

HOSPITAL DE LA PRINCESA. MADRID
SERVICIO DE TRAUMATOLOGÍA Y CIRUGÍA ORTOPÉDICA

Jefes: Dres. J. OLAGUIBEL LLOVERA y P. J. PÉREZ CLEMENTE

Quiste sinovial intraneural

Revisión de la literatura y presentación de un caso

H. M. A. HOUMANI SIDANI, J. L. DE GREGORIO JABATO, C. J. GARCIA ARAUJO
y J. L. MARTINEZ OLIVA

RESUMEN

Con ocasión de observar un caso de ganglión intraneural, afectando al ciático poplíteo externo de una paciente de 66 años hemos realizado una extensa revisión de la literatura referente a esta entidad clínica, recogiendo todos los casos publicados hasta el momento de esta afección. Ello nos ha permitido desarrollar una amplia exposición de su cuadro clínico, teorías etiopatogénicas, así como sus posibilidades terapéuticas, y realizar el correspondiente estudio anatomopatológico.

Descriptores: Ganglión intraneural ciático poplíteo externo.

SUMMARY

A case of ganglion of the lateral popliteal nerve in a sixty-six year old woman is reported. The pathologic and surgical treatment and follow-up are described.

The problems of the diagnosis etiology of this tumor are collected and discussed.

Key words: Ganglion of the lateral popliteal nerve.

Aún siendo el quiste sinovial una patología frecuente en las consultas de Traumatología y Cirugía Ortopédica, constituye una rareza como factor etiológico dentro del vasto cuadro de los síndromes canaliculares. A excepción de los enfermos claramente etiologizados de reumáticos, en los que patología sinovial de base hace pensar en la posibilidad etiopatogénica de producción de este tipo de quistes, existe una tendencia generalizada entre Cirujanos Ortopédicos, Neurólogos, Neurocirujanos y Reumatólogos a olvidar esa patología quística en relación con los cuadros de compresión nerviosaperiférica. Por ello y con ocasión de observar recientemente un caso de compresión del ner-

vio ciático poplíteo externo (CPE) por un ganglión intraneural, hemos querido llamar la atención sobre esta afección a través de una extensa revisión de la Literatura en busca de su patogenia y posibilidades terapéuticas.

Caso clínico

T.G.R., ama de casa de 66 años de edad, vista en el Servicio de Neurología en agosto de 1983 por presentar dolor en cara dorsal del pie izquierdo de 8 meses de evolución que se intensifica en los últimos 2 meses, acompañado de pie caído. Ese cuadro se presenta preferentemente a modo de pseudoclaudicación intermitente de unos 200 mts.

El estudio clínico y analítico dirigidos, descar-

tan enfermedad reumática, exposición a metales y toxinas, hábitos posturales de compresión de CPE, y/o enfermedades crónicas encamantes. Únicamente se detecta una hiperglucemia sin repercusión sistémica que remite con dieta hipoglucemiante.

En la exploración destaca una hipoestesia en cara dorsal de pie y anteroexterna de tobillo y pierna izquierdos. Dolor a la presión y Tinel (+) en cuello de peroné, stepage, fuerza muscular: tibial anterior 1; extensor propio primer dedo y extensor común 2; peroneos laterales 4. No se aprecia tumoración alguna en el trayecto del CPE. Estudio radiográfico normal de ambas rodillas. Espondiloartrosis moderada sin repercusión neurológica, maniobras de elongación del ciático negativas. Electromiografía demostrativa de bloqueo en la conducción del CPE a nivel del cuello del peroné.

La exploración quirúrgica realizada el 4-1-84 pone en evidencia tras exponer el CPE desde hueso poplíteo hasta su bifurcación, una tumoración endoneural fusiforme (2 x 0'5 cm.), de coloración blanquecina transparente, que afecta la rama profunda principalmente (figs. 1 a 4). Se procede a la incisión del quiste, vaciándolo de un material mucoso gelatinoso típico de los gangliones. Con microscopio óptico se realiza la resección microquirúrgica de las paredes del quiste y sus envolturas conjuntivas con una adecuada endoneurolisis. Asimismo, se evidencia la comunicación pediculada con la articulación tibio-peronea superior, siguiendo la rama articular procedente de la rama profunda del CPE que se secciona, liga y cauteriza. El informe sobre el material resecado lo realiza en el Servicio de Anatomía Patológica de nues-

tro Hospital, el Profesor M. Zomeño (Figs. 5, 6 y 7), confirmando el diagnóstico clínico y la anatomía patológica macroscópica.

El postoperatorio inmediato cursa con parálisis de CPE, precisando una férula antiequino. Un año después la recuperación neuromuscular es evidente; no se aprecia alteración sensitiva ni motora, clínica ni electromiográficamente.

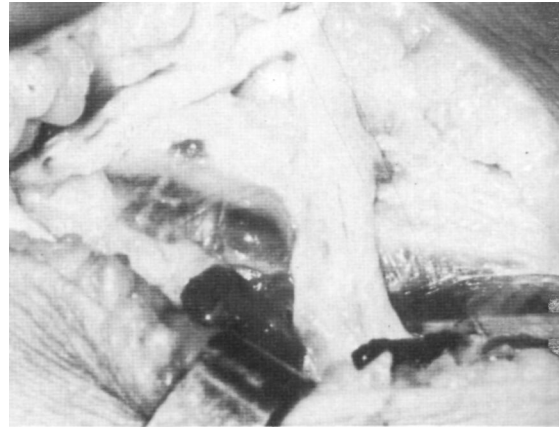


FIG. 2.— A mayor aumento, se aprecia comunicación del ganglión intraneural con la articulación tibio-peronea proximal.

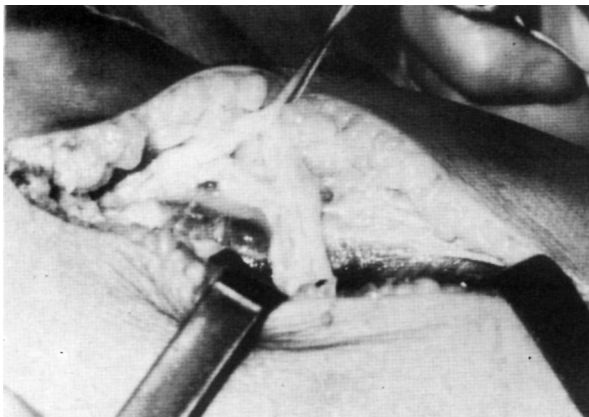


FIG. 1.— Incisión cutánea e identificación del ganglión intraneural en el Ciático Poplíteo Externo.



FIG. 3.— Nervio ciático Poplíteo externo liberado de la tumoración, obsérvese que no se interrumpe la continuidad neurológica.

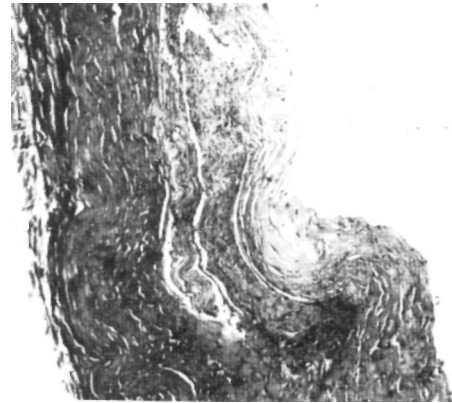


FIG. 4.— Tejido fibroso que presenta incluido un pequeño fascículo nervioso. Hemat. Eos $\times 150$.

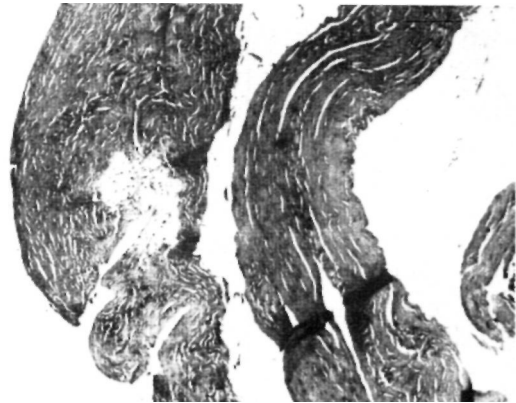


FIG. 5.— Zona clara con degeneración mucoide del colágeno. Hemat. Eos $\times 150$.

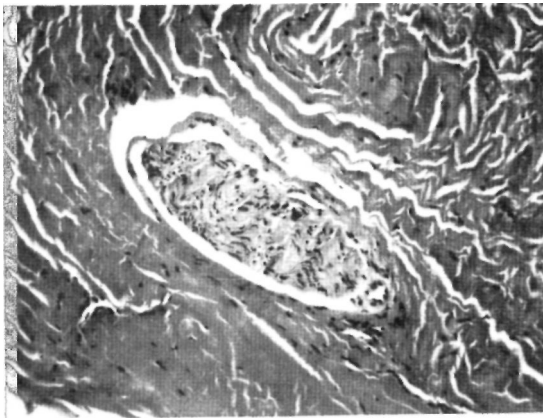


FIG. 6.— Fascículo nervioso en el interior del tejido colágeno. Hemat. Eos $\times 250$.

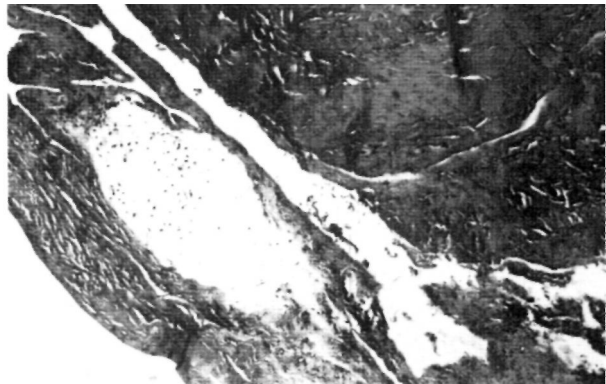


FIG. 7.— Degeneración mucoide del tejido colágeno. Hemat. Eos $\times 250$.

Discusión

Existe en la Literatura revisada, referencias acerca de una primera descripción de formaciones quísticas intraneurales realizada por DUCHENE en 1810; sin embargo la primera publicación referente a una compresión nerviosa periférica por ganglión que hemos podido comprobar, es una afectación del N. mediano a nivel del Carpo, descrita por HARTWELL 1901 (10). A SULTAN (24) se debe la primera aportación de un caso de

paresia de CPE debida a lo que él denominó «degeneración quística intraneural». Desde entonces se han publicado una serie de casos de formaciones quísticas mucoides intra y extraneurales, lo que ha suscitado una polémica sobre el origen y patogenia de este cuadro pese a su rareza. Motivados por esa polémica, hemos revisado la Literatura referente a esa entidad clínica, entendiendo por tal, toda compresión del CPE ocasionado por formaciones quísticas mucoides sean intra o perineurales. Hemos resumido los da-

tos más interesantes de los 48 casos publicados hasta el momento. Hemos desechado los casos de compresión por quistes sinoviales originados en la articulación tibiofemoral y/o bolsas serosas circundantes, por entender que se trata de una entidad clínica bien definida y diferente al problema que nos ocupa. Sin embargo incluimos los casos de compresión por quistes de la articulación TPS, debido a que, por el momento, sigue en debate el que ésta sea el origen de las formaciones quísticas intraneurales del CPE. Por otro lado queremos resaltar, antes de entrar en el análisis estadístico de los mismos, dada la disparidad de fuentes de información y por tanto la inviabilidad de confrontación de estos datos al carecer de un protocolo común de recogida de datos. Creemos que la simple aportación numérica de estos datos es lo suficientemente demostrativa para conocer esa patología clínica, anatomopatológica y patogénicamente.

Un rápido análisis revela una anárquica distribución de la afección con respecto a la edad, siendo las edades límites publicadas 12, 13, 15 y 74 años (20).

Con respecto al sexo, existe un claro predominio del sexo masculino, siendo éstos los afectados en 37 casos, en contra de 8 mujeres y 3 casos no especificados (20).

Al ser imposible recoger el síntoma inicial en todos los casos, hemos optado por referir la sintomatología en el momento del diagnóstico. El dolor espontáneo, penetrante y agudo, reproducible a la presión sobre cuello del peroné y referido a cara anteroexterna de pierna y pie, es señalado en casi todos los casos exceptuando 5 pacientes.

La afectación sensitiva es señalada en 26 casos entre parestesias (15 casos) y anestesia (11 casos), siendo en casi todos ellos más tardía que la afectación motora. Esta última se especifica como parálisis en 33 casos, parestesia 11 casos y solamente 1 caso libre de sintomatología motora, en el momento del diagnóstico. Todo este cortejo sintomático

es referido de manera constante al territorio inervado por la rama profunda del CPE, respetando con frecuencia los peroneos (21, 26), distribución que quedará explicada al estudiar la anatomía patológica de la lesión.

No hemos encontrado en la Literatura revisada ningún caso que haya cursado con sintomatología de claudicación intermitente como en nuestro caso. Sin embargo la disposición anatómica del CPE a su paso por el canal peroneo (canal en T) nos explica esa presentación clínica como un síntoma propio de síndromes caniculares o desfiladeros osteomusculares.

Otro signo recogido con frecuencia en la Literatura es la presencia de tumoración palpable a nivel del cuello del peroné (11, 21, 26). Esta masa precisa ser de un tamaño, y sobre todo de grosor mayor al encontrado en nuestro caso ($2 \times 0,5$ cm.) para ser palpable a través de las cubiertas musculares y cutáneas, por lo que no es referido de manera constante en las publicaciones revisadas ni fue hallado por nosotros antes de la exploración quirúrgica.

El papel de un traumatismo previo único o repetido es señalado por distintos autores (4, 6, 28) como posible factor etiopatogénico. Sin embargo es referido solamente en 14 casos de los 48 revisados. Sin restar importancia al factor traumático sobre un nervio de localización subcutánea como el CPE, creemos de acuerdo con BROOKS (2) que su repercusión en la génesis de esos quistes mucoides es secundaria, dado que el nervio que con más frecuencia es sometido a traumatismos cotidianos es el n. cubital, sin que por ello presente ese tipo de patología quística.

Diagnóstico diferencial

Ante un cuadro sintomático de afectación del CPE sobre todo en su rama profunda y la existencia de una masa palpable en

el trayecto del mismo a nivel del cuello del peroné, quedan pocas dudas acerca de la naturaleza de la lesión. Sin embargo, la presentación de un síntoma aislado sin acompañarse del resto del cuadro clínico, plantea una serie de enfermedades como posibles causantes del mismo, que deben ser descartados. Así ante una afectación del CPE se debe plantear el diagnóstico diferencial con las neuropatías periférica no compresivas, metabólicas o por enfermedades profesionales (As, Pb, etc.). Igualmente se deben descartar hábitos posturales en los cuales la depresión visible que ocasiona la presión de la rótula contralateral sobre el cuello del peroné del lado afectado, al cruzarse de piernas de manera prolongada y persistente, puede aclarar el diagnóstico (3). También deben descartarse antecedentes traumáticos directos, así como antecedentes de Cialgias de repetición y/o de larga evolución.

En caso de una masa palpable el diagnóstico diferencial se debe plantear con los siguientes cuadros: aneurismas o T. vascular, neurofibromatosis, hematoma encapsulado (9), tumor benigno tipo Schwanoma (7) o neurofibroma. En todos esos casos la arteriografía puede ayudar al diagnóstico (21), de tumor neoplásico maligno como fibrosarcoma o liposarcoma (8).

Por fin no queremos dejar atrás este apartado sin recordar que las enfermedades reumáticas que afectan con frecuencia a las rodillas (Artritis reumatoide, S. Reiter, etc.) cursan en un 30 por 100 de casos con quistes sinoviales, sobre todo poplíteos (8, 22) que aunque raramente, pueden originar síndrome de compresión nerviosa sea del tibial posterior (32) o del mismo CPE al disecar su camino hacia el compartimento anteroexterno (18).

Los exámenes complementarios preconizados por distintos autores en relación con esa patología carecen a nuestro juicio de interés diagnóstico. La Electromiografía es útil como documento de referencia en el segui-

miento del paciente, así como confirmación documentada del bloqueo de conducción nerviosa a un determinado nivel. La artrografía se hace necesaria en pacientes reumáticos con sospecha clínica de quistes sinoviales. LAGARRIGUE (13) ha podido evidenciar en un caso, con la técnica de superposición de clichés radiológicos, la existencia de una comunicación articular con el quiste intraneural.

Patogenia

La patogenia de los quistes mucoides intraneurales sigue siendo el núcleo de la polémica creada en torno a esa entidad. Para su esclarecimiento se han postulado distintas hipótesis que intentaremos discutir a continuación:

Teoría tumoral. La formación de los quistes mucoides corresponde según esa teoría a la degeneración secundaria de un Schwanoma o neurilemoma (11). Es imprescindible para hablar de Schwanoma, evidenciar células tumorales en la pared del quiste en cuyo caso se trataría de entidades bien distintas. Esta teoría definitivamente abandonada ha inducido a distintos autores a catalogar ciertos casos de quistes mucoides, de Schwanomas tipo Antoni B aún sin la confirmación histológica de células tumorales. Por otro lado, en estos casos, el simple vaciado quirúrgico de los quistes supuestamente secundarios a Schwanoma, fue suficiente para la curación y la no recidiva local del tumor, razón por lo que creemos se trataba de simples quistes sinoviales o mucoides, por lo que se han incluido en el cuadro I (11, 20).

Teoría sinovial. El origen de los quistes sinoviales en este caso, sería la típica hernia sinovial procedente de una articulación o bolsa serosa vecina. Esta teoría se basa en los siguientes hechos anatomopatológicos; 1) El revestimiento sinovial de esos quistes

intraneurales (4, 20, 21, 29, 30) demostrado histológicamente por distintos autores. 2) El frecuente hallazgo de un pedículo que comunica el quiste con la articulación tibio-peronea superior (18 casos de los 48 revisados). Existen para los defensores de esta teoría razones anatómicas que justifican la afectación constante de la rama profunda por esos quistes. PARKES (20) postula que la hernia sinovial sigue el trayecto de la rama articular de la articulación TPS, que al llegar a la cubierta nerviosa del CPE, se propaga libremente hasta el canal peroneo.

ROBERT (21) en un estudio anatómico de la inervación de la articulación tibio-peronea superior encuentra que la salida de la rama articular desde el CPE se origina en el nervio tibial anterior a la salida del nervio destinado al extensor común. Ello explicaría la casi constante indemnidad de los m. peroneos en esa entidad clínica.

Teoría degenerativa. Primeramente expuesta por LEDDERHOSE —referido por ROBERT (21)— en relación con el clásico ganglión y posteriormente evocada por ELLIS (5), WADSTEIN (29) y FERGUSON (7) entre otros, como una degeneración quística al igual que los gangliones intramusculares o perivasculares. KING —referido por FERGUSON— (7) postula la formación de múltiples microquistes en el tejido conjuntivo periarticular en respuesta a una determinada irritación por un traumatismo. Surgiría entonces una metaplasia y las células espinosas normales paraarticulares, se transformarían en células esferoidales con vacuolas mucoides que se verterían al espacio intersticial formando cavidades pseudoarticulares. MCEVDY (17) plantea que al crecer esos microquistes y hacerse coalescentes, las células de recubrimiento de naturaleza sinovial secretoras de mucinas y dialistasas van a estar sometidas a una presión intraquística que va a condicionar una disminución en la producción de dialistasas con lo que el contenido de esos quistes se hace gelatinoso con un

alto contenido en mucinas. Para BROOKS (2), WARREN (30) podría tratarse de restos embrionarios ectópicos o remanentes sinoviales no obliterados al terminar la época embrionaria, que en momento determinado producirían esos quistes de cualquier localización pararticular.

LAGARRIGUE (13) en defensa de esa hipótesis argumenta que esos quistes tienen una pared propia perfectamente disecable e individualizada. El origen de esos quistes sería periarticular en torno a la articulación TPS, sin que por ello se trate de una simple hernia sinovial dado que las células esferoidales de recubrimiento del quiste no reproducen la histología sinovial bien diferenciada. Por otro lado, no encuentra en los casos publicados una demostración documentada de una libre comunicación entre el TPS y el quiste intraneural. Las artrografías realizadas por el mismo autor tampoco han confirmado esa comunicación, aunque si la existencia de un pedículo que se dirige hacia la articulación que en definitiva sería hacia un origen periarticular de la degeneración quística.

Expuestas las tres teorías, creemos que la teoría sinovial sigue siendo la más convincente y que el no encontrar una comunicación articular en todos los casos puede ser debido por un lado a que no se ha buscado con el suficiente interés investigador y por otro lado, a que una vez originado y desarrollado el quiste no es infrecuente la obliteración de la comunicación con la articulación vecina, hecho muy frecuente en los clásicos gangliones de la muñeca y que puede ser perfectamente superponible a esa localización. La teoría degenerativa pese a sus valiosos argumentos, sigue sin explicarnos el por qué una degeneración periarticular de la TPS, sigue constantemente cuando se ha encontrado el pedículo, la rama articular que es el camino más difícilmente disecable por una formación extraneural, a menos que la metaplasia surga en las mismas cubiertas

nerviosas de la rama articular. Por otro lado sigue dando un valor inexplicable al traumatismo como factor irritante y desencadenante de la metaplasia, que no parece suficientemente valorable según los datos recogidos. Finalmente hemos de reseñar que la histología de la membrana de revestimiento no perfectamente identificable como sinovial, queda bien explicada por la hipótesis de MC EVDY anteriormente expuesta. Las células del revestimiento al estar alejadas de su origen, sometidas a presión intraquística y por tanto mal nutridas, difícilmente son del todo similares a las células de una sinovial perfectamente activa en una articulación normal.

Tratamiento

Actualmente todos los autores parecen estar de acuerdo en la necesidad de una liberación quirúrgica del nervio. Para nosotros y mientras no se confirme la teoría degenerativa o metaplásica, el tratamiento ideal es la endoneurolisis o la simple incisión y resección macroscópica de las paredes quísticas sin someter los fascículos nerviosos a traumatismos innecesarios, cuando no se dispone de microscopía óptica o no se tiene la suficiente práctica con las técnicas microquirúrgicas. Sea de un modo u otro, el tratamiento debe ser completado con la ligadura del pedículo cuando éste se visualiza, y por la sección y ligadura de la rama articular tibio-peronea superior, aún cuando no se pueda visualizar la comunicación con esta articulación. Con ello creemos que se evitaría la recidiva al menos por esa vía. De todos modos las pocas recidivas (4 casos) hallados en la Literatura, fueron resultado de un tratamiento quirúrgico insuficiente que consistía en la simple incisión y evacuación del quiste. El resultado de la liberación quirúrgica —no así de la resección nerviosa realizada por ciertos autores (4, 20)— está en

relación con la duración del cuadro (19), el tamaño del quiste y la complejidad de su resección, siendo curativo en 27 casos de los 48 tratados con puesta a plano, resección quística, o la simple incisión del quiste con o sin ligadura del pedículo. Los 14 casos de paresia y 4 de parálisis hallados en la Literatura revisada, están en relación con un factor o más de los anteriormente citados.

BIBLIOGRAFIA

1. BORA, F. N. and cols. (1982): Compression Neuropathy Clin. 163; 20-32.
2. BROOKS, D. M. (1952): Nerve Compression by Simple Ganglia. A review of thirteen Collected Cases. *Bone J. and Joint Surg.*, 34-B; 391-400.
3. CARNEY, L. R. (1967): The dimple Sign in peroneal palsy. *Neurology*, 17; 922.
4. CLARK, K. (1961): Ganglion of the Lateral popliteal Nerve. *Bone J. and Joint Surg.*, 43-B; 778-83.
5. ELLIS, V. H. (1936): Two Cases of Ganglia in the Sheath of Peroneal Nerve. *Br. J. Surg.*, 24; 141-42.
6. FAIVRE, J. and cols. (1975): Les pseudo-Kystes mucoides de la gaine du nerf sciatique poplité externe. A propos de deux observations. *Rev. Neurol. (Paris)*, 131; 709-20.
7. FERGUSON, L. K. (1937): Ganglion of the Peroneal Nerve. *Ann. Surg.*, 106; 313-16.
8. GRIFFITHS, H. T. and cols. (1984): Popliteal masses masquerading as popliteal Cysts. *Ann. Rheuma. Dis.*, 60-62.
9. GURDJIAN, E. S. and cols. (1965): Intraneural Cyst of the Peroneal and ulnar nerves. Report of two Cases. *Neurosurg. J.*, 23; 76-78.
10. HARTWELL, A. S. (1901): Cystic tumor of Median nerve; operation: Restoration of function. *Boston Med. and Surg. J.*, 144; 582-83.
11. JENKINS, S. A. (1952): Solitary Tumours of peripheral Nerve trunks. *Bone J. and Joint Surg.*, 34-B; 401-11.
12. KATZ, M. R. and cols. (1970): Intraneural ganglionic cyst of the peroneal nerve. Case report. *Neurosurg. J.*, 32; 692-94.
13. LAGARRIGUE, J. and cols. (1982): Kystes sinoviaux intraneurux du Sciatique externe. *Neurochir.*, 28; 131-34.
14. LAVARDE, G. (1968): Les Pseudo-Kystes mucoides des nerfs peripheriques. *Chir. J. (Paris)*, 95; 97-104.

15. MAINI, P. S. and cols. (1966): Ganglion of the Lateral popliteal nerve. *Indian Surg. J.*, 28: 219-23.
16. MASSE, A. and cols. (1973): Paralysis isolée du nerf sciatique poplite externe, une etiologie peu connue. *Ann. Orthop. Quest.*, 5: 33-35.
17. MC EVEDY, B. V. (1962): Simple Ganglia. *Br. Surg. J.*, 49: 585-94.
18. O'DELL, J. R. and cols. (1984): Anterior tibial mass: An unusual complication of popliteal cyst. *Arth. and Rheuma*, 27 (1): 113-15.
19. PALAZZI COLL, S. (1972): Nervio ciático poplíteo externo. Cirugía de los nervios periféricos. *Rev. Orthop. Trauma.*, 16-IB (4): 1123-42.
20. PARQUES, A. (1961): Intraneural ganglion of the Lateral popliteal nerve. *Bone J. and Joint Surg.*, 43 B; 784-90.
21. ROBERT, R. and cols. (1980): Kyste Synovial intraneural du Sciatique poplite externe, a propos d'un cas. *Neurochir.*, 26: 135-43.
22. SCOTT, W. N. and cols. (1977): Posterior compartment Syndrome resulting from a dissecting popliteal cyst. *Clin. Orthop.*, 122: 189-92.
23. SINDOU, M. and cols. (1976): Les pseudo-Kistes mucoïdes intranerveux du sciatique poplite externe. A propos d'un cas opéré. *Lyon Méd.*, 235: 869-72.
24. SULTAN, C. (1921): Ganglion der nervenscheide des Nervus peroneus. *Zentralbl. f. chir.*, 48: 963-65.
25. SORIA DURÁN, J. I. and cols. (1983): Compresión nerviosa por ganglión. *Rev. Ortop. Trauma.*, 27 (IB) 6: 667-72.
26. STACK, R. E. and cols. (1965): Compression of the Common peroneal nerve by Ganglion Cysts. *Bone J. and Joint Surg.*, 47-A: 733-78.
27. TUPMAN, G. S. (1957): Axonotmesis of anterior tibial branch of lateral popliteal nerve due to Ganglion of the nerve Sheath. *British J. Surg.*, 45: 23-24.
28. VILAR DE LA PEÑA, R. and cols. (1979): Ganglión del nervio peroneal. Resección con técnica microquirúrgica. *Rev. Ortop. y Trauma.*, 23-IB: 93-96.
29. WADSTEIN, T. (1931): Two cases of Ganglion in the Sheath of personal nerve. *Acta Ortop. Scand.*, 2: 221-31.
30. WAEAWN, R. (1964): Ganglion of the common peroneal nerve. Case Report. *Ann. Surg.*, 124: 152-55.
31. ZAAR (1926): Uber Ganglien in der Nervenscheide. *Zentralbl. F. chir.*, 53: 2551.
32. ZYGMUNT, S. (1982): Baker Cyst Causing nerve esntrapment. *Scand. J. Rheuma.*, 11: 239-40.