

Üliharuldane liigesehaigus *lipoma arborescens* – ülevaade ja haigusjuhu kirjeldus

Hendrik Rull¹, Pirja Sarap², Erik Tamp³, Anne Poksi⁴, Paul-Sander Vahi^{5,6}

Eesti Arst 2023;
102(4):228–232

Saabunud toimetusse:
07.02.2023
Avaldamiseks vastu võetud:
08.03.2023
Avaldatud internetis:
24.04.2023

¹ TÜ Kliinikumi radioloogikliinik,
² Medicumi radioloogia osakond,
³ Ida-Tallinna keskhaigla patoloogiakeskus,
⁴ Ida-Tallinna keskhaigla nukleaarmeditsiini osakond,
⁵ Põhja-Eesti Regionaalhaigla ortopeediakeskus,
⁶ Ida-Tallinna keskhaigla ortopeediakeskus

Kirjavahetajaautor:
Hendrik Rull
hendrikull@gmail.com

Võtmesõnad:
liigesehaigus, liigesefusioon, sünovektoomia, magnetresonants-tomograafia, haigusjuht

Lipoma arborescens on krooniline aeglaselt progresseeruv harva esinev liigesesisene kahjustus. Kliiniliselt avaldub haigus episoodiliselt esinevate liigesefusioonidena. Diagnoosimisel on olulisel kohal magnetresonantsmograafilise (MRT) uuringu iseloomulik leid. Artiklis on esitatud patsiendi haigusjuhu kirjeldus koos illustreeriva materjali ning diferentsiaaldiagnostika tutvustusega.

Lipoma arborescens'i (LA) korral asendub liigesekapsli ehk sünoviaalmembraani sisepinnal subsünoviaalses sidekoe kihis tavapärase sidekude adipotsüütidega, mis põhjustavad hatukujuliste rasvarakkude vohamise. See annabki haigusele omapärase nime, mis tõlkes ladina keelest tähendabki rasvarakkude puukujulist paiknemist. Esimesena kirjeldas ja andis haigusele nime 1904. aastal Saksa kirurg A. Hoffa. Detailsema haiguskirjelduse avaldas 1957. aastal A. Arzimanoglu (1).

Termin „lipoom“ on selle haiguse puhul eksitav, sest tegu ei ole makroskoopiliselt ega histoloogiliselt kasvajaga.

Enamasti haarab kahjustus põlveliigest, kuid on kirjeldatud ka LA paiknemist nii hüppe-, puusa-, õla-, randme- ja küünarliigestes kui ka liigesepaunades ja kõõlusetuppedes. Põlveliigeses paikneb kahjustus difuusselt ning alati on haaratud suprapatellaarne ruum. Kuigi kahjustus on tavaliselt monoartikulaarne, on kirjeldatud ka sümmeetrilist esinemist eeskätt just sekundaarse haigusvormi puhul (1).

Tavaliselt on sümptomiteks aeglaselt süvenev, episoodiline valu turse liigeses, mida põhjustab perioodiline liigesefusiooni tekkimine, liikumispiiratus ja liigese n-ö lukkujäämine. Haiguse süvenemisel võib tekkida ka mehaaniline valulikkus. Tsüklilist sümptomite esinemist on selgitatud lipomatoosse hatu mehaanilise kinnijäämisega liigesepilus (1).

Haiguse sagedust on raske hinnata, kuid ühes uuringus leiti 12 578 põlve magnetresonantsmograafilise (MRT) uuringu kohta 32 LA-juhtumit, mis teeb 0,25% kõikidest

selles töös käsitletud põlve MRT-uuringutest (2). Tasub meeles pidada, et põlve MRT-uuring tehakse enamjaolt vaid põlveliigese haiguse kahtluse korral, mistõttu on LA levimus ilmselt alahinnatud. Kokku on maailmas kirjeldatud praeguseks ligikaudu 200 LA-juhtumit, kuid tõenäoliselt lisandub neid MRT-uuringu laialdasema rakendamise tõttu (2).

Haigestunute vanuse ja haigestumise etioloogia alusel eristatakse kaht LA vormi. Esmasesse ehk primaarsesse vormi haigestuvad isikud vanuses 20–30 eluaastat ning haiguse tekkepõhjus ei ole teada. Reumatoloogilistele haigusele viitavad laboratoorsed näitajad: erütrotsüütide settekiirus ja reumatoidfaktor jäävad sageli negatiivseks, kusihappe ja põletikumarkerite tase veres on madal (1, 3). Esmane vorm on haruldasem ning selle vormi korral ei ole leitud seost liigese degeneratiivsete muutustega.

Sagedamini esinevasse teisesesse ehk sekundaarsesse haigusvormi haigestuvad peamiselt 50–70aastased inimesed. Teise vormi tekitajaks peetakse enamasti pika-aegset füüsilist mõjutust, mida põhjustab osteoartritis, varasem trauma, meniski vigastus, sünoviaaltsüst või mõni reumaatiline haigus, näiteks reumatoidartriit (RA) (4).

Varasematel aegadel sai haigust diagnoosida vaid histoloogilisel uuringul, kuid tänapäeval on MRT-uuringu laialdase kättesaadavuse ja suure tundlikkuse tõttu võimalik LAd diagnoosida radioloogilise leiu alusel. Histoloogilisel uuringul on tüüpiliseks leiuks sünooviumiga kaetud tavalistest rasvarakkudest koosnevad sõrmjad harg-

nevad jätked, millele lisandub põletiku-infiltraat (1).

Radiodiagnostika kuldstandard on tänapäeval MRT-uuring, mis võimaldab üsna spetsiifiliselt erinevaid sekventse kasutades rasvaspetsiifilist signaali esile tuua ja seetõttu eristada selgelt LAd teistest intra-artikulaarsetest mittelipomatoosetest ja lipomatoosetest protsessidest (vt tabel 1) (1, 5).

Tavaline röntgenogramm, ultraheli-uuring, sealhulgas Doppleri uuring, ja kompuutertomograafia on olulise tähtsusega diferentsiaaldiagnostikas. Röntgenogrammil otse- ja lateraalsuunas nähtav suprapatellaarne pehmekoe tihenemine rasvatihedusega aladega on kaudseks viiteks

LA-le. LA korral puuduvad rasvatihedusega alades kaltsifikaadid. Need viitaksid näiteks sünoviaalsele kondromatoosile. Samuti puuduvad LA korral RA-le iseloomulikud marginaalsed erosioonid (1, 5).

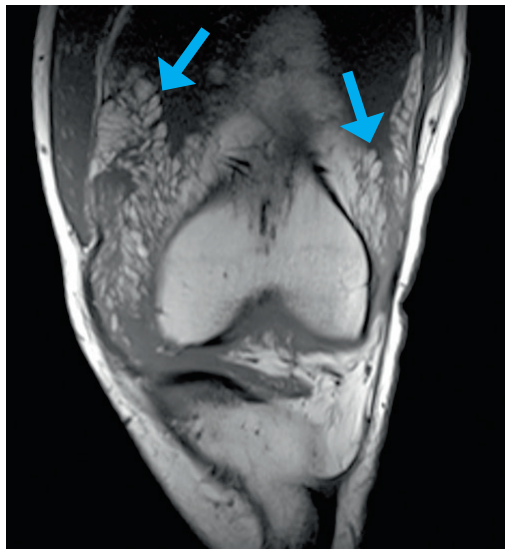
Ultraheli- (UH-) uuring on valutava põlveliigese korral diferentsiaaldiagnostiliselt oluline uuring, hindamaks sünoviaalse proliferatsiooni ulatust ja iseloomu ning rasvale iseloomuliku kajalisusega lisamassi olemasolu. LA korral on UH-uuringul spetsiifiliseks leiuks sünooviumi sõnajalalehe ja sõrme sarnased (*frond-like* ja *finger-like*) lehvikjad rasvkehad, mida ümbritseb liigeseefusioon ja mis uuringu käigus reaajas liiguvad (3).

Makroskoopiliselt näeb LA liigeseesiselst välja valkjas-kollakate hattudena.

Tabel 1. *Lipoma arborescens*'i diferentsiaaldiagnostika radioloogiliste uuringute põhjal põlveliigese näitel (5)

Haigus	Röntgenuuringu leid	Ultrahelileid	Magnetresonantstomograafia	
			T1-sekvents	T2-sekvents
<i>Lipoma arborescens</i>	Suprapatellaarne efusioon	Efusioon liigeses Sünoovia perifeerse paksenemisega, mis on liigutatav reaajas	Kõrge signaaliga rasva moodi sõrmesarnane sünoovia tihenemine Madala signaaliga efusioon	Kõrge signaaliga efusioon
Sünoviaallipoom	Suprapatellaarne efusioon	Solitaarne polüüpjas lisamass Liigeseefusioon Sünoviaaltsüstid Subsünoviaalne rasvkoe ladestus	Kõrge signaaliga solitaarne polüüpjas rasvasignaalgiga lisamass Liigeseefusiooni ei ole	
Pigmento-villonofulaarne sünoviit	Marginaalsed erosioonid Liigeseesisene efusioon Subkondraalsed tsüstid liigestuvatel pindadel Liigesevahemik püsib muutumatuna	Lobuleeritud pehmekoe massid Liigeseefusioon	Lihaskoega võrreldes iso- või madalama signaaliga alad, milles kõrge signaaliga hajusad piirkonnad	
Sünoviaalne kondromatoos	Üksikud või mitmesed pehmekoemassid Kaltsifikaadid	Pehmekoe massid, milles kaltsifikaate Doppleri uuringul lesioonides verevool	Keskmise signaaliintensiivsusega vedelik, milles madala signaaliga osteokondraalsed vabakehad	Madala signaaliga osteokondraalsed vabakehad, mille ümber kõrge signaaliga vedelikku
Sünoviaalne hemangioom	Fleboliidid Pehmekoe turse Periosti tihenemine Artriidi tunnused	Heterogeense ehogeensusega noodulid, milles kajavarje jätvad kaltsifikaadid Intensiivistunud verevarustus Doppleri uuringul	Keskmise signaaliga pehmekoe turse Intensiivne kontrasteerumine kontrastaine manustamise järel	Nahaaluskoes oleva rasvaga võrreldes kõrgema signaaliga rasv T2* GRE intensiivne verevarustus
Reumatoidartriit	Periartikulaarsed erosioonid Liigesevälise ühtlase kitsenemine Subkondraalsed tsüstid Jukstaartikulaarne osteoporoos Pehmekoe turse	Liigeseefusioon Sünoviit Erosioonid Doppleri uuringul hüperemia	Tõusnud signaaliga erosioonid Madala signaaliga subkondraalne turse ja efusioon	Efusioon, mille signaal intensiivne Erosioonid subkondraalsel mõlemal pool liigesevälisel Kõrge signaaliga subkondraalne turse

LA ravi kuldstandard on artroskoopiline sünovektoomia. Enamiku patsientide vaevused artroskoopilise sünovektoomia järel taanduvad. 65 patsiendi haigusjuhtu käsitletud ülevaateartikli andmetel kasvas ainult kahel juhul moodustis tagasi, kuid siiski ei saa ainuüksi selle ülevaate põhjal järeldada, et haigus tavaliselt ei retsidiveeru. Haigust kirjeldavaid juhuanalüüse ja uurin-
guid on avaldatud vähe ning ebaedukate ravitulemuste avaldamise tõenäosus on



Joonis 1. Koronaarne magnetresonants-tomograafilise uuringu T1-kujutis põlvest. Sinised nooled viitavad *lipoma arborescens*'ile iseloomulikele sõrmetaolistele rasvohanditele.

väiksem (4). On publitseeritud ka LA-juhtum, kus haigust raviti edukalt ütrium-90 kolloidi (Y-90) liigesesisese manustamisega (6).

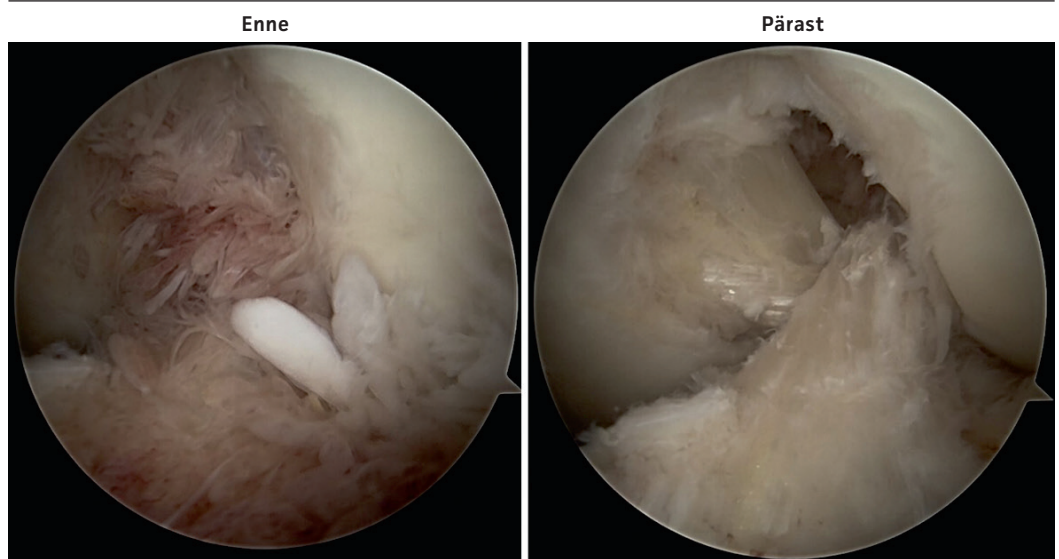
Ühe uuringu tulemuste põhjal oli LA õigeaegse raviga võimalik osteoartriooni väljakujunemist aeglustada (7).

HAIGUSJUHT

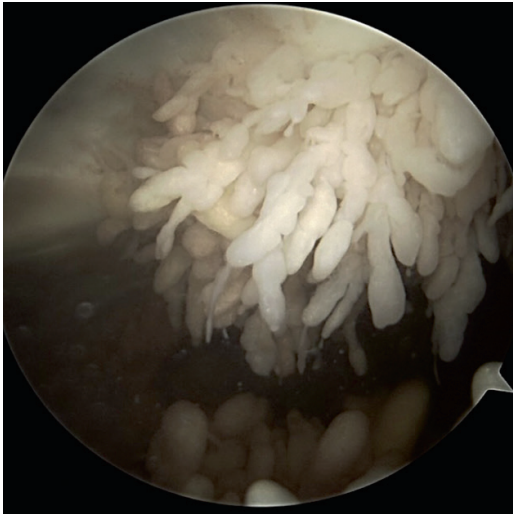
56aastane meespatsient pöördus arsti vastuvõtule viimase 5 aasta jooksul korduvalt esinenud põlveliigese ebamugavustunde episoodide ja liigesesse vedeliku kogunemise tõttu, millele oli viimasel ajal lisandunud ka valu liigese koormamisel. Patsiendil oli 20 aastat tagasi diagnoositud anküloseeriv spondüliit ja ta oli seetõttu üle 10 aasta saanud bioloogilist ravi adalimumabiga.

Esmalt tegeles põlveprobleemiga reumatoloog. Sümptomite leevendamiseks oli põlveliigesest korduvalt liigesevedelikku aspireeritud ning tehtud glükokortikosteroidi süste. Glükokortikosteroididel oli lühiaegne mõju ja põlveliigese piirkonna turse tekkis taas.

Koormusvalude tekkimise ning raviresistentsete liigesefusioonide tõttu otsustas reumatoloog suunata patsiendi ortopeedi konsultatsioonile. Täpsustavalt tehtud MRT-uuringu leiuks oli LA ning lisaks mediaalse meniski tagasarve rebend ja mediaalkondüüli II–III astme kõhrekahjustus, mediaalsel esines osteofüüte (vt joonis1). Algselt 2020. aasta sügisel planeeritud operatsioon lükkus COVID-19-epideemia tõttu edasi 2021. aasta suvesse.



Joonis 2. Artroskoopiline leid operatsiooni algul ja pärast sünovektoomiat.

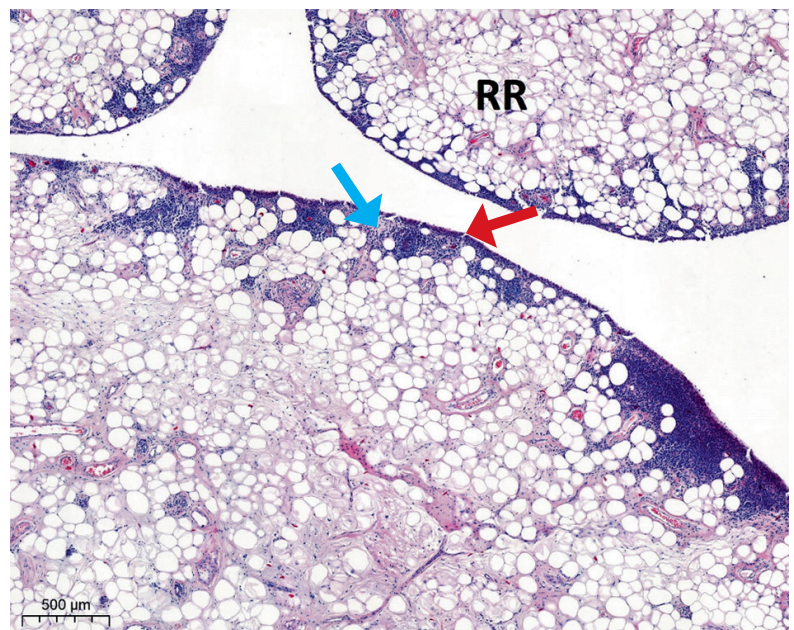


Joonis 3. *Lipoma arborescens*'ile iseloomulikud hatud sünoviaalmembraanil artroskoopial ja operatsioonipreparaadina, võrdluseks 10 ml süstal.

Juulis 2021 tehti patsiendile totaalne artroskoopiline sünovektomia. Vasakule põlveliigesele rajati anterolateraalne ja anteromediaalne portaal. Liigese revisjonil oli näha suprapatellaarsel, külgsopistes ja interkondülaarsel rohke hele hatuline sünoviit (vt joonis 2, 3). Rajati superolateraalne ja superomediaalne portaal ning tehti kogu eesmise sünooviumi reseksioon. Sünoviaalkoest võeti ka bioptaadid – makroskoopiliselt oli tegemist kollaka sõmerja koega. *Patella* mediaalserva keskosas esines II astme kõhrekahjustuskolle, mille ebastabiilsed servad resetseeriti. Mediaalse meniski tagasarve ja korpuse piiril esines väike degeneratiivne lapprebend valges tsoonis. Reieluu mediaalpõnda kandval pinnal esines difuusne II astme kõhrekahjustus, 30 kraadi fleksioonipinnal ka lahtine kõhrelapp suurusega 5 × 5 mm. Kõik kahjustunud alad resetseeriti. Sääreluu mediaalplatoo kõhr oli terve. Lateraalne menisk ja lateraalsed tibiofemoraalsed kõhred olid terved. Gillquisti manöövri abil siseneti liigese tagumisse ruumi, rajati posteromediaalne portaal ning kaks posterolateraalset portaali, mille kaudu resetseeriti ka rohke sünoviaalmass põlveliigese tagumises osas.

Operatsiooni käigus võetud materjali histoloogilisel uuringul ilmestusid madalmesoteeliga kaetud rasvarakkude villoossed proliferaadid (vt joonis 4). Submesoteeliaalselt esines vahelduvas hulgas põletikuinfiltraati. Leid hinnati sobivaks *lipoma arborescens*'ile.

40 päeva pärast operatsiooni kutsuti patsient tagasi lokaalseks adjuvantseks liigeseiseseks kiiritusraviks ütrium-90-ga (Y-90). Y-90 radiosünovektomiat kasutatakse laialdaselt ka teiste kroonilisi sünoviite põhjustavate haiguste ravis iseseisvana ja kirurgilise ravi järgse adjuvantravina näiteks pigmenteeritud villonodulaarse sünoviidi korral (8).



RR – rasvarakud

Joonis 4. *Lipoma arborescens*'i histoloogiline leid (1). Villoossed proliferaadid kaetud madala mesoteeliga (punane nool). Vahel põletikuinfiltraati (sinine nool).

¹ Radiology Clinic, Tartu University Hospital, Tartu, Estonia,
² Department of Radiology, Medicum, Tallinn, Estonia,
³ Pathology Centre, East Tallinn Central Hospital, Tallinn, Estonia,
⁴ Centre of Nuclear Medicine, East Tallinn Central Hospital, Tallinn, Estonia,
⁵ Orthopaedic Centre, North Estonia Medical Centre, Tallinn, Estonia,
⁶ Orthopaedic Centre, East Tallinn Central Hospital, Tallinn, Estonia

Correspondence to:
 Hendrik Rull
 hendrik.rull@gmail.com

Keywords:
 joint disease, joint effusion, synovectomy, magnetic resonance imaging, case reports

Patsiendi operatsioonijärgne ja radiosünovektomiaeelne MRT-leid viitas efusiooni ja sünoviidi taandumisele, kuid siiski esines veel mõõdukat sünoviaalset turset ja liigesesisest põletikku.

12 kuud pärast radiosünovektomiat on põleveliigese funktsioon hea. On jäänud püsima minimaalne liikumispiiratus, mis igapäevaelu oluliselt ei mõjuta. Operatsiooni järel ei ole efusioone taas tekkinud ning koormusvõime ei esine. Aeg-ajalt on patsient tundnud opereeritud põlves suprapatellaarselt kerget valulikkust, mis ei ole sõltunud koormusest. Patsient on probleemideta saanud sõita jalgrattaga.

Opereeritud põleveliiges on stabiilne. Liikuvus opereeritud vasakus põleveliigeses on 0-5-120°, paremas põleveliigeses 0-0-145°. Palpatooriselt on põlv valutu. Põleveliigeses turset ei esine, reie ümbermõõt suprapatellaarselt mõõdetes on vasakul 0,5 cm suurem paremast.

KOKKUVÕTE

Lipoma arborescens on üliharva esinev sünoviaalkesta haigus. Sümptomite korral on saadud head efekti artroskoopiliselt totaalsünovektomiast, tihti kasutatakse ka adjuvantravina radiosünovektomiat. Prognoos on üldiselt hea, enamikul patsientidest haigus ei retsiveeru. Haiguse harva esinemise tõttu ei ole haigusest paljud teadlikud ning seetõttu võib õige diagnoosi saamiseni minna mitmeid aastaid.

Kirjeldataud 56aastasel mehel tekkisid põleveliigesesse korduvad liigesefusioonid ilma selge põhjuseta. MRT-uuringul tulid esile sünoviaalmembraani sõrmetaolised rasvkehad, mis on LA korral spetsiifilised muutused. Patsiendile tehti artroskoopiline sünovektomia ning adjuvantravina radiosünovektomia. 12 kuud pärast ravi oli patsient sümptomivaba.

VÕIMALIKU HUVIKONFLIKTI DEKLARATSIOON

Autoritel puudub huvikonflikt seoses artiklis kajastatud teemaga.

SUMMARY

Extremely rare joint disease *Lipoma arborescens*: a survey and a case report

Hendrik Rull¹, Pirja Sarap², Erik Tamp³, Anne Poksi⁴, Paul-Sander Vahi^{5,6}

Lipoma arborescens is a rare slowly progressing chronic disease that affects the joints. LA manifests itself most commonly with episodic joint effusions. The most frequently affected joint is the knee, but the disease may occur in almost any medium or large joint. Today the diagnosis is based on typical findings on MRI, while other radiologic methods may also reveal the diagnostics. Arthroscopic total synovectomy is the most effective treatment. Intra-articular radiotherapy with Y90 has also demonstrated good results in reducing the symptoms.

Our case report presents a 56-year-old male who has had several recurrent knee joint effusions with no underlying cause. MRI showed specific alterations of *Lipoma arborescens*, such as villous and frond-like intra-articular fatty masses. The patient underwent arthroscopic total synovectomy and adjuvant radiosynovectomy. Twelve months later he was free of pain and demonstrated satisfactory motility of the affected knee joint.

KIRJANDUS / REFERENCES

1. De Vleeschhouwer M, Van Den Steen E, Vanderstraeten G, et al. Lipoma arborescens: review of an uncommon cause for swelling of the knee. Kolb W, ed. In: Case reports in orthopedics. 2016;2016:9538075.
2. Johandi F, Chua Z, Malhotra R, Wang W. Knee pain: a cautionary tale of lipoma arborescens. Case Reports 2016;2016:bcr2015214049.
3. Sanamandra SK, Ong KO. Lipoma arborescens. Singapore Med J 2014;55:5-10;quiz 11.
4. Wang CK, Alfayez S, Marwan Y, Martineau PA, Burman M. Knee Arthroscopy for the Treatment of Lipoma Arborescens: A Systematic Review of the Literature. JBS Rev 2019;7:e8.
5. Patil P, Kamalapur M, Joshi S, Dasar S, Rao R. Lipoma arborescens of knee joint: role of imaging. Radiol Case Rep 2011;5:17-25.
6. Erselcan T, Bulut O, Bulut S, et al. Lipoma arborescens; successfully treated by yttrium-90 radiosynovectomy. Ann Nuc Med 2003;17:593-6.
7. Natera L, Gelber PE, Erquicia JI, Monllau JC. Primary lipoma arborescens of the knee may involve the development of early osteoarthritis if prompt synovectomy is not performed. Orthopaedics Traumatol 2015;16:47-53.
8. André V, Dalibard V, Derris E, Varin S, Cormier G. Current role for radioisotope synovectomy. Joint Bone Spine 2018;85:295-9.