

Controversias diagnósticas y terapéuticas del Adamantinoma en tibia distal. *Diagnostic and therapeutic controversies of adamantinoma in the distal tibia.*

Gonzalo Palomo¹ , Marthelena Acosta² , Miguel Molano³ .

Fecha de recepción: 09/03/2025. Fecha de aceptación: 12/06/2025.

Resumen

Introducción: El Adamantinoma es un tumor maligno de bajo grado, bifásico con cúmulos de células epiteliales rodeadas de un componente osteofibroso, típicamente encontrado en la tibia. Representa desafíos diagnósticos, dado que entre las patologías diferenciales posibles están Osteosarcomas, Displasia Osteofibrosa, Sarcomas de Ewing y carcinomas metastásicos y la interpretación histoquímica e inmunohistoquímica es compleja. **Reporte de caso:** Paciente femenina de 19 años de edad quien debutó con una lesión ubicada en la metafisis distal de la tibia izquierda, posterior a la aplicación de protocolo oncológico se determinó se trataba de un Adamantinoma clásico en Estadio IA de Enneking. **Discusión:** Por otra parte, si bien en la literatura existe consenso en cuanto a que el tipo de resección necesaria es la resección amplia, es distinta la situación en cuanto al modelo de reconstrucción en la tibia distal ya que existen propuestas muy variadas, sin embargo, en todos es factible que existan déficits residuales, en nuestro caso se logró mediante osteogénesis por distracción múltiple finalizando en artrodesis tibio astragalina, una reconstrucción funcional y anatómica bastante aceptable. **Rev Venez Cir Ortop Traumatol, 2025, Vol 57 (1): 69-78.**

Palabras Clave: Neoplasias de Tejido Óseo, Biopsia, Adamantinoma, Oncología quirúrgica, Procedimientos Quirúrgicos.

Nivel de Evidencia: 4

Abstract

Introduction: Adamantinoma is a low-grade, biphasic, malignant tumor with clusters of epithelial cells surrounded by an osteofibrous component, typically found in the tibia. It represents diagnostic challenges, given that possible differential pathologies include osteosarcomas, osteofibrous dysplasia, Ewing sarcomas, and metastatic carcinomas, and histochemical and immunohistochemical interpretation is complex. **Case report:** A 19-year-old female patient presented with a lesion located in the distal metaphysis of the left tibia. After application of an oncologic protocol, it was determined to be a classic Enneking Stage IA adamantinoma. **Discussion:** Although there is consensus in the literature that the necessary type of resection is a wide resection, the situation differs regarding the reconstruction model for the distal tibia, as there are very varied proposals. However, residual deficits are likely to exist in all of them. In our case, this was achieved through multiple distraction osteogenesis, resulting in a tibiotalar arthrodesis, a fairly acceptable functional and anatomical reconstruction. **Rev Venez Cir Ortop Traumatol, 2025, Vol 57 (1): 69-78.**

Key Words: Bone Neoplasms, Biopsy, Adamantinoma, Surgical Oncology, Surgical Procedures.

Level of evidence: 4

Introducción

El Adamantinoma (Ad) es un tumor poco frecuente, representa menos del 0,5% de todos los tumores esqueléticos primarios.

Definido por la Organización Mundial de la Salud como: Tumor maligno bifásico con cúmulos de células epiteliales rodeadas de un componente osteofibroso de células fusiformes relativamente insignificante, apareciendo con mayor frecuencia en la diáfisis media de la tibia, con o sin compromiso del peroné. Su pico de aparición es entre los 20 y 50 años de edad, el sexo más afectado es el masculino, aunque el Ad se presenta más tempranamente en mujeres, entre los 11 y 30 años^{1,2}. Los síntomas iniciales son

¹Jefe de la Unidad de Oncología Ortopédica del Estado Monagas. ²Jefe Sección Patología Osteoarticular Instituto Anatomopatológico Dr. José Antonio O' Daly UCV. ³Jefe de la Unidad de Trauma Complejo del Hospital "Manuel Núñez Tovar".

Autor de correspondencia: Gonzalo Palomo: email: gpalomo3@gmail.com
Instituciones que respaldan esta investigación: Unidad de Oncología Ortopédica del Estado Monagas. Centro de Especialidades de Cirugía Ortopédica y Traumatología Oriente.
Conflictos de interés: Los autores declaran que no existen conflictos de interés.

inespecíficos y dependen de la localización anatómica de la lesión y su extensión. Este tumor causa fractura patológica en 16-23% de los pacientes, pero los síntomas cardinales son dolor e inflamación local, generalmente leve o moderado^{3,4}.

En la radiografía simple, generalmente aparece como una lesión lítica lobulada excéntrica, a veces central, con márgenes escleróticos de radiolucidez superpuesta, con delineación pobre o nítida, en los dos tercios distales de la diáfisis o metáfisis de la tibia. La resonancia magnética, al estar especializada en revelar lesiones de tejidos blandos, parece ser el examen más apropiado para el diagnóstico diferencial entre el Ad y otros tumores esqueléticos, como la Displasia Fibrosa u Osteofibrosa, el Osteosarcoma, el Sarcoma de Ewing y el carcinoma metastásico.

En cuanto a la biología de estos tumores, algunos estudios han indicado que las células con fenotipo epitelial son muy probablemente el elemento maligno. Aún existe debate sobre si la parte fibrosa debe considerarse como un elemento neoplásico benigno de un tumor bifásico o como un tejido reactivo no neoplásico junto a un tumor óseo epitelioide, considerando que en la realización de estudios adicionales la actividad proliferativa generalmente se evidencia mayormente en el componente epitelial⁵.

Tres patrones morfológicos principales son reconocidos: El Adamantinoma clásico, el Adamantinoma displasia osteofibrosa-like y el Adamantinoma desdiferenciado, basándose la diferencia de los dos primeros en la extensión del componente epitelial y en el caso de los desdiferenciados en

cambios sarcomatosos del componente epitelial. Los Adamantinomas clásicos pueden mostrar variedad en su aspecto histológico mostrando estructuras tubulares, nidos de componente escamoso queratinizado, componente epitelial fusocelular o bien esclerosis extensa⁶⁻⁹. En el diagnóstico inmunohistoquímico de los Adamantinomas es fundamental la identificación del componente epitelial con el cual muestra expresión de queratinas de amplio espectro, EMA, vimentina y p63. El componente epitelial además tiene una diferenciación basal que se demuestra con la positividad a citoqueratina 5, citoqueratina13 y citoqueratina 19⁶. Un patrón recurrente de anomalías numéricas en los cromosomas 7, 8, 12, 19 y/o 21 ha sido documentado en los Adamantinomas clásicos, así como los Adamantinomas displasia osteofibrosa-like, y extra copias de uno a más de estos cromosomas (excepto el 19) han sido identificados en displasias osteofibrosas, soportando la teoría de que estas lesiones pudieran originarse de lesiones preexistentes de este tipo^{6,10}.

El tratamiento preferido para este tumor implica su resección en bloque dentro de amplios márgenes operatorios, que pueden incluir ganglios linfáticos regionales sospechosos, con reconstrucción de la extremidad¹; además, existen varias estrategias que apuntan a reconstruir el defecto del hueso extirpado, como la osteogénesis por distracción, los aloinjertos intercalares, los autoinjertos peroneos vascularizados y las prótesis o endoprótesis hechas a medida. Realizar una amputación como tratamiento del Adamantinoma no aumenta la supervivencia en comparación con las técnicas quirúrgicas anteriores, sin

embargo, cuando ocurre una recurrencia local o no hay otra opción disponible, se podría plantear la amputación. La radioterapia y la quimioterapia se consideran tratamientos ineficaces con respecto a este tumor específico¹.

El presente reporte hace referencia a un caso clínico de una paciente con un Adamantinoma en tibia distal, los procesos diagnósticos utilizados y la propuesta terapéutica ofrecida a la paciente, haciendo una revisión de la literatura sobre los aspectos controversiales reportados sobre un tumor de este tipo en una ubicación anatómica de tan difícil reconstrucción.

Reporte de caso

Se trata de paciente femenina de 19 años de edad, oficio estudiante, quien consultó el 19 de agosto del 2024, a la Unidad de Oncología Ortopédica del Estado Monagas referida por presentar tumor en tibia izquierda encontrado radiológicamente por clínica de dolor moderado en el tobillo izquierdo. Al examen físico de ingreso a la unidad: paciente en buenas condiciones generales, eupneica, hidratada, cardiopulmonar estable, ruidos cardíacos rítmicos y regulares, murmullo vesicular sin alteraciones, TA: 120/75 mmHg. Frecuencia cardíaca 82 latidos por minutos, frecuencia respiratoria: 20 latidos por minutos. Abdomen blando deprimible, sin visceromegalia, sin defensa abdominal. Neurológicamente sin alteraciones, no hay trastornos motores ni sensoriales en las extremidades, no se aprecia deformidad importante en el tobillo izquierdo, pero si hay zonas dolorosas a la digitopresión, no hay

cambios de turgencia en la piel, ni red venosa colateral. Los estudios radiológicos de ingreso en tibia distal izquierda en zona metafisaria se aprecia área osteolítica de patrón geográfico, de aproximadamente 5 centímetros de diámetro, con presencia de septos intracavitarios, importante adelgazamiento cortical. En tercio distal de peroné izquierdo pequeña área lítica de menos de un centímetro de diámetro. Se solicitan estudios de extensión: RMN DE TOBILLO: se aprecia lesión metafisaria con aparente respeto de la zona epifisaria, hiperintensa en T2 e hipointensa en T1 que se origina en la cortical lateral y se extiende hacia zona medular en todas las direcciones, permanece intraósea, la lesión no se aprecia homogénea en todo su trayecto presentando cambios en la intensidad de señal, en distintos focos. GAMMAGRAMA ÓSEO: este estudio marca lesión hipercaptante única en tercio distal de tibia izquierda. TAC DE TORAX: No demuestra presencia de lesiones secundarias pulmonares. (Figura 1).

Se realizó biopsia por *trucut* el 21-08-2024, se obtienen 8 cilindros de tejido neoplásico viable y se incluyen en solución de formalina al 10%, se envían para estudio.

ESTUDIO HISTOPATOLÓGICO: Valoración hecha por patólogo experto en huesos, el reporte fue dado el 29-08-2024. (Biopsia N00121 Lat. SP): la muestra está constituida por células fusiformes (de aspecto fibroblástico), con núcleos aguzados, basófilos, algunos ligeramente irregulares e hipercromáticos, rodeados por citoplasma eosinofílico denso; las células se disponen en masas sólidas. El estroma es denso con áreas hialinizadas, e importante vascularización, los vasos son

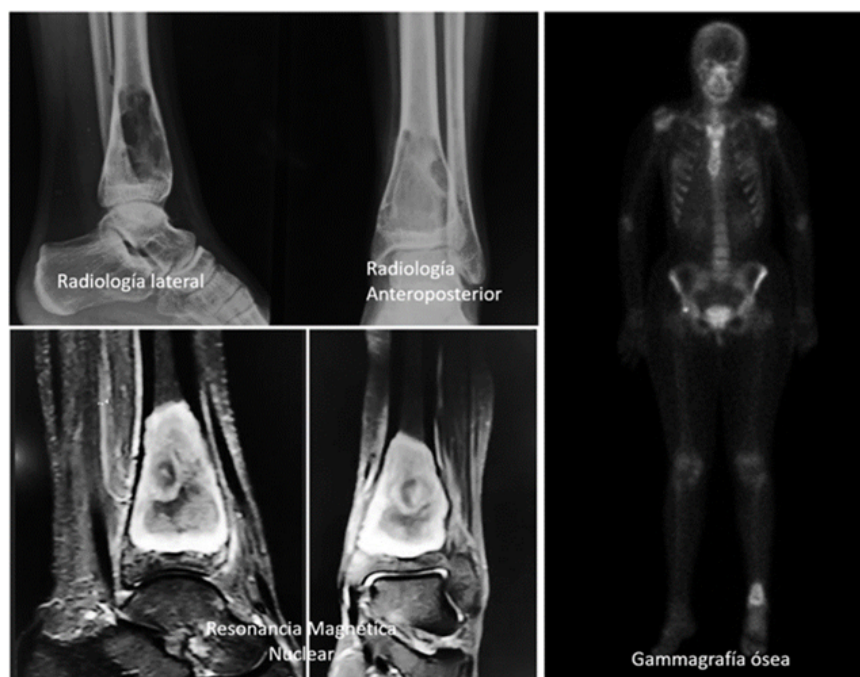


Figura 1. Estudios imagenológicos que incluyen: Radiología, Resonancia magnética de la pierna izquierda y Gammagrafía ósea, se demuestra localización y extensión de la lesión.

predominantemente capilares, algunos congestivos; no se identifican figuras mitóticas o necrosis en el material en estudio. Los hallazgos histológicos son sugestivos de Fibroma Desmoplásico localizado en metáfisis distal de tibia. Se recomienda inmunohistoquímica. La muestra es enviada entonces a laboratorio en la ciudad de Caracas (Lat. Marín I-03003-24) el 03 de septiembre, valorada por otro patólogo experto en huesos, evidenciándose una lesión con moderada celularidad constituida por células fusiformes con escaso citoplasma de núcleos hipercromáticos inmersas en abundante matriz colágena hialinizada (Figura 2A), se realiza estudio de inmunohistoquímica observando marcaje positivo para: Citoqueratina AE1/AE3 (Figura 2B) y p63 (Figura 2C), demostrando presencia de componente epitelial complejo, siendo negativo al Antígeno de

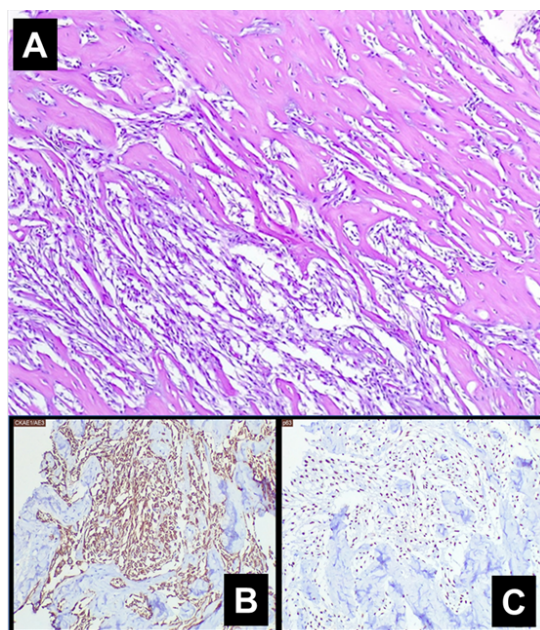


Figura 2. (A) Aspecto morfológico de la lesión. Coloración hematoxilina-eosina aumento 20x. Estudio de inmunohistoquímica: (B) Citoqueratinas de amplio espectro (CKAE1/AE3) aumento 20x. (C) p63 aumento 20x.

membrana epitelial, MDM2, ERG y CD34 con una actividad proliferativa de 5%, por lo que se concluye como Adamantinoma clásico de patrón morfológico fusocelular colagenizado. Siendo el Adamantinoma una lesión intraósea con expresión difusa a marcadores epiteliales, el principal diagnóstico diferencial debió establecerse con una lesión metastásica epitelial, motivo por el cual, se recomienda correlacionar estos hallazgos con estudios de extensión de la paciente a fin de descartar esa posibilidad, por lo que se solicita: TAC TORACOABDOMINOPÉLVICO CON DOBLE CONTRASTE, no encontrándose lesiones primarias epiteliales malignas ocultas en este estudio. Se estadifica en ESTADIO: IA (Enneking)

Se procede entonces a propuesta terapéutica, en nueva reunión clínica con paciente y familiares, se sugiere:

1. Realizar resección oncológica amplia que incluye resección de segmentos distales de tibia y peroné de 10 centímetros para establecer suficiente margen oncológico.
2. Reconstrucción con autoinjerto obtenido (transporte óseo) por distracción multifocal que culmine en artrodesis tibio astragalina.
3. Evaluación por oncología clínica. La propuesta es aceptada y consentida por paciente y familiares.

Es ingresada para tratamiento quirúrgico el 01 de octubre del 2024: bajo anestesia general, previo posicionamiento en decúbito ventral previa asepsia y antisepsia y colocación de campos estériles, se procede con incisión arciforme sobre cara anterior del tercio distal de pierna izquierda a realizar cuidadosa disección de planos musculares articulares y ligamentarios del tercio distal de la tibia izquierda para

liberar las porciones óseas afectadas por el tumor, se hace osteotomía para reseccionar 9 centímetros aproximadamente de tercio distal de la tibia y el peroné (Figura 3A,B y C), se corrobora hemostasis y se cierra herida operatoria, en dos planos. Posteriormente se realiza estabilización mediante sistema de fijación externa tipo Ilizarov, luego de lo cual, se procede a realizar triple osteotomía de la tibia proximal y media, dejando la alineación adecuada de las balas óseas

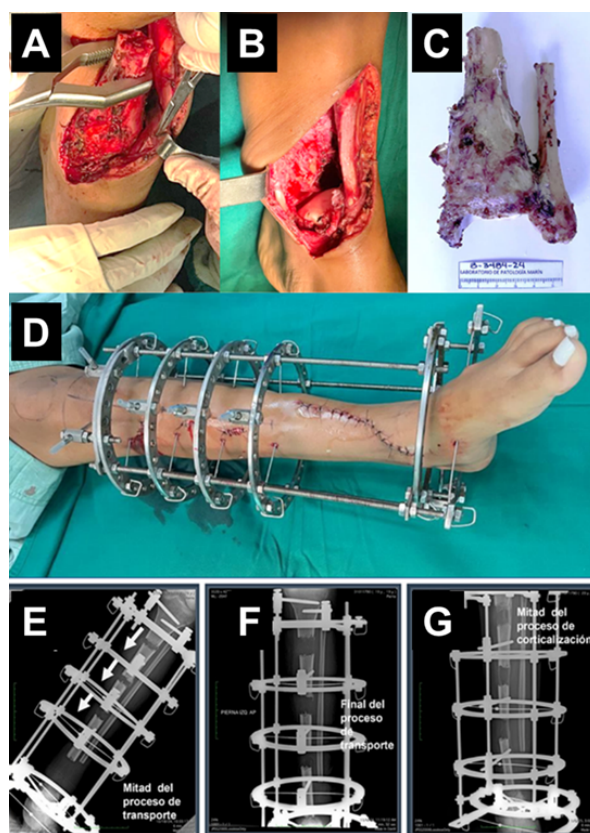


Figura 3. (A, B y C) Resección Oncológica de margen amplio, lo que incluyó el retiro en bloque de 10 centímetros de tercio distal de Tibia Izquierda. (D) Montaje del sistema de Transporte óseo (Ilizarov) utilizado en este caso con triple foco de distracción ósea. (E, F y G) Proceso de reconstrucción mediante osteogénesis por distracción culminando en artrodesis tibio-astragalina.

para su posterior traslado progresivo (Figura 3D). Se cierran las pequeñas heridas de osteotomías y se dejan apósitos húmedos. Se envía pieza anatómica para análisis histopatológico. La cirugía tuvo una duración de 6 horas: dos horas de resección y cuatro horas de reconstrucción. Posteriormente en su post operatorio, se siguió el siguiente esquema de transporte óseo: 3 focos de movilización simultánea. Tiempo antes del inicio de la distracción: 10 días; Velocidad de traslado 1 milímetro/diario cada foco. Distancia global a cubrir por el transporte: 9 centímetros (90 milímetros), a una velocidad de 3mm diarios, se logró la meta antes de cumplir el mes. Se realizaron controles radiológicos a las dos semanas, al culminar el transporte y durante la corticalización (Figura 3E, F y G).

El proceso de artrodesis tibio astragalina se logró: en 8 semanas. La corticalización se dejó avanzar durante: 3 meses, se hizo conversión de fijación externa a interna con placa LCP larga, al cumplir 5 meses (Figura 4).

En anatomía patológica en Caracas, se recibe pieza quirúrgica correspondiente a segmento de tibia y peroné. La tibia midió 8,5cm de longitud con diámetros variables entre 8 y 14cm. La superficie externa era irregular, con superficie articular sin lesiones macroscópicas significativas. El peroné midió 8,5cm de longitud con diámetros variables entre 4 y 4,5cm, con superficie articular lisa, se identificó área irregular con cortical erosionada a nivel de cara interna, que coincide con hallazgos imagenológicos observados previos a la cirugía. Al corte coronal de la tibia y a 2,5cm del borde de resección proximal, se identificó la lesión de aspecto tumoral que midió 5 x 3 x 2,8cm, se encontraba a 1cm de la superficie



Figura 4. Conversión de Fijación externa a fijación interna para completar proceso de corticalización de la Tibia y asegurar artrodesis Tibio astragalina.

articular, blanquecina, homogénea, de consistencia semifirme confinada al hueso, pero con compromiso de la cortical. El resto del espacio medular de la tibia era de aspecto habitual (Figura 5). A la exploración

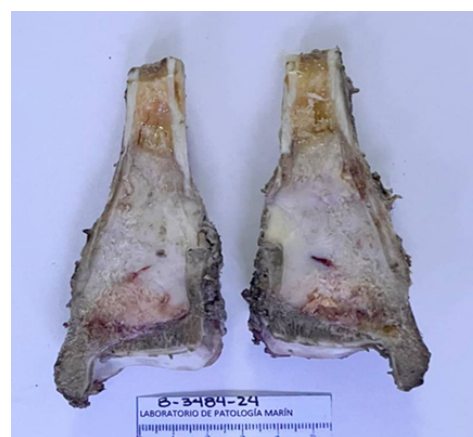


Figura 5. Aspecto macroscópico de la pieza en corte coronal.

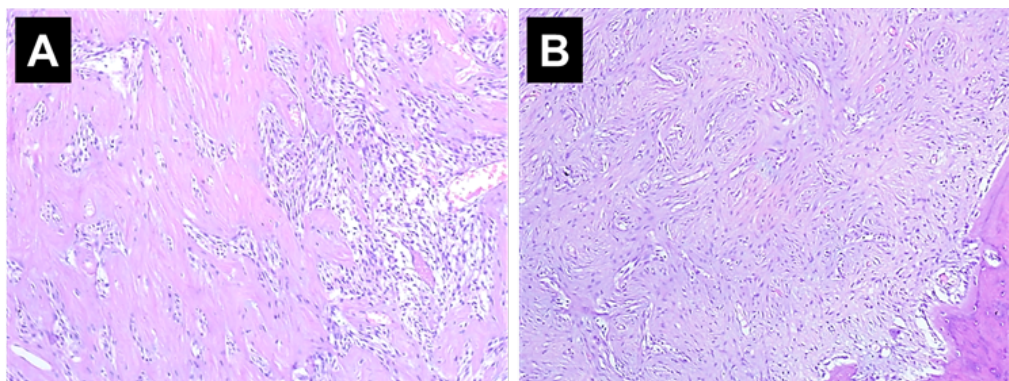


Figura 6. (A) Aspecto morfológico de la pieza quirúrgica, coloración hematoxilina – eosina, aumento 20x. Áreas similares a las observadas en la biopsia previa. (B) Aspecto morfológico, coloración hematoxilina – eosina, aumento 20x de áreas periféricas en relación a la cortical, de aspecto displasia osteofibrosa – like/displasia osteofibrosa.

del peroné, se identifica área erosiva descrita previamente, sin otras lesiones macroscópicas significativas. Se incluyó de este material muestras representativas para estudio histológico definitivo, en el cual posterior al procesamiento y en estudio histológico se identificó una lesión neoplásica constituida por células fusiformes con discretas atipias inmersas en matriz colagenizada densa (Figura 6A), con una actividad mitótica de 1 mitosis \times mm^2 y con áreas periféricas con aumento del componente estromal y presencia de islas de células de aspecto epitelioides (Figura 6B). La lesión se encontraba confinada a la cortical de la estructura ósea de la tibia sin sobrepasarla, se concluye el estudio de la pieza como un Adamantinoma clásico de patrón morfológico fusocelular colagenizado con áreas periféricas de displasia osteofibrosa – like.

Discusión

El presente caso expone situaciones controversiales médicas causadas por la

aparición de una neoplasia muy infrecuente, de diagnósticos diferenciales complejos en una localización esquelética de difícil reconstrucción. Fue un importante reto diagnóstico en el que se mostraba una lesión fusocelular densamente colagenizada, la cual al estudio de inmunohistoquímica expresa no solo citoqueratinas de alto peso, siendo esto lo clásico para estos tumores, sino adicionalmente marcaje a citoqueratinas de bajo peso como las citoqueratinas 8/18 que si bien está reportado puede ocurrir hasta en un 33% de los casos¹¹, sugiere dentro de los planteamientos diagnósticos otras entidades que podrían estar simulando esta lesión, el más importante en esta disertación lo representaría un *Sarcoma de Ewing Adamantinoma – like* el cual fue descartado por la negatividad al NKX2.2 y Fli1. Por otra parte, resulta interesante analizar que la expresión a CK8/18 cuando está presente en casos como estos, ha sido en relación a *Adamantinomas Displasia Osteofibrosa-like*, que si bien es un término controversial y algunos autores plantean que ésta entidad sigue refiriéndose a una

Displasia Osteofibrosa, se considera en el presente caso que el Adamantinoma Clásico observado se trate de la progresión de una lesión preexistente que fue visualizada en la periferia de la pieza quirúrgica, ya que el patrón de marcaje obtenido para la CKAE1/AE3 en dicha periferia es cónsono con áreas de Displasia Osteofibrosa, siendo además esto soportado por estudios que demuestran que estas lesiones comparten características moleculares, validando la idea de que el Adamantinoma pueda, si bien no en todos, en algunos casos originarse de lesiones preexistentes^{6,10,12}, adicionalmente la lesión se mostró en ubicación distal-metafisaria, la cual ciertamente no es una localización del todo típica para estas lesiones, sin embargo, están reportados hasta un 30% de los casos con esta ubicación así como con imágenes muy similares a la del presente caso⁸, argumentos por los que se mantiene el diagnóstico de: *ADAMANTINOMA CLÁSICO DE PATRÓN MORFOLÓGICO FUSOCELULAR COLAGENIZADO EN TIBIA IZQUIERDA CON ÁREAS PERIFÉRICAS DE DISPLASIA OSTEOFIBROSA-LIKE/DISPLASIA OSTEOFIBROSA.*

La otra situación especialmente compleja se refiere a las alternativas de reconstrucción en oncología ortopédica cuando debe lograrse la restitución anatómica del tercio distal de la tibia después de resear 9 centímetros, porque elementos biomecánicos hacen deficitario cualquier esfuerzo en lograrlo, ya que: los tejidos blandos alrededor del hueso son escasos, discurren en forma muy íntima estructuras vasculares y nerviosas debido a la forma de embudo que tiene el tobillo, y adicional a esto, las estructuras estabilizadoras remanentes posterior a la resección tienden a ser escasas al momento de reconstruir. Los aloinjertos estructurales

osteo-cartilagosos, generalmente terminan artrodesándose ya que se crea una situación de artrosis e inestabilidad precoz. Las prótesis no han dado los resultados de estabilidad requeridos, evidentemente la mortaja tibio-astragalina en su complejidad estructural y funcional aún no ha encontrado un sustituto en la ingeniería médica que supla sus funciones y permita en el tiempo la durabilidad necesaria en este tipo de reconstrucciones. Vincent Y. y colaboradores¹³ en una revisión sobre el uso de aloinjertos en sarcomas de tibia distal opinaron que los cirujanos y los pacientes deben prepararse para un tratamiento prolongado que puede incluir múltiples complicaciones y cirugías. En la mayoría de los casos, se pueden lograr resultados excelentes o moderados, pero puede ser necesaria la amputación en el 15-20 % de los casos. Zhiqing Zhao y colaboradores (14) consideran que la preservación de la extremidad produce mejores resultados funcionales en comparación con la amputación, afirman que la reconstrucción biológica es más recomendable que el reemplazo protésico y, además señalan que el autoinjerto es el método reconstructivo óptimo en lo que respecta a un mejor resultado funcional posoperatorio y menos complicaciones importantes. Por todo lo anterior, se decidió en este caso, luego de una adecuada resección oncológica (demostrada por el reporte de anatomía patológica), reconstruir mediante una técnica que nos permitía recuperar un hueso autólogo, oxigenado, biológicamente activo en menos de un mes por un procedimiento de osteogénesis por distracción con tres focos de osteotomía finalizando con artrodesis tibio-astragalina. Teng-Fei Lou y colaboradores¹⁵ evaluaron la técnica de resección artrodesis en tibia distal mediante osteogénesis por distracción, en cinco pacientes con

sarcomas óseos, los resultados mostraron una efectividad significativa, con una unión sólida en el sitio de alargamiento y una fusión adecuada del tobillo en todos los casos. Señalan que esta técnica quirúrgica híbrida representa una opción de tratamiento prometedora para los sarcomas óseos en la tibia distal, especialmente en pacientes con grandes defectos óseos. Karol Mochocki y colaboradores¹⁶ señalan en su estudio, que la artrodesis de tobillo con alargamiento simultáneo del miembro inferior mediante fijador de Ilizarov, tiene un enfoque particularmente útil en casos complejos donde se necesitan tanto la estabilidad del tobillo como la corrección de la longitud de la pierna. Ashraf A Khanfour¹⁷ señala en su trabajo que la técnica de Ilizarov ofrece varias ventajas en la artrodesis de tobillo, especialmente en casos difíciles ya que promueve la consolidación ósea efectiva, permite al paciente apoyar peso sobre el pie más pronto, facilita la corrección de la posición del pie que requiera realizarse, y puede ayudar a resolver problemas como infecciones o no unión.

Es evidente que algunos aspectos pueden ser contraproducentes en este método reconstructivo, uno de ellos es el referente a las cicatrices que genera el traslado de los pines por las partes blandas y la piel además del tiempo que pueda necesitarse para cumplir la distracción y corticalización del nuevo hueso, lo cual, repercute en el reinicio y reeducación de la marcha, pero en nuestro caso se disminuyó considerablemente, al realizar tres focos de distracción simultánea lo que dio una importante reducción en la etapa de distracción y el recambio de fijación externa a interna para complementar la etapa de corticalización, además durante todo el

proceso pudo suplementarse con terapia física dirigida al acondicionamiento muscular.

El presente trabajo, denota algunos elementos controversiales diagnósticos y terapéuticos, que confluyen en un caso clínico, seguido y tratado con criterios oncológicos primordialmente y en segunda instancia con criterios funcionales racionales. Es notable la presencia de una neoplasia muy infrecuente en las estadísticas mundiales de tumores óseos, con diagnósticos imagenológicos e histológicos diferenciales muy complejos que requirió procedimientos reconstructivos de difícil decisión por la región anatómica afectada.

Referencias

1. Varvarousis DN, Skandalakis GP, Barbouti A, Papathanakos G, Filis P, Tepelenis K, *et al.* Adamantinoma: An Updated Review. *In Vivo*. 2021 Nov-Dec;35(6):3045-3052. doi: 10.21873/invivo.12600.
2. Aytekin MN, Öztürk R, Amer K. Epidemiological Study of Adamantinoma from US Surveillance, Epidemiology, and End Results Program: III Retrospective Analysis. *J Oncol*. 2020 Jun 16;2020:2809647. doi: 10.1155/2020/2809647.
3. Petaros A, Šantić V, Vuković AS, Perić P, Jonjić N. Recurrent Adamantinoma With Fibrous Dysplasia-like Feature. *Clin Pathol*. 2024 Apr 7;17:2632010X241240391. doi: 10.1177/2632010X241240391.
4. Smyth SL, Siddiqi A, Athanasou N, Whitwell D, Soleymani Majd H. Adamantinoma: A review of the current literature. *J Bone Oncol*. 2023 Jun 22;41:100489. doi: 10.1016/j.jbo.2023.100489.
5. Bovée JV, van den Broek LJ, de Boer WJ, Hogendoorn PC. Expression of growth factors and their receptors in adamantinoma of long bones and the implication for its histogenesis. *J Pathol*. 1998 Jan;184(1):24-30. doi: 10.1002/(SICI)1096-9896(199801)184:1<24::AID-PATH952>3.0.CO;2-W.

6. Nielsen GP, Hogendoorn PCW. Adamantinoma of long bones. En: Fletcher CDM, Bridge JA, Hogendoorn P, Mertens F, editores. WHO Classification of Tumours of Soft Tissue and Bone. 5th ed. Lyon: WHO Press; 2020.
7. Jo VY, Antonescu CR, Zhang L, Dal Cin P, Hornick JL, Fletcher CD. Cutaneous syncytial myoepithelioma: clinicopathologic characterization in a series of 38 cases. *Am J Surg Pathol.* 2013 May;37(5):710-8. doi: 10.1097/PAS.0b013e3182772bba.
8. Czerniak B. Adamantinoma of long bones. En: *Bone Tumors*, 2nd edition. Elsevier; 2016. p. 1154-1185.
9. Keeney GL, Unni KK, Beabout JW, Pritchard DJ. Adamantinoma of long bones. A clinicopathologic study of 85 cases. *Cancer.* 1989 Aug 1;64(3):730-7. doi: 10.1002/1097-0142(19890801)64:3<730::aid-cnrcr2820640327>3.0.co;2-p.
10. Jain D, Jain VK, Vasishta RK, Ranjan P, Kumar Y. Adamantinoma: a clinicopathological review and update. *Diagn Pathol.* 2008 Feb 15;3:8. doi: 10.1186/1746-1596-3-8.
11. Benassi MS, Campanacci L, Gamberi G, Ferrari C, Picci P, Sangiorgi L, *et al.* Cytokeratin expression and distribution in adamantinoma of the long bones and osteofibrous dysplasia of tibia and fibula. An immunohistochemical study correlated to histogenesis. *Histopathology.* 1994 Jul;25(1):71-6. doi: 10.1111/j.1365-2559.1994.tb00600.x.
12. Exner G, Schai P, Bühler T, Kurrer M, Forster N. (2022) Osteofibrous Dysplasia-Like Adamantinoma of the Tibia Diagnosed at Age 6 Years Progressing into a Classic Adamantinoma over 39 Years, Reconstruction Performed by a Modified Capanna Technique: A Case Report. *Open Journal of Orthopedics*, 12, 335-344. doi:10.4236/ojo.2022.127032.
13. Ng VY, Louie P, Punt S, Conrad EU. Allograft Reconstruction for Sarcomas of the Tibia. *Open Orthop J.* 2017 Mar 22;11:189-194. doi: 10.2174/1874325001711010189. PMID: 28458731;
14. Zhao Z, Yan T, Guo W, Yang R, Tang X, Wang W. Surgical options and reconstruction strategies for primary bone tumors of distal tibia: A systematic review of complications and functional outcome. *J Bone Oncol.* 2018 Dec 4;14:100209. doi: 10.1016/j.jbo.2018.100209.
15. Lou TF, Li H, Chai YM, Wang CY, Liu SH, Hamushan M, Wu F, Cai WJ, Han P. Resection arthrodesis using distraction osteogenesis then plating as a hybrid surgical technique for the management of bone sarcomas of the distal tibia. *Int Orthop.* 2018 Mar;42(3):705-711. doi: 10.1007/s00264-018-3811-4.
16. Mochocki K, Górski R, Żarek S, Szellerski Ł, Małydk P. Ankle Arthrodesis with Simultaneous Lengthening of the Lower Limb Using the Ilizarov Fixator. *Ortop Traumatol Rehabil.* 2018 Dec 31;20(6):465-474. doi: 10.5604/01.3001.0012.8393.
17. Khanfour AA. Versatility of Ilizarov technique in difficult cases of ankle arthrodesis and review of literature. *Foot Ankle Surg.* 2013 Mar;19(1):42-7. doi: 10.1016/j.fas.2012.10.001. Epub 2012 Oct 26. PMID: 23337276.