

## Bone lesion. Tumor or inflammatory disease?

### Guz kości. Nowotwór czy choroba zapalna?

Wojciech Kmiecik, Zbigniew Żuber

Department of Paediatrics, Faculty of Medicine and Health Sciences, Andrzej Frycz Modrzewski Krakow University, Poland  
Katedra Pediatrii, Wydział Lekarski i Nauk o Zdrowiu, Krakowska Akademia im. Andrzeja Frycza Modrzewskiego, Polska

Key words: CRMO, CNO

Słowa kluczowe: CRMO, CNO

**Introduction:** Chronic non-bacterial osteomyelitis (CNO) is an autoinflammatory bone disorder that frequently affects children and adolescents. It manifests as pain and swelling in the affected bone. The most common site of the disease is the metaphysis of long bones, but other typical locations include the pelvic bones, spine, clavicle, and jaw. Lesions can occur in any part of the skeletal system. When multiple sites are affected, the condition is referred to as chronic recurrent multifocal osteomyelitis (CRMO), which is the most severe form of CNO. The goal of treatment is to reduce pain and halt disease progression. Non-steroidal anti-inflammatory drugs (NSAIDs) are used as first-line therapy, and if there is no response, synthetic conventional disease-modifying antirheumatic drugs (sDMARDs), bisphosphonates, glucocorticoids, and biological agents, such as TNF inhibitors, may be used.

**Case description:** In September 2021, a 10-year-old girl began reporting pain in the left hip joint area and left lower limb. The pain was most intense in the afternoon and nighttime, often waking her from sleep, with a pain score of 10/10 on the NRS scale. She was repeatedly hospitalized in the pediatric department, where imaging diagnostics were performed: classic X-ray, magnetic resonance imaging (MRI), and computed tomography (CT) of the pelvis, revealing an infiltrative process involving the left iliac bone, accompanied by bone marrow edema and soft tissue swelling, suggesting a neoplastic process (Fig. 1). Laboratory tests, including inflammatory markers, alkaline phosphatase, calcium-phosphate metabolism, and a slightly elevated level of osteocalcin and ESR, showed no significant abnormalities (Table I).

The patient, suspected of having a neoplastic disease, was transferred to the hematology-oncology department, where an open bone biopsy was performed. The result was inconclusive, and another sample was taken, which suggested low-grade sarcoma. In April 2022, the specimen was reviewed at the National Institute of Oncology in Warsaw, where the findings leaned more toward chronic, nonspecific inflammation of the iliac bone. Follow-up imaging showed tumor mass enlargement, and MRI of the pelvis and Tc-99m scintigraphy results were still inconclusive. In a chest CT, changes were found that could correspond to either inflammatory or metastatic lesions.

**Wprowadzenie:** Przewlekłe niebakteryjne zapalenie kości i szpiku (CNO) jest autozapalną chorobą kości, która często dotyka dzieci i młodzież. Manifestuje się bólem i obrzękiem zajętej kości. Najczęstszą lokalizacją choroby są przynasady kości długich, do innych typowych lokalizacji należą kości miednicy i kręgosłupa, obojczyk oraz żuchwa. Zmiany mogą wystąpić w każdym elemencie układu kostnego. W przypadku mnogiej lokalizacji rozpoznajemy przewlekłe nawracające wielogniskowe zapalenie kości i szpiku (CRMO), które jest najcięższą formą CNO. Celem leczenia jest redukcja bólu oraz zahamowanie progresji choroby. W leczeniu stosuje się niesteroidowe leki przeciwzapalne, a w przypadku braku odpowiedzi – syntetyczne klasyczne leki modyfikujące przebieg choroby (sLMPCh), bisfosfoniany, glikokortykosteroidy i leki biologiczne, głównie z grupy inhibitorów TNF.

**Opis przypadku:** Pacjentka, 10 lat, z guzem trzonu i talerza kości biodrowej lewej. Dziewczynka we wrześniu 2021 r. zaczęła zgłaszać dolegliwości bólowe okolicy stawu biodrowego lewego i kończyny dolnej lewej. Ból dominował w godzinach popołudniowych i nocnych, wybudzał dziecko ze snu, NRS bólu 10/10. Chora była wielokrotnie hospitalizowana na Oddziale Pediatrycznym, gdzie wykonano diagnostykę obrazową: klasyczne badanie radiologiczne (RTG), rezonans magnetyczny (RM), tomografię komputerową (TK) miednicy, stwierdzając nacieki obejmujący trzon i talerz kości biodrowej lewej z towarzyszącym obrzękiem szpiku kostnego kości biodrowej i obrzękiem tkanek miękkich, co sugerowało proces rozrostowy (ryc. 1).

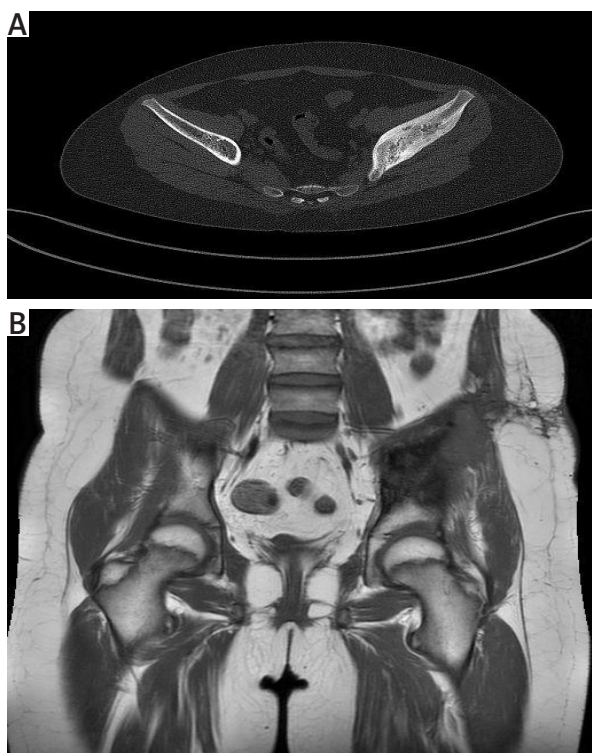
W badaniach laboratoryjnych m.in. bez wzrostu parametrów zapalnych, fosfatazy zasadowej (tab. I).

Następnie pacjentka z podejrzeniem choroby rozrostowej została przekazana na Oddział Hematologiczno-Onkologiczny, gdzie wykonano biopsję otwartą kości, której wynik był niediagnostyczny. Pobrano kolejny wycinek, w którym stwierdzono obraz najbardziej odpowiadający wysoko zróżnicowanemu kostniakomięsakowi (*low-grade sarcoma*).

Następnie w kwietniu 2022 r. preparat był konsultowany w Narodowym Instytucie Onkologii w Warszawie, gdzie stwierdzono, że obraz bardziej przemawia za przewlekłym, nieswoistym zapaleniem kości biodrowej. W kontrolnych badaniach obrazowych obserwowano zwiększenie masy guza, a obraz w RM miednicy i scyntygrafii (<sup>99m</sup>Tc) uznano za

In June 2022, the girl was transferred to the Rheumatology Clinic, where a proliferative process was excluded, and the diagnosis of CNO was confirmed. Treatment was initiated with intravenous bisphosphonates at a dose of 1 mg/kg in 3-day cycles every 3 months, along with methotrexate. As a result of the treatment, improvement was observed, including a reduction in the affected area (Fig. 2) and resolution of pain.

**Conclusions:** Chronic non-bacterial osteomyelitis is a relatively rare disease that, due to the lack of specific biochemical markers and varied clinical presentation, poses a diagnostic challenge. It requires multi-specialty differential diagnosis, with a particular focus on ruling out oncological conditions.



**Fig. 1.** Computed tomography of the pelvis (February 2022) and T1 FSE sequence MRI (April 2022).

**Ryc. 1.** Tomografia komputerowa miednicy (luty 2022 r.) oraz rezonans magnetyczny w sekwencji T1 FSE (kwiecień 2022 r.).



**Fig. 2.** Computed tomography of the pelvis (April 2024).

**Ryc. 2.** Tomografia komputerowa miednicy (kwiecień 2024 r.).

niejednoznaczny. W TK klatki piersiowej stwierdzono zmiany mogące odpowiadać zmianom zapalnym lub przerzutowym. W czerwcu 2022 r. dziewczynka została przekazana do Kliniki Reumatologii WSSDz im. św. Ludwika w celu dalszej diagnostyki, gdzie po wykonaniu kolejnych badań obrazowych i szeregu konsultacji wielospecjalistycznych ostatecznie wykluczono proces rozrostowy. Rozpoznano CNO i rozpoczęto leczenie bisfosfonianami dożylnie w dawce 1 mg/kg w cyklach trzydniowych raz na 3 miesiące oraz metotreksatem. W wyniku zastosowanego leczenia uzyskano poprawę w postaci zmniejszenia obszaru zajętego procesem chorobowym (ryc. 2) oraz ustąpienie bólu.

**Wnioski:** Przewlekłe niebakteryjne zapalenie kości i szpiku jest stosunkowo rzadką jednostką chorobową, która z uwagi na brak specyficznych markerów biochemicznych i różnicowany obraz kliniczny stanowi wyzwanie diagnostyczne wymagające wielospecjalistycznej diagnostyki różnicowej, ze szczególnym uwzględnieniem chorób onkologicznych.

**Table I.** Laboratory test results

Laboratory test	Result
CRP	0.17 mg/dl (0.0–0.5)
ESR	25 mm (3–15)
PCT	0.022 mg/ml (< 0.5)
Hb	13.2 g/dl (12.2–18.1)
Ca	2.58 mmol (2.20–2.70)
Ca <sup>2+</sup>	1.28 mmol/l (1.15–1.45)
P	1.25 mmol/l (1.05–1.70)
PTH	25.7 pg/ml (15–65)
ALP	164 U/l (0–300)
Vitamin D	28.4 ng/ml (30–80)
Osteocalcin	114.50 ng/ml (11–43)

**Tabela I.** Wyniki badań laboratoryjnych

Badanie	Wynik
CRP	0,17 mg/dl (0,0–0,5)
OB	25 mm (3–15)
PCT	0,022 mg/ml (< 0,5)
Hb	13,2 g/dl (12,2–18,1)
Ca	2,58 mmol (2,20–2,70)
Ca <sup>2+</sup>	1,28 mmol/l (1,15–1,45)
P	1,25 mmol/l (1,05–1,70)
PTH	25,7 pg/ml (15–65)
ALP	164 U/l (0–300)
Witamina D	28,4 ng/ml (30–80)
Osteokalcyna	114,50 ng/ml (11–43)