



Sinovitis vellonodular pigmentada difusa como causa de gonalgia inespecífica en paciente pediátrico: reporte de caso

Diffuse pigmented villonodular synovitis as a cause of nonspecific gonalgia in a pediatric patient: case report

Ernesto Antonio Cendo Delgado,* Luis Ricardo Ramírez Osuna,*

Marlene Vanessa Salcido Reyna,* Óscar Iván García Tovar*

*Servicio de Ortopedia y Traumatología del Hospital General de Mexicali, Baja California, México.

Resumen

La sinovitis vellonodular pigmentada es una condición rara en la población general, causada por un desorden proliferativo sinovial benigno y mayormente descrita en la población adulta, por lo que su presentación en la población pediátrica suele ser un diagnóstico omitido. Su incidencia aproximada es de 1.8 casos por cada millón de habitantes, y la edad habitual de presentación es entre los 20 y 50 años; sin embargo, se cuenta con reportes de series de casos pequeños y reportes de caso individuales sobre este padecimiento en la población pediátrica, encontrando la edad de presentación más joven a los 12 meses de edad. El área más habitual de localización es la rodilla, pero existen reportes en cadera, pie y tobillo, codo, hombro e incluso de carácter poliarticular. En cuanto a sintomatología, suele ser muy inespecífico, con dolor localizado de forma intermitente, inflamación, limitación funcional o cambios de temperatura. La resonancia magnética se considera el estándar de oro en imagenología para el diagnóstico. A continuación, se expone el caso de sinovitis vellonodular pigmentada difusa de rodilla izquierda en varón de 13 años con gonalgia inespecífica de dos años de evolución, su cronología y las valoraciones clínicas hasta su diagnóstico. Nuestro objetivo es realizar un aporte a la bibliografía sobre este padecimiento de rara presentación en pacientes pediátricos.

Palabras clave: Sinovitis vellonodular, rodilla, gonalgia, artroscopia.

Abstract

Pigmented villonodular synovitis is a rare condition in the general population, caused by a benign synovial proliferative disorder and mostly described in the adult population, so its presentation in the pediatric population is often a missed diagnosis. Its incidence is approximately 1.8 cases per million population, and the usual age of presentation is between 20 and 50 years; however, there are reports of small case series and individual case reports on this disease in the pediatric population, finding the youngest age of presentation at 12 months of age. The most common area of localization is the knee, but there are reports in hip, foot and ankle, elbow, shoulder and even polyarticular character. In terms of symptomatology it is usually very nonspecific with intermittent localized pain, swelling, functional limitation, temperature changes. Magnetic resonance imaging is considered the gold standard in imaging for diagnosis. The following is a case of diffuse pigmented villonodular pigmented synovitis of the left knee in a 13-year-old male patient with nonspecific gonalgia of 2 years of evolution, its chronology and clinical assessments until its diagnosis. Our aim is to contribute to the literature on this rare condition in pediatric patients.

Keywords: Villonodular synovitis, knee, gonalgia, arthroscopy.

Introducción

La sinovitis vellonodular pigmentada es una rara condición proliferativa que afecta las articulaciones sinoviales.¹⁻¹⁹ El término sinovitis vellonodular pig-

mentada fue establecido por Jaffe et al. en 1941.²⁻²⁰ Se han descrito patrones de presentación focal y difuso. En el 2013, la Organización Mundial de la Salud, cambió el término por tumor tenosinovial de células gigantes, clasificando en dos tipos: tipo 1 o de

Correspondencia:

Ernesto Antonio Cendo Delgado

E-mail: ernestocendo@hotmail.com

Recibido: 16-11-2021. Aceptado: 02-12-2021.

Citar como: Cendo DEA, Ramírez OLR, Salcido RMV, García TÓI. Sinovitis vellonodular pigmentada difusa como causa de gonalgia inespecífica en paciente pediátrico: reporte de caso. Orthotips. 2022; 18 (3): 245-249. <https://dx.doi.org/10.35366/107274>

patrón localizado y tipo 2 o de patrón difuso, donde se incluye la sinovitis vellonodular pigmentada.

Presenta una incidencia aproximada de 1.8 casos por cada millón de personas. Es usualmente encontrada en adultos entre los 20-50 años y es raramente observada en la población pediátrica, encontrándose dos series de casos pequeños y reportes de casos individuales, donde la edad del caso más joven es de 12 meses de edad.³⁻¹⁷ La localización más común es la rodilla, aunque ha sido reportada en otras áreas como cadera, pie y tobillo, codo, hombro y en ocasiones con carácter poliarticular.

La etiología de la sinovitis vellonodular pigmentada es desconocida, se han descrito desórdenes tumorales con aberraciones cromosómicas, así como factores genéticos como causas potenciales. Trauma repetitivo y artritis reumatoide también han sido considerados.³⁻¹⁶ La etiopatogenia consensuada fue propuesta por West, donde menciona que hay un «efecto paisaje del tumor tenosinovial de células gigantes» causado por la translocación de una pequeña cantidad de células.

La presentación clínica es inespecífica y se incluye dolor, inflamación, disminución de rangos de movimiento, incapacidad para la marcha y hemartrosis atraumática recurrente.⁴⁻¹⁸

El estudio de gabinete para el diagnóstico es la resonancia magnética, la cual proporciona delimita-



Figura 1:

Clínica comparativa de ambas rodillas.
Foto del autor.



Figura 2: Resonancia magnética con corte sagital que muestra tejido sinovial difuso suprapatelar medial.
Foto del autor.

ción del padecimiento y es el estudio de imagen más sensible para la evaluación de la sinovitis vellonodular pigmentada.⁵⁻¹⁵

El pilar de tratamiento es la resección quirúrgica en las formas localizadas y la sinovectomía total para formas difusas, las cuales se pueden realizar de forma abierta, artroscópica o una combinación de ambos abordajes. La radioterapia se ha propuesto para reducir las recurrencias.⁶⁻¹³

El propósito de este estudio es presentar el caso de un paciente de 13 años con antecedente de gonalgia inespecífica de dos años de evolución, que resulta en un diagnóstico de sinovitis vellonodular pigmentada difusa de rodilla izquierda y así otorgar un aporte a la literatura sobre esta entidad de la cual existen pocos reportes en la población pediátrica.

Presentación del caso

Se trata de varón de 13 años, sin antecedentes de importancia para su patología actual. Inicio del padecimiento dos años anteriormente a su valoración en consulta de traumatología y ortopedia del Hospital General de Mexicali (HGM), durante los que presen-

taba gonalgia izquierda de forma intermitente que lo limitaban para realizar actividades de la vida diaria. Es valorado en unidad de salud donde se trata de forma paliativa mediante analgesia; posteriormente, se agrega aumento de volumen en región de rodilla izquierda, por lo que es revalorado en unidad de salud y finalmente se envía a consulta de segundo nivel para valoración en HGM. En su primera consulta en el HGM, se observa aumento de volumen en región de rodilla izquierda, sin aumento de temperatura ni cambios de coloración y se realiza palpación, la cual resulta medianamente dolorosa (*Figura 1*). La exploración directa de rodilla presenta extensión completa, flexión de 90° donde se aprecia sensación de pseudobloqueo al intentar ganar mayor rango de flexión y pruebas para valoración ligamentarias y meniscales sin alteraciones.

Las radiografías iniciales AP y lateral de rodilla sólo mostraban ligero aumento en los tejidos blandos sin presencia de lesiones óseas. Se solicita resonancia magnética de rodilla, la cual informa de engrosamiento sinovial heterogéneo difuso con predominio hacia los recesos patelofemorales y suprapatelares (*Figura 2*). Ante los hallazgos clínicos y de imagen se decide realizar artroscopia de rodilla, la cual muestra tejido sinovial hiperplásico difuso de mayor predominio hacia región suprapatelar; sin embargo, lograba observarse en la mayoría del recorrido artroscópico (*Figura 3*). Se procede a realizar sinovectomía artroscópica para posterior toma de muestra de tejido sinovial (*Figura 4*).

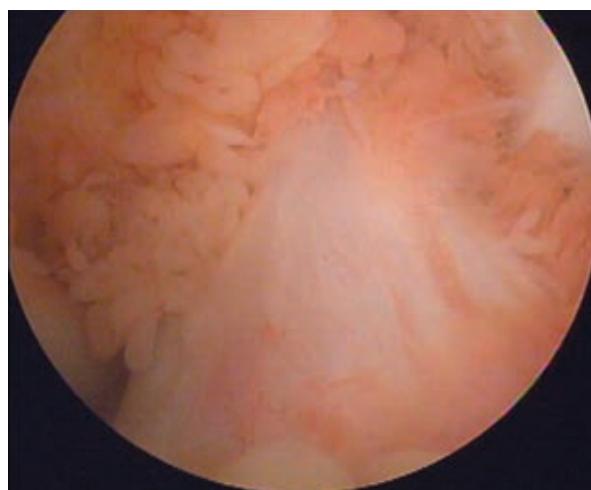


Figura 3: Imagen durante artroscopia, se observa abundante tejido sinovial difuso hacia ligamento cruzado anterior.
Foto del autor.



Figura 4: Muestra total obtenida posterior a sinovectomía artroscópica.
Foto del autor.

Se envía muestra para estudio histopatológico, el cual reportó tejido sinovial edematoso, denso y difuso con infiltrado inflamatorio, formado por la mezcla de linfocitos de aspecto reactivo más inclusiones de hemosiderina, dando como resultado el diagnóstico de sinovitis vellonodular pigmentada difusa (*Figura 5*).

Posterior a procedimiento quirúrgico se valora paciente en consulta externa a las dos, cuatro y seis semanas, donde se observa disminución notable de aumento de volumen previo, con marcha bipodálica independiente no dolorosa. Se realizó referencia de paciente al Servicio de Radiooncología para valoración de caso y se decidió continuar con la vigilancia implementada por el Servicio de Ortopedia ante la adecuada evolución clínica.

Discusión

De acuerdo con la clasificación de la Organización Mundial de la Salud, se define como tumor tenosinovial de células gigantes con patrón focal o tipo I y patrón difuso o tipo II donde se incluye la sinovitis vellonodular. Este paciente presenta un tipo II, que corresponde a un patrón difuso de proliferación sinovial.⁷⁻¹⁴

En cuanto a sintomatología, coincide con la mayoría de los reportes de caso y revisiones de la literatura como un padecimiento inespecífico, presentándose en este caso el proceso inflamatorio, dolor de carácter intermitente y limitación funcional en la flexión de rodilla

habitualmente. El proceso diagnóstico se encontró muy sesgado al no tener la sospecha clínica inicial, debido a que no se encontraba en la edad de mayor presentación como se ha descrito anteriormente. Dentro de los posibles diagnósticos diferenciales se encuentran: sinovitis transitoria, artritis reumatoide, artritis juvenil, hemartrosis, procesos tumorales e infecciosos.⁸⁻¹⁰

Durante el proceso diagnóstico se inició con radiografías convencionales de rodilla, las cuales no revelaron alguna anormalidad, por lo que se realiza complemento con resonancia magnética, la cual muestra el patrón difuso sinovial, su extensión y delimitación.⁹⁻¹²

En este caso se logró realizar un procedimiento de sinovectomía con técnica individual artroscópica, con la cual se obtuvo el alivio de sintomatología y mejoría funcional desde la primera valoración postquirúrgica a las dos semanas, y con esto lograr una reintegración a las actividades de la vida sin dolor.^{10,11} Propiamente se realizó envío para valorar el complemento con radioterapia como manejo multidisciplinario, manteniéndose de manera expectante ante la adecuada evolución del paciente.

Conclusiones

Para lograr un manejo adecuado de este tipo de casos, se debe realizar un protocolo de estudio sistemático, con una valoración integral y anamnesis dirigida, además de individualización de los casos ante la sospecha clínica y complementar el proceso diagnóstico con estudios de gabinete necesarios. Ha de tenerse en cuenta que, aunque se trata de un padecimiento de mayor presentación en la etapa adulta, no es exclusivo de la misma y se pueden encontrar variantes en la población pediátrica. Con esto



Figura 5: Corte histológico con células sinoviales de aspecto inflamatorio con linfocitos de aspecto reactivo más inclusiones de hemosiderina. Foto del autor.

se podría evitar la omisión diagnóstica que conlleva a recurrencias en valoraciones clínicas y persistencia de la sintomatología con el consiguiente impacto funcional de los pacientes.

Propiamente en este caso se habla de una cronología de dos años desde el inicio de la sintomatología con valoraciones clínicas y recurrencia en los síntomas. Se realiza el abordaje diagnóstico adecuado con resonancia magnética y con esto planear la terapéutica quirúrgica a base de sinovectomía por vía artroscópica, con adecuados resultados desde la evaluación postquirúrgica a las dos semanas y reintegración a las actividades de la vida diaria en su totalidad a las seis semanas, por lo que es de suma importancia el seguimiento ante la duda en el diagnóstico para obtener una intervención oportuna y adecuada.

En este caso en particular, a pesar de presentar un sesgo de dos años desde el inicio de la sintomatología, se realizó un protocolo de estudio adecuado y posteriormente una planeación quirúrgica que implica un procedimiento quirúrgico satisfactorio con el alivio de la sintomatología y mejoría funcional en nuestro paciente.

Referencias

1. Keyhani S, Kazemi S, Ahn J, Verdonk R, Soleymanha M. Arthroscopic treatment of diffuse pigmented villonodular synovitis of the knee: complete synovectomy and septum removal-midterm results. *J Knee Surg.* 2019; 32 (05): 427-433.
2. Willimon SC, Busch MT, Perkins CA. Pigmented villonodular synovitis of the knee: An underappreciated source of pain in children and adolescents. *J Pediatr Orthop.* 2018; 38 (8): e482-485.
3. Karami M, Soleimani M, Shiari R. Pigmented villonodular synovitis in pediatric population: review of literature and a case report. *Pediatr Rheumatol Online J.* 2018; 16 (1). Available in: <http://dx.doi.org/10.1186/s12969-018-0222-4>
4. Poutoglidiou F, Metaxiotis D, Mpeletsiotis A. Pigmented villonodular synovitis of the knee joint in a 10-year-old patient treated with an all-artroscopic synovectomy: a case report. *Cureus.* 2020; 12 (12): e11929.
5. Sen D, Sen AM, Gupta A, Manibanker NB. Pigmented villonodular synovitis in a child: A missed diagnosis. *Med J Armed Forces India.* 2019; 75 (4): 467-471.
6. Jha SC, Nishisho T, Matsuura T, Takeuchi M, Miyagi R, Takao S, et al. Pigmented villonodular synovitis of the knee joint in a 5-year-old girl treated with combined open and arthroscopic surgery: a case report. *J Pediatr Orthop B.* 2016; 25 (6): 564-569.
7. Hong CM, Hing LT. Acute knee pain in a child due to pigmented villonodular synovitis. *J Orthop Case Rep.* 2015; 5 (3): 78-80.
8. Zhao L, Zhou K, Hua Y, Li Y, Mu D. Multifocal pigmented villonodular synovitis in a child: a case report. *Medicine (Baltimore).* 2016; 95 (33): e4572.
9. Eckhardt BP, Hernandez RJ. Pigmented villonodular synovitis: MR imaging in pediatric patients. *Pediatr Radiol.* 2004; 34 (12): 943-947.

10. Papamerkouriou Y-M, Posantzis MI, Kouremenos D, Manousakis C, Plessas SI. Arthroscopic technique for the treatment of localized pigmented villonodular synovitis of the knee. *Cureus*. 2020; 12 (4): e7832.
11. Xie G-P, Jiang N, Liang C-X, Zeng J-C, Chen Z-Y, Xu Q, et al. Pigmented villonodular synovitis: a retrospective multicenter study of 237 cases. *PLoS One*. 2015; 10 (3): e0121451.
12. Mukhopadhyay K, Smith M, Hughes PM. Multifocal PVNS in a child – followed over 25 years. *Skeletal Radiol*. 2006; 35 (7): 539-542.
13. Turkucar S, Makay B, Tatari H, Unsal E. Pigmented villonodular synovitis: four pediatric cases and brief review of literature. *J Postgrad Med*. 2019; 65 (4): 233.
14. 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: 90-94.
15. Baroni E, Russo BD, Masquijo JJ, Bassini O, Miscione H. Pigmented villonodular synovitis of the knee in skeletally immature patients. *J Child Orthop*. 2010; 4 (2): 123-127.
16. Bruns J, Schubert T, Eggers-Stroeder G. Pigmented villonodular synovitis in children: A case report. *Arch Orthop Trauma Surg*. 1993; 112 (3): 148-151.
17. Capellen CF, Tiling R, Klein A, Baur-Melnyk A, Knosel T, Birkenmaier C, et al. Lowering the recurrence rate in pigmented villonodular synovitis: a series of 120 resections. *Rheumatology*. 2018; 57: 1448-1452.
18. Atik OS. Localized pigmented villonodular synovitis in a child knee. *Eklem Hastalik Cerrahisi*. 2017; 28 (1): 46-49.
19. Brenner JS. Pigmented villonodular synovitis causing painless chronic knee swelling in an adolescent. *Clin Pediatr (Phila)*. 2007; 46 (3): 268-271.
20. Gouin F, Noailles T. Localized and diffuse forms of tenosynovial giant cell tumor (formerly giant cell tumor of the tendon sheath and pigmented villonodular synovitis). *Orthop Traumatol Surg Res*. 2017; 103 (1): S91-97.

Conflictivo de intereses

No existe conflicto de intereses por parte de la institución ni de los médicos involucrados en el reporte de caso.