



Omuz eklemi ve biceps tendonunda yaygın pigmentte villonodüler sinovit: Olgu sunumu

Diffuse pigmented villonodular synovitis in the shoulder joint and the biceps tendon: a case report

Serkan Sipahioğlu,¹ Sinan Zehir,² Hüseyin Aşkar,³ Uğur Özkanlı¹

¹Harran Üniversitesi Tıp Fakültesi Ortopedi ve Travmatoloji Anabilim Dalı, Şanlıurfa, Türkiye;

²Şanlıurfa Devlet Hastanesi Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği, Şanlıurfa, Türkiye;

³Şanlıurfa Balıklıgöl Devlet Hastanesi Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği, Şanlıurfa, Türkiye

Pigmente villonodüler sinovit (PVNS) en sık diz ekleminde ve el tendon sinoviyal dokularında görülen sinovyanın iyi huylu proliferatif bir hastalıdır; omuz tutulumu son derece nadirdir. Eklemlerde nodüler ve yaygın tutulum olmak üzere iki şekilde görülebilir. Klinik ve radyolojik bulgular hastalığa özgü değildir ve genellikle diğer eklem hastalıklarını taklit eder. Hastaların genel yakınması, uzun süredir devam eden ve tanı konulamayan ağrılı şişliktir. Manyetik rezonans görüntülemesinde yumuşak doku kitlesi olarak görülür. Villöz sinoviyal projeksiyonlarda pigment birikimi ve histiositik hücre infiltrasyonu majör histolojik bulgulardır. Tedavide sinovektomi uygulanır ve tedavi sonrası nüks görülme sıklığı yüksektir. Bu yazıda, 23 yaşında bir erkek hastada PVNS'nin çok nadir görüldüğü omuz eklemi ve biceps tendonunda yaygın PVNS olgusu sunuldu.

Anahtar sözcükler: Artroskopi; biceps tendonu; omuz eklemi; açık cerrahi; pigmentte villonodüler sinovit.

Pigmented villonodular synovitis (PVNS) is a benign proliferative disease of synovium frequently most frequently seen in the knee joint and hand tendon synovial tissues; shoulder involvement is extremely rare. It can be seen in joints in two forms as nodular or diffuse involvement. The clinical and radiological symptoms are not specific to the disease and usually mimic other joint diseases. The general complaint of the patients is long-lasting painful swelling that could not be diagnosed. In magnetic resonance imaging it is observed as soft tissue mass. Pigment deposition and histiocytic cell infiltration in the villous synovial projections are the major histological findings. Synovectomy is performed for treatment and the incidence of recurrence is high. In this article, we report a 23-years-old male patient with diffuse PVNS in the shoulder joint and biceps tendon which are rarely involved in PVNS.

Key words: Arthroscopy; biceps tendon; shoulder joint; open surgery; pigmented villonodular synovitis.

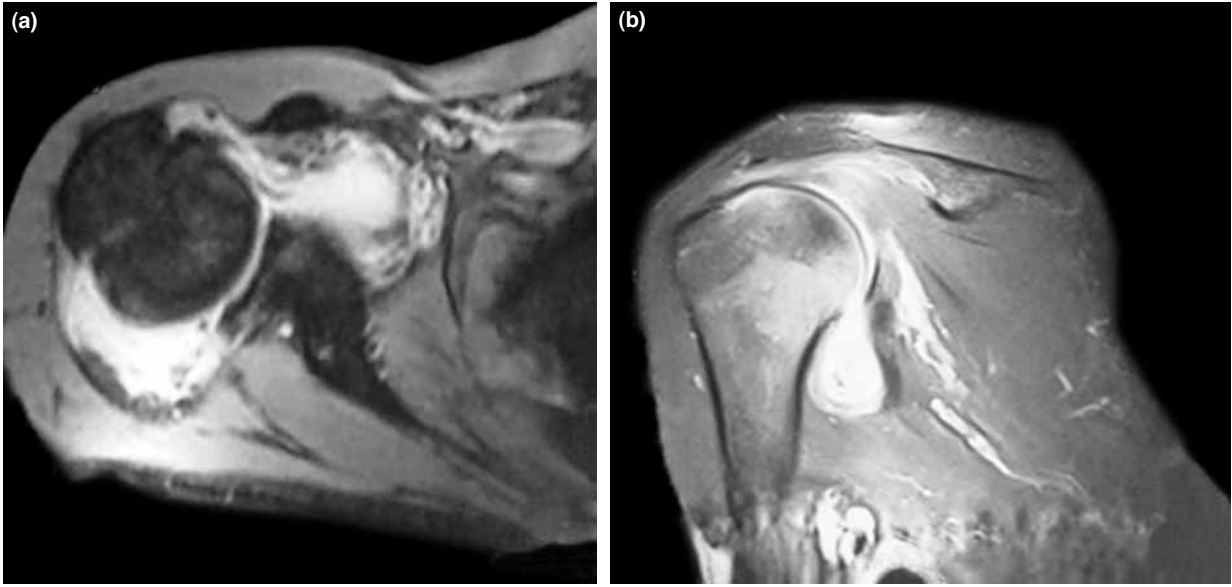
Pigmente villonodüler sinovit (PVNS) klinikte nadir karşılaşılan sinovyanın iyi huylu proliferatif bir hastalıdır. Eklemi, tendon kılıfını ve ekstraartiküler bursayı tutar. Histolojik olarak hiperplazik sinovyal villöz oluşumlar gösteren fibröz stroma içerisinde pigment depolanması, histiositik hücre infiltrasyonu ve dev hücrelerden oluşur ve eklemi yaygın veya sınırlı tutabilir. Sınırlı tutulumu nodüler form olarak adlandırılır ve kısmi olarak kapsüledir.

Çoğunlukla üçüncü veya dördüncü on yılda genç erişkinlerde görülür. En sık diz ekleminde görülmeyle birlikte azalan sıklıkla kalça, ayak bileği ve çok nadiren omuz ekleminde görülür ve genellikle monoar-

tikülerdir.^[1] Poliartiküler formu görülen tüm olguların %1'inden azını oluşturur.^[2] Görülme insidansının yaklaşık bir milyon kişide iki olduğu bildirilmiştir.^[3] Semptomları ağrı, şişlik ve eklem hareket kısıtlılığıdır. Sınırlı villonodüler sinovitte radyografik inceleme normal olmakla birlikte yaygın formlarda osteoartrit bulguları göze çarpar. Radyolojik olarak ilk bulgusu özellikle eklem yüzünden uzak yerleşimli kemik kistleridir. Başlangıç tedavisi olarak sinovektomi önerilmekle birlikte ileri derecede eklem harabiyeti gösteren yaygın formlarda artroplasti kaçınılmaz tedavi yöntemidir. Özellikle tamamen eksize edilemeyen yaygın tutulumlarda tedaviye radyoterapi eklenebilir.

• Geliş tarihi: 12 Temmuz 2011 Kabul tarihi: 05 Eylül 2011

• İletişim adresi: Dr. Serkan Sipahioğlu, Harran Üniversitesi Tıp Fakültesi Ortopedi ve Travmatoloji Anabilim Dalı, 63300 Şanlıurfa, Türkiye.
Tel: 0414 - 314 84 10 Faks: 0414 - 318 33 50 e-posta: serkans@harran.edu.tr



Şekil 1. Manyetik rezonans görüntülemesinde omuz eklemi. (a) Anteriyor ve posteriyor, (b) posteriyor.

Omuz ekleminde PVNS çok nadir görülür. Mohr^[4] 166 PVNS olgusundan hiçbirinde omuz tutulumu bildirmemiştir. Bunun yanında, Schwartz ve ark.^[5] 99 hastanın yalnızca ikisinde omuz tutulumu olduğunu bildirmişlerdir. Tutulan omuzda giderek artan şişlik ve hareket kısıtlılığı yakınmaları başlıca klinik bulgulardır. Uzun süreli tutulumlarda eklem sertliği görülebilir. Bu yazıda omuz eklemi ve biceps tendonunu tutan yaygın form pigmente villonodüler sinoviyit tartışıldı.

OLGU SUNUMU

Sağ omuz ağrısı ve sağ omuzda şişlik yakınması ile polikliniğe başvuran 23 yaşında erkek hastanın öyküsünde yakınmalarının iki yıldır devam ettiği ve bu yakınmalarla farklı merkezlerde medikal tedavi aldığı öğrenildi. Hastanın travma öyküsü yoktu. Ağrısını geçirmek için antienflamatuvar ilaçlar kullandığı öğrenildi.

Yapılan fizik muayenede sağ omuzda özellikle omuz anteriyorda biceps tendonu trasesine uyacak şekilde yaygın yumuşak doku şişliği olduğu görüldü. Şişlik üzerinde basmakla hassasiyet vardı. Kızarıklık ve ısı artışı bulguları yoktu. Omuz hareketleri pasif olarak tam olmasına rağmen aktif olarak özellikle fleksiyon, iç ve dış rotasyon ve abduksiyon hareketleri ağrılı idi. Tam kan sayımı, serum elektrolitleri ve CRP sonuçları normal idi. Çekilen direkt grafide herhangi bir anormallik saptanmadı. Çekilen manyetik rezonans görüntülemesinde eklem içinde anteriyorda ve posteriyorda yoğunlaşan yaygın düzgün sınırlı nodüler kitleler görüldü (Şekil 1). Kitle özellikle biceps tendonu etrafında yoğunlaşmış ve tendon boyunca eklem dışı-

na çıkarak intertübüküler olukta tendonu çepeçevre sarıyordu (Şekil 2).

Hastaya öncelikle tanısal amaçlı omuz artroskopisi uygulandı. Eklem içerisine sinovyal hiperplazi ve yaygın sarı kahverengi papiller yapılar görüldü. Görünümün PVNS ile uyumlu olduğu düşünüldü. Artroskopik olarak shaver ve mekanik aletlerle sinovektomi uygulandı. Ancak artroskopik sinovektominin özellikle biceps tendonu boyunca ilerleyen hipertrofik sinovyal dokuların eksizyonunda ve eklem içi total sinovektomide yeterli olmayacağı düşünülerek açık



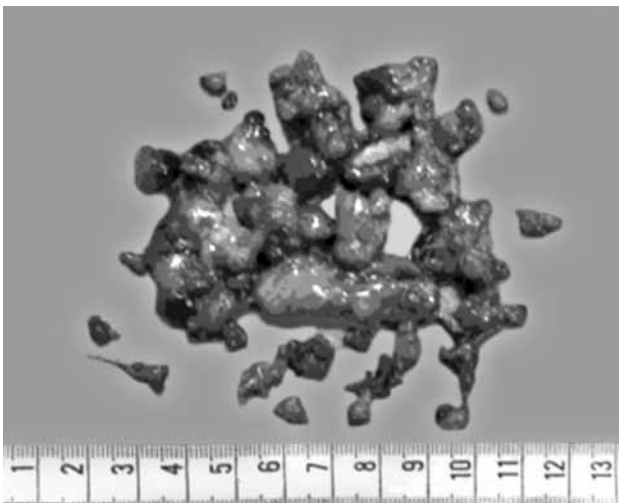
Şekil 2. Manyetik rezonans görüntülemesinde biceps tendonunu çevreleyen pigmente villonodüler sinoviyit.

cerrahiye geçildi. Deltopektoral girişimle subskapularis kası kapsülden ayrıldıktan sonra kapsül T şeklinde açıldı. Eklem içinde anteroinferiyora ve posteriyora uzanan sarı kahverengi pas renginde papiller uzanımlar gösteren hipertrofik yumuşak doku kitleleri eksize edildi. Biceps tendonu uzun başı etrafında tendonu tamamen sarmış halde tendon boyunca ilerleyen aynı yumuşak doku kitlesi eksize edildi. İntertüberküler oluk açılarak biceps tendonu serbestleştirildi ve etrafındaki kitle tendondan sıyrılarak eksize edildi. Daha sonra tendon oluşuna yerleştirilerek tamir uygulandı (Şekil 3). Eklem kırıkdağlarının normal olduğu görüldü. Yapılan mikroskopik incelemede hiperplazik sinovyal doku içerisinde hemosiderin depolamış fagositler ve histiositler görüldü. Stroma içerisine dağılmış yoğun lenfosit infiltrasyonu ve damarlanmada artış vardı. Bu değişiklikler pigmente villonodüler sinovit tanısı ile uyumlu bulundu.

Ameliyat sonrası hastanın yakınmalarında azalma olduğu gözlemlendi. Ameliyat sonrası 7. günde pasif hareketlere başlandı. 3. ayda hasta tam aktif eklem açıklığına ulaştı. Hastanın ağrı ve şişlik yakınmaları tamamen geçti. Hastanın 3. yıl takibinde herhangi bir nüks saptanmadı.

TARTIŞMA

1941 yılında eklem sinovyasından, bursadan ve tendon kılıfından köken alan proliferatif lezyonların tanımlanmasıyla pigmente villonodüler sinovit, tarif edilmiştir.^[6] Sinovial lezyonlar lokalize nodüler ve yaygın olmak üzere iki şekilde görülebilir. Yaygın formu daha sık görülür ve omuz tutulumu olan PVNS genellikle yaygın tiptedir.^[2,5,7,8] İyi huylu bir oluşum olmasına rağmen ileri derecede eklem harabiyetine neden olabilir.^[9] Her yaş grubunda görülebilmesiyle beraber sıklıkla 30 ile 50 yaş arası görülür ve her iki cinsiyeti



Şekil 3. Eksizyon sonrası sarı kahverengi eksizyon materyali.

eşit sıklıkta tutar.^[2] Yıllık görülme insidansı milyonda 1.8 olarak bildirilmiştir.^[3] Diz eklemi en sık tutulan eklemdir ve olguların %80'i dizde görülür. Genellikle monoartiküler tutulum yapar. Dizden sonra sıklıkla kalça, ayak bileği, el parmak eklemleri ve ayakda görülür.^[8,10,11] Omuz eklemi tutulumu oldukça nadir görülür.

Etyolojisi tam olarak bilinmemekle beraber tekrarlayan enflamatuvar travmayla ilişkisi olduğu bildirilmiştir.^[2,12-14] Hastanın öncesinde travma öyküsünün olması, lezyonda ağırlıklı olarak enflamatuvar hücrelerin bulunması ve özellikle sık eklem içi kanama geçiren hemofili hastalarında da benzer lezyonların görülmesi reaksiyonel bir nedeni destekler.^[11] Yapılan DNA analizlerinde PVNS'deki fibrohistiositik proliferasyonun poliklonal olduğu görülmüştür.^[15] Neoplazik oluşumlar bir tek hücrenin transformasyonu ile oluşarak monoklonal bir lezyon oluşturur. Pigmente villonodüler sinovitte görülen poliklonal çoğalma, nedenin reaksiyonel bir neden olduğunu destekler.

Pigmente villonodüler sinovit iyi huylu bir tümör olduğu kabul edilse de lokal olarak agresif davranabilir. Eklem çevresinde kemikte aşınmalar görülebilir ve eksize sonrası lokal nüks oranı yüksektir. Tek bir olguda ayak bileği lezyonundan akciğer metastazı tanımlanmıştır.^[6] Hastalığın klinik semptomları hastalığa özgü değildir ve genellikle eklemde hareket kısıtlılığı ile beraber tekrarlayan ağrı ve eklem şişliği atakları vardır.^[17] Aynı zamanda görüntüleme yöntemleriyle de kesin tanıya ulaşmak zordur.^[18] Manyetik rezonans görüntülemesinde, lezyonun yaygın olması malignansiyi düşündürse de benign bir oluşumu da ekarte ettirmez. Manyetik rezonans görüntülemesinde, enflamasyon ve sıvı koleksiyonu görülen bölgelerde yüksek sinyal intensite ile birlikte sinovyal proliferasyon görülür. Kitle içerisinde fokal düşük sinyal intensiteleri hemosiderin depolarını tanımlar. Radyolojik olarak kemik erozyonları ve kistler görülebilir. Lezyonun, nutrient arterlerin foraminalarından kemiğe girerek kistleri oluşturduğu düşünülmektedir.^[10] Kemik kistlerinin PVNS'de görülebilmesi hastalığın özellikle osteoartrit, romatoid artrit ve avasküler nekroz gibi hastalıkların ayırıcı tanısını güçleştirir.

Pigmente villonodüler sinovit tedavisi, lokalize tutulum gösterenlerde marjinal eksize, yaygın tutulum gösterenlerde total sinovektomidir. Ancak ileri derecede eklem harabiyeti gösteren tutulumlarda sinovektomi yeterli olmayabilir.^[9] Diz ve kalça tutulumu gösteren PVNS'de total eklem artroplastisi uygulamaları genelde başarılı sonuçlar vermiştir.^[9,19] Özellikle yaygın tutulumlarda total sinovektomi uygulamak zor bir işlemdir ve kimi zaman imkansızdır. Bu nedenle nüks görülme sıklığı da yüksektir. Yaygın tutulumlu

PVNS'de, total sinovektomi sonrası Johansson ve ark.^[10] %33, Byers ve ark.^[17] ise %50 oranında nüks bildirmişlerdir. Aynı zamanda sinovektomi sonrası özellikle ameliyat sonrası hareket kısıtlılığı gibi komplikasyonlarla karşılaşma ihtimali de yüksektir.^[17] Kemik erozyonları ve kistlerinin görüldüğü ve ileri derecede eklem harabiyeti olan durumlarda artroplastisi veya artrodez uygulaması ve sonrasında radyoterapi verilmesinin nüks oranlarını düşürdüğü bildirilmiştir.^[11,14] Radyoterapi, yeni bir cerrahinin önemli derecede fonksiyon kaybına yolaçabileceği nüks olgularında da başvurulabilecek bir yöntemdir.^[20] Nüks görülme sıklığı nodüler veya yaygın tutulum göstermesi ile ilişkili değildir ve kemik tutulumunun olması nüks oranını artırmamaktadır.^[11] Pigmente villonodüler sinovitte omuz tutulumu çok az görülür ve buna bağlı olarak nüks de oldukça nadir görülmektedir.^[9,10] Nüks oranının omuz eklemine dize göre daha düşük görülmesinde omuz eklemine sinovektominin daha kolay olmasının da etkili olduğu düşünülmektedir.^[13]

Omuz tutulumlu hastalarda sinovektominin artroskopik uygulaması; eklem kavitesinin tam ve net görüşünü sağlaması ve cerrahi sonrası açık cerrahiye göre daha az oranda eklem sertliği ve ağrı görülmesi nedeniyle önerilen bir yöntemdir.^[21,22] Artroskopik girişim ile omuz tutulumu olan hastalarda aynı zamanda rotator kılıf tamiri ve akromiyoplastisi de uygulamak mümkündür.^[23,24] Koh ve ark.,^[25] her iki omuz tutulumlu PVNS olgusunda her iki omuzda da artroskopik sinovektomi uygulamış ve 2.5 yıllık takibinde nüks görmediklerini bildirmişlerdir. Chiang ve ark.,^[23] beş olguluk çalışmalarında PVNS tutulumlu hastalarında artroskopik sinovektomi yanında rotator kılıf tamiri de uygulamış ve yaklaşık iki yıllık takibinde tüm hastalarında semptomatik ve fonksiyonel iyileşme gözlemlenmiş ve hiçbir hastada nüks saptamamışlardır. Koh ve ark.,^[25] özellikle eklem posteriyoruna ulaşımın artroskopik yöntemle açık cerrahiye göre daha kolay olduğunu bildirmiştir. Ji ve ark.,^[21] iki hastada artroskopik sinovektomi yanında subakromiyal yayılım olması nedeniyle subakromiyal dekompresyon uygulamış ve artroskopik olarak görünümün daha geniş ve rahat olduğunu bildirmişlerdir. Chiffolot ve ark.,^[22] artroskopik sinovektomi uyguladıkları PVNS hastasının üç yıllık takibinde nüks görmediklerini bildirmişlerdir. Mahieu ve ark.,^[26] iki hastada artroskopik sinovektomi sonrası başarılı sonuç almış ve takiplerinde nüks görmediklerini bildirmişlerdir. Nüks oranının açık cerrahiden farklı olmaması, morbiditesinin düşük olması ve hızlı rehabilitasyon sağlaması nedeniyle artroskopik sinovektomi tercih edilmesi gereken tedavi yöntemi olarak önerilmektedir.^[25,26]

Omuz eklemine PVNS tutulumu çok nadir görülen bir durumdur ve özellikle uzun süreli ve geçmeyen eklem ağrısı ve şişlik yakınması ile başvuran hastalarda ayırıcı tanıda düşünülmelidir. İleri derecede eklem harabiyeti gelişmeden tanı konulması eklem koruyucu tedavi uygulaması için önemlidir. Sinovektomi uygulamasının mümkün olduğunca geniş ve tam olması nüks gelişimi için önemli bir faktördür. Sinovektomi tekniği olarak daha geniş eklem içi görüş olanağı sağlaması ve daha minimal invazif bir girişim olması nedeniyle artroskopik yöntem açık cerrahiye tercih edilmelidir. Artroskopik olarak ulaşılamayan bölgelerde açık cerrahi de düşünülebilir.

Çıkar çakışması beyanı

Yazarlar bu yazının hazırlanması ve yayınlanması aşamasında herhangi bir çıkar çakışması olmadığını beyan etmişlerdir.

Finansman

Yazarlar bu yazının araştırma ve yazarlık sürecinde herhangi bir finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

KAYNAKLAR

1. Tatari H, Baran O, Lebe B, Kiliç S, Manisali M, Havitçioğlu H. Pigmented villonodular synovitis of the knee presenting as a popliteal cyst. *Arthroscopy* 2000;6:13.
2. Dorwart RH, Gen ant HK, Johnston WH, Morris JM. Pigmented villonodular synovitis of the shoulder: radiologic-pathologic assessment. *AJR Am J Roentgenol* 1984;143:886-8.
3. Myers BW, Masi AT. Pigmented villonodular synovitis and tenosynovitis: a clinical epidemiologic study of 166 cases and literature review. *Medicine (Baltimore)* 1980;59:223-38.
4. Mohr W. Pigmented villonodular synovitis-a review with reference to 166 cases]. *Pathologie* 1992;13:314-21. [Abstract]
5. Schwartz HS, Unni KK, Pritchard DJ. Pigmented villonodular synovitis. A retrospective review of affected large joints. *Clin Orthop Relat Res* 1989;243:55.
6. Cho CH, Sohn SW, Song KS, Kang CH, Min BW, Bae KC, et al. Extra-articular pigmented villonodular synovitis of the subacromial space. *Orthopedics* 2008;31. pii: orthosupersite.com/view.asp?rID=32938.
7. Cotten A, Flipo RM, Mestdagh H, Chastanet P. Diffuse pigmented villonodular synovitis of the shoulder. *Skeletal Radiol* 1995;24:311-3.
8. Flandry F, Norwood LA. Pigmented villonodular synovitis of the shoulder. *Orthopedics* 1989;12:715-8.
9. Toro FG, Paulos JA, Fuentes DL, Sancy KL. Total shoulder arthroplasty in pigmented villonodular synovitis: a case report. *J Shoulder Elbow Surg* 2002;11:188-90.
10. Johansson JE, Ajjoub S, Coughlin LP, Wener JA, Cruess RL. Pigmented villonodular synovitis of joints. *Clin Orthop Relat Res* 1982;163:159-66.
11. Sawmiller CJ, Turowski GA, Sterling AP, Dudrick SJ. Extraarticular pigmented villonodular synovitis of the shoulder: a case report. *Clin Orthop Relat Res* 1997;335:262-7.

12. Hoaglund FT. Experimental hemarthrosis. The response of canine knees to injections of autologous blood. *J Bone Joint Surg Am* 1967;49:285-98.
13. Mulier T, Victor J, Van Den Bergh J, Fabry G. Diffuse pigmented villonodular synovitis of the shoulder. A case report & review of literature. *Acta Orthop Belg* 1992;58:93-6.
14. Ray RA, Morton CC, Lipinski KK, Corson JM, Fletcher JA. Cytogenetic evidence of clonality in a case of pigmented villonodular synovitis. *Cancer* 1991;67:121-5.
15. Sakkars RJ, de Jong D, van der Heul RO. X-chromosome inactivation in patients who have pigmented villonodular synovitis. *J Bone Joint Surg Am* 1991;73:1532-6.
16. Castens HP, Howell RS. Malignant giant cell tumor of tendon sheath. *Virchows Arch A Pathol Anat Histol* 1979;382:237-43.
17. Byers PD, Cotton RE, Deacon OW, Lowy M, Newman PH, Sissons HA, et al. The diagnosis and treatment of pigmented villonodular synovitis. *J Bone Joint Surg [Br]* 1968;50:290-305.
18. Ege G, Akman H. Case report: lipoma arborescens of the knee. [Article in Turkish] *Eklem Hastalik Cerrahisi* 2002;131:45-8.
19. Danzig LA, Gershuni DH, Resnick D. Diagnosis and treatment of diffuse pigmented villonodular synovitis of the hip. *Clin Orthop Relat Res* 1982;1:42-7.
20. O'Sullivan B, Cummings B, Catton C, Bell R, Davis A, Fornasier V, et al. Outcome following radiation treatment for high-risk pigmented villonodular synovitis. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 1995;32:777-86.
21. Ji JH, Shafi M, Park SE, Kim WY. Subacromial bony erosion: a rare presentation of pigmented villonodular synovitis of the shoulder. *Knee Surg Sports Traumatol Arthrosc* 2009;17:534-8.
22. 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;91:470-5. [Abstract]
23. Chiang ER, Ma HL, Wang ST, Hung SC, Chen TH. Arthroscopic treatment for pigmented villonodular synovitis of the shoulder associated with massive rotator cuff tear. *Arthroscopy* 2009;25:716-21.
24. Akpınar S, Hersekli MA, Ozalay M, Ozkoc G, Tandogan RN. Arthroscopic acromioplasty in the treatment of subacromial impingement syndrome. [Article in Turkish] *Eklem Hastalik Cerrahisi* 2003;14:94-7.
25. Koh KH, Lim KS, Yoo JC. Arthroscopic treatment of pigmented villonodular synovitis involving bilateral shoulders. *Orthopedics* 2010;6:442.
26. Mahieu X, Chaouat G, Blin JL, Frank A, Hardy P. Arthroscopic treatment of pigmented villonodular synovitis of the shoulder. *Arthroscopy* 2001;17:81-7.