

ANGIOFIBROMA EN EL DORSO DEL PIE. CASO CLÍNICO Y REVISIÓN BIBLIOGRÁFICA

Valero, J¹, Gallart, J², González, D³.

1. Podólogo y Antropólogo. Especialista en Cirugía Podológica. Doctor por la Universidad de Zaragoza (Sociología). Doctor por la Universidad de Zaragoza (Medicina).
2. Podólogo y Antropólogo. Doctorando por la Universidad de Zaragoza (Medicina).
3. Podólogo. Master por la Universidad Complutense de Madrid. Doctorando por la Universidad de Zaragoza (Medicina).

CORRESPONDENCIA

E-mail: clinicajosevalero@gmail.com

RESUMEN

Se presenta un inusual caso de angiofibroma localizado en el dorso del pie de etiología claramente patomecánica. Se describe el procedimiento quirúrgico, el estudio anatomopatológico y el tratamiento ortopodológico compensador de la patología funcional causante de la tumoración. Al propio tiempo se hace una revisión bibliográfica que incluyen aquellos procesos tumorales y paratumorales con los que es preciso establecer diagnóstico diferencial, especialmente con los malignos, entre los que se encuentran el fibrosarcoma, el sarcoma sinovial, el melanoma y el histiocitoma fibroso maligno.

PALABRAS CLAVE

Angiofibroma. Dermatofibroma. Cirugía. Podiatría.

ABSTRACT

An unusual case of angiofibroma located on the dorsum of the foot with pathomechanics clear etiology, is presented. We describe the surgical procedure, pathologic examination and treatment compensating orthosis functional pathology causing the tumor. At the same time we present a literature review include those processes with paratumors and tumors, where appropriate differential diagnosis, especially with the malignant tumors between those who are fibrosarcoma, synovial sarcoma, melanoma and malignant fibrous histiocytoma.

KEY WORDS

Angiofibroma. Dermatofibroma. Surgery. Podiatry.

INTRODUCCIÓN

Los tumores y las lesiones paratumorales de origen tisular fibroso son frecuentes en el pie y, generalmente, están asociados a traumatismos, microtraumatismos de repetición y, de un modo muy significativo, a alteraciones en la correcta funcionalidad del pie¹. Sin embargo, el angiofibroma, considerado por numerosos autores como un fibroma tenosinovial^{2,3,4,5} es un tumor poco frecuente en el pie. Delgado et al., en un estudio sobre 166 tumores en hueso y partes blandas del pie, solo hallan un angiofibroma⁶, al igual que Ozdemir et al.⁷, en 196 casos.

El angiofibroma puede tratarse, desde un punto

de vista clínico y anatomopatológico de un dermatofibroma muy vascularizado, también llamado histiocitoma, fibroma duro, nódulo cutáneo, fibrosis nodular subepidérmica, dermatofibroma lenticular y hemangioma esclerosante⁸. Derivado del tejido conectivo fibroso, esta tumoración se presenta en forma de pápula o nódulo pequeño (alrededor de 1 cm de diámetro), dura y del color de la piel, amarillo- marrón o pardo-rojizo.

Generalmente solitario, la superficie puede presentarse ligeramente escamosa, elevada o ligeramente deprimida. Su localización más habitual en la extremidad inferior es la zona anterior de la pierna, presentándose en el pie, como ubicación más frecuente, en los dedos del pie (muy especialmente en

la zona periungueal)⁹ y, de un modo más raro si se excluyen los dedos, en la zona dorsal¹⁰. Su etiología suele ser traumática o microtraumática. También se ha sugerido como una de las causas de aparición de este tumor, las picaduras de algunos insectos.

Pese a su aspecto típico y su localización característica en las extremidades inferiores, se requiere diagnóstico diferencial con tumoraciones y lesiones benignas como el acantoma de células claras, el neurofibroma mixoide, el quiste mucoide, el angiomixoma superficial y la dermatofibrosis lenticular diseminada y con tumoraciones malignas como el mioblastoma de células granulosas, el fibrosarcoma y sus variantes histopatológicas (fibroma fibroblástico mixoinflamatorio acral, el mixofibrosarcoma y el sarcoma fibromixoide de bajo grado) el sarcoma sinovial, el melanoma y el histiocitoma fibroso maligno.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente, varón de 68 años de edad que refiere dolor en el dorso del pie y que asocia a una tumoración aparecida hace menos de seis meses. El dolor es significativo cuando está calzado y caminando pero disminuye sensiblemente en reposo y descalzo.

No tiene conciencia de haber sufrido traumatismo alguno. Relata, igualmente, que desde hace varios meses y previamente a la lesión tumoral, dolor plantar-medial que se extiende desde el talón hasta el antepié, que es especialmente intenso cuando comienza a caminar al levantarse de la cama, que desaparece o disminuye significativamente tras varios minutos caminando y que se acentúa tras el reposo y la vuelta a la deambulación, que podría ser compatible con la sintomatología de la fascitis plantar de etiología patomecánica.

A la exploración se aprecia una masa, de consistencia dura a la palpación, situada en el dorso del pie a la altura de la diáfisis del segundo metatarsiano, entre los tendones del extensor propio del hallux y el tendón para el segundo dedo del extensor largo de los dedos, y que puede ser desplazada entre el primero y el segundo espacios intermetatarsianos sin que dicha maniobra le produzca dolor (Figura 1). La evaluación muscular muestra una acortamiento funcional del tríceps sural y de los músculos isquiotibiales. El estudio biomecánico muestra un tipo de pie normal o ligeramente excavado, pronación excesiva de la articulación subastragalina y antepié supinado.



Figura 1A: Angiofibroma. Aspecto de la lesión



Figura 1B: Angiofibroma. Tumor fijado manualmente.

En sus antecedentes médicos caben citarse tres intervenciones quirúrgicas (colecistitis, adenoma de próstata y cataratas). En la actualidad padece hipertensión arterial, controlada y tratada por su médico de familia.

PROCEDIMIENTO QUIRÚRGICO

Previa anestesia local de la zona a intervenir con mepivacaína al 1% y supramaleolar, se practica una incisión longitudinal abarcando la piel y el tejido celular subcutáneo, quedando expuesta la tumoración (Figura 2) que no se encuentra encapsulada. Se procede, seguidamente, a la disección y extracción de la tumoración (Figura 3). La sutura se realiza con puntos simples de monofilamento no absorbible (Figura 4).



Figura 2: Angiofibroma. Incisión y exposición del tumor.



Figura 3: Angiofibroma. Extracción del tumor.

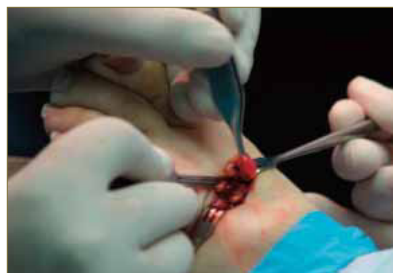


Figura 4: Angiofibroma. Sutura.

TRATAMIENTO POST-QUIRÚRGICO

Las piezas extraídas se remitieron para su estudio anatomopatológico.

Se prescribió antibioterapia por vía oral (500 mg de amoxicilina + 125 mg de ácido clavulánico cada 8 horas) durante ocho días. Se indicó reposo absoluto durante las primeras veinticuatro horas y relativo durante los días siguientes hasta la retirada de la sutura.

El post-operatorio cursó con normalidad: no hubo fiebre ni dolor ni exudación en ningún momento. La sutura se retiró a los 11 días y se permitió al paciente hacer vida normal, con calzado cómodo y protección de la zona intervenida con un apósito simple.

El paciente fue revisado a los treinta días de la intervención y se comprobó la curación total de la lesión. A partir de ese momento se realizó una nueva exploración biomecánica en la que se constató la alteración funcional que se apreció en la primera visita y el paciente comenzó a utilizar el tratamiento ortopodológico compensador de su retropié patológicamente pronado que consistió en soportes elaborados en polipropileno de 3 mm de grosor, con talón neutro y

poste en retropié para compensar el acortamiento funcional del tríceps sural y estabilizar el soporte plantar.

Ha sido revisado cada seis meses para controlar su tratamiento ortopodológico y, a los cuarenta y ocho meses de la intervención, se constata que no se ha producido recidiva del tumor y ha desaparecido por completo la sintomatología dolorosa derivada de su fascitis.

ESTUDIO ANATOMOPATOLÓGICO

Descripción macroscópica: Dos fragmentos que miden en conjunto 2x2x0,5 cm con aspecto de tejido de aspecto fibroso de consistencia blanda-elástica. Se incluye en su totalidad.



Figura 5: Angiofibroma. Aspecto de la tumoración extirpada.

Descripción microscópica: las secciones estudiadas están constituidas por un nódulo bien delimitado no encapsulado formado por un tejido fibroso en áreas hialinizado, en otras con edema intersticial o degeneración mixoide entremezclado con vasos de tipo venoso o capilar. No se observan atipias ni mitosis (Figura 6).

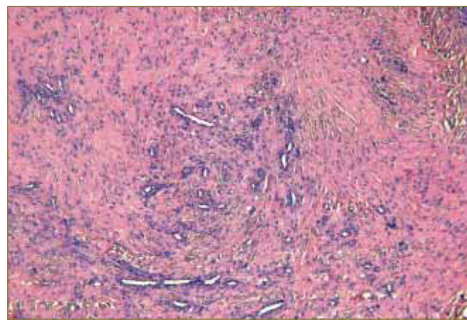


Figura 6A: Panorámica que muestra una proliferación de vasos sobre un estroma con tejido fibroso parcialmente colagenizado (HE, x50).

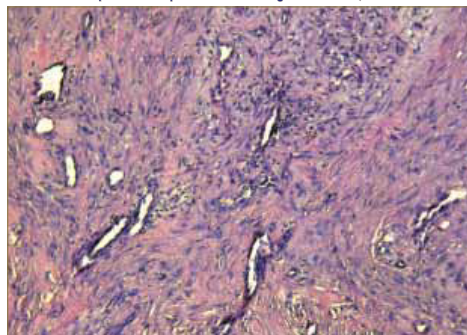


Figura 6B: Presencia de vasos de tipo venoso-capilar con un endotelio aplanado sin atipias en un estroma fibroso moderadamente celular con un infiltrado leve reactivo linfoplasmocitario (HE, x100).

Diagnóstico anatomopatológico: Compatible con angiofibroma.

DISCUSIÓN

Como se ha indicado anteriormente, el angiofibroma (para algunos autores se trata de un fibroqueratoma digital adquirido)^{11,12} es un tumor poco frecuente en el pie.

Sin embargo, se han reportado numerosos casos de angiofibromas digitales, especialmente periungueales^{13,14} que se presentan por regla general (aunque se han descrito morfologías peculiares¹⁵, incluso de localización plantar¹⁶) como una tumoración adquirida, compacta y solitaria, en forma de pápula rosácea o del color de la piel. Con alguna frecuencia y de un modo totalmente inapropiado el angiofibroma periungueal recibe la denominación de "tumor de Koenen" cuando este tumor, aún tratándose de un tipo de angiofibroma, se presenta en forma de fibromas periungueales múltiples, hereditarios y desarrollados generalmente durante la pubertad en pacientes con esclerosis tuberosa y presenta unas características anatomopatológicas peculiares como la presencia distal de colágeno laxo con numerosos vasos pequeños y, proximalmente, se encuentra colágeno compacto y pocos vasos sanguíneos^{17,18}. Sin embargo, el angiofibroma adquirido tiene unas características histológicas coincidentes en algunos aspectos con el quiste sinovial, el fibroqueratoma digital adquirido, con algunos histiocitomas e incluso con algunos tipos de hemangiomas, pero no presenta las peculiaridades anatomopatológicas del tumor de Koenen.

En nuestra revisión bibliográfica partimos de que hay que tomar en consideración que, si bien la mayor parte de los tumores que se presentan en el pie y en el tobillo suelen ser de naturaleza reactiva y/o inflamatoria, la Organización Mundial de la Salud reconoce más de ochenta tipos diferentes de lesiones neoplásicas de partes blandas y óseas¹⁹. Por otra parte, la epidemiología de los tumores malignos es muy variable en dependencia de los diversos estudios realizados; mientras que para Bakotic y Borkowski²⁰, con 401 casos estudiados, llegan al 62,8% de tumores malignos en partes blandas, Casadei et al.²¹, con 260 casos, hallan un 22,3% de tumores malignos, Ozdemir et al.⁷ solo un 12,8% (25 casos en una serie de 196) y, por último, Delgado et al.⁶ solo hallan un 3,6% de tumores malignos en un estudio sobre 166 casos de tumores óseos y de partes blandas en el pie y en el tobillo. Cuando el estudio se limita a tumores de partes blandas, los porcentajes disminuyen considerablemente en la mayoría de los casos: Kirby et al.¹⁹, en 83 casos, identifican un 13% de tumores malignos, Delgado et al.⁶, en 76 casos, hallan un 5,2% de tumores malignos y, por último, Ozdemir et al.⁷, en 41 pacientes con tumores en piel y partes blandas, reportan 19 casos de tumores malignos.

Para Valdés et al. los sarcomas de partes blandas representan el 1% del total de tumores en la edad adulta y el 15% en la edad pediátrica, además de que el 50% de estas neoplasias aparecen en las extremidades²². Para Delgado et al., solo uno de éstos, el sarcoma sinovial, representa el 1,3% de todos los tumores de partes blandas⁶ del pie. Sin embargo Kirby et al.¹⁹, en su estudio de 11 tumores malignos de partes blandas, el 45% de ellos fueron sarcomas sinoviales. Por su parte Scully et al.²³ afirman que el sarcoma sinovial constituye el 45-50% de los tumores malignos en el pie y en el tobillo. Ozdemir et al.⁷, en una serie de 19 tumores malignos de piel y partes blandas de piel y

tobillo, reportan 5 sarcomas sinoviales y 4 fibrosarcomas que representan en conjunto el 47,36% de todos los tumores malignos de piel y partes blandas y, por supuesto, mucho más frecuentes que el angiofibroma. Por tanto, ante una tumoración fibrosa y angiomatosa en el pie, de naturaleza y evolución inciertas o desconocidas, ante la posibilidad de que se trate de una tumoración maligna, es imprescindible la exéresis quirúrgica y el estudio anatomopatológico del material anatómico extirpado.

Desde hace años existe controversia acerca de las diversas denominaciones que se dan a algunos tipos de tumores fibrosos lo que produce que, cada cierto tiempo, aparezcan nuevas entidades tumorales. Un ejemplo de ello es que, Fetsch et al., en 2001, presentaron una serie de casos de una nueva entidad que denominó "fibromixoma acral superficial" después de revisar una serie de 280 tumores acrales fibrohistiocitarios diagnosticados como fibroma, mixoma, fibromixoma, mixolipoma, dermatofibroma, histiocitoma fibroso o angiofibroma²⁴. En el caso presentado, desde un punto de vista anatomopatológico, el angiofibroma se presenta como un fibroma vascularizado del tendón extensor en el que caben resaltarse como características más significativas: el tejido fibroso en áreas hialinizadas, el edema intersticial o degeneración mixoide entremezclado con vasos de tipo venoso y capilar y la ausencia de atipias ni mitosis. Sin embargo los tumores malignos con los que es preciso hacer diagnóstico diferencial, muestran unas características anatomopatológicas diferentes pero muy específicas para cada uno de ellos, como el angiosarcoma que presenta luces vasculares con un patrón infiltrativo, extravasación hemática y depósitos de hemosiderina (Figura 7), o el sarcoma fibroblástico mixoinflamatorio acral que tiene un patrón de crecimiento infiltrativo, un importante componente inflamatorio, estroma mixoide o hialino con tres poblaciones de células tumorales, o el dermatofibrosarcoma protuberans que muestra un patrón estoriforme e infiltración subcutánea digitiforme (Figura 8), el histiocitoma fibroso maligno, con células marcadamente atípicas, entremezcladas con algunas multinucleadas (Figura 9) o, por último, el mixofibrosarcoma de bajo grado que muestra un gran pleomorfismo celular, vasos capilares curvilíneos prominentes y mitosis atípicas²⁵.

Está generalmente aceptado que algunos tumores, por su situación e independientemente de que sean benignos o malignos, pueden interferir en las funciones normales del organismo¹⁷. En el caso de los tumores en los pies, además de que tumores intrínsecamente benignos pueden alterar la funcionalidad correcta de los pies y, por extensión, del aparato locomotor, las alteraciones funcionales de los pies y/o de la extremidad inferior pueden provocar, a su vez, tumores cuya etiología sería patomecánica. Desde un punto de vista clínico, el angiofibroma presentado muestra las características propias de un tumor producido por alteraciones en la funcionalidad del pie siendo, por tanto, su etiología intrínsecamente patomecánica. La etiología patomecánica de un buen número de tumores del pie ha sido contrastada en otras publicaciones^{1,13,26} que proponen, al mismo tiempo, como tratamiento complementario del tumor intervenido quirúrgicamente, la necesidad de un adecuado tratamiento rehabilitador y/u ortopodológico.

Del mismo modo, en el angiofibroma descrito, se encontraba afectando a los tendones del extensor propio del hallux y el tendón para el segundo dedo

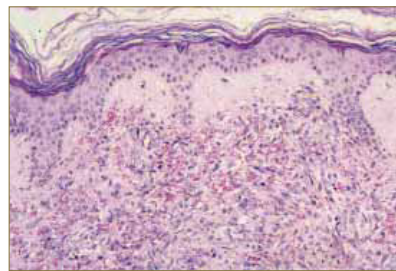


Figura 7A: Angiosarcoma. La lesión tumoral asienta en la dermis y es pobremente circunscrita, con un patrón sólido y angiomatoso (H-E, x 100).

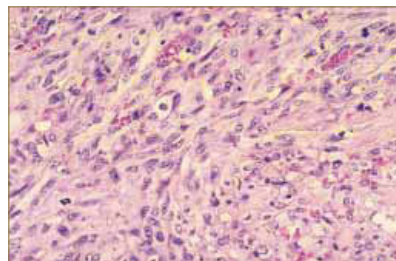


Figura 7B: Angiosarcoma. Áreas sólidas de células fusiformes o cuboideas entremezcladas con pequeños canales vasculares tapizados por células endoteliales atípicas (H-E, x 400).

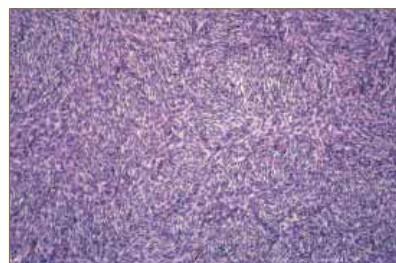


Figura 8A: Dermatofibrosarcoma protuberans. Los fibroblastos se disponen en cordones y espirales irregulares (H-E, x 100).

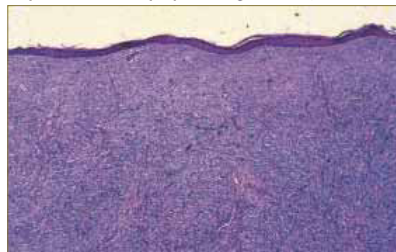


Figura 8B: Dermatofibrosarcoma protuberans. Proliferación de células fibroblásticas dispuestas irregularmente, que ocupan todo el espesor de la dermis (H-E, x 40).

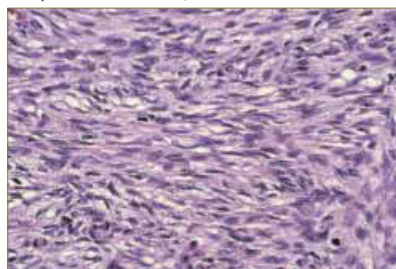


Figura 8C: Dermatofibrosarcoma protuberans. Los núcleos de las células tumorales muestran cierto grado de atipia (H-E, x 400).

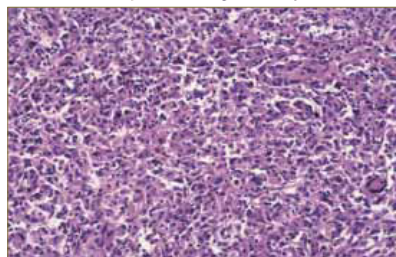


Figura 9: Histiocitoma fibroso maligno. Células marcadamente atípicas, entremezcladas con algunas multinucleadas (H-E, x 200).

del extensor largo de los dedos lo que podría confirmar la descripción de "fibroma sinovialvascularizado" y su inmediata causa patomecánica ser debida a una mala función del grupo extensor provocada por sus alteraciones funcionales (acortamiento funcional del tríceps sural, pronación excesiva de la articulación suabragalina y antepié supinado).

Por otra parte, se han descrito algunos casos de tumores de células gigantes en la vaina del tendón del peroneo corto²⁷ y en el tendón del extensor propio del primer dedo²⁸. También se han descrito fibromas tenosinoviales^{2,5}, fibromas en las vainas tendinosas³ y angiofibromas de la vaina tendinosa estableciendo como sinónimo el término de "fibroma sinovial"⁴. Pese a sus similitudes y diferencias clínicas y anatomopatológicas, todas esas tumoraciones tienen, en nuestra opinión, dos características comunes: su origen suele ser, mayoritariamente, traumático, microtraumático o patomecánico y, al mismo tiempo, requieren diagnóstico diferencial con tumores malignos de origen tisular fibroso.

El tratamiento del angiofibroma es quirúrgico y consiste en la resección del tumor con márgenes libres. Sarma et al. consideran que la escisión qui-

rúrgica completa es un procedimiento curativo; sin embargo reportan que la recurrencia del tumor ocurre en el 24% de los casos, generalmente a causa de una inadecuada escisión³. No obstante, como quiera que existen casos en los que la tumoración regresa con el paso del tiempo, se recomienda una actitud expectante cuando los signos clínicos lo permitan. El seguimiento de este tipo de tumores, en principio benignos y de difícil clasificación²⁹, es necesario ya que hay que tener muy presente que, para algunos autores, el aumento de tamaño de algunos tumores de origen fibroso entre 2 y 3 cm, sugeriría la presencia de un histiocitoma fibroso maligno.

AGRADECIMIENTOS

Al Dr. M.A. Marigil Gómez, MD, Anatomopatólogo, por su valiosa colaboración en el estudio anatomopatológico del caso presentado en este artículo.

A Exa Editores por la cesión de las imágenes de las figuras 7,8 y 9.

BIBLIOGRAFÍA

1. Valero J, Gallart J, González D, Marquina R, Agustín L. Tumores de origen patomecánico. *Podología Clínica*, 2012, 13(1): 11-27.
2. Gill PW, Rosenthal L, Wagreich CR. Tenosynovial fibroma. A case report. *JAPMA* 1988 Jul;78(7):368-9.
3. Sarma DP, Townsend GH, Rodriguez FH Jr. Fibroma of tendon sheath. *J Foot Surg*. 1987 Sep-Oct;26(5):422-4.
4. Wu KK. Angiofibroma of tendon sheath (tenosynovial fibroma) of the foot. *J Foot Ankle Surg*. 1993 Jul-Aug;32(4):453-5.
5. Azzopardi JG, Tanda F, Salm R. Tenosynovial fibroma. *Diagn Histopathol*. 1983 Apr-Jun;6(2):69-76.
6. Delgado EA, Rico G, Linares LM, Estrada E, León SR, Ble R. Epidemiología de tumores óseos y partes blandas de pie y tobillo. *Acta Ortopédica Mexicana* 2007;21(3):144-150.
7. Ozdemir HM, Yildiz Y, Yilmaz C, Saglik Y. Tumors of the foot an ankle: Analysis of 196 cases. *J Foot Ankle Surg* 1997;36(6):403-8.
8. Vilanova J, Flint A. The morphological variations of fibrous histiocytomas. *J Cutan Patol* 1974; 1: 155.
9. Jacobs AM, Amarwek DL, Oloff LM. Atypical fibrous histiocytoma of the great toe. *J Foot Surg*;1984; 23: 250.
10. Novicki DC, Anselmi SJ. Fibrous histiocytomas. *JAPA*; 1978; 68: 606.
11. Berger RS, Spielvogel RL. Dermal papule on a distal digit. Acquired digital fibrokeratoma. *Arch Dermatol* 1988;124:1559-63.
12. Vinson RP, Angeloni VL. Acquired digital fibrokeratoma. *Am Fam Physician* 1995;52:1365-1367.
13. Valero J. Tumores de la piel y de las partes blandas del pie. Madrid: Exa Editores, 2003.
14. Tisa LM, Iurcotta A. Solitary periungual angiofibroma. An unusual case report. *JAPMA* 1993;83:679-680
15. Mora GS, Pérez S, Navales J. Fibroqueratoma digital adquirido. Reporte de un caso con morfología no característica. *Rev Centr Dermatol Pascua* 2003;12(2):84-86.
16. Fernández R, Cesarios G, Feijoo F. Fibroqueratomas adquiridos de localización plantar. A propósito de 4 casos. *Arch Argent Dermat* 1993;43:335-40.
17. Klint A, Baran R. Histopathologic study of Koenen tumours. *J Am Acad Dermatol* 1988;18:269-72.
18. Chin FE, McCarthy DJ. The etiological and biochemical implications of periungual fibroma. *J Foot Surg* 1992;31:486-49.
19. Kirby EJ, Shereff M, Lewis M. Soft-Tissue tumors and tumor-like lesions of the foot. An analysis of eighty-three cases. *J Bone Joint Surg* 1989; 71A(4):621-6.
20. Bakotic BW, Borkowski P. Primary soft-tissue neoplasms of the foot: the clinicopathologic features of 401 cases. *Foot Ankle Surg* 2001;40(1):28-35.
21. Casadei R, Ferrero A, Ferruzzi A, Biagini R, Ruggieri P. Bone tumors of the foot: epidemiology and diagnosis. *Clin Organi Mov* 1991;76:47-62.
22. Valdés C, Oleaga L, López I, Puertas J, Egilior J, Ortiz J, Legoburu M, Terrones J. Protocolo para el diagnóstico y tratamiento de sarcomas de tejidos blandos del hospital de Basurto. *Cir Plást Iberoamer* 2004;30(4):285-92.
23. Scully SP, Temple H, Harrelson J. Synovial sarcoma of the foot and ankle. *Clin Orthop Rel Res* 1999;364:220-6.
24. Fetsch JF, Laskin WB, Miettinen M. Superficial acral fibromyxoma: a clinicopathologic and immunohistochemical analysis of 37 cases a distinctive soft tissue tumor with a predilection for the fingers and toes. *Hum Pathol*. 2001;32:704-14.
25. Messeguer F, Nagore E, Agustí-Mejías A, Traves V. Fibromixoma acral superficial, un tumor periungueal CD34 positivo. *Actas Dermosifiliogr*. 2011. doi:10.1016/j.ad.2011.03.028.
26. Valero J, Gallart J, González D, Agustín L, Marquina R, Deus J, Lahoz M. Neuroma under the fifth metatarsal head. A retrospective study. *Histol Histopathol* (2012) 27: 1103-1107.
27. Goni V, Gopinathan NR, Radotra BD, Viswanathan VK, Longithasan RK, SB. Giant cell tumour of peroneus brevis tendon sheath- a case report and review of literature. *BMJ Case Rep*. 2012 Jul 13;2012,pii:ber0120125703,doi:10.1136/ber.01.2012.5703.
28. Muramatsu K, Mine T, Ichihara K. Atypical tenosynovial giant cell tumor of the extensor hallucis longus tendon. *J Am Podiatr Med Assoc*. 2006 Jul-Aug;96(4):359-61.
29. Valero J, Gallart J, González D. Un tumor de difícil clasificación: hemangioma mixto, hemangioma arterio-venoso, angiofibroma o angioleiomioma. *Podología Clínica* 2012;13(4):102-06.