



CASO CLÍNICO

EPISÓDIOS DE DERRAME ARTICULAR DE REPETIÇÃO E GONALGIA ANTERIOR EM ADOLESCENTE – RELATO DE CASO DE SINOVITE VILONODULAR PIGMENTADA DO JOELHO

*Ana Costa Pinheiro, Carolina Oliveira, Bruno Pombo, Margarida Areias, Cristina
Sousa, Francisca Gonzalez*

Serviço de Ortopedia e Traumatologia da Unidade Local de Saúde do Alto Minho, Viana do Castelo

Ana Costa Pinheiro, Carolina Oliveira, Bruno Pombo, Margarida Areias
Interno Ortopedia ULSAM

Cristina Sousa, Francisca Gonzalez
Assistente Ortopedia ULSAM

Submetido em 03 dezembro 2015

Revisto em 15 janeiro 2017

Aceite em 27 fevereiro 2017

Tipo de Estudo: Caso Clínico

Nível de Evidência: V

Declaração de conflito de interesses: Nada a declarar.

Correspondência

Ana Costa Pinheiro

Serviço de Ortopedia e Traumatologia

Unidade Local de Saúde do Alto Minho

Estrada de Santa Luzia

4901-858 Viana do Castelo

Telefone: 91 433 58 60

ana.alexandra.pinheiro@gmail.com

RESUMO

A sinovite vilonodular pigmentada (SVNP) do joelho constitui uma lesão tumoral singular caracterizada pela proliferação de células sinoviais, devendo esta entidade ser incluída no diagnóstico diferencial da gonalgia anterior.

A SVNP do joelho é difícil de diagnosticar devido à sua raridade e localização intra-articular, possuindo a ressonância magnética uma função relevante.

Os autores apresentam um caso clínico de SVNP do joelho em adolescente seguida na consulta externa de Ortopedia por gonalgia direita e episódios de derrame articular de repetição. A paciente foi submetida a ressecção artroscópica das lesões e sinovectomia. A cirurgia e o pós-operatório decorreram sem intercorrências, verificando-se o alívio da gonalgia e do derrame articular. Após 2 anos de follow-up não se registou evidência de recidiva.

O objetivo deste trabalho é alertar a comunidade médica de que apesar de rara e de difícil diagnóstico, a SVNP do joelho, deve ser incluída no diagnóstico diferencial da dor anterior do joelho associada a episódios de derrame articular de repetição, nomeadamente nas crianças e adolescentes em crescimento. Os pacientes não tratados adequadamente podem evoluir para destruição articular, daí a importância do diagnóstico e tratamento atempado.

Palavras chave: *Joelho, adolescente, sinovite vilonodular pigmentada, tratamento, Artroscopia.*

ABSTRACT

The anterior knee pain is a common problem and a diagnostic and therapeutic challenge. Pigmented villonodular synovitis (PVNS) is a rare tumor lesion characterized by the proliferation of synovial cells and whose differential diagnosis must be included in the anterior knee pain. The synovial tumors are difficult to diagnose due to their rarity and intraarticular location, presenting magnetic resonance imaging an important role in their detection.

The authors present a case of pigmented villonodular synovitis of the knee in an adolescent followed in orthopedic outpatient by right knee pain and recurrent joint effusion. She was submitted to arthroscopic lesions excision and synovectomy.

Surgery and postoperative elapsed uneventful and there was relief from knee pain and strokes and there were no signs of recurrence.

The aim of this study is to alert the medical community that although rare and difficult to diagnose, the PVNS of the knee, should be included in the differential diagnosis of anterior knee pain associated with recurrent joint effusion, particularly among children and adolescents. Patients not adequately treated can develop into joint destruction, hence the importance of diagnosis and timely treatment.

Key words: *Knee, adolescent, pigmented villonodular synovitis, treatment, Arthroscopy.*

INTRODUÇÃO

A dor anterior do joelho constitui uma queixa comum, apresentando-se ainda como um desafio diagnóstico e terapêutico¹.

A sinovite vilonodular pigmentada (SVNP) é definida como uma lesão tumoral invulgar caracterizada pela proliferação de células sinoviais e cujo diagnóstico diferencial deve ser incluído na gonalgia anterior^{2, 3}.

Os tumores sinoviais do joelho são difíceis de diagnosticar devido à sua raridade e localização intra-articular, apresentando a ressonância magnética nuclear (RMN) uma função relevante^{4,5}.

A SVNP, tenossinovite vilonodular pigmentada e a bursite vilonodular pigmentada constituem um espectro de uma patologia rara, representada pela proliferação benigna da membrana sinovial das articulações, bainhas tendinosas e bursas, respectivamente^{2,6,7}.

A SVNP é rara em crianças e adolescentes, sendo mais habitual em pacientes entre os 20 e os 50 anos. Esta entidade apresenta leve predileção pelo sexo feminino⁸⁻¹¹.

A etiologia da SVNP não está ainda designada, podendo estar relacionada a episódios de hemartrose de repetição, processo neoplásico benigno, resposta a estímulos desconhecidos ou a episódios de trauma repetitivos^{2,12}.

A SVNP pode atingir diversas articulações, atingindo o joelho em 80% dos casos^{2,3}. Esta entidade pode afigurar-se sob dois padrões desiguais: a forma localizada (SVNPL) e a difusa (SVNPD), na qual a membrana sinovial da articulação afetada é atingida parcial ou totalmente, respectivamente^{2,3}. De referir que a SVNPL afigura-se, frequentemente, menos intensamente pigmentada e com menor proliferação vilositária².

Os sintomas clínicos da SVNP dependem da localização intra-articular ou extra-articular. A dor e o edema constituem os sintomas clínicos mais frequentemente associados ao tipo intra-articular^{2-4,10}.

O tratamento da SVNP assenta na ressecção da lesão por via artroscópica e/ou aberta, todavia a recidiva local pode ocorrer em 18-46% dos casos^{4,10,12}.

Os autores apresentam um caso clínico de SVNP do joelho em adolescente seguida em consulta externa de ortopedia por gonalgia direita e episódios de

derrame articular de repetição.

O objetivo deste trabalho é alertar a comunidade médica de que apesar de rara e de difícil diagnóstico, a SVNP do joelho, deve ser incluída no diagnóstico diferencial da dor anterior do joelho associada a episódios de derrame articular de repetição, nomeadamente nas crianças e adolescentes em crescimento.

RELATO DO CASO

Paciente do sexo feminino, 14 anos, sem antecedentes patológicos de relevo, enviada a consulta externa por gonalgia à direita e episódios de derrame articular de repetição, sem história traumática aparente. A paciente referia dor na região anterior do joelho direito de carácter mecânico, na ausência de “falhas” ou bloqueios. No exame objetivo apresentava hidrartrose moderada do joelho direito e dor à palpação da interlinha articular externa.

Não foram observados desvios de eixos, cicatrizes ou atrofia muscular. Foi ainda constatada a preservação das mobilidades ativas e a estabilidade anteroposterior e varo/valgo do joelho direito. As provas meniscais foram negativas. A radiografia simples do joelho nas incidências anteroposterior e perfil não manifestava anomalias (Figura 1).

A RMN do joelho revelou uma formação nodular na região intercondiliana, com cerca de 1.6cm, de maior eixo axial, apresentando um sinal intermédio em T1, intermédio/baixo sinal em T2, com perda de sinal nas sequências de eco de gradiente. Tratava-se de uma lesão

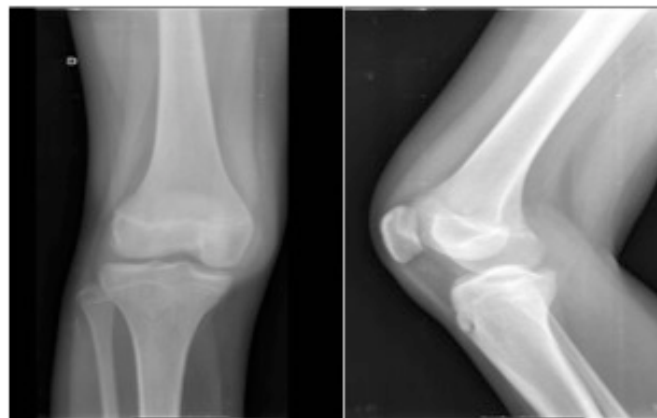


Figura 1-Radiografia do joelho direito incidência face e perfil, normal.

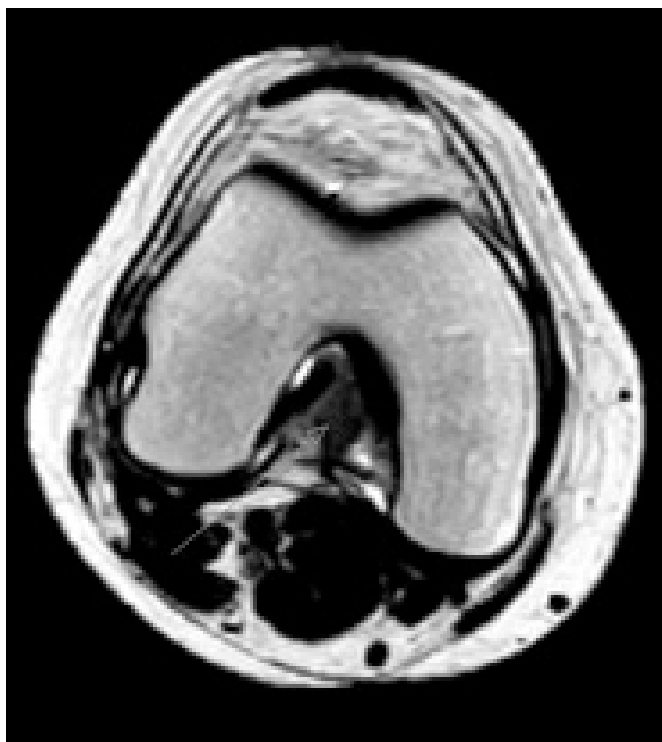


Figura 2- RMN do joelho: Esquerda- Sequência axial T2 gradiente eco com focus de queda de sinal por suscetibilidade magnética. Direita- Sequência sagital T1.

inespecífica, que dado o seu comportamento deveria levar a considerar um processo de sinovite focal, com alguns focos de hemossiderina (com comportamento vilonodular ou não). O facto de não existirem calcificações, demonstradas no estudo radiográfico complementar, desfavorecia a possibilidade de se tratar de um condroma (Figuras 1 e 2).

A paciente foi submetida a excisão cirúrgica das lesões (macroscopicamente avermelhadas/acastanhadas, daí a denominação sinovite pigmentada, devido à presença da hemossiderina intra e extracelular) e sinovectomia do joelho por

artroscopia. Durante o procedimento artroscópico foi visualizado o acometimento dos ligamentos cruzado anterior e posterior, sendo que os meniscos não estavam envolvidos (Figuras 3).

As lesões excisadas foram enviadas para estudo anatomopatológico (Figura 4), que revelou tratar-se de lesões correspondentes a SVNP do joelho. (Figura 5).

O exame histológico com hematoxilina e eosina demonstrou áreas de fibrose hialina e áreas de celularidade histiocitária com hemossiderina e cristais de colesterol (Figura 5.1- x2). Observaram-se ainda células histiocitárias espumosas (Figura 5.2- x20) e células gigantes multinucleadas e células histiocitárias mononucleares, com focos de hemossiderina (Figura 5.3- x40).

O período pós-operatório decorreu sem intercorrências, tendo a paciente cumprido programa de reabilitação funcional. A paciente foi orientada para Consulta Externa de Ortopedia. Após 2 anos de seguimento, a doente permanece assintomática, sem limitações nas atividades de vida diária e a RMN de controlo não revelou recidiva da lesão.

DISCUSSÃO

A nível mundial, a SVNP manifesta uma incidência global de 1.8 casos por milhão de habitantes/ano, sendo uma condição excecional em crianças^{2,3, 13}.

O mecanismo etiopatogénico subjacente da SVNP permanece ainda obscuro, sendo os fatores genéticos particularmente importantes nos casos que acometem a infância^{2,12}.

Como atentado neste relato de caso, a SVNP é uma patologia monoarticular e de carácter progressivo, acometendo principalmente as grandes articulações,



Figura 3-Ressecção artroscópica das lesões.



Figura 4- Imagem macroscópica das lesões excisadas.

sendo o joelho implicado em 80% dos casos na forma difusa^{2,3}.

A sintomatologia, devido à sua inespecificidade, contribui, frequentemente, para o atraso no estabelecimento do diagnóstico, constituindo um desafio ainda maior na criança em crescimento. A dor local, tumefação articular, massa palpável, rigidez articular, diminuição da amplitude de movimento e instabilidade articular representam os achados clínicos mais frequentes^{2-4, 10}.

O diagnóstico diferencial desta lesão tumoral intra-articular do joelho inclui desde a patologia neoformativa benigna à maligna, mormente o lipoma arborescens, o hemangioma sinovial, o neuroma

plexiforme, a osteocondromatose sinovial, o quisto sinovial, o condroma e o osteocondroma, a patologia reumatismal e ainda a patologia infecciosa^{5,14-16}.

O diagnóstico da SVNP é realizado através da conjugação da história clínica, exame físico, imagiologia e exame histológico¹⁷⁻¹⁹.

Como aconteceu no caso descrito, a radiografia é normal na maioria dos casos². A RMN constitui o exame complementar de eleição para o diagnóstico e acompanhamento desta entidade, pois possibilita discriminar as variadas estruturas intra-articulares e esclarecer as características e a extensão das lesões de tecidos moles^{4,5}. Como observado no caso apresentado, na RMN observam-se regiões específicas de baixo sinal nas sequências ponderadas em T1 e T2 que correspondem ao depósito de hemossiderina dentro da sinovial^{14-16,18}. Contudo, é de ressaltar que o diagnóstico irrevogável da SVNP é celebrado apenas pelo estudo histológico do tecido sinovial¹².

A paciente apresentada foi submetida a artroscopia para esclarecimento diagnóstico e para realização de sinovectomia completa e excisão das lesões. A histopatologia confirmou o diagnóstico de SVNP. Apesar da SVNP do joelho ser uma doença rara e de difícil diagnóstico, particularmente nas crianças

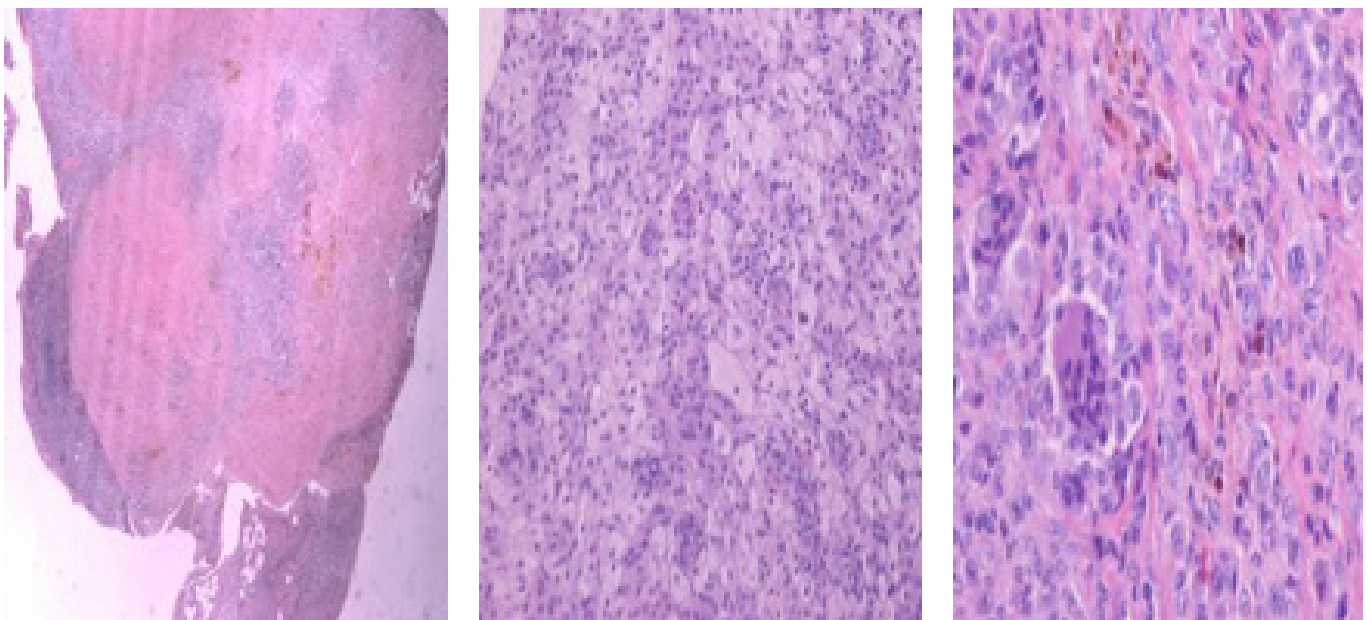


Figura 5- Estudo histológico das lesões excisadas:

Figura 5.1- x2 - Área de fibrose hialina e área de celularidade histiocitária com hemossiderina e cristais de colesterol.

Figura 5.2- x20 - Célula histiocitária espumosa(foam cell)

Figura 5.3- x40 HE - Célula gigante multinucleada e célula histiocitária mononuclear. Focos de hemossiderina

e adolescentes em crescimento, devemos ter em consideração esta patologia nos pacientes com gonalgia anterior associada a episódios de derrame articular de repetição.

Apesar da raridade, estão descritos na literatura vários relatos de casos semelhantes ao caso apresentado, podendo as lesões ocorrer em qualquer local no interior da articulação do joelho revestido com membrana sinovial, nomeadamente no ligamento cruzado posterior e ligamento cruzado anterior²⁰⁻²⁴.

O tratamento da SVNP na forma nodular consta da sinovectomia enquanto na forma difusa esta pode exibir alta taxa de recorrência²⁵⁻²⁹.

Os pacientes não tratados adequadamente podem evoluir para destruição articular, daí a importância do diagnóstico e tratamento atempado²⁵⁻²⁹.

Apesar de não ter sido realizada no caso descrito, este trabalho visa ainda alertar para a importância da realização de uma biópsia prévia que confirme o diagnóstico de SVNP, pois um diagnóstico incorreto pode conduzir a um tratamento inadequado e a um consequente desfecho fatal, sendo necessário excluir o diagnóstico de sarcoma epitelial primário da sinovial do joelho, que poderia exigir uma amputação³⁰. Optámos por realizar uma artroscopia do joelho com componente diagnóstico e terapêutico, na medida em que se se diagnosticasse outra patologia no exame histológico que exigisse um tratamento mais agressivo do que o realizado, trataríamos a patologia de acordo a *posteriori*.

Apesar da escassez dos estudos, decorrente da baixa incidência desta lesão, acreditamos que a excisão artroscópica das lesões características da SVNP associadas à sinovectomia constitui um método efetivo, de baixa morbidade, proporcionando a remissão dos sintomas e apresentando baixo índice de recidiva, tal como verificado no caso em estudo.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Post WR. Anterior Knee Pain: Diagnosis and Treatment. *J Am Acad Orthop Surg*. 2005 Dec;13(8):534-43.
2. Bouali H, Deppert EJ, Leventhal LJ, Reeves B, Pope T. Pigmented villonodular synovitis: a disease in evolution. *J Rheumatol*. 2004 Aug;31(8):1659-62.
3. BBojanic I, Ivkovic A, Dotlic S, Ivkovic M, Manojlovic S. Localized pigmented villonodular synovitis of the knee: diagnostic challenge and arthroscopic treatment: a report of three cases. *Knee Surg Sports Traumatol Arthrosc*. 2001 Nov;9(6):350-4.
4. Dürr HR, Stäbler A, Maier M, Refior HJ. Pigmented villonodular synovitis. Review of 20 cases. *J Rheumatol*. 2001 Jul;28(7):1620-30.
5. Goldman AB, DiCarlo EF. Pigmented villonodular synovitis. Diagnosis and differential diagnosis. *Radiol Clin North Am*. 1988 Nov;26(6):1327-47.
6. Granowitz SP, D'Antonio J, Mankin HL. The pathogenesis and long-term end results of pigmented villonodular synovitis. *Clin Orthop Relat Res*. 1976 Jan-Feb;(114):335-51.
7. Myers BW, Masi AT. Pigmented villonodular synovitis and tenosynovitis: a clinical epidemiologic study of 166 cases and literature review. *Medicine (Baltimore)*. 1980 May;59(3):223-38.
8. Neubauer P, Weber AK, Miller NH, McCarthy EF. Pigmented villonodular synovitis in children: a report of six cases and review of the literature. *Iowa Orthop J*. 2007;27:90-4.
9. Godoy F, Faustino C, Meneses C, Nishi S, Góes C, Canto A. Sinovite vilonodular pigmentada localizada: relato de caso. *Rev Bras Ortop*. 2011;46(4):468-71.
10. de Visser E, Veth RP, Pruszczynski M, Wobbes T, Van de Putte LB. Diffuse and localized pigmented villonodular synovitis: evaluation of treatment of 38 patients. *Arch Orthop Trauma Surg*. 1999;119(7-8):401-4.
11. Garner H, Ortiguera C, Nakhlen R. Pigmented villonodular synovitis. *Ra-diographics*. 2008; 28(5):1519-23.
12. Klomp maker J, Veth R, Robinson P, Molenaar W, Nielsen H. Pigmented villonodular synovitis. *Arch Orthop Trauma Surg* 1990; 109: 205-210.
13. Saulsbury F. Pigmented villonodular synovitis of the knee in a 9-year-old child. *South Med J* 2004; 97(1):80-82.
14. Hughes T, Sartoris D, Schweitzer M, Resnick D. Pigmented villonodular synovitis: MRI characteristics. *Skeletal Radiol*. 1995; 24(1):7-12.
15. Masih S, Antebi A. Imaging of pigmented villonodular synovitis. *Semin Musculoskelet Radiol* 2003; 7(3):205-16.
16. Papp D, Khanna A, McCarthy E, Carrino J, Farber A, Frassica F. Magnetic resonance imaging of soft-tissue tumors: determinate and indeterminate lesions. *J Bone Joint Surg Am*. 2007; 89(3):103-15.
17. Costallat B, Montagner S, Amstalden E, Ferreira D, Zoppi A, Costallat L. A case of villonodular synovitis of the shoulder in an adolescent: imaging and pathologic diagnosis. *Rev Bras Reumatol*, 2009; 49(1):70-80.
18. Murphey M, Rhee J, Lewis R, Fanburg-Smith J, Flemming D, Walker E. Pigmented villonodular synovitis: radiologic-pathologic correlation. *RadioGraphics*. 2008; 28:1493-1518.
19. Psarelis S, Wensley RG, Kourounis G, Hatzikosti M. Persistent knee effusion in a young female. *J Musculoskelet Neuronal Interact* 2015; 15(2):237-239.
20. Coventry M, Harrison Jr E, Martin J. Benign synovial tumors of the knee: a diagnostic problem. *J Bone Joint Surg Am* 1966; 48A:1350-8.
21. Huang GS, Lee CH, Chan WP, Chen CY, Yu JS, Resnick D. Localized nodular synovitis of the knee: MR imaging appearance and clinical correlates in 21 patients. *AJR* 2003; 181:539-43.
22. De Beuckeleer L, De Schepper A, De Belder F, Van Goethem J, Marques M, Broeckx J, et al. Magnetic resonance imaging of localized giant cell tumour of the tendon sheath (MRI of localized GCTTS). *Eur Radiol*. 1997;7(2):198-201.
23. Sheppard D, Kim E, Yasko A, Ayala A. Giant-cell tumor of the tendon sheath arising from the posterior cruciate ligament of the knee: a case report and review of the literature. *Clin Imaging* 1998;22:428-30.
24. Otsuka Y, Mizuta H, Nakamura E, Kudo S, Inoue S, Takagi K. Tenosynovial giant-cell tumor arising from the anterior cruciate ligament of the knee. *Arthroscopy*. 1996; 12:496-9.
25. Chiari C, Pirich C, Brannath W, Kotz R, Trieb K. What affects the recurrence and clinical outcome of pigmented villonodular synovitis? *Clin Orthop Relat Res* 2006; 450:172-8.
26. Mahieu X, Chaouat G, Blin J, Frank A, Hardy P. Arthroscopic treatment of pigmented villonodular synovitis of the shoulder. *Arthroscopy*. 2001;17(1):81-

- 7.
27. Toro F, Paulos J, Fuentes D, Sancy K. Total shoulder arthroplasty in pigmented villonodular synovitis: a case report. *J Shoulder Elbow Surg* 2002; 11(2):188-90.
28. Bynum C, Tasto J. Arthroscopic treatment of synovial disorders in the shoulder, elbow, and ankle. *J Knee Surg* 2002; 15(1):57-9.
29. Chiffolot X, Ehlinger M, Bonnomet F, Kempf JF. Arthroscopic resection of pigmented villonodular synovitis pseudotumor of the shoulder: a case report with three year follow-up. *Rev Chir Orthop Reparatrice Appar Mot* 2005; 91(5):470-5.
30. Chow LTC. Primary synovial epithelioid sarcoma of the knee: distinctly unusual location leading to its confusion with pigmented villonodular synovitis. *APMIS* 2015; 123: 350–358.