

V. SINOVITIS VELLONODULAR PIGMENTADA POLIARTICULAR: ESTUDIO CON MICROSCOPIA ELECTRONICA

Dr. Carlos D. Scognamillo, Docente del Departamento de Medicina Interna, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, Mendoza, Argentina.

Dr. Raúl Bistué, Profesor Adjunto del Departamento de Medicina Interna, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, y Jefe del Servicio Cátedra de Clínica Médica III, Hospital Central, Mendoza, Argentina.

Dra. Leonor Riveros de Gasparolo, Docente del Departamento de Medicina Interna, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, Mendoza, Argentina.

Dra. María Gallo de Sprazzato, Docente del Departamento de Medicina Interna, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, Mendoza, Argentina.

Dr. Carlos R. Wiederhold, Docente del Departamento de Medicina Interna, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, Mendoza, Argentina.

Dra. Lucía J. Bruno, Ex médica residente, Servicio Cátedra de Clínica Médica III, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, Hospital Central, Mendoza, Argentina.

Dra. Elena Ramos de Guevara, Bioquímica del Departamento de Medicina Interna, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, Mendoza, Argentina.

Dra. Liber Puy, Docente del Instituto de Histología, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, Mendoza, Argentina.

Institución donde se realizó el trabajo: Servicio Cátedra de Clínica Médica III, Departamento de Medicina Interna, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, Hospital Central - Alem y Salta, (5500) Mendoza, Argentina.

RESUMEN

La sinovitis villonodular pigmentada es casi siempre monoarticular. Un curso poliarticular es extremadamente raro, como lo demuestra la revisión de la literatura mundial consultada. Se presenta un caso de compromiso poliarticular por lo inusual de la afectación, con hallazgos parciales en la microscopia electrónica y tratamiento con metotrexate oral, ante la refractariedad a la terapéutica convencional con esteroides, radioterapia y sinovectomía. El diagnóstico se efectuó por la clínica, radiología, laboratorio y biopsias sinoviales repetidas en el tiempo, descartándose otras entidades.

Se trataba de una mujer de 45 años de edad, que comienza a los 16 años con artritis de codo y tenosinovitis derechos. Tres años después: artritis de rodilla derecha. Se realiza biopsia sinovial, con diagnóstico de sinovitis villonodular pigmentada. En el curso intermitente de la afección, desarrolla artritis temporomaxilar y artritis de rodilla izquierda, practicándose sinovectomía. En la última internación presenta artritis de rodilla derecha, efectuándose sinovectomía, con diagnóstico histopatológico de sinovitis villonodular pigmentada. Se realiza, asimismo, examen por microscopia electrónica. Actualmente: artritis de ambas rodillas. En la microscopia electrónica se observó: células sinoviales con prolongaciones citoplasmáticas numerosas, cuyo citoplasma presenta abundantes mitocondrias y cuerpos densos, con escaso retículo endoplásmico rugoso representando, probablemente, sinoviocitos de tipo A.

SUMMARY

Although pigmented villonodular synovitis (PVNS) occurs in both localized and diffuse forms (DPVNS), it is the latter as a chronic monoarticular arthritis, that confronts with most difficulty in diagnosis and treatment. Because it is crucial to an accurate diagnosis, the histopathology of PVNS warrants careful attention. DPVNS is nearly always monoarticular.

A patient is presented with a polyarticular pigmented villonodular synovitis confirmed by histopathological studies after sequential synovectomies. The electron microscopic examination showed that synovial lining cells were predominantly type A. They were characterized by scanty endoplasmic reticulum and varying numbers of lysosomes.

Palabras clave: Artritis poliarticular - Sinovitis villonodular pigmentada.
Polyarticular arthritis - Pigmented villonodular synovitis.

INTRODUCCION

La expresión sinovitis villonodular pigmentada fue introducida por Jaffe y cols. en 1941.⁽⁶⁾ Como se deduce de este nombre, existe una proliferación crónica del tejido sinovial, que es de color marrón oscuro debido al depósito excesivo de hemosiderina. La sinovial prolifera formando vellosidades que brotan en grupos, a veces en forma difusa y a veces enteramente localizadas o nodulares.

Por lo general está afectada una sola articulación, siendo la rodilla la que con más frecuencia es atacada por la enfermedad. Sin embargo, también se ha des-

crito la afectación de otras articulaciones, tales como la cadera, codo, tobillo, hombro, muñeca y más recientemente, las articulaciones temporomandibulares.^(2, 7, 9, 12)

En raras ocasiones, la sinovitis villonodular pigmentada ha sido poliarticular. La literatura mundial contiene sólo un pequeño número de casos documentados histopatológicamente de afectación poliarticular.^(2, 10, 13)

El objeto de este trabajo es presentar un caso de sinovitis villonodular pigmentada de tipo poliarticular, con estudios histopatológicos secuenciales,

bien documentados, incluyendo microscopía electrónica efectuada en el Instituto de Histología de la Facultad de Ciencias Médicas de la Universidad Nacional de Cuyo.

CASO CLINICO

A. M. F. - Mujer, 45 años de edad. Ingresa por artritis de rodilla derecha.

Sus manifestaciones articulares comienzan a los 16 años de edad con artritis de codo derecho, acompañada de tenosinovitis y con la presencia de nódulos sobre la región anterior de la muñeca derecha y tendón flexor del dedo anular derecho. A los 19 años presentó artritis de la rodilla derecha. Se efectuó biopsia sinovial con diagnóstico de sinovitis velionodular pigmentada. La afección siguió un curso intermitente, comprometiéndose articulaciones temporomandibulares, columna cervical y rodilla izquierda. En la que se efectuó una sinovectomía hace 3 años. La paciente fue tratada con fármacos analgésicos y antiinflamatorios no esteroideos, ocasionalmente con esteroideos en forma irregular y radioterapia en la rodilla derecha.

Examen físico: buen estado general, obesa, afebril. Tumefacción de la rodilla derecha, con derrame articular escaso, sin aumento de la temperatura local y dolor y limitación a la movilidad activa y pasiva. Tumefacción sin derrame de la rodilla izquierda, la que presenta buena movilidad. Limitación de la flexoextensión de la columna cervical. Fuerza muscular, normal. Resto del examen físico, normal. Laboratorio: Hto.: 37 %. Glóbulos blancos: 8.000 por mm³. Fórmula leucocitaria, normal. Eritrosedimentación: 33 mm en la primera hora. Examen del líquido sinovial de la rodilla derecha: aspecto turbio. Viscosidad, regular. Coágulo de mucina, regular; fragmentos blancos en líquido turbio. Recuento celular: 4.800 por mm³. Recuento diferencial: polimorfonucleares, 60 %, y mononucleares, 40 %. Glucosa: 0,63 gramos por ml. No se observan cristales. Examen bacteriológico negativo. Radiografía de rodillas: tumefacción de partes blandas. Conservación de la luz articular, con moderado pinzamiento interno en la rodilla derecha. Incipiente osteopenia yuxtaarticular.

Durante la internación se efectuó sinovectomía de la rodilla derecha, enviándose material para examen histopatológico con microscopía óptica y microscopía electrónica.

Microscopía óptica: tejido inflamatorio linfoplasmocitario. Fibroblastos juveniles y células espumosas. Depósitos de hemosiderina (fig. 1).

Microscopía electrónica: se observan cortes de células sinoviales a diferentes niveles, las que muestran numerosas prolongaciones citoplasmáticas. Dicho citoplasma presenta abundantes mitocondrias y cuerpos densos, mientras que el retículo endoplasmático rugoso es escaso y probablemente representando al sinoviocito de tipo A (figs. 2 y 3).

Durante la internación la paciente fue tratada con fármacos analgésicos y antiinflamatorios no esteroideos y esteroideos por vía oral. Ante la refractariedad a dicha medicamentación, se inició tratamiento oral en bolos semanales con metotrexate, que oscilaron entre 7,5 a 10 mg, durante 6 meses con buena respuesta terapéutica y muy buena tolerancia.

COMENTARIOS

La sinovitis velionodular pigmentada representa un grupo de afecciones tumorales benignas interarticulares, que afectan los revestimientos de articulaciones, bolsas y vainas tendinosas y/o los tejidos fasciales y ligamentos adyacentes a los tendones.⁽¹²⁾

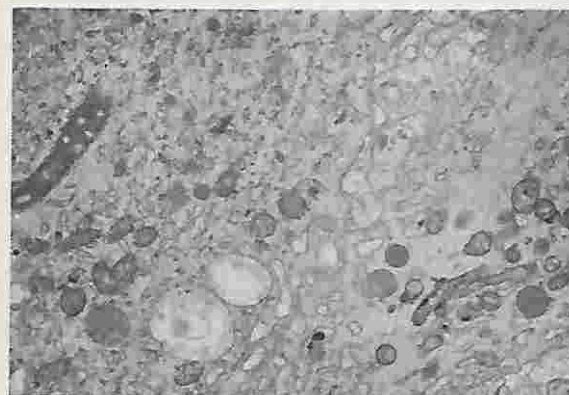
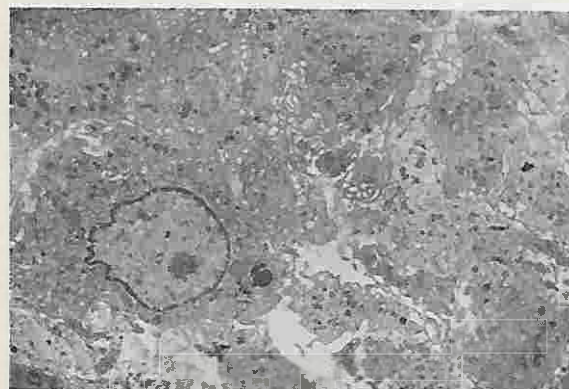
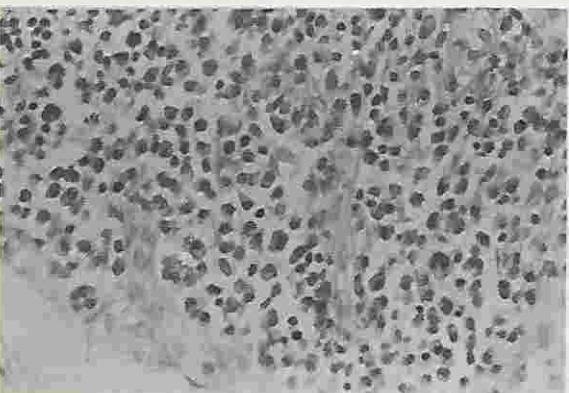


Figura 1. Microscopía óptica. Tejido inflamatorio linfoplasmocitario. Fibroblastos juveniles y células espumosas. Depósitos de hemosiderina. Coloración hematoxilina-eosina. 400x.



Figuras 2 y 3. Microscopía electrónica. Se observan cortes

de células sinoviales a diferentes niveles, las que muestran numerosas prolongaciones citoplasmáticas. Dicho citoplasma presenta abundantes mitocondrias y cuerpos densos, mientras que el retículo endoplasmático rugoso es escaso representando, probablemente, al sinoviocito de tipo A.

Figura 2: 2.500 x - Figura 3: 5.000 x.

desarrolló un curso intermitente, con refractariedad a la terapéutica convencional con esteroideos, radioterapia y sinovectomía, lo que motivó el empleo de metotrexate oral en bolos semanales, con buena respuesta.

En estudios por microscopía electrónica se han encontrado dos tipos de células: unas de aspecto fibrilístico, ricas en retículo endoplásmico rugoso, similares a los sinoviocitos de tipo B, y otras de aspecto macrofágico, de citoplasma claro y numerosas prolongaciones citoplasmáticas (sinoviocitos de tipo A). La mayoría de los autores encuentran un predominio de sinoviocitos de tipo B.^(1, 3, 14, 15, 17)

Otros autores señalan la posibilidad de que los sinoviocitos de tipo A y B representen estados diferentes de un período evolutivo.

En el caso aquí presentado, el predominio celular fue de tipo macrofágico o tipo A. Los hallazgos parciales de la microscopía electrónica de este caso revelaron células sinoviales con prolongaciones citoplasmáticas, cuyo citoplasma presenta abundantes mitocondrias y cuerpos densos, con escaso retículo endoplásmico rugoso representando, probablemente, sinoviocitos de tipo A.

Las teorías propuestas para la patogénesis de la sinovitis villonodular pigmentada incluyen: la respuesta inflamatoria a un agente desconocido,^(4, 5, 11) varias anomalías inmunológicas han sido observadas en un caso.⁽⁸⁾

Por lo descrito y revisado en la literatura acerca de los aspectos histopatológicos por microscopía óptica y microscopía electrónica, es posible que se trate de una proliferación sinovial de tipo benigno, pero desde el punto de vista del compromiso de la articulación, puede tener una afectación secular grave.

BIBLIOGRAFÍA

1. Arthaud, J. B.: "Pigmented nodular synovitis". *Am J Clin. Pathol.*, 58:51-517, 1972.
2. Docken, W. P.: "Pigmented villonodular synovitis: A review with illustrative case reports". *Semin. Arthritis Rheum.*, 9:1-222, 1979.
3. Chaddaji, E. N.; Lander, J. M. A.; Dick, C. E.: "Ultrastructural of pigmented villonodular synovitis". *J. Pathol.*, 127:19-26, 1979.
4. Granowitz, S. P.; D'Antonio, J.; Mankin, H. L.: "The pathogenesis and long term results of pigmented villonodular synovitis". *Clin. Orthop.*, 114:351-355, 1976.
5. Henderson, B.; Glynn, L. E.; Biletsky, L.; Chayen, J.: "Evidence for cell division in synovocytes in acutely inflamed rabbit joints". *Ann. Rheum. Dis.*, 40:117-181, 1981.
6. Jaffe, H. L.; Lichtenstein, L.; Suto, C. J.: "Pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis". *Arch. Pathol.*, 31:731-765, 1941.
7. Kelley, W. N.; Harris, E. D.; Rudolph, S.; Siegel, C. B.: "Textbook of Rheumatology", 2ª edición W. B. Saunders, Filadelfia, 1985.
8. Kinsella, T. D.; Vasey, F.; Ashworth, M. A.: "Penetrations of humoral and cellular immunity in a patient with pigmented villonodular synovitis". *Am. J. Med.*, 58:444-447, 1975.
9. Lamou, W. A.: "Pigmented villonodular synovitis". *Med. Clin. North Am.*, 49:141-150, 1965.
10. Lesytsia, J.; Hucell, J. R.; Percy, J. S.; y cols.: "Pigmented villonodular synovitis in multiple joints". *Ann. Rheum. Dis.*, 34:259-272, 1975.
11. Mainardi, C. L.; Levine, P. M.; Webb, Z. y cols.: "Proliferative synovitis in hemophilia". *Arthritis Rheum.*, 21:137-144, 1978.
12. McCarty, D. J., ed.: "Arthritis and allied conditions", 10ª edición, Lea and Febiger, Filadelfia, 1965.
13. Myers, B. W.; Masi, A. T.; Feigenbaum, S. L.: "Pigmented villonodular synovitis and tenosynovitis: A clinical epidemiologic study of 166 cases and literature review". *Medicine (Baltimore)*, 59:223-238, 1980.
14. Reginaldo, A.; Martínez, V.; Schumacher, H. R.; y cols.: "Giant cell tumor associates with rheumatoid arthritis". *Ann. Rheum. Dis.*, 33:333-341, 1974.
15. Schumacher, H. R.; Lotke, P.; Aitaya, B.; Robinson, S.: "Pigmented villonodular synovitis: Light and electron microscopic studies". *Semin. Arthritis Rheum.*, 12:32-43, 1982.
16. Taglia, L.; Chirioff, R. T.: "Diffuse pigmented villonodular synovitis". *Clin. Orthop.*, 115:172-176, 1976.
17. Wyllie, J. C.: "The stromal cell reaction of pigmented villonodular synovitis: A electron microscopic study". *Arthritis Rheum.*, 12:205-214, 1969.

Esta es casi siempre monoarticular, siendo la rodilla la articulación más frecuentemente afectada. Un curso poliarticular es extremadamente raro.^(1, 7, 9, 10)

El síndrome más común es la tumefacción articular crónica y el dolor moderado es habitual, aunque a veces puede ser asintomática.

Con respecto a los datos de laboratorio, éstos suelen ser normales.^(12, 13, 16) Sin embargo, el examen del líquido sinovial es orientador diagnóstico de la enfermedad. Este, generalmente, es sanguinolento, no viscoso y comúnmente no coagula. El recuento celular muestra un número desproporcionado de glóbulos rojos con respecto a los glóbulos blancos.^(9, 13, 16)

Las alteraciones radiológicas incluyen: tumefacción de partes blandas con preservación del espacio articular, ausencia de osteoporosis yuxtaarticular y pueden también observarse quistes en el hueso subcondral.

En la relación con la historia natural de la sinovitis villonodular pigmentada, es frecuente la recurrencia después de la extirpación quirúrgica de la membrana sinovial, aunque eventualmente la enfermedad puede autolimitarse. Las complicaciones extraarticulares de la enfermedad son poco comunes, excepto las relacionadas con los métodos de diagnóstico y tratamiento.⁽⁹⁾

En el caso aquí descrito, que coincide con los referidos en la bibliografía revisada, el diagnóstico se efectuó por las características clínicas, radiológicas, humorales y biopsias sinoviales repetidas a través del tiempo, descartándose otras entidades.

Se destaca en esta paciente el compromiso poliarticular, de grandes y pequeñas articulaciones, y la presencia de tenosinovitis. Este hecho es inusual, ya que la literatura mundial refiere pocos casos documentados histopatológicamente de compromiso poliarticular. Además, la paciente del presente informe