologic study of 238 cases. *Cancer*
1992;69:2921-31. 268
[8] Adamsbaum C, Mascard E, Guinebretière JM, Kalifa G, Dubouset J.
269 Intralésionnel ethibloc injections in primary aneurysmal bone cysts : an
270 efficient and safe treatment. *Skeletal Radiol* 2003;32:559-66. 271
[9] Capanna R, Campanacci DA, Manfrini M. Unicameral and aneurys-
272 mal bone cysts. *Orthop Clin North America* 1996;27:605-14. 273
[10] Mortensen NH, Kuur E. Aneurysmal bone cyst of the proximal pha-
274 lanx. *J Hand Surg [Am]* 1990;15B:482-3. 275
[11] Rao GS, Keogh P, Webster H, Lunn PG, Burke FD. Aneurysmal bone
276 cysts in the hand treated by free non-vascular transfer of metatarsal or
277 proximal phalanx from the foot. *J Hand Surg [Am]* 1993;18B:736-41. 278
[12] Bury TF, Stassen LPS, Van der Werken C. Repair of the proximal
279 interphalangeal joint with a homograft. *J Hand Surg [Am]* 1989;14A:
280 657-8. 281
[13] Hasegawa T, Yamano Y. Arthroplasty of the proximal interphalangeal
282 joint using costal cartilage grafts. *J Hand Surg [Am]* 1992;17B:583-5. 283
[14] Salon A, Journeau P, Drape JL, Glorion C. Post-traumatic DIP recon-
284 struction using free hemi-joint transfer of the fifth toe middle phalanx
285 in children. *J Paediatr Orthop (Br)* 2004; (in press). 286
[15] Foucher G, Merle M. Transfert articulaire au niveau d'un doigt en
287 microchirurgie. In: Lettre informative. Groupe d'avancement pour la
288 microchirurgie, GAM; 1976. p. 7. 289
[16] Foucher G, Smith D. Free and island joint vascularized transfer for
290 PIP reconstruction : a series of 27 cases. *J Hand Surg* 1994;19A(8):
291 35-41. 292
[17] Tsai TM, Wang W. Vascularized joint transfers : Indications and
293 results. *Hand Clin* 1992;8:525-9. 294
[18] Buck-Gramcko D, Pereira JAR. Proximal toe phalanx transplantation
295 for bony stabilization and lengthening of partially aplastic digits. *Ann*
296 *Hand Upper Limb Surgery* 1990;9(2):107-18. 297
[19] Cavallo AV, Smith PJ, Morley S, Morsi AW. Non-vascularized free toe
298 phalanx transfers in congenital hand deformities. The great Ormond
299 street experience. *J Hand Surg* 2003;28B(6):520-7. 300
[20] Torpey B, Faierman E, Lehmann O. Phalangeal transfer for recurrent
301 giant-cell tumor of the phalanx of a finger in a nine-year-old child. A
302 case report with forty-one year follow-up. *J Bone Joint Surg* 1994;
303 76A(12):1864-9. 304
[21] Smith JA, Millender LH. Treatment of recurrent giant cell tumor of
305 the digit by phalangeal excision and toe phalanx transfer: a case
306 report. *J Hand Surg* 1979;4:164-7. 307
308
309