

Tumori benigni e pseudotumori dell'articolazione temporo-mandibolare: aspetti radiologici

L. IZZO, M. CAPUTO, A. BUFFONE, A. CASULLO¹, A. PERRONE¹, S. SASSI¹,
L. IMPARA¹, G. LUPPI¹, D. MAZZA¹, Marina MARINI¹

RIASSUNTO: Tumori benigni e pseudotumori dell'articolazione temporo-mandibolare: aspetti radiologici.

L. IZZO, M. CAPUTO, A. BUFFONE, A. CASULLO, A. PERRONE,
S. SASSI, L. IMPARA, G. LUPPI, D. MAZZA, MARINA MARINI

Le lesioni tumorali benigne e simil-tumorali che coinvolgono l'articolazione temporo-mandibolare sono poco frequenti. Le più frequenti sono l'ostecondroma, il condroma, l'osteoma, la sinovite villonodulare pigmentata e la condromatosi sinoviale.

Riportiamo i casi di sei pazienti affetti da queste patologie in cui l'imaging con TC, RM e/o ortopantomografia si è dimostrato di grande aiuto per la diagnosi.

SUMMARY: Benign tumors and pseudotumors of temporo-mandibular joint: radiologic aspects.

L. IZZO, M. CAPUTO, A. BUFFONE, A. CASULLO, A. PERRONE,
S. SASSI, L. IMPARA, G. LUPPI, D. MAZZA, MARINA MARINI

Benign tumors and tumor-like lesions that involve temporo-mandibular joint are very rare. Those more frequent are osteochondroma, chondroma, osteoma, pigmented villonodular synovitis and synovial chondromatosis.

The Authors report six cases of patients affected by these pathologies in which imaging, such as TC, MRI and/or orthopantomography have been useful to have a diagnosis.

KEY WORDS: Articolazione temporo-mandibolare - Tumori - Imaging.
Temporomandibular joint - Tumors - Imaging.

Introduzione

I tumori benigni dell'articolazione temporo-mandibolare (ATM) sono entità rare rappresentate da osteoma osteoide, osteoma, ostecondroma, condroma, osteoblastoma e fibroma non ossificante, emangioma (1-6). Vengono incluse in questo gruppo anche delle lesioni che per le loro caratteristiche di espansività e infiltrazione in loco sono considerate pseudotumorali: la sinovite pigmentata villonodulare (PVNS) (10-12) e la condromatosi sinoviale (1,2). I tumori più frequenti sono ostecondromi, condromi e osteomi. Sebbene la natura della maggior parte di queste lesioni sia neoplastica, in alcuni non si può escludere una eziopatogenesi infiammatoria o traumatica (1, 4, 10, 11).

Per quanto concerne l'aspetto clinico i tumori dell'ATM si manifestano con segni e sintomi aspecifici

(1, 3, 4, 5) e pertanto lo studio radiologico è l'unico in grado di far porre precocemente una diagnosi corretta. Data la loro rarità, queste lesioni possono infatti restare misconosciute od essere clinicamente confuse con disfunzioni dell'ATM.

Per l'accertamento diagnostico di tali tumori possiamo ricorrere a diverse metodiche: ortopantomografia (OPT), tomografia computerizzata (TC) e risonanza magnetica (RM). Sebbene l'indagine di prima istanza sia l'OPT, che talora è sufficiente ad individuare la lesione, nella maggior parte dei casi la radiologia tradizionale è di scarsa utilità diagnostica per cui si ricorre a TC e RM.

Il trattamento è il più delle volte chirurgico e prevede l'asportazione della lesione con eventuale condillectomia e sinoviectomia.(3-6). È comunque consigliabile eseguire una TC con ricostruzione 3D prima di effettuare l'intervento chirurgico per precisare la reale estensione della lesione ed evitare quindi una resezione radicale del processo condilare (4)

Riportiamo sei casi di pazienti affetti da tumori e pseudotumori di diverso tipo dell'ATM in cui l'ausilio delle indagini radiologiche è risultato fondamentale per la diagnosi e l'indirizzo terapeutico.

Università degli Studi "La Sapienza" di Roma
Dipartimento "Pietro Valdoni"
(Direttore: Prof. A. Cavallaro)
¹Dipartimento di Scienze Radiologiche - Radiologia Centrale B
(Direttore: Prof. R. Passariello)

Casistica clinica

Caso 1 - Osteocondroma

Una donna di 37 anni si sottoponeva alla nostra osservazione per la comparsa, da circa quattro mesi, di disturbi dell'occlusione soprattutto a sinistra, più intensi durante l'apertura della bocca. Non riferiva dolore, né all'esame obiettivo delle regioni paraauricolari si apprezzavano tumefazioni o linfadenopatie.

Veniva eseguita un'OPT che metteva in evidenza una formazione radiopaca a margini irregolari nella porzione superiore del condilo mandibolare di sinistra, il quale appariva anche irregolare. Per gli ulteriori accertamenti del caso, la paziente, non potendosi eseguire una RM in quanto portatrice di pacemaker, veniva sottoposta ad una TC che mostrava una deformazione della porzione superiore del condilo sinistro, che appariva di volume aumentato e con evidenti irregolarità del profilo; erano inoltre presenti disomogeneità densitometriche per l'alternarsi di aree di ridotta calcificazione e altre di sclerosi. La ricostruzione 3D documentava la deformazione del condilo con la presenza di lacune ossee in corrispondenza della porzione superiore, riferibili ad aree cartilaginee scarsamente calcificate. I reperti radiologici suggerivano la diagnosi di osteocondroma.

La paziente, in accordo con il chirurgo, decise di non sottoporsi all'intervento chirurgico per l'alto rischio cardiovascolare e perché non sussistevano una rilevante deformazione estetica, né grave invalidità funzionale dell'ATM. La donna si sottopone a regolari controlli.

Caso 2 - Osteoma

Un uomo di 45 anni si è presentato alla nostra osservazione per la comparsa diversi mesi prima di una tumefazione preauricolare destra di circa 2 cm. Aveva deciso di sottoporsi ad accertamenti perché aveva notato un aumento di volume della formazione con problemi sia di tipo funzionale (limitazione dei movimenti di apertura e di lateralità) sia di tipo estetico (un'evidente asimmetria facciale per spostamento controlaterale della mandibola). All'esame obiettivo la formazione si presentava dura, fissa e dolente alla palpazione.

Furono eseguite un'OPT ed una radiografia del cranio in proiezione antero-posteriore che confermarono la presenza di una formazione di circa 2 cm, ovale, a contorni regolari, di densità elevata ed omogenea, a larga base d'impianto, ad origine dalla superficie esterna del collo condilare. Il reperto era significativo per osteoma.

Conseguentemente il paziente fu sottoposto ad intervento chirurgico di condilectomia. L'esame istologico del pezzo operatorio evidenziò la presenza di tessuto osseo misto lamellare e trabecolare circondato da periostio.

Attualmente il paziente è in buone condizioni di salute e si sottopone a controlli radiologici.

Caso 3 - Condroma

È giunto alla nostra osservazione un uomo di 56 anni per la comparsa, a livello dell'articolazione temporo-mandibolare destra, di una tumefazione associata a blocchi articolari saltuari all'apertura della bocca. All'esame obiettivo la suddetta lesione appariva ovale, a margini regolari, poco dolente alla palpazione e all'apertura della bocca era possibile ascoltare dei click articolari.

Fu eseguita un'ecografia che evidenziò in sede preauricolare destra, in stretta contiguità del condilo mandibolare, la presenza di un'area ipoecogena con rari echi interni di debole intensità. Alla successiva TC con ricostruzione 3D la formazione ovale, di circa 1 cm, mostrava contorni irregolari, ed era situata a livello del profilo esterno del condilo di destra, con densità disomogenea ed un contorno lievemente sclerotico iperdenso e una zona centrale ipodensa.

Per sospetto condroma fu eseguito l'intervento di parziale resezione del condilo. L'istologia ha confermato la diagnosi segnalando la presenza di una massa cartilaginea, microscopicamente caratterizzata da una matrice ialina e condrociti, ossificante in periferia.

Caso 4 - Osteocondroma

Una donna di 42 anni chiedeva il nostro consulto per aver notato in sede paraauricolare sinistra la comparsa di una tumefazione dolente, che le impediva i movimenti articolari di apertura e chiusura della bocca e le creava inoltre problemi di natura estetica, poiché la mandibola si presentava deviata verso destra.

Fu sottoposta ad un esame TC che evidenziò, sul versante antero-esterno del condilo mandibolare sinistro, una grossolana formazione esototica, di densità disomogenea per la presenza di aree di sclerosi alternate ad altre di ridotta calcificazione; i contorni apparivano modicamente irregolari. La ricostruzione 3D documentava bene l'aumento di volume e la deformazione della porzione esterna del condilo e l'aspetto mammellonato ed irregolare della superficie.

Pertanto è stata posta diagnosi di osteocondroma, cui ha fatto seguito l'asportazione chirurgica. L'esame istologico del campione operatorio mostrò trabecole di tessuto osseo contenenti cellule emopoietiche e soprattutto cellule adipose rivestite da un cappuccio cartilagineo.

Caso 5 - Condromatosi sinoviale

Una donna di 58 anni si è presentata alla nostra osservazione per la comparsa, in sede auricolare destra, di dolore che si accentuava durante i movimenti di apertura della bocca. All'esame obiettivo la paziente presentava un'apertura massima della bocca di 30 mm, rumori articolari (click e lock); non si apprezzavano tumefazioni visibili o palpabili.

La paziente è stata quindi sottoposta ad un esame TC senza mdc che mostrava la presenza di alcune masse calcifiche libere nella cavità articolare dell'ATM destra, reperto compatibile con condromatosi sinoviale.

L'artroscopia operativa ha confermato la diagnosi ed ha consentito l'asportazione dei corpi liberi endoarticolari. La diagnosi istopatologica confermò il sospetto di condromatosi sinoviale.

La paziente è riuscita a recuperare parzialmente la normale apertura della bocca, portandola a 45 mm. La TC di controllo eseguita dopo tre mesi non ha documentato recidive di malattia.

Caso 6 - Sinovite villonodulare pigmentata

È giunto alla nostra osservazione un paziente di 67 anni che presentava una tumefazione in sede preauricolare destra, con dolore localizzato che si accentuava alla digitopressione, limitazione funzionale nei movimenti di apertura e lateralità, trisma e lieve cervicalgia. All'esame obiettivo la tumefazione appariva di forma rotondeggiante, delle dimensioni di 1-2 cm, a margini netti, di consistenza dura, fissa sui piani sottostanti.

È stata eseguita una RM della ATM che mostrava, antero-lateralmente al condilo destro, una massa rotondeggiante di circa 1,5 cm, disomogenea ed ipointensa nelle sequenze T1- e T2 - pesate, ben delimitata e parzialmente adesa al condilo. Dopo somministrazione endovenosa di mezzo di contrasto paramagnetico la formazione mostrava un disomogeneo aumento dell'intensità di segnale. È stato realizzato un esame TC del massiccio facciale che segnalava iperdensità della lesione e confermava le principali caratteristiche morfologiche descritte dalla RM. La bassa intensità di segnale rilevata dalla RM in combinazione con la iperdensità della TC hanno suggerito un accumulo tissutale di emoderina, reperto altamente correlato con PVNS.

La lesione è stata asportata con approccio preauricolare. L'esame istologico evidenziava una proliferazione di elementi

mononucleati e numerose cellule giganti multinucleate distribuite omogeneamente all'interno della lesione, commiste ad aree emorragiche, ad accumuli di emosiderina e tessuto fibrovascolare, aspetti che hanno confermato la diagnosi di PVNS.

Un mese dopo l'intervento è stata effettuata una TC di controllo che non ha mostrato immagini patologiche riferibili a recidive locoregionali.

Discussione

I tumori benigni e le formazioni pseudotumorali dell'ATM si presentano con una frequenza molto bassa e in letteratura ne sono riportati solo pochi casi. Quelli giunti alla nostra osservazione sono stati: 2 casi di osteocondroma, 1 caso di osteoma, 1 caso di condroma, 1 caso di condromatosi sinoviale e 1 caso di PVNS. Seppure limitata, la nostra casistica concorda con i dati della letteratura che indicano l'osteocondroma come il tumore osseo benigno più frequente (40-45%). Per quanto riguarda le altre lesioni non ci sono dati sulla loro incidenza a livello dell'ATM, se si esclude l'osteoma per il quale, ad oggi, sono stati riportati solo 14 casi (8).

Per quanto concerne la patogenesi, l'osteoma e il condroma riconoscono un'accertata origine neoplastica (1, 7, 8), la condromatosi sinoviale una trasformazione metaplasica della membrana sinoviale (2, 5), mentre per l'osteocondroma e la PVNS non si può escludere, oltre all'ipotesi neoplastica, una patogenesi infiammatoria o traumatica (4, 5, 10-12).

Come dimostrato dalla nostra casistica, la sintomatologia di queste neoformazioni è simile per tutte. Le lesioni possono rimanere per lungo tempo asintomatiche fino alla comparsa della tumefazione visibile e palpabile e talora dolente. Questa, aumentando di volume, compromette la funzionalità dell'articolazione, con difficoltà durante i movimenti di apertura della bocca, e determina asimmetria facciale per deviazione controlaterale della mandibola, malocclusione, intenso dolore e rumori articolari (click, lock e crepitii) (1-6).

Lo studio radiologico è utile per l'indirizzo diagnostico.

Nel caso dell'osteoma abbiamo utilizzato l'OPT che ci ha permesso di individuare un'area ovoidale radiopaca della stessa densità dell'osso, a larga base d'impianto. Le immagini da noi ottenute avevano il classico aspetto descritto in letteratura (6) e pertanto non sono stati necessari ulteriori accertamenti diagnostici. In altri casi può essere d'aiuto il ricorso a TC o RM per una diagnosi differenziale soprattutto con l'osteocondroma (5), che all'OPT presenta un aspetto radiologico simile, ma base d'impianto pedunculata e irregolarità del profilo.

Per lo studio dell'osteocondroma gli Autori (4,5) concordano sull'uso della RM come gold standard in

grado di evidenziare il cappuccio cartilagineo patognomonico della lesione, che ha un'intensità di segnale intermedia nelle immagini T1-pesate ed elevata in quelle T2-pesate. Nei nostri due casi di osteocondroma abbiamo sottoposto i pazienti anche ad indagine TC, che ha individuato in entrambi una formazione esostotica a densità disomogenea per l'alternarsi di aree sclerotiche ed aree di ridotta calcificazione; con la ricostruzione 3D è stato possibile evidenziare sulla superficie delle formazioni piccole prominenze irregolari e lacune ossee corrispondenti verosimilmente al cappuccio cartilagineo.

Il condroma da noi osservato è apparso alla TC come un'area osteolitica al centro, ipodensa e delimitata da un orletto denso osteosclerotico, aspetti concordanti con quelli riportati in letteratura (8), con l'eventuale aggiunta di calcificazioni interne.

Per la diagnosi delle formazioni pseudotumorali la radiologia tradizionale il più delle volte è di scarso ausilio, per cui tutti gli Autori (2, 3, 10-14) sono d'accordo nell'utilizzo di TC e RM. Nel caso della condromatosi sinoviale, infatti, raramente l'OPT riesce ad individuare i corpi calcifici liberi nella cavità articolare, che appaiono invece iperdensi alla TC; la RM li mette in evidenza come piccole aree ipointense nelle sequenze T1- e T2-pesate, alle quali può associarsi una dislocazione del disco articolare (2,3). Se il dubbio diagnostico persiste, risulta dirimente l'artroscopia (3).

La PVNS può essere studiata sia mediante TC sia mediante RM. La TC ha precisato nel nostro caso, in accordo con i dati della letteratura (10-14), l'estensione della lesione, che appariva di densità più elevata rispetto ai tessuti circostanti, e i suoi limiti. Dopo somministrazione di mezzo di contrasto, la lesione ha mostrato un potenziamento discreto ed omogeneo del segnale. L'esame con RM si è poi rivelato altamente accurato e sensibile per la presenza di emosiderina nel contesto della lesione con un caratteristico aspetto ipointenso (10-15).

Il trattamento dei tumori descritti è chirurgico e prevede l'asportazione della lesione con eventuale condilectomia e sinoviectomia (3-6). I pazienti da noi studiati sono stati sottoposti tutti ad asportazione della lesione, eccetto la malata con osteocondroma portatrice di pacemaker, nella quale per i motivi segnalati si è optato un atteggiamento conservativo con periodici controlli radiologici.

Conclusioni

Spesso i tumori benigni e le formazioni simil-tumorali dell'ATM restano misconosciuti per la loro sintomatologia aspecifica genericamente riferita a disturbi funzionali dell'ATM. I pazienti vengono diret-

tamente trattati con bite o trattamenti simili senza essere sottoposti ad indagini radiologiche. Sugeriamo inve-

ce di effettuare sempre degli esami radiodiagnostici, anche in assenza di tumefazioni visibili.

Bibliografia

1. Warner BF, Luna MA, Robert Newland T. Temporomandibular joint neoplasm and pseudotumors. *Adv Anat Pathol* 2000; 7(6): 365-81.
2. Salgarelli A, Panigatti S, Persia M, Collini M. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Min Stomatol* 2000; 49(1-2): 51-7.
3. Miyamoto H, Sakashita H, Wilson DF, Goss AN. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2000; 38(3): 205-8.
4. Iizuka T, Schroth G, Laeng RH, Ladrach K. Osteochondroma of the mandibular condyle : report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1996; 54(4): 495-501.
5. Ongole R, Pillai RS, Ahsan AK, Pai KM. Osteochondroma of the mandibular condyle. *Saudi Med J*. 2003; 24(2): 213-6.
6. Tochiara S, Sato T, Yamamoto H, Asada K, Ishibashi K. Osteoid osteoma in mandibular condyle. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2001; 30(5): 455-7.
7. Chandu A, Spencer JA, Dison DP. Chondroma of the mandibular condyle: an example of a rare tumour. *Dentomaxillofac Radiol* 1997; 26 : 242-5.
8. Siar CH, Jial AA. *J Oral Science* 2004; 46: 51-3.
9. Bravo SM, Winalski BM, Weissman BN. Pigmented villonodular synovitis. *Radiol Clin North Am* 1996; 34: 311-26.
10. Bemporad JA, Chaloupka JC, et al. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: diagnostic imaging and endovascular therapeutic embolization of a rare head and neck tumor. *AJNR Am J Neuroradiol* 1999; 20(1): 159-62.
11. Tosun F, Carrau R, Weissman J. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: an extensive case with skull-base involvement. *Am J Otolaryngol* 2004; 25(3): 204-7.
12. Poletti SC, Gates HS 3rd, Martinez SM, Richardson WJ. The use of magnetic resonance imaging in the diagnosis of pigmented villonodular synovitis. *Orthopedics* 1990; 13(2): 185-90.
13. Cheng XG, You HY, Liu W, Zhao T, Qu H. MRI features of pigmented villonodular synovitis (PVNS). *Clin Rheumatol* 2004; 23(1): 31-4.
14. Kyoung WK, Moon HH, et al. *Eur J Radiol* 2004; 49: 229.