

CASO CLINICO

Tenosinovite delle caviglie come segno d'esordio di sarcoidosi in un paziente con rettocolite ulcerosa

Tenosynovitis of the ankles as onset of sarcoidosis in a patient with ulcerative colitis

A. Furlan, M. Podswiadek, F. Cozzi, S. Todesco

Cattedra ed Unità Operativa Complessa di Reumatologia, Università degli Studi di Padova

SUMMARY

Arthritis and tenosynovitis are frequently reported as complications of inflammatory bowel diseases. About 10% of patients with ulcerative colitis presents articular inflammation, usually in the phases of activity of intestinal disease. Tenosynovitis is also a frequent complication of ulcerative colitis.

We describe here a case of tenosynovitis of both ankles occurring in a patient affected by ulcerative colitis not in active phase. Chest X-ray and TC showed hilar lymphonode enlargement and transbronchial biopsy confirmed the diagnosis of sarcoidosis. In this disease tenosynovitis is very rare, unlike arthritis that is rather common. In conclusion we observed a case of ankle bilateral tenosynovitis as onset manifestation of sarcoidosis.

Reumatismo, 2005; 57(3):197-200

INTRODUZIONE

La sarcoidosi, o reticoloendoteliosi benigna, o malattia di Besnier-Boeck-Schaumann, è una malattia granulomatosa cronica, ad evoluzione sistemica, la cui eziologia è tuttora sconosciuta. Tale disordine può colpire qualsiasi organo, incluso l'apparato muscoloscheletrico, anche se le più comuni sedi di localizzazione sono i linfonodi, soprattutto intratoracici, i polmoni, il fegato e la milza, la cute e gli occhi. Per questo motivo il paziente affetto da sarcoidosi può presentarsi inizialmente a vari medici specialisti, ai quali spetta il compito di riconoscere precocemente questa condizione morbosa, la quale può creare serie difficoltà diagnostiche differenziali con altre malattie a causa della varietà delle sue manifestazioni extrapolmonari (1). Le manifestazioni reumatiche della sarcoidosi pos-

sono essere diverse e comprendono artriti, tenosinoviti, osteopatie e miopatie (2).

L'artrite è la più classica e frequente, essendo stata descritta in una percentuale fino al 23,5% dei pazienti (3-6). Può manifestarsi in due modi: una forma acuta autolimitantesi, spesso nell'ambito di una sindrome di Löfgren, oppure una forma cronica che invece può portare a deformazioni articolari, talora anche gravi. Le due forme si presentano in pazienti che hanno caratteristiche genetiche diverse ed aspetti del liquido sinoviale differenti, sia per cellularità che per concentrazione di citochine proinfiammatorie (7).

Fra le localizzazioni più colpite, nella forma acuta ritroviamo le caviglie. Tuttavia, in caso di dolore e tumefazione in queste sedi, non è sempre facile stabilire se si tratti di un'artrite o di una tenosinovite o di entrambe, visto il frequente coinvolgimento delle parti molli.

Le tenosinoviti sono una complicanza rara della sarcoidosi: i casi descritti in letteratura interessavano prevalentemente guaine tendinee localizzate a livello di mani e polsi (8-11).

Riportiamo un caso di sarcoidosi manifestatasi in un paziente affetto da rettocolite ulcerosa (RCU)

Indirizzo per la corrispondenza:

Dott. Antonio Furlan
Cattedra e UOC di Reumatologia
Via Giustiniani 2, 35128 Padova
E-mail: antonio.furlan@unipd.it

con una tumefazione dolorosa delle caviglie che non sembrava attribuibile alla malattia infiammatoria intestinale, essendo essa da tempo in remissione.

CASO CLINICO

B.S., maschio di 39 anni, giungeva alla nostra osservazione nel luglio 2004 per la comparsa di dolore e tumefazione ad entrambe le caviglie.

Ricoverato nell'agosto del 1999 in reparto gastroenterologico per diarrea muco-sanguinolenta ed iperpiressia, era stato dimesso con diagnosi di retocolite ulcerosa a localizzazione retto-sigmoidea. La terapia intrapresa con mesalazina era stata dopo poco sospesa per una reazione cutanea allergica e il paziente veniva quindi sottoposto ad un ciclo di terapia corticosteroidica (25 mg/die di prednisone per os, a scalare), con beneficio.

Nel 2000 e nel 2001 veniva nuovamente ricoverato per una riacutizzazione della malattia, manifestatasi dapprima con anemizzazione e poi con dolore addominale e diarrea muco-ematica. In occasione dell'ultimo ricovero iniziava terapia con metotrexate (25 mg i.m. alla settimana) in aggiunta alla terapia corticosteroidica in atto. Il trattamento determinava un rapido miglioramento, per cui veniva continuato per due mesi a dosaggio decrescente, con buon beneficio. Da allora il paziente non riferisce recidive della colite, in assenza di terapia specifica.

L'esame obiettivo all'ingresso nel nostro reparto, a parte un'eruzione acneiforme al dorso, evidenziava tumefazione, dolorabilità e limitazione funzionale di entrambe le caviglie. In particolare apparivano arrossate ed edematose le superfici articolari e la cute sovrastante i tendini estensori delle dita, con aspetto tenosinovitico. Gli accertamenti ematochimici mostravano l'aumento degli indici di flogosi (VES 50 mm I ora, PCR 29,3 mg/l) e della beta2-microglobulina (3,08 mg/l). Lievemente superiori alla norma risultavano inoltre la fosfatasi alcalina (130 UI/l) e l'ACE (56 UI/l). Gli indici di funzionalità renale erano nella norma, come pure emocromo, transaminasi, elettroliti, profilo lipidico e proteico, ferritina ed esame urine. Negativi risultavano gli anticorpi anti-citrullina, il fattore reumatoide, il TPHA, l'HbsAg e gli anticorpi anti-HCV. La tipizzazione HLA mostrava il seguente assetto genetico: A23 (9), 24 (9); B7, 44 (12); Cw2, 7 (Bw4, 6); DR2, 11 (5); DQ1, 7 (3); (DR51, 52).



Figura 1 - Radiogramma del torace eseguito durante il ricovero (luglio 2004): linfadenomegalia mediastinica bilaterale.



Figura 2 - Radiogramma del torace eseguito un anno prima del ricovero (settembre 2003): n.d.p.



Figura 3 - TC del torace eseguita durante il ricovero: evidenti noduli parenchimali polmonari (freccia).

L'ecografia delle articolazioni tibiotarsiche evidenziava i segni di una tenosinovite bilaterale dei tendini estensori delle dita, senza segni di versamento articolare. La radiografia del torace mostrava profili poliplici delle ombre ilari, che apparivano più compatte che di norma (Fig. 1); tale reperto non era apprezzabile nella precedente radiografia che risaliva ad un anno prima (Fig. 2). Veniva quindi eseguita una TC del torace che mostrava alcuni linfonodi delle dimensioni massime di 15 mm in sede mediastinica paratracheale, pacchetti linfonodali agli ili polmonari e lungo le diramazioni dei grossi bronchi, nodularità parenchimali diffuse ad entrambi i polmoni (Fig. 3). L'esame istologico di un campione di tali lesioni, ottenuto mediante biopsia transbronchiale, mostrava noduli epitelioidi il cui aspetto veniva descritto dal patologo come indicativo di sarcoidosi. Al controllo gastroenterologico non venivano ravvisati segni clinici di riacutizzazione della RCU.

Il paziente veniva quindi inviato presso un centro specialistico dedicato alla sarcoidosi per iniziare la terapia farmacologica più opportuna.

DISCUSSIONE

Il caso qui descritto presenta una manifestazione clinica di difficile interpretazione.

I precedenti anamnestici del paziente inducevano facilmente ad ipotizzare una artrite associata a riacutizzazione della colite ulcerosa, come ampiamente descritto in letteratura. L'ecografia ha invece chiarito trattarsi di tenosinovite degli estensori delle dita dei piedi, patologia poco frequente nella RCU (12) a differenza dell'artrite. Le ma-

nifestazioni più importanti a carico dell'apparato locomotore in corso di spondiloartrite sieronegative associate ad enteropatia sono infatti l'artrite e la tenosinovite, specie a carico delle maggiori articolazioni dell'arto inferiore, oltre al possibile impegno assiale (sacroileite e spondilite) (13).

Nel paziente in esame colpiva però il fatto che la malattia infiammatoria intestinale era da tempo in remissione, anche senza assumere alcuna terapia.

La indagini radiologiche hanno invece spostato l'attenzione su una concomitante patologia linfonodale, che la biopsia transbronchiale ha consentito di diagnosticare come sarcoidosi. In questa malattia più del 90% dei pazienti mostrano un coinvolgimento degli ili polmonari (14).

Nella sarcoidosi, oltre alle lesioni ossee descritte da Jungling (15) le manifestazioni articolari sono molto frequenti e sono riportati, anche se raramente, casi di tenosinovite. In effetti l'antigene HLA DR3, indicato come possibile fattore di rischio (RR 4.8) per un interessamento articolare in corso di sarcoidosi (16) non veniva evidenziato nel caso in esame.

La mancanza di una contemporanea riaccensione della colite ulcerosa ci ha fatto correlare la tenosinovite non a questa malattia ma alla sarcoidosi che verosimilmente era di recente insorgenza, considerato che una radiografia del torace di un anno prima non aveva evidenziato alcun segno di linfadenopatia mediastinica.

In conclusione questo caso clinico conferma analoghe precedenti seppur rare osservazioni e suggerisce che la diagnosi di sarcoidosi va presa in considerazione di fronte ad una tenosinovite delle caviglie (17-19).

RIASSUNTO

Artrite e tenosinovite sono complicanze frequenti delle malattie infiammatorie dell'intestino. Circa il 10% dei pazienti con rettocolite ulcerosa accusano episodi di artrite o di tenosinovite durante il decorso, di solito nelle fasi di riaccensione della malattia intestinale.

Descriviamo qui un caso di tenosinovite di entrambe le caviglie manifestatasi in un paziente affetto da rettocolite ulcerosa in fase quiescente. Il radiogramma e la TC del torace hanno mostrato una linfadenomegalia mediastinica e la biopsia transbronchiale ha confermato la diagnosi di sarcoidosi. In questa malattia le tenosinoviti sono molto rare, a differenza dell'artrite. Abbiamo in definitiva osservato un caso di tenosinovite delle caviglie come manifestazione d'esordio della sarcoidosi.

Parole chiave - Tenosinovite, sarcoidosi, rettocolite ulcerosa.

Key words - *Tenosynovitis, sarcoidosis, ulcerative colitis.*

BIBLIOGRAFIA

1. Newman LS, Rose CS, Maier LA. Sarcoidosis. *N Eng J Med* 1997; 336: 1024-34.
2. Torralba KD, Quismorio FP Jr. Sarcoid arthritis: a review of clinical features, pathology and therapy. *Sarcoidosis Vasc Diffuse Lung Dis* 2003; 20: 95-103.
3. Glennas A, Kvien TK, Melby K, Refvem OK, Andrup O, Karstensen B, et al. Acute sarcoid arthritis: occurrence, seasonal onset, clinical features and outcome. *Br J Rheumatol* 1995; 34: 45-50.
4. Perruquet JL, Harrington TM, Davis DE, Viozzi FJ. Sarcoid arthritis in a North American Caucasian population. *J Rheumatol* 1984; 11: 521-5.
5. Kaplan HI, Katz WA, Rubenstein M. Periarticular inflammation, bilateral hilar adenopathy and sarcoid reaction. *Arthritis Rheum* 1970; 13: 101-11.
6. Mana J, Gomez-Vaquero C, Montero A, Salazar A, Marcovall J, Valverde J, et al. Löfgren's syndrome revisited: a study of 186 patients. *Am J Med* 1999; 107: 240-5.
7. Punzi L, Oliviero F, Ramonda R, Sfriso P, Todesco S. The synovial fluid analysis in sarcoid arthritis. *Sarcoidosis Vasc Diffuse Lung Dis*. 2004; 21: 77.
8. Stambouth JL, Bora FW, DuShuttle RP. Sarcoid flexor tenosynovitis of the finger: a case report. *J Hand Surg* 1986; 11: 436-8.
9. Merle M, Bour C, Foucher G, Saint Laurent Y. Sarcoid tenosynovitis in the hand. A case report and literature review. *J Hand Surg* 1986; 11: 281-6.
10. Grossman JA, Robotti EB. A palmar plaque and flexor tenosynovitis in a patient with sarcoidosis. *Ann Chir Main Memb Super* 1992; 11: 416-8.
11. Katzman BM, Caligiuri DA, Klein DM, Perrier G, Dauterman PA. Sarcoid flexor tenosynovitis of the wrist: a case report. *J Hand Surg* 1997; 22: 336-7.
12. De Geysers F, Elewaut D, De Vos M, De Vlam K, Cuvelier C, Mielants H, et al. Bowel inflammation and the spondyloarthropathies. *Rheum Dis Clin North Am* 1998; 24: 785-813.
13. Podswiadek M, Punzi L, Pianon M, D'Inca R, Bernardini D, Ferronato A, et al. Prevalenza delle manifestazioni reumatiche nei pazienti con malattie infiammatorie intestinali. Studio su 539 pazienti. *Reumatismo* 1999; 51 (suppl 2): 279.
14. Baughman RP, Teirstein AS, Judson MA, Rossman MD, Yeager H Jr, Bresnitz EA, et al. Clinical characteristics of patients in a case control study of sarcoidosis. *Am J Respir Crit Care Med* 2001; 164: 1885-9.
15. Jungling O. Über osteitis tuberculosa multiplex cystoides zugleich ein Beitrag zur Lehre von der Tuberkuliden der Knochen. *Beitr Klin Chir* 1928; 143: 401-9.
16. Krause A, Goebel KM. Class II MHC antigen (HLA-DR3) predisposes to sarcoid arthritis. *J Clin Lab Immunol* 1987; 24: 25-7.
17. Larsen TK. Tenosynovitis as initial diagnosis of sarcoidosis. Case report. *Scand J Plast Reconstr Surg Hand Surg* 1996; 30: 157-9.
18. Kellner H, Spathling S, Herzer P. Ultrasound findings in Löfgren's syndrome: is ankle swelling caused by arthritis, tenosynovitis or periartthritis? *J Rheumatol* 1992; 19: 38-41.
19. Grossman JA, Robotti EB. A palmar plaque and flexor tenosynovitis in a patient with sarcoidosis. *Ann Chir Main Memb Super* 1992; 11: 16-8.