

Kazuistika Case Report

ČESKÁ
STOMATOLOGIE
ročník 113,
2013, 6,
s. 150–154

Chondrokalcinóza (pseudodna) temporomandibulárního kloubu

(Kazuistika)

Chondrocalcinosis (Pseudogout) of the Temporomandibular Joint

(Case Report)

Tvrđý P.¹, Pink R.¹, Tichý T.², Heinz P.¹, Michl P.¹

¹Klinika ústní, čelistní a obličejové chirurgie LF UP a FN, Olomouc

²Ústav klinické a molekulární patologie LF UP a FN, Olomouc

SOUHRN

Úvod: Krystaly indukované artropatie jsou častým onemocněním kloubů. Dochází ke tvorbě depozit krystalů v kloubních nebo periartikulárních tkáních. Ukládání krystalů v temporomandibulárním kloubu se vyskytuje velmi vzácně.

Cíl práce: Cílem práce je demonstrovat ojedinělý výskyt vzácné krystalové artropatie v temporomandibulárním kloubu, prezentovat vyšetřovací metody a terapeutické možnosti.

Materiál, metodika, výsledky: Autoři popisují případ 77leté ženy s chondrokalcinózou pravého čelistního kloubu. Po absolvování zobrazovacího vyšetření pomocí magnetické rezonance podstoupila nejprve biopsii, potom, vzhledem k nejasnému závěru histopatologického vyšetření, chirurgické odstranění pseudotumoru. Podrobnějším histopatologickým vyšetřením byly zjištěny romboidní krystaly kalciumpyrofosfátu.

Závěr: Nebývá lehké stanovit přesnou diagnózu onemocnění pro různorodost klinických symptomů. Často imituje různé nádory či zánětlivé stavy. V diagnostice se využívá hlavně histopatologické vyšetření v polarizačním mikroskopu a CT a MRI zobrazení. Hlavní terapeutickou metodou je chirurgické odstranění depozit krystalů.

Klíčová slova: *chondrokalcinóza – pseudodna – temporomandibulární kloub – diagnostika – terapie*

SUMMARY

Introduction: Crystal-induced arthropathies are a frequent inflammatory joint disease. These diseases are characterized by the formation of crystal deposits in joint tissues or in periarticular structures. Calcium pyrophosphate crystal deposition in the temporomandibular joint occurs very rarely.

Aim: The aim of this case report is to demonstrate the occurrence of the rare crystal arthropathy in temporomandibular joint, examination methods and therapeutic options.

Material and method, results: In this report, we present the case of a 77-year-old woman with chondrocalcinosis of right temporomandibular joint. She underwent removal of pseudotumor after MRI examination. Evaluation of the specimen revealed the presence of rhomboid positively birefringent crystals.

Conclusion: It is not easy to make an accurate diagnosis of the disease due to the heterogeneity in the clinical symptoms. Frequently, it imitates various tumours or inflammatory conditions. Histopathological examination with a polarizing microscope and CT and MRI scans are the mainstays of the diagnostics. The principal therapeutic method is the surgical removal of the depositions of crystals.

Key words: *chondrocalcinosis – pseudogout – temporomandibular joint – diagnostics – therapy*

Čes. Stomat., roč. 113, 2013, č. 6, s. 150–154

ÚVOD

Krystaly indukované artropatie jsou častým závažným kloubním onemocněním. Pro tyto choroby je charakteristická tvorba depozit krystalů ve tkáních kloubu či periartikulárních strukturách, na kterou organismus reaguje zánětem.

Existují tři hlavní typy „krystalových“ artropatií: urátová artropatie (dna), vznikající ukládáním natrium urátových krystalů při zvýšené hladině kyseliny močové v séru; kalciumpyrofosfát dihydrátová artropatie (pseudodna, chondrokalcinóza, CPPD) a hydroxyapatitová artropatie. Jejich výskyt v čelistním kloubu je raritní.

Při chondrokalcinóze se ukládají krystaly v synoviální tekutině kloubu i v periartikulárních tkáních. Tento proces pravděpodobně souvisí s poškozením chrupavky při chronickém zánětu nebo lokálním traumatu kloubu. Celkově může být spojeno i se systémovými onemocněními, jako jsou například hypotyreóza, hyperparatyreóza, hypomagnezémie, amyloidóza, a taktéž s procesem stárnutí organismu, hlavně u žen při hormonální dysbalanci v menopauze [9, 19, 20].

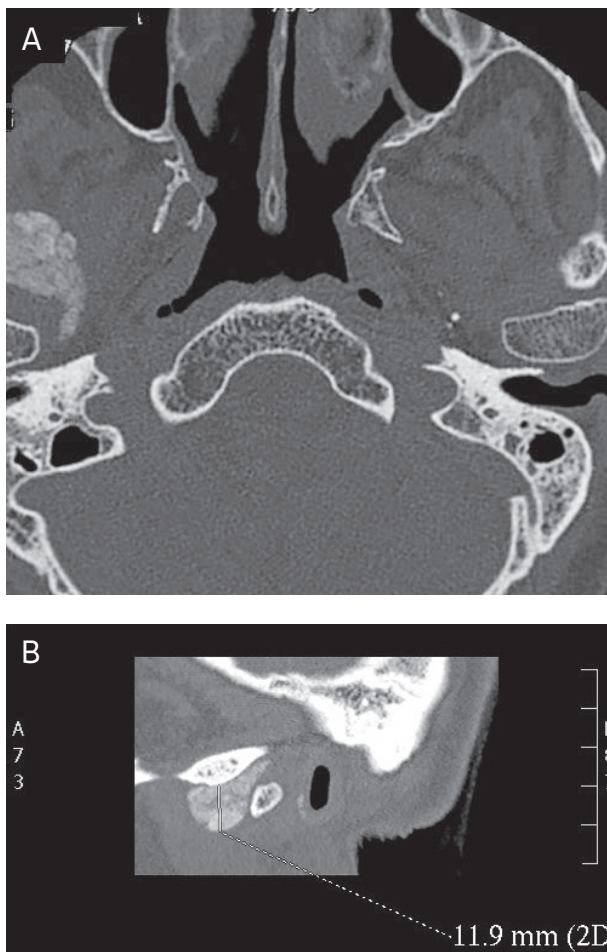
KAZUISTIKA

Na ambulanci Kliniky ústní, čelistní a obličejové chirurgie LF UP a FN v Olomouci byla na doporučení otorinolaryngologa ke konzultaci nálezu odeslána na počítačovou tomografii (CT) 77letá žena.

Pacientka byla subjektivně bez obtíží, otevírání úst měla v normě, bez zvukových fenoménů, bez stranové úchylny brady nebo viditelného zduření měkkých tkání obličeje. Na dostupných CT snímcích byla popsána v oblasti pravého temporomandibulárního kloubu nepravidelná poloměsíčitá struktura preartikulárně pod spodinou lební, sytosti kalcifikovaného útvaru, velikosti 30×15×11 mm (obr. 1a, b).

V osobní anamnéze uvedla ablaci prsu pro karcinom v roce 1992 s následnou radioterapií a chemoterapií tamoxifenem a v roce 2010 myringoplastiku pro perforaci bubínku po zánětu středního ucha vpravo.

Další námi navrhovaný postup (biopsie, hospitalizace event. chirurgický výkon) nemocná v tuto dobu odmítala. Dostavila se po půl roce s narůstajícím difúzním nebolestivým měkkým zduřením pretrageálně vpravo. Udávala i občasné ataky bolesti v této krajině, šířící se temporálně a také podél těla dolní čelisti vpravo. Pro podezření z nádorového onemocnění jsme indikovali vyšetření magnetickou rezonancí (MRI), které bylo provedeno na Radiologické klinice LF UK a FN v Olomouci. Bylo zjištěno hypo-



Obr. 1 CT snímek TMK před operací v axiální (A) a boční (B) projekci

signální ložisko o velikosti 32×18×19 mm vpravo ventrálně od kondylu mandibuly, těsně při kraniálním okraji m. pterygoideus lateralis, s usurací velkého křídla kosti klínové (obr. 2a, b).

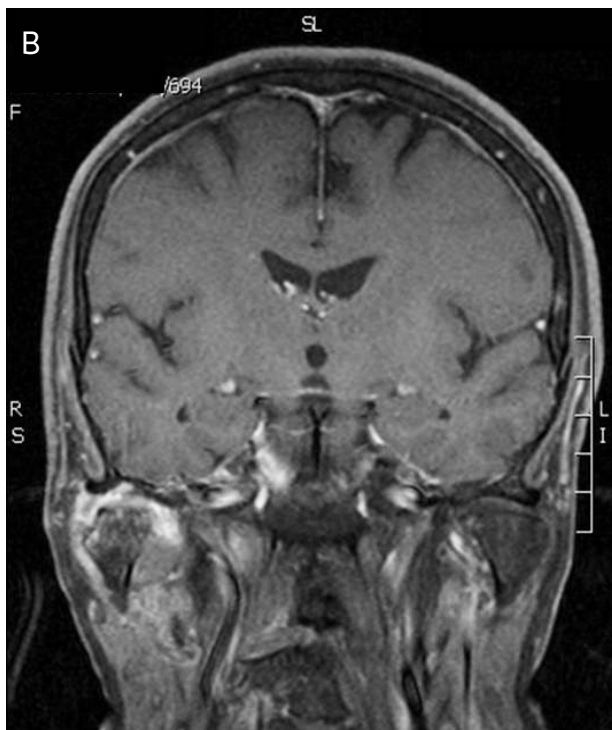
Z histopatologického vyšetření bioptického vzorku tkáně tumoru nebylo možné přesně stanovit, o jakou tkáň jde.

V celkové anestezii jsme z preaurikulárního přístupu exstirpovali granulomatózní ohraničený tumor světle žluté barvy krytý velmi tenkým vazivovým pouzdrém (obr. 3), který nasedal na přední část kloubního pouzdra. Peroperačně jsme šetřili větvení lícního nervu a ránu uzavřeli suturou po vrstvách.

Histopatologický nálezn byl překvapivý, šlo o nepravidelně lobulizovanou homogenní tkáň s obsahem velkého množství drobně krystalického materiálu s makrofagickou reakcí v okolí, nejvíce se blížíci obrazu dnavého tofu.

Vzorek tkáně jsme proto ve spolupráci s Ústavem klinické a molekulární patologie LF UP a FN

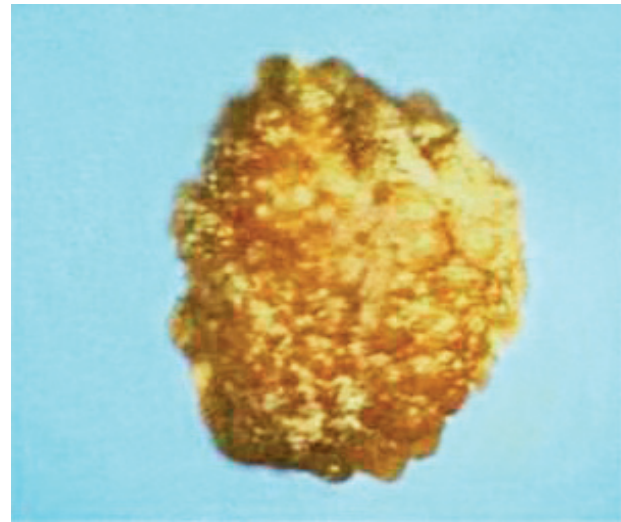
ČESKÁ
STOMATOLOGIE
ročník 113,
2013, 6,
s. 150–154



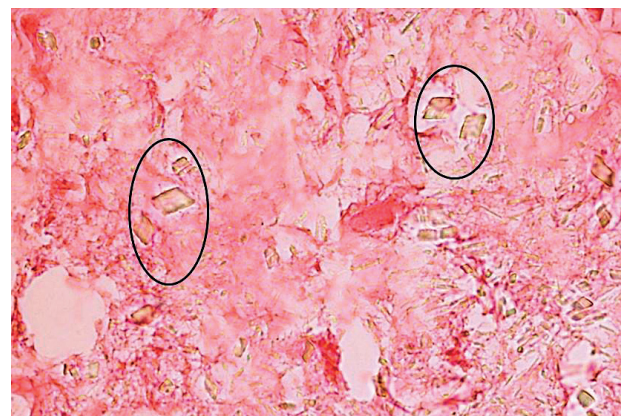
Obr. 2 Magnetická rezonance lebky před operací (a, b)

v Olomouci podrobili vyšetření v polarizačním světle. Zřetelně byly nalezeny krystaly romboidního tvaru, které jsou charakteristické pro kalciumpyrofosfát (obr. 4).

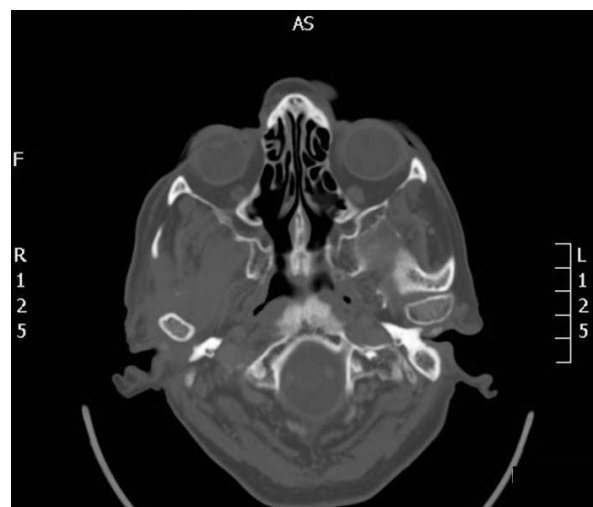
Pacientku jsme odeslali také na revmatologické vyšetření, kde byla zjištěna normální hladina kyseliny močové, vápníku, fosforu, alkalické fosfatázy i revmatoidního faktoru.



Obr. 3 Exstirpovaný pseudotumor



Obr. 4 Krystaly kalciumpyrofosfátu



Obr. 5 CT lebky po operaci

Chondrokalcinóza (pseudodna) temporomandibulárního kloubu

Na základě uvedených vyšetření jsme diagnózu uzavřeli jako chondrokalcinózu (pseudodnu) pravého temporomandibulárního kloubu.

Nemocná je 15 měsíců po operaci, subjektivně i objektivně bez potíží. Na kontrolním CT snímku není patrna recidiva ukládání kalciumpyrofosfátu (obr. 5).

DISKUSE

Depozice krystalů kalcium pyrofosfát dihydrátu (CaPPD) patří mezi krystaly indukovaná onemocnění. U tohoto onemocnění nebyla zjištěna systémová metabolická odchylka ve fosfokalciovém metabolismu, ale v kloubu byly zjištěny změny, při kterých dochází k lokálně zvýšené tvorbě anorganického pyrofosfátu. Onemocnění může mít formu sporadickou familiární, nebo asociovanou s jiným onemocněním [5]. Výskyt pyrofosfátové artropatie stoupá s věkem a je dvakrát častější u žen [15]. Osmdesát procent postižených je ve věku vyšším než 60 let. Incidence stoupá jak s věkem, tak s anamnézou přetížení nebo po traumatu kloubu. S rizikem vzniku tohoto onemocnění bývá spojeno mnoho systémových chorob, jako například revmatoidní artritida, dna, hypomagnezémie, hypotyreóza, amyloidóza, hypofosfatémie, hyperparatyroidismus, hemosideróza, hemochromatóza, familiární hypokalciurie, a hyperkalcémie [3, 18]. Nejčastější klinickou manifestací je akutní synovitida nebo pyrofosfátová artropatie či kombinace obou. Akutní synovitida (pseudodna) je prudký, epizodický zánět připomínající dnu, který nepostihuje I. metakarpofalangeální kloub, ale jiné klouby, převážně na nohou, a to ve formě mono- či oligoartritidy. Pyrofosfátová artropatie je chronické onemocnění připomínající osteoartrózu s tím, že prediktivně postihuje jiné klouby než osteoartróza (zápěstí, ramena, lokty, kotníky). Při diagnostice nemoci podmíněné ukládáním krystalů CaPPD se prokazují krystaly v synoviální tekutině nebo typické kalcifikace na rentgenovém snímku. Krystaly CaPPD jsou v polarizačním mikroskopu slabě pozitivně dvojlomné, romboidního tvaru, na rozdíl od častěji se vyskytujících krystalů urátových, které mají tvar jehlic. Kalcifikace postihují zejména vazivové chrupavky. Nejčastější lokalizací jsou menisky kolenních kloubů, triangulární disk na zápěstí a symfýza stydkých kostí. Výskyt tohoto onemocnění v oblasti temporomandibulárního kloubu je velmi vzácný, v anglosaské literatuře je popsáno méně než 40 případů, a pouze dvě kazuistiky uvádějí oboustranný nález [7, 10, 12]. První případ pseudodny v čelistním kloubu popsal Pritzker v roce 1976 [16]. Klinické příznaky jsou variabilní a napodobují

jiná onemocnění kloubu, jako jsou pravá dna, osteoartróza, revmatoidní artritida, synoviální chondromatóza a nádory. Mohou imitovat i postižení mimokloubních struktur, například cholesteatom, chondrosarkom, amyloid nebo nádory příušní žlázy. Při vyšetření je patrný difuzní preaurikulární otok, bolest ucha a poloviny obličeje šířící se temporálně. Může být přítomna i čelistní kontraktura či jednostranná porucha sluchu. V diagnostice je důležité radiologické vyšetření, zejména CT a magnetická rezonance, kde jsou popisovány neostře ohraničené kalcifikované útvary, výjimečně s přítomností drobných erozí přilehlých kostních struktur [3, 8, 9, 11, 14]. Nezbytnou roli v přesném stanovení diagnózy má histopatologické vyšetření s využitím polarizačního mikroskopu, které rozliší jednotlivé typy krystalů [2]. Kalciumpyrofosfátové krystaly jsou pozitivně dvojlomné a romboidního tvaru, což je pro ně velmi charakteristické [2]. Přínosem v předoperační rozvaze je získání vzorku tkáně aspirací tenkou jehlou. Množství tkáně však může být nedostatečné pro záchyt přítomných krystalů [13]. Nutné je i laboratorní biochemické vyšetření se zaměřením na hladiny vápníku, fosforu a kyseliny močové a zároveň podrobné revmatologické vyšetření.

Terapie onemocnění je zcela symptomatická. Při akutním zánětu lze použít lokální a výjimečně i systémovou aplikaci kortikosteroidů. Lékem volby při léčbě bolesti jsou nesteroidní antiflogistika. Sekundární osteoartróza se léčí primární kombinací farmakologických a nefarmakologických postupů. Artrocentéza a laváž nitrokloubního prostoru pomáhají odstranit mediátory zánětu a také volné krystaly v kloubní tekutině. Podávání alkaloidu kolchicinu při chronickém průběhu nemoci může působit jako profylaxe akutních exacerbací; významnější terapeutický účinek jako u pravé dny však pozorován nebyl [1, 6]. Kolchicin, alkaloid rostliny *Colchicum autumnale* (ocún jesenní) se používá v léčbě dny již od šestého století našeho letopočtu. Pro své antimitotické a protizánětlivé účinky se využívá také v léčbě progresivní systémové sklerodermie, Behcetovy choroby, jaterní cirhózy a amyloidózy [4]. Hlavní léčebnou metodou zůstává chirurgické odstranění pseudotumoru (tofu) a exkochleace dalších depozit krystalů v kostních strukturách kloubu. Důležitá je pečlivá toaleta (výplach) operačního pole. Čím více krystalů se povede odstranit, tím menší je riziko recidivy.

ZÁVĚR

Ukládání kalciumpyrofosfátových krystalů v temporomandibulárním kloubu se vyskytuje velmi vzácně. Málo známá je i patogeneze tohoto procesu.

ČESKÁ
STOMATOLOGIE
ročník 113,
2013, 6,
s. 150-154

Nebývá lehké stanovit přesnou diagnózu onemocnění pro různorodost klinických symptomů. Často imituje různé nádory či zánětlivé stavy. V diagnostice se využívá hlavně histopatologické vyšetření v polarizačním mikroskopu a CT a MRI zobrazení. Hlavní terapeutickou metodou je chirurgické odstranění depozit krystalů.

LITERATURA

- Alvarellos, A., Spilberg, I.:** Colchicine prophylaxis in pseudogout. *J. Rheumatol.*, roč. 13, 1986, č. 4, s. 804–805.
- Appel, T., Bergé, S., Conrad, R., Süess, K.:** Kalziumpyrophosphatarthropathie (Pseudogicht) des Kiefergelenks. *Mund Kiefer Gesichtschir.*, roč. 4, 2001, č. 5, s. 61–64.
- Dijkgraaf, L. C., De Bont, L. G., Liems, R. S.:** Calcium pyrophosphate crystal deposition disease of the temporo-mandibular joint: report of a case. *J. Oral Maxillofac. Surg.*, roč. 50, 1992, č. 9, s. 1003–1009.
- Dvořák, Z., Ulrichová, J., Modrianský, M., Maurel, P.:** Effect of colchicine and its derivatives on the expression of selected isoforms of cytochrome P450 in primary cultures of human hepatocytes. *Biomed. Pap. Med. Fac. Univ. Palacky Olomouc Czech Repub.*, roč. 143, 2000, s. 47–50.
- Goldblatt, F., Highton, J., Kumara, G.:** Temporomandibular joint pseudogout: an uncommon site for a familiar condition. *Ann. Rheum. Dis.*, roč. 63, 2004, č. 12, s. 1706–1707; doi:10.1136/ard.2003.019075.
- Gonzalez, T., Gantes, M.:** Prevention of acute attacks of pseudogout with oral colchicine. *J. Rheumatol.*, roč. 14, 1987, č. 3, s. 632–633.
- Greaves, S., Fordyce, A.:** Bilateral temporomandibular joint pseudogout. *Brit. Dent. J.*, roč. 192, 2002, č. 1, s. 25–27.
- Gross, B. D., Williams, R. B., DiCosimom, C. J., Williams, S. V.:** Gout and pseudogout of the temporomandibular joint. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, roč. 63, 1987, č. 9, s. 551–554.
- Hutton, C. W., Doherty, M., Dieppe, P. A.:** Acute pseudogout of the temporomandibular joint: report of three cases and review of the literature. *Brit. J. Rheumatol.*, roč. 26, 1987, č. 2, p. 51–52.
- Chuong, R., Piper, M. A.:** Bilateral pseudogout of the temporomandibular joint: report of a case and review of the literature. *J. Oral Maxillofac. Surg.*, roč. 53, 1995, č. 5, s. 691–694.
- Kamatani, Y., Tagawa, T., Hirano, Y., Nomura, J., Murata, M.:** Destructive calcium pyrophosphate dihydrate temporomandibular arthropathy. *Int. J. Oral Maxillofac. Surg.*, roč. 16, 1987, č. 8, s. 749–752.
- Kathju, S., Cohen, R., Lasko, L. A., Aynechi, M., Dattilo, D. J.:** Pseudogout of the temporomandibular joint: immediate reconstruction with total joint arthroplasty. *Head Neck*, roč. 32, 2010, č. 3, s. 406–410.
- Marsot-Dupuch, K., Smoker, W. R., Gentry, L. R., Cooper, K. A.:** Massive calcium pyrophosphate dihydrate crystal deposition disease: a cause of pain of the temporomandibular joint. *Am. J. Neuroradiol.*, roč. 25, 2004, č. 7, s. 876–879.
- Lambert, R. G., Becker, E. J., Pritzker, K. P.:** Case report 597: Calcium pyrophosphate deposition disorder (CPPD) of the right temporomandibular joint. *Skeletal Radiol.*, roč. 19, 1990, č. 2, s. 139–141.
- Magno, W. B., Lee, S. H., Schmidt, J.:** Chondrocalcinosis of the temporomandibular joint: an external ear canal pseudotumor. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, roč. 73, 1992, č. 4, s. 262–265.
- Pritzker, K. P., Phillips, H., Luk, S. C., Koven, I. H., Kiss, A., Houpt, J. B.:** Pseudotumor of the temporomandibular joint: destructive calcium pyrophosphate dihydrate arthropathy. *J. Rheumatol.*, roč. 3, 1976, č. 2, s. 70–81.
- Pynn, B., Weinberg, S., Irish, J.:** Calcium pyrophosphate dihydrate deposition disease of the temporomandibular joint. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol. Oral Radiol. Endod.*, roč. 87, 1995, č. 2, s. 133–134.
- Richette, P., Ayoub, G., Bardin, T., Bouvet, S., Orcel, P., Badran, A. M.:** Hypomagnesemia and chondrocalcinosis in short bowel syndrome. *J. Rheumatol.*, roč. 32, 2005, č. 12, s. 2434–2436.
- Steinbach, L. S., Resnick, D.:** Calcium pyrophosphate dihydrate crystal deposition disease revisited. *Radiology*, roč. 110, 1996, č. 1, s. 1–9.
- Žurek, M.:** Krystaly indukované artropatie. *Med. pro Praxi*, roč. 8, 2011, č. 6, s. 299–301.

MUDr. Peter Tvrdý, Ph.D.

Klinika ústní, čelistní a obličejové chirurgie
LF UP a FN
I. P. Pavlova 6
775 20 Olomouc
e-mail: peter.tvrdy@fnol.cz