

ГЕТЕРОТОПИЧЕСКАЯ ОССИФИКАЦИЯ В СРЕДИННОМ РАЗРЕЗЕ ПОСЛЕ ОПЕРАЦИИ ПО ПОВОДУ АБДОМИНАЛЬНОЙ ТРАВМЫ У БОЛЬНОГО С ПОЛИТРАВМОЙ

**HETEROTOPIC OSSIFICATION IN THE MIDLINE INCISION FOLLOWING ABDOMINAL TRAUMA SURGERY
IN POLYTRAUMA PATIENT**

**Seung Je Go
Young Hoon Sul
Jin Bong Ye
Jin Young Lee
Jin Suk Lee
Soo Young Yoon
Hong Rye Kim
Jung Hee Choi**

**Seung Je Go
Young Hoon Sul
Jin Bong Ye
Jin Young Lee
Jin Suk Lee
Soo Young Yoon
Hong Rye Kim
Jung Hee Choi**

Национальный университетский госпиталь Chungbuk,
Чхонджу, Корея

Chungbuk National University Hospital,
Cheongju, Korea

Гетеротопическая оссификация представляет чрезвычайно редкое явление, когда кость развивается в мягких тканях, которые обычно не подвержены оссификации. По причине редкого возникновения и недостаточного описания этиологии, патофизиологии и вариантов лечения клинические врачи, ранее не сталкивавшиеся с данным состоянием, испытывают трудности в принятии решения о выборе лечения. Мы представляем случай гетеротопической оссификации в срединном разрезе после операции по поводу абдоминальной травмы у больного с политравмой и обсуждаем современное понимание этиологии, патофизиологии, вариантов лечения гетеротопической оссификации, а также проводим обзор литературы.

Ключевые слова: гетеротопическая оссификация; костная ткань; срединный надрез; операция по поводу абдоминальной травмы.

Heterotopic ossification (HO) is an extremely rare condition which occurs when bone develops in soft tissues that usually do not undergo ossification. Because of its rarity, the etiology, pathophysiology, and the treatment options are not well noted, the clinicians who have not experienced this rare condition have difficulties in deciding how to manage it. So we present a case of HO in midline incision following abdominal trauma surgery in polytrauma patient and then discuss the current understandings of the etiology, pathophysiology, treatment options of HO with related literature reviews.

Key words: heterotopic ossification; bone tissue; midline incision; abdominal trauma surgery.

Гетеротопическая оссификация (ГО) представляет собой костное образование, встречающееся во всех видах мягких тканей вне скелетной системы. Впервые описана Riedel в 1883 г. Однако, учитывая факт чрезвычайно редких сообщений о гетеротопической оссификации, ее распространенность остается не оцененной. Этиология данного патологического состояния противоречива. Оно по-прежнему считается чрезвычайно редким осложнением. Для ее лечения применяются различные методы, но ни один из них не стал стандартом. В статье мы представляем случай лечения пациента с ГО, удаленной хирургическим путем через пять месяцев после абдоминальной хирургии при политравме с травматическим гемоперитонеумом, развившимся на фоне множественных перфораций в тощей кишке. Обсуждаются различные точки зрения, касающиеся этиологии и методов лечения ГО, и приводится обзор литературы по данной теме.

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ

Шестидесятилетний мужчина был госпитализирован с жалобами на прогрессирующие неприятные ощущения в эпигастральной области и вздутие живота после

Нетеротопическая оссификация (НО) refers to a bone formation in all types of soft tissues outside the skeletal system. It is first described by Riedel in 1883, but given the probability that HO is extremely rarely reported, the incidence is unclear. The etiology of pathology is not consensual, and the formation of HO is still considered an extremely rare complication. Various treatments have been attempted, but none of these has yet been clearly established. Here we present a patient with HO that was surgically resected five months after abdominal surgery for polytrauma including traumatic hemoperitoneum due to multiple jejunal perforations, and then discuss the current understandings of the etiology and treatment options of HO with related literature reviews.

CASE

A 60-year-old man was admitted with complaints of progressive epigastric discomfort and more aggravated postprandial fullness disturbing his posture for the past

приема пищи, что отрицательно влияло на положение тела в последние пять месяцев. Лапаротомия проводилась три раза. Первой операцией была лапаротомия «damage control», выполненная через срединный абдоминальный надрез, для лечения травматического гемоперитонеума и разрывов тощей кишки по причине дорожно-транспортного происшествия за пять месяцев до этого.

При осмотре в области абдоминального надреза пальпировалось твердое образование, распространяющееся от подгрудинной области до верхней пупочной области. Других патологических образований не обнаружено. Компьютерная томография абдоминальной области показала вертикально ориентированное, вилкообразное, линейное обызвествленное патологическое образование той же плотности, что и остальные костные структуры в предыдущем абдоминальном разрезе (рис. 1). Во время операции в области абдоминального разреза обнаружено обызвествленное образование в предбрюшинном пространстве (рис. 2). Выполнен общий надрез. Размер иссеченных образцов составил $10 \times 3,5 \times 0,8$ см. Гистопатология показала зрелые костные трабекулы (рис. 3). Симптом полностью исчез после операции. Пациент выписан без осложнений.

ОБСУЖДЕНИЕ

ГО представляет метапластический феномен, при котором компоненты зрелой пластинчатой кости формируются в мягких тканях (кожа, рубцы, подкожная жировая клетчатка, мышцы) по ходу тканей брыжейки [1]. ГО встречается в 2-7 % случаев у пациентов, прошедших ортопедические операции на тазобедренном суставе, затрагивающие его капсулу [2, 3]. Несмотря на то, что ГО является стандартным осложнением ортопедической хирургии, оно считается очень редким явлением при абдоминальной хирургии. Недавнее исследование показало, что ГО зарегистрирована в 25 % случаев среди 152 пациентов с абдоминальным разрезом [4]. К сожалению, пока не опубликованы какие-либо подробные данные по симптомам ГО у больных после абдоминальной операции. Возможно, это связано с малым количеством пациентов. Определенно, ГО преобладает среди мужчин. Соотношение случаев у мужчин и женщин составляет 10 : 1. Возраст пациентов варьируется от 18 до 91 года (большинство пациентов среднего возраста) [5, 6]. Большинство гетеротопических костных образований формируются в первый год после операции и самокупируются в дальнейшем [4]. В нашем случае после первой лапаротомии прошло пять месяцев.

Патогенез ГО не исследован в полной мере. Возможно, он связан с остеобластной метаплазией мультипотентных мезенхимальных клеток как ответ на сильные воспалительные раздражители после травмы, или же он вызывается травматической или хирургической имплантацией надкостницы в мягкие ткани [1]. Данный процесс относят к остеогенной индукции, когда мезенхимальные клетки, которые не участвуют в образовании кости в нормальных условиях, приобретают свойства формирующихся костей [7]. В нашем случае ГО, вероятно, произошла из-за повторных хирургических

5 months. He had received three laparotomies. The first surgery was a damage control laparotomy, which was done by a long midline abdominal incision for traumatic hemoperitoneum and jejunal perforations due to traffic accident five month ago.

On physical examination, a hard mass was palpable in the abdominal incision site extending from the sub-iphoid region to the upper umbilical region. Except for the palpable hard mass, no additional abnormal findings were observed. A computed tomography (CT) scan of the abdomen revealed a vertically oriented, bifurcated, and linear calcified lesion with the same density as other bony structures in previous abdominal incision site (fig. 1). At operation, the calcified lesion in the abdominal incision site was found in the preperitoneal space (fig. 2), a total excision was done without severe adhesion around tissue. The size of the excised specimen was $10 \times 3.5 \times 0.8$ cm, and the histopathology revealed mature bone trabeculae (fig. 3). The symptom was completely resolved after the operation, and he was discharged without any complications.

DISCUSSION

HO is defined as the metaplastic phenomenon where mature, lamellar bone components are formed in soft tissue such as skin, scars, subcutaneous fat, and muscle along with mesenteric tissues [1]. HO is a common finding after orthopedic surgery and is seen in 2 to 7 % of patients who underwent hip surgery including hip joint capsule [2, 3]. Although it is known to be a common complication after orthopedic surgery, it is recognized as a very rare phenomenon after abdominal surgery. A recent study reported that HO was observed in about 25 % of 152 patients who underwent abdominal incision [4]. Unfortunately, definite data of the symptoms associated with HO in patients who underwent abdominal incision has not yet been established. Perhaps this limitation is due the small number of patients. It is certainly that HO is male predominant, with male to female ratio about 10 : 1, age distribution ranging from 18 to 91 years, mostly middle-aged individuals [5, 6]. Most ectopic bones appear to form within one year after surgery, are self-limited and even regressive [4]. In our case, five months had elapsed since the first laparotomy in a middle-aged male.

The pathogenesis of HO has not been clearly established, although it may be due to osteoblastic metaplasia of multipotential mesenchymal cells as a response to severe inflammatory stimuli from trauma, or may be caused by traumatic or surgical implantation of periosteum into the soft tissues [1]. This process has been referred to as an osteogenic induction, where the mesenchymal cell, which normally does not participate in bone formation, gains the property of forming bones [7]. In our case, HO probably occurred due to repetitive surgical injuries, with maintained inflammatory stimulus resulting in bone formation.

In previously reported cases of HO associated with abdominal surgery or trauma, most of the symptomatic pa-

Рисунок 1

Компьютерная томография (КТ). Фронтальная (А) и сагиттальная (В) проекция срезов КТ показывают обызвествленную ткань (белые стрелки) в участке срединного разреза

Figure 1
Computed Tomography (CT) scan. The coronal view (A) and the sagittal view (B) of CT scans show calcified tissue (white arrows) in the midline incision site

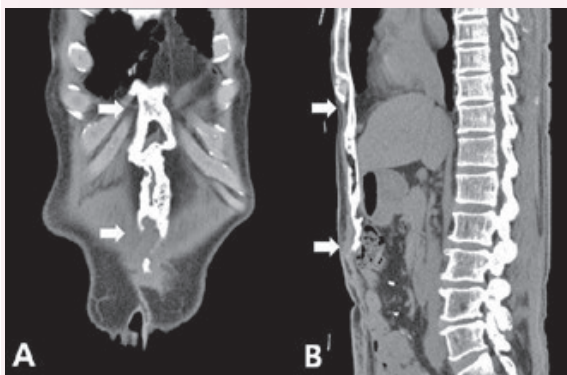


Рисунок 2

Хирургическая область. Выполнено хирургическое удаление ГО

Figure 2
Operative field. Surgical excision of HO was done

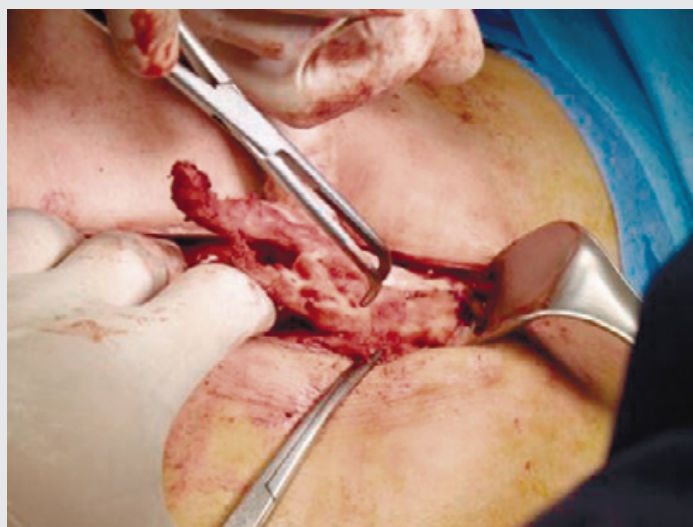
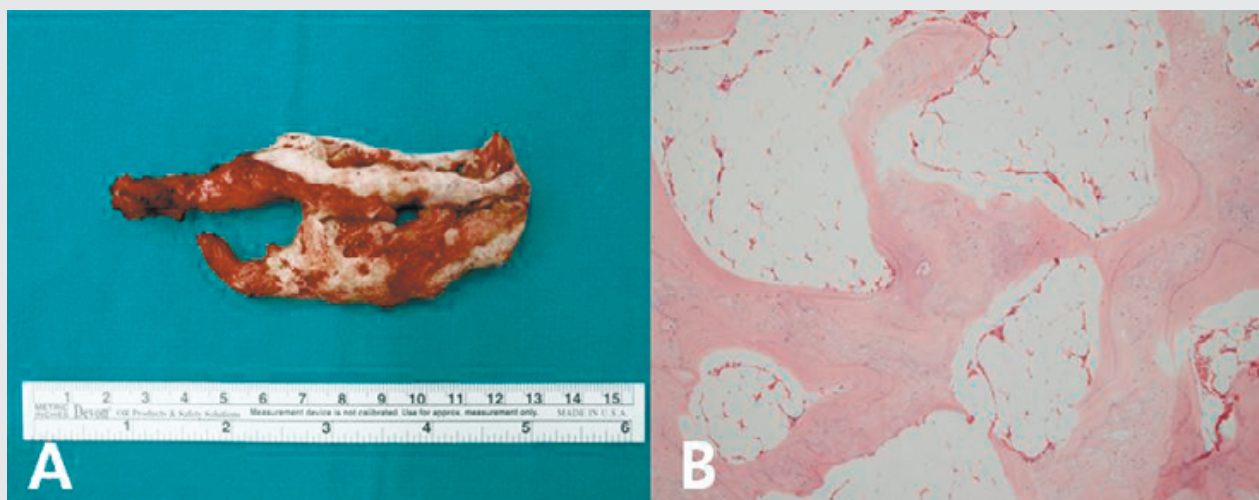


Рисунок 3

Гистопатология иссеченных образцов: А – общая фотография (размер 10 × 3,5 × 0,8 см); В – гистологический срез: ткань зрелой кости (100 × HE)

Figure 3
Histopathology of the excised specimen: A – gross picture (size 10 × 3.5 × 0.8 cm); B – histologic section: mature bone tissue (100 × HE)



травм, при которых устойчивые воспалительные раздражители вызывают образование кости. В описанных случаях ГО после абдоминальной хирургии или травмы большинство пациентов жаловались на боль, вздутие и дискомфорт при передвижении, что также накладывало ограничения на повседневную активность. У нашего пациента наблюдался прогрессирующий дискомфорт в эпигастральной области и вздутие живота после приема пищи.

Во время врачебного осмотра в пораженной области пальпировалось твердое образование [8]. При подозрении на ГО требуется рентгенологическое исследование. Для постановки точного диагноза подойдут рентген, ультрасонография, КТ и МРТ. При рентгенологиче-

patients complained of pain, swelling, and uncomfortable movements, which also caused disability in their daily activities. In our case, the patient presented progressive epigastric discomfort and postprandial fullness disturbing his posture.

On physical exam, a hard mass was palpable at the afflicted area [8]. If HO is suspected, radiologic imaging test is required. A plain X-ray, ultrasonography, CT scan, or magnetic resonance imaging can be useful for accurate diagnosis. When radiologic imaging test is used for diagnosis, care should be taken to distinguish HO from other mostly benign entity lesions and other post-operative complications such as surgical site infection and retained foreign body [4]. In Our case, a hard mass

ском исследовании необходимо отличить ГО от доброкачественных образований и остальных послеоперационных осложнений, среди которых инфекция послеоперационной раны и инородные тела [4]. В нашем случае клиническое обследование показало твердое образование, простирающееся от подгрудинной области до верхней пупочной области. Проведены обзорная рентгенография и КТ.

Прогноз ГО обычно благоприятный. Осложнения возникают редко. Некоторые клинические случаи показали, что костный мозг может играть независимую роль в гематопоэзе, когда гистология показывает нормальный гематопоэз [9]. Также сообщается о случаях остеохондромы мечевидного отростка, которая распространяется в рубцовую ткань брюшной стенки [10]. ГО в большинстве случаев является доброкачественным образованием. Злокачественные образования, например, остеосаркома, встречаются редко [11].

Окончательных рекомендаций по лечению рубцовой ткани брюшной стенки нет. Можно применять несколько методов. Возможно консервативное лечение. Отказ от операции подразумевает профилактику дальнейшей оссификации. Тем не менее, предпочтительным методом лечения симптоматической ГО может быть хирургическое иссечение с первичным закрытием [8]. Рецидив встречается крайне редко. Известно, что незрелая костная ткань исчезает после иссечения, а достаточный лечебный эффект может быть достигнут только при удалении областей зрелой оссификации [12]. Эффективные методы профилактики рецидива ГО включают лучевую терапию (ЛТ) и нестероидные противовоспалительные средства (НПВС). Несмотря на то, что ЛТ широко используется для профилактики и лечения ГО после ортопедической операции, преимущества РТ в абдоминальной хирургии отсутствуют или остаются спорными [7]. При ГО широко используются НПВС (индометацин, дифосфаты и особенно Етидронате Дисуодиум) [13]. Исследования животных, при которых деминерализованный костный матрикс помещался в абдоминальные мышцы, показали, что данные препараты могут задерживать и частично предотвращать послеоперационный рецидив ГО [14]. В нашем случае ГО была удалена хирургически. Послеоперационная профилактическая лучевая терапия проводилась в течение 5 дней (с низкой дозой облучения 700 санти-Грей). Фармакологические препараты не применялись.

ВЫВОДЫ:

ГО представляет редкое патологическое явление. Многие его аспекты остаются неисследованными. Мы рекомендуем хирургическое удаление в качестве выборочного лечения, т.к. окончательные рекомендации по лечению ГО еще не опубликованы.

Информация о финансировании и конфликте интересов

Авторы данной работы заявляют об отсутствии явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с публикацией статьи.

Исследование не имело спонсорской поддержки.

extending from the subxiphoid region to the upper umbilical region was noted on clinical exam, and then plain X-ray and CT scan were performed.

The prognosis of HO is generally good, rarely causing complications. Several case reports showed that the bone marrow of HO can play an independent role in hematopoiesis, with histological evidence of normal trilineage hematopoiesis [9]. Cases of osteochondroma of the xiphoid appendix into the abdominal wall scar have also been reported [10]. Although HO is mostly benign, it is rarely reported as a malignant lesion such as osteosarcoma [11].

Although there is no definitive guideline of the treatment methods applicable to the scarring of the abdominal wall, several treatment methods can be applied. Conservative treatment can be possible, avoiding surgery to prevent further ossification. However, surgical excision with primary closure can be the treatment of choice for symptomatic HO [8]. Recurrence is very rare, and it is known that immature bone tissue is depleted after excision and sufficient treatment effect can be obtained by removing only mature ossifications [12]. Treatment methods known to be effective in preventing recurrence of HO include radiation therapy (RT), and NSAIDs. Although RT has been widely used as a preventive and treatment method for HO after orthopedic surgery, the advantages of application of RT in abdominal surgery are still lacking and controversial [7]. NSAIDs, such as indomethacin, diphosphates, and especially etidronate disodium, are widely used in HO [13]. Animal studies in which demineralized bone matrix was inserted in the abdominal muscle to induce HO, have shown that these pharmaceutical agents may delay, and partially prevent postoperative recurrence of HO [14]. In our case, the symptomatic HO was surgically excised, and then postoperative prophylactic radiation therapies were performed for 5 days with low dose radiation (700 cGy). No pharmaceutical agent was prescribed for prevention.

CONCLUSION

HO is a rare pathology, with many unknown aspects. We recommend the surgical resection as a selective therapy until a verified study of HO treatment is published.

Information on financing and conflict of interests

The study was conducted without sponsorship. The authors declare the absence of clear or potential interests relating to publication of the article.

REFERENCES:

1. McCarthy EF, Sundaram M. Heterotopic ossification: a review. *Skeletal Radiol.* 2005; 34(10): 609-619.
2. Riegler HF, Harris CM. Heterotopic bone formation after total hip arthroplasty. *Clin Orthop Relat Res.* 1976; (117): 209-216.
3. Mann HA, Choudhury MZ, Lee CA, Goddard NJ. Heterotopic bone formation as a complication of elective joint replacement in haemophilic patients – a case report and literature review. *Haemophilia.* 2006; 12(6): 672-675.
4. Kim J, Kim Y, Jeong WK, Song SY, Cho OK. Heterotopic ossification developing in surgical incisions of the abdomen: analysis of its incidence and possible factors associated with its development. *J Comput Assist Tomogr.* 2008; 32(6): 872-876.
5. Goff AK, Reichard R. A soft-tissue calcification: differential diagnosis and pathogenesis. *J Forensic Sci.* 2006; 51(3): 493-497.
6. Marteinson Bt, Musgrove JE. Heterotopic bone formation in abdominal incisions. *Am J Surg.* 1975; 130(1): 23-25.
7. Reardon MJ, Tillou A, Mody DR, Reardon PR. Heterotopic calcification in abdominal wounds. *Am J Surg.* 1997; 173(2): 145-147.
8. Daoud Ra, Watkins MK, Brown G, Carr N. Mature bone metaplasia in abdominal wall scar. *Postgrad Med J.* 1999; 75(882): 226-227.
9. Christofi T, Raptis DA, Kallis A, Ambasakoor F. True trilineage haematopoiesis in excised heterotopic ossification from a laparotomy scar: report of a case and literature review. *Ann R Coll Surg Engl.* 2008; 90(5): W12-W14.
10. El Kaoui H, Sall I, Bouchentouf M, Baba H, Ali AA, Achour A et al. Osteochondroma developing from the xyphoid appendix into an abdominal wall scar from a previous laparotomy. *Am J Surg.* 2008; 196(5): e43-e45.
11. Konishi E, Kusuzaki K, Murata H, Tsuchihashi Y, Beabout JW, Unni KK. Extraskelletal osteosarcoma arising in myositis ossificans. *Skeletal Radiol.* 2001; 30(1): 39-43.
12. Shapeero LG, De Visschere PJ, Verstraete KL, Poffyn B, Forsyth R, Sys G, et al. Post-treatment complications of soft tissue tumors. *Eur J Radiol.* 2009; 69(2): 209-221.
13. Heyd R, Buhleier T, Zamboglou N. Radiation therapy for prevention of heterotopic ossification about the elbow. *Strahlenther Onkol.* 2009; 185(8): 506-511.
14. Cullen N, Perena J. Heterotopic ossification: Pharmacologic options. *J Head Trauma Rehabil.* 2009; 24(1): 69-71.

Сведения об авторах:

Seung Je Go, врач, отделение травматологии, Национальный университетский госпиталь Chungbuk, Чхонджу, Корея.

Young Hoon Sul, врач, д.м.н., отделение травматологии, Национальный университетский госпиталь Chungbuk, Чхонджу, Корея.

Jin Bong Ye, врач, отделение травматологии, Национальный университетский госпиталь Chungbuk, Чхонджу, Корея.

Jin Young Lee, врач, отделение травматологии, Национальный университетский госпиталь Chungbuk, Чхонджу, Корея.

Jin Suk Lee, врач, отделение травматологии, Национальный университетский госпиталь Chungbuk, Чхонджу, Корея.

Soo Young Yoon, врач, отделение торакальной и сердечно-сосудистой хирургии, Национальный университетский госпиталь Chungbuk, Чхонджу, Корея.

Hong Rye Kim, врач, отделение нейрохирургии, Национальный университетский госпиталь Chungbuk, Чхонджу, Корея.

Jung Hee Choi, врач, отделение анестезиологии и медицины боли, Национальный университетский госпиталь Chungbuk, Чхонджу, Корея.

Адрес для переписки:

Young Hoon Sul, 776, 1 Sunhwan-ro, Seowon-gu, Cheongju-si, Chungcheongbuk-do, 28644, Korea

Tel : +82-43-269-7847

Fax : +82-43-269-7810

E-mail ssulyh@gmail.com

Information about authors:

Seung Je Go, MD, Department of Trauma Surgery, Chungbuk National University Hospital, Cheongju, Korea.

Young Hoon Sul, MD, PhD, Department of Trauma Surgery, Chungbuk National University Hospital, Cheongju, Korea.

Jin Bong Ye, MD, Department of Trauma Surgery, Chungbuk National University Hospital, Cheongju, Korea.

Jin Young Lee, MD, Department of Trauma Surgery, Chungbuk National University Hospital, Cheongju, Korea.

Jin Suk Lee, MD, Department of Trauma Surgery, Chungbuk National University Hospital, Cheongju, Korea.

Soo Young Yoon, MD, Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery Chungbuk National University Hospital, Cheongju, Korea.

Hong Rye Kim, MD, Department of Neurosurgery, Chungbuk National University Hospital, Cheongju, Korea.

Jung Hee Choi, MD, Department of Anesthesiology and Pain Medicine, Chungbuk National University Hospital, Cheongju, Korea.

Address for correspondence:

Young Hoon Sul, 776, 1 Sunhwan-ro, Seowon-gu, Cheongju-si, Chungcheongbuk-do, 28644, Korea

Tel : +82-43-269-7847

Fax : +82-43-269-7810

E-mail ssulyh@gmail.com