

Sinovitis villonodular pigmentada de la articulación tibioperonea distal

A propósito de 1 caso

B. SERAL GARCÍA, J. GIL ALBAROVA, T. CASTIELLA y F. SERAL ÍÑIGO

Departamento de Cirugía y Obstetricia. Facultad de Medicina de Zaragoza. Servicio de Traumatología y Cirugía Ortopédica. Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa. Zaragoza.

Resumen.—La sinovitis villonodular pigmentada localizada en el tobillo es una entidad poco frecuente. Presentamos el caso de 1 paciente de 57 años de edad, con discreto dolor y disestesias en el dorso del pie, con una imagen osteolítica en la radiología convencional y cuyo diagnóstico anatomopatológico fue de tenosinovitis nodular pigmentada. En este artículo se revisan aspectos diagnósticos y terapéuticos de la sinovitis villonodular pigmentada en el tobillo, aportando 1 caso poco frecuente de afectación neurológica periférica.

PIGMENTED VILLONODULAR SYNOVITIS OF THE ANKLE JOINT. A CASE REPORT

Summary.—The pigmented villonodular synovitis of the ankle joint is rare. We report a 57-year-old male patient with pain and diffuse dysaesthesia at the right foot, with an osteolysis in the X-ray image. The histological diagnosis was diffuse form of pigmented villonodular synovitis. The present paper reports a rare case of periferic nerve compression of the foot, and we analyze several diagnostic and therapeutical aspects of this entity.

INTRODUCCIÓN

Un importante número de tumores benignos y lesiones pseudotumorales tienen su origen en la sinovial de las articulaciones y de las vainas tendinosas. La sinovitis villonodular pigmentada es un proceso proliferativo benigno que conduce a una osteólisis del hueso y de la articulación. Su presentación clínica puede ser muy inespecífica. El diagnóstico es anatomopatológico, con gran variabilidad en la proporción de células mononucleares, células gigantes y células xantomatosas. Dada la gran variedad histológica ha recibido diferentes denominaciones. Ocasionalmente aparecen características especiales como figuras de mitosis que pueden llevar al diagnóstico erróneo de sarcoma sinovial. Para algunos autores se trata de un fenómeno poco frecuente, fundamentalmente focal sin producir

metástasis a distancia. Ocasionalmente se confunden con procesos benignos localizados en las proximidades de las vainas tendinosas, como son granulomas a cuerpo extraño, granulomas necrobióticos, xantomas tendinosos y fibromas de las vainas tendinosas (1).

Son raros los casos que se presentan con alteración nerviosa periférica. Se han descrito varios casos de sinovitis villonodular pigmentada localizada en la cadera con afectación neurológica del nervio femoral (2). Nosotros presentamos 1 caso poco frecuente de sinovitis villonodular pigmentada localizada en el tobillo con clínica compatible con afectación del nervio peroneo superficial.

CASO CLÍNICO

Paciente varón de 57 años de edad remitido a nuestras consultas por presentar una tumoración en el tobillo izquierdo de al menos 10 años de evolución, con alteraciones sensitivas tipo disestesias en el dorso del pie izquierdo. Entre los antecedentes personales destacaban: alergia al AAS y herniorrafía inguinal hace 30 años.

Correspondencia:

Dr. BELÉN SERAL GARCÍA
P.º Constitución, 25, 2.º dcha.
50001 Zaragoza



Figura 1. Tumorción de 6 X 8 cm de diámetro, de consistencia moderada, en la sindesmosis tibioperonea distal adherida a planos profundos.

A la exploración se palpaba una tumorción de 6 x 8 cm de diámetro en la sindesmosis tibioperonea distal izquierda, de consistencia dura, adherida a planos profundos, que no limitaba la movilidad del tobillo (Fig. 1). Clínicamente tenía dolor a la palpación en el maléolo peroneo izquierdo. Presentaba una marcha normal de puntillas y de talones, con una distancia mano-suelo de 10 cm. Los ROT estaban presentes y eran simétricos. En la exploración sensitiva presentaba ciertas disestesias en el dorso del pie. A nivel cutáneo presentaba varicosidades con pulsos distales conservados.

En la analítica destacaba en el hemograma una leucocitosis de 10.300 con desviación izquierda, con una VSG de 5. En la radiología estándar se observaba una lesión osteolítica de bordes esclerosos en la sindesmosis tibioperonea distal (Fig. 2). En la exploración gammagráfica destacaba una hipercaptación de partes blandas a nivel del tobillo. En la RNM se observaba una voluminosa lesión de intensidad baja, de contornos lobulados, con zonas heterogéneas en su interior, con afectación de las estructuras óseas adyacentes de la porción distal del peroné y también de la porción externa de la parte distal de la tibia, sin afectación de la articulación tibioastragalina (Fig. 3).

El 7 de junio de 1995 se realizó una arteriografía selectiva de la extremidad inferior izquierda, vía femoral izquierda, y posterior embolización, sin complicaciones inmediatas, observándose una tumorción en el tobillo irrigada por 2 vasos que dependían de las arterias tibiales anterior y posterior, y la arteria peronea que se detenía en la tumorción irrigándola y sin salida distal. Se procedió a la embolización de la arteria peronea con partículas de Contour de 700 a 1.000 micras, obteniéndose un buen resultado, con buena irrigación del pie, conservándose el arco dorsal y plantar (Figs. 4 y 5).

El 20 de noviembre se intervino quirúrgicamente, objetivándose una tumorción de color marrón, en reloj de arena, a nivel de la articulación tibioperonea inferior. La tumorción estaba delimitada, sin invadir partes blandas, aunque sí estaba adherida a tibia y peroné,



Figura 2. Imagen osteolítica en la sindesmosis tibioperonea distal.

donde erosionaba las superficies tibioperoneas produciendo zonas cavitarias (Fig. 6).

En decúbito lateral y mediante una incisión anterolateral se liberaron y protegieron los troncos sensitivos regionales, resecando la parte anterior hasta la articulación tibioperonea. Mediante una incisión posterolateral se liberó la masa situada entre ambos peroneos y tendón de Aquiles y se resecó, realizándose un curetaje de las zonas óseas cavitarias de la articulación tibioperonea.

El estudio macroscópico de la pieza quirúrgica la describía como tumor de superficies lisas e irregulares, de color pardo rojizo y consistencia moderada. El estudio microscópico observaba una proliferación histiocitaria con células de núcleos vesiculosos y nucléolo prominente, con cierta atipia y alguna mitosis. Las células tenían gran cantidad de pigmento; en muchas áreas había grupos de células xantomatosas y escasas células gigantes. Esta lesión infiltraba y destruía la cortical ósea (Fig. 7). El diagnóstico fue de «tumor de células gigantes tenosinovial de tipo difuso y nodular» (tenosinovitis vellonodular pigmentada, forma florida o proliferativa).

El paciente permaneció con una férula de yeso durante 3 semanas, iniciando carga total con bastones ingleses. A los 2 meses de la intervención quirúrgica no se

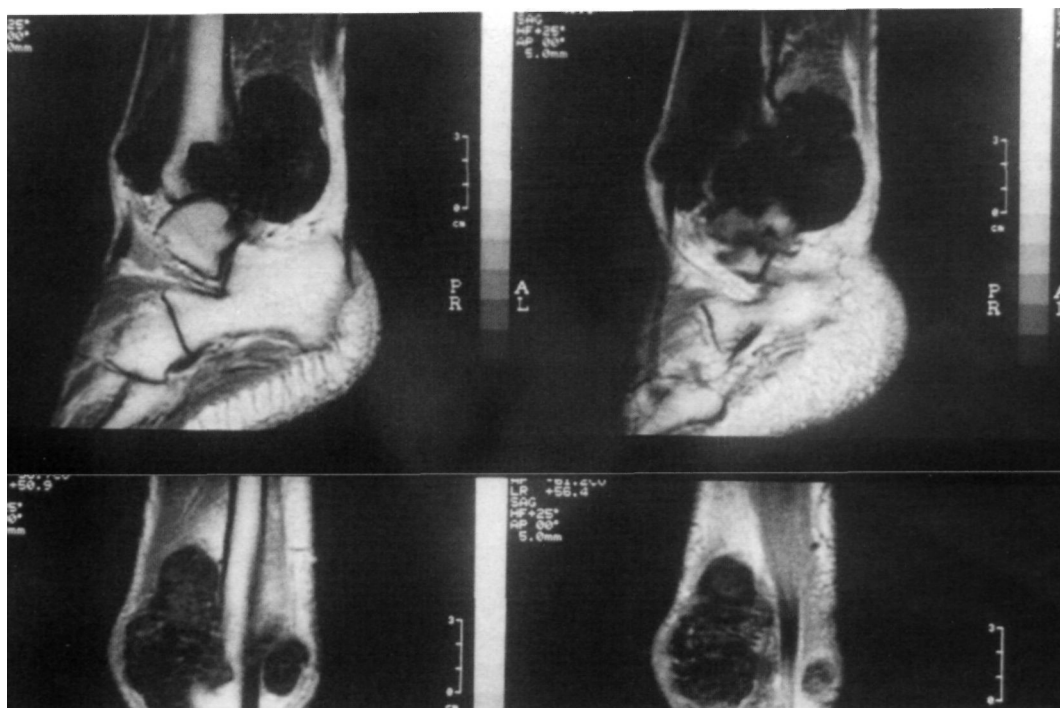


Figura 3. En RM, tumor en reloj de arena, heterogéneo, en la sindezmosis anterior y posterior.

palpaban tumoraciones, presentando una movilidad completa e indolora del tobillo. Se realizó nueva valoración clinicorradiológica al año de la intervención mediante la realización de una RNM, en la que no se observaba recidiva (Fig. 8).

DISCUSIÓN

La sinovitis vellonodular pigmentada es una entidad poco frecuente que se desarrolla en la tercera y cuarta década de la vida, con afectación similar de los varones y las mujeres. La rodilla es la articulación afectada con más frecuencia seguida de la cadera y el tobillo (1, 3-5).

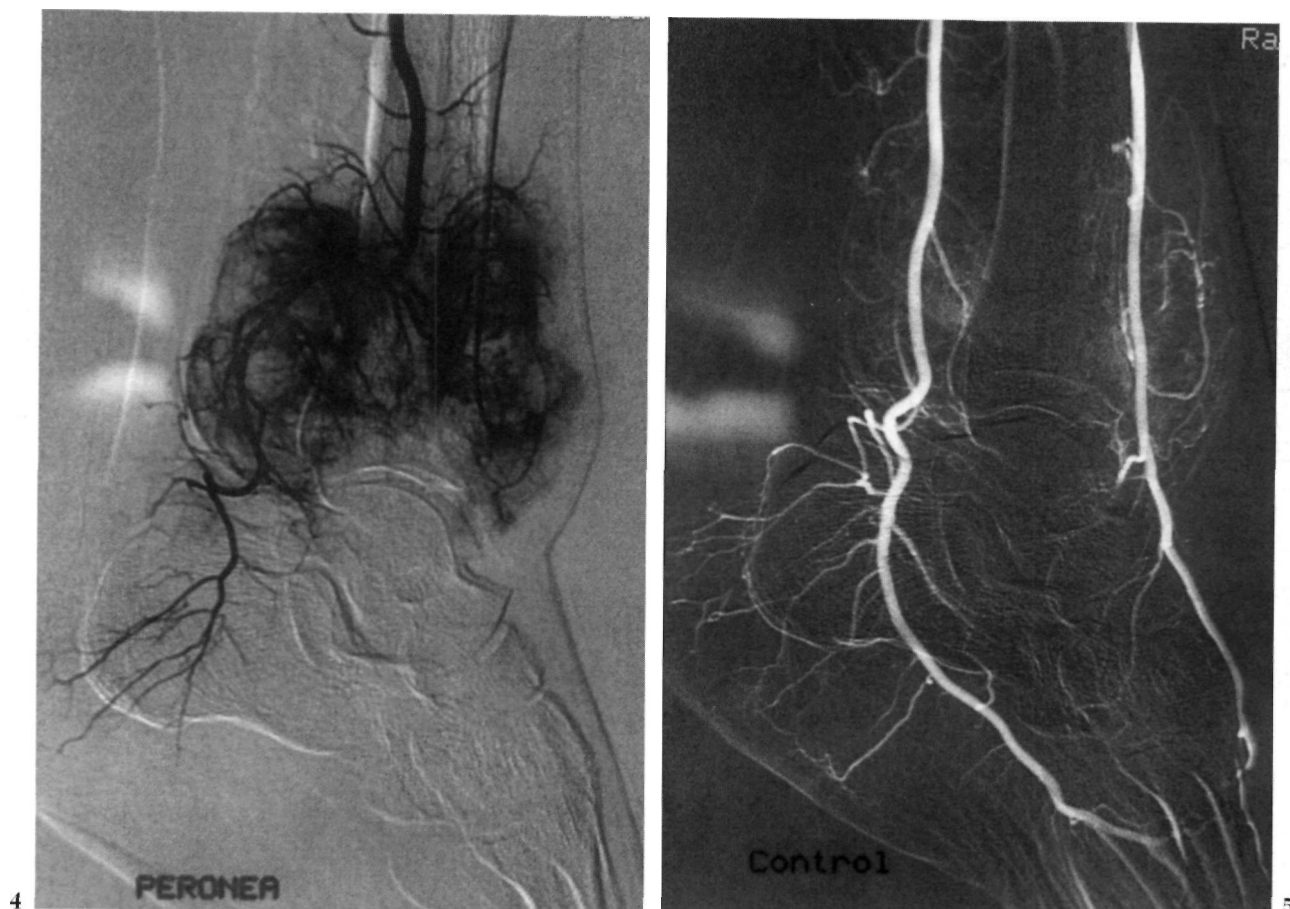
La descripción más importante la realizaron Jaffe et al (6), quienes consideraron la sinovial de las vainas tendinosas, la bolsa serosa y la articulación como una unidad anatómica que podía dar lugar a distintas lesiones de la misma familia en las que se incluían tumores de células gigantes (tenosinovitis nodular), sinovitis nodular pigmentada localizada o difusa y casos excepcionales de sinovitis vellonodular pigmentada extraarticular originada a partir de una bursitis pigmentada. Las diferencias en la extensión y crecimiento dependen de la localización anatómica.

La patogenia de este tipo de lesiones está en constante revisión. Se han descrito múltiples factores que pueden influir; en la mitad de los casos aparece un antecedente traumático. Para otros

autores es un problema multifactorial. Se han descrito también lesiones similares tras la inyección intraarticular de sangre en animales de experimentación. En la actualidad estudios de diagnóstico molecular con análisis citogenéticos establecen la naturaleza exacta de la lesión, pudiendo localizar la alteración genética responsable de la transformación maligna de una célula normal. Bridge et al han sugerido que se trata de un proceso reactivo (7). Sackers et al, mediante la inactivación del cromosoma X, evalúan una lesión de sinovitis vellonodular pigmentada en una paciente de 47 años y demuestran un origen policlonal o reactivo (8). Un origen neoplásico es apoyado por la capacidad de este tipo de lesiones de presentar un crecimiento autónomo.

Arenas et al aportan 1 caso raro de lesión circunscrita de la rodilla a nivel del paquete adiposo de Hoffa. Un joven de 16 años con antecedente traumático sobre la tuberosidad tibial anterior, inicialmente asintomático, cuya exploración radiológica evidenció una calcificación en la inserción distal del tendón rotuliano. Dada la clínica dolorosa, al año de evolución se decide su extirpación incluyendo la grasa de Hoffa en su totalidad. En la revisión a los 2 años estaba asintomático, sin signos de recidiva (3).

Caso Martínez et al presentan 2 casos clínicos de sinovitis vellonodular pigmentada localizada en



Figuras 4 y 5. Aporte vascular de la tumoración (peronea, tibial posterior y tibial anterior) (4); tras la embolización de la arteria peronea (5).

la cadera que debutaron con clínica dolorosa y limitación funcional importante, con destrucción lítica del cotilo y cabeza femoral, ambos candidatos a una artroplastia de cadera. Destacan la artroplastia de cadera como procedimiento de elección en casos de alteración articular grave, con el problema que las artroplastias plantean en las personas jóvenes. Se debe asociar una sinovectomía completa para evitar recidivas (4).

García Sandoval aporta 1 caso raro de sinovitis vellonodular pigmentada en el tobillo. Presentaba clínica dolorosa de 3 años de evolución, con una tumefacción global. En la radiología se apreciaba una zona lítica en la parte externa del astrágalo. Se intervino realizando una sinovectomía, curetaje del foco lítico y relleno con injerto de hueso esponjoso. La revisión a los 4 meses era satisfactoria sin recidiva (5).

Aunque por regla general la sintomatología se atribuye a la afectación intraarticular, puede aparecer en forma de tumoración de partes blandas

con afectación neurológica. Aboulafta et al describieron 3 casos de pacientes afectados de una sinovitis vellonodular pigmentada de cadera con hipoestesia en la parte anterior del muslo. En 1 paciente cuya tumoración era anterior tenía paresia en la extensión de la rodilla; otro paciente cuya tumoración era posterior presentaba clínica compatible con irritación del nervio ciático. En 2 de los 3 casos los cambios articulares de la cadera eran mínimos, mientras que en el tercero la erosión intraarticular era muy extensa en el momento de la presentación. La variabilidad en la extensión intraarticular o periarticular asociado con una sinovitis vellonodular pigmentada no parece tener correlación con la presencia o ausencia de una tumoración en partes blandas. Por eso es importante pensar en esta entidad ante un paciente que presente una masa de partes blandas con afectación neurológica y con mínimas o nulas alteraciones articulares (2).

Huene et al (9), diseccionando 26 cadáveres, hacen una descripción anatómica de la inervación del nervio peroneo superficial que lleva la sensibi-

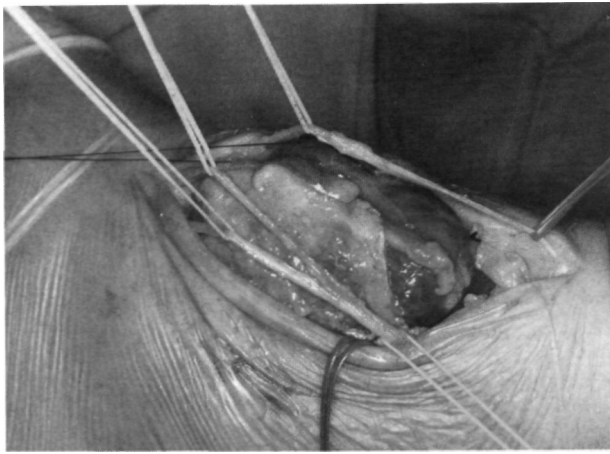


Figura 6. Incisión anterolateral, tumor pardo rojizo que no invadía partes blandas.

lidad cutánea a la parte anterolateral del tobillo y dorsal del pie. Distalmente al cuello del peroné el nervio peroneo común se divide en profundo y superficial. El nervio peroneo superficial penetra por la fascia crural a unos 12 cm por encima del tobillo y se divide en el tercio distal de la extremidad en el nervio cutáneo dorsal intermedio y en el nervio cutáneo dorsal medial. El nervio cutáneo dorsal intermedio comunica con el nervio cutáneo dorsal lateral, rama del nervio sural en la parte media del pie para dar sensibilidad a la parte lateral del pie y tobillo, tercero, cuarto y quinto dedos. El nervio cutáneo dorsal medial inerva el dorso del pie, primero, segundo y tercer dedos.

En nuestro paciente había ciertas disestesias en el dorso del pie, sin trastornos motores, probablemente por irritación de alguna de estas ramitas nerviosas cutáneas que proporcionan la sensibilidad distal.

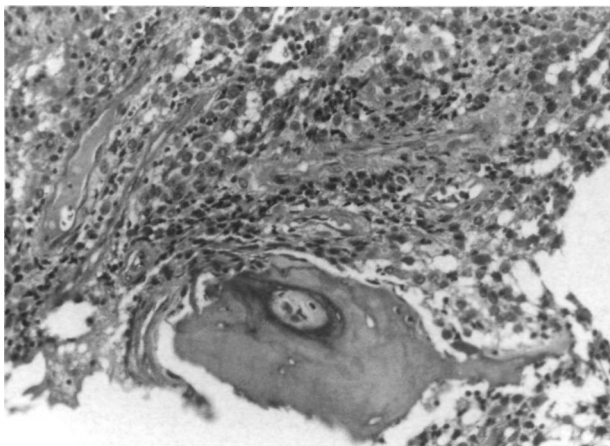


Figura 7. Proliferación histiocitaria con células de núcleos vesiculosos y nucléolo prominente, con cierta atipia y alguna mitosis. Esta lesión infiltra y destruye la cortical ósea.



Figura 8. Control en RM al año de la intervención.

Dependiendo de las características histológicas se dividen en formas localizadas y difusas. Las formas localizadas afectan con más frecuencia a los dedos de la mano, tanto a la sinovial de las vainas tendinosas como a la articulación interfalángica. Las formas difusas afectan a zonas adyacentes a articulaciones que soportan el peso como son la rodilla y el tobillo, que en muchas circunstancias presentan una extensión extraarticular de una sinovitis vellonodular pigmentada.

A diferencia de la forma localizada, la forma difusa es bastante rara. Se diagnostica antes de los 40 años, con ligero predominio en el sexo femenino, con larga duración de los síntomas, frecuentemente de años. En muchos casos con flogosis articular, hemartros, limitación de la movilidad y falta de compromiso articular. Por orden de frecuencia la distribución anatómica es la rodilla, seguido del tobillo y el pie. Radiológicamente la imagen de tumor de partes blandas es evidente y puede acompañarse de osteoporosis, de aumento del espacio articular y de erosión cortical del hueso adyacente. La arteriografía puede sugerir malignidad debido a la gran vascularización y al relleno precoz del sistema venoso. Estas lesiones presentan mayores problemas de diagnóstico que las formas localizadas por la importante celularidad, la extensión y la desestructuración (1).

Coincidiendo con García Sandoval et al pensamos que el diagnóstico no es fácil debido a su rareza, su clínica inespecífica y lenta con ligero dolor y muy discreta alteración funcional. Las analíticas son normales. La TAC muestra con más claridad las lesiones y permite la caracterización de los tumores de tejidos blandos. Aun así es necesario un

amplio diagnóstico diferencial. El diagnóstico siempre se confirma por biopsia y estudio anatomopatológico.

En la literatura no hay unanimidad en la conducta y tratamiento a seguir en la sinovitis villonodular pigmentada. Los casos descritos tienen un seguimiento corto. El pronóstico es incierto, un 25-50% de los pacientes intervenidos presentan recidivas. El tratamiento deseable es intentar una excisión completa sin crear al paciente una importante discapacidad. La elección del tratamiento va a depender de la edad del paciente, de los cambios articulares degenerativos, de la clínica y de la extensión extraarticular (2). Así pues, si se afecta la articulación de la ro-

dilla una sinovectomía vía artroscópica es suficiente. Sin embargo, si se trata de una gran masa extraarticular la sinovectomía no va a ser suficiente para la resección total de la lesión. Si existiera una lesión osteolítica debería curetarse y rellenarse con injertos óseos. Una artrodesis o una artroplastia de cadera estaría indicado en casos de destrucción importante intraarticular o simplemente en un esfuerzo de controlar la enfermedad. Existen también un elevado porcentaje de recidivas que depende de la extensión del proceso y del éxito quirúrgico. El riesgo de recidiva aumenta cuanto más largo sea el seguimiento. Nuestro paciente, intervenido hace 1 año, no ha requerido una segunda intervención.

Bibliografía

1. Enzinger FM, Weiss SW. Soft tissue tumors. Benign tumors and tumorlike lesions of synovial tissue. St. Louis, Missouri: Ed. Mosby; 1995;28:735-54.
2. Stalder H, Romero J, Dietz V. Extrapelvic compression of the femoral nerve: an uncommon cause of hip pain. Case report. Hip International 1996;6(3):129-33.
3. Arenas AJ, Córdoba A, Pampliega A, et al. Sinovitis villonodular pigmentada localizada en el paquete adiposo de Hoffa. Rev Ortop Traum 1995;39:323-7.
4. Caso Martínez J, Agote Jemein JA, González Galarraga JJ, et al. Sinovitis villonodular pigmentada de la cadera. Aspectos diagnósticos y terapéuticos. Rev Ortop Traum 1995;39:266-9.
5. García MA, Menéndez G, Velasco J, et al. Sinovitis villonodular pigmentada del tobillo. Rev Ortop Traum 1995;39:56-9.
6. Jaffe HL, Lichtenstein L, Sutro CJ. Pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis. Arch Pathol 1941;31:731.
7. Bridge JA. Cytogenetic and molecular cytogenetic techniques in orthopaedic surgery. J Bone Joint Surg 1993;75A(4):606-14.
8. Sakkars RJB, De Jong D, Van der Heul RO. X-chromosome inactivation in patients who have pigmented villonodular synovitis. J Bone Joint Surg 1991 ;73A: 1532-6.
9. Huene DB, Bunell WP. Operative anatomy of nerves encountered in the lateral approach to the distal part of the fibula. J Bone Joint Surg 1995;77A:1021-4.