

SUBUNGVALNA EGZOSTOZA PALCA STOPALA – PRIKAZ OSMOGODIŠNJE DJEVOJČICE

SUBUNGUAL EXOSTOSIS OF THE THUMB – CASE REPORT IN EIGHT YEAR OLD GIRL

ANKO ANTABA, TOMISLAV ĐAPIĆ, SVEN SEIWERTH, DINO PAPEŠ,
ROBERT KARLO, TOMISLAV LUETIĆ*

Deskriptori: Koštani tumori – radiografija, patologija, kirurgija; Egzostoze – radiografija, patologija, kirurgija; Osteohondrom – radiografija, kirurgija; Falange nožnih prstiju – radiografija, patologija, kirurgija; Bolesti noktiju – patologija, kirurgija; Palac

Sažetak. Subungvalna egzostoza (SE) osteokartilaginozni je benigni tumor distalne falange prsta. Većinom je lokaliziran na palcu stopala, puno rijetko na drugim prstima. SE se pojavljuje u oba spola, u pravilu u drugom i trećem desetljeću života, a vrlo rijetko u djece mlađe od osam godina. U radu je prikazana osmogodišnja djevojčica sa subungvalnom egzostozom distalne falange palca desnog stopala. Prezentirala se postupnim rastom bezbolnog, subungvalno smještenoga tvrdog čvora palca desnog stopala, veličine 12 mm u promjeru. Na rendgenogramu stopala koštani izdanak raste iz terminalne falange palca desnog stopala, bez lokalne reakcije periosta. Tumor je kirurški odstranjen pristupom kroz ležište nokta. Histopatološka analiza potvrđuje da se radi o SE-u. Poslijeoperativno u deset mjeseci nije zamijećen recidiv.

Descriptors: Bone neoplasms – radiography, pathology, surgery; Exostoses – radiography, pathology, surgery; Osteochondroma – radiography, surgery; Toe phalanges – radiography, pathology, surgery; Nail diseases – pathology, surgery; Thumb

Summary. Subungual exostosis (SE) is a benign osteocartilaginous tumor of the distal phalanx of the finger, particularly of the toes. It affects both sexes, the most frequently occurring in the second and third decades of life, and very rarely in children younger than eight years. We present subungual exostosis (SE) in a eighth year old female child affecting the terminal phalanx of the right thumb. She presented to us with gradually enlarging, painless, subungual hard nodule on the right thumb, spherical appearance size of 12 mm in diameter. Roentogram of the foot showed bony outgrowth arising from the terminal phalanx of right thumb. Lesion was excised with prior ablation of the nail, and sent for histopathological examination. Histology showed evidence of SE. No recurrence at postoperated site was seen till ten months of follow-up.

Liječ Vjesn 2015;137:233–235

Subungvalna (ispod nokatne ploče) egzostoza (SE) primarni je benigni koštani tumor distalne falange prsta. Tipičan je brz i bezbolan rast, odizanje nokatne ploče, a potom i destrukcija ležišta nokta. Prvi ga je opisao Dupuytren 1847. godine.¹ Od tada je opisano nekoliko stotina slučajeva.² Cešći je na prstima stopala nego šake. Većinom se javlja u drugom i trećem desetljeću života. Vrlo je rijedak u djece mlađe od osam godina, a najmlađe opisano dijete imalo je nepunih sedam godina.^{3,4} U ovom radu prikazujemo SE u osmogodišnje djevojčice.

Prikaz bolesnice

Osmogodišnja djevojčica dolazi na pregled dječjem kirurgu zbog velike bezbolne tvorbe koja joj odiže nokat palca desnog stopala. Tijekom ljetnih praznika, hodajući bosa, zadržala je udarac u taj palac; tada je načinjen rendgenogram, nema koštane traume. Mjesec dana nakon ozljede imala je upalu ležišta nokta. Dva je tjedna liječena antibiotikom i kupkama. Dva mjeseca prije dolaska kirurgu majka zamjećuje rast kuglaste tvorbe koja je odigla nokat. Liječnica obiteljske medicine tvorbu liječi kao piogeni granulom, slanim kupkama i antibiotikom. Nakon mjesec dana uputila je djevojčicu na pregled dječjem kirurgu. Na dan pregleda nokat je odignut iz ležišta, tumor prominira, sferična je oblika, promjera 12 mm. Površina vidljivog dijela tumora je hiperkeratotična. Od udarca u prst do pregleda kod kirurga i prikazanih fotografija (slika 1. a, b) prošlo je sedam mjeseci. Perkusija i palpacija tog mjesta lagano su bolne. Snimljene su rendgenogrami u dva smjera, na kojima je jasno prik-

zana trabekulirana koštana novotvorina (izdanak) koja strši s dorzomedijalne strane distalne falange palca (slika 2.).

Kortikalni rubovi zdrave kosti jasno su ocrtni, nema znakova destrukcije kosti distalne falange. Na osnovi tih snimaka postavljena je dijagnoza SE-a. Operacija je načinjena u općoj anesteziji s palcem u blijeđoj stazi. Odstranjena je nokat, a kroz nokatnu ploču ekscedirana je u blok-resekciji tumorska tvorba (slika 3.). Histološka analiza pokazuje bazu koštanog tumora gradenju od lamelirane trabekulirane kosti s tankom hijalinofibrokartilaginoznom kapom. Osam mjeseci nakon zahvata nije bilo znakova recidiva bolesti.

Raspis

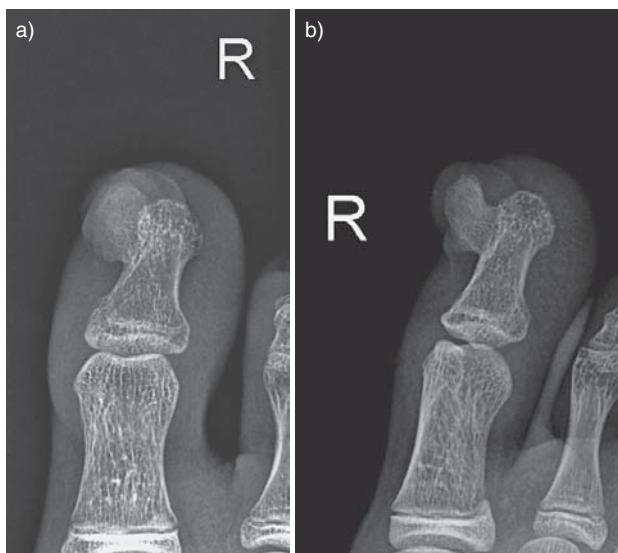
Subungvalna egzostoza rijetka je benigna kortikalna novotvorina distalnih falanga prstiju. Tumor raste ispod ili pokraj nokta i za nekoliko mjeseci koštano tkivo pokriveno hrskavičnom kapom odiže nokatnu ploču i razara ležište nokta. Taj koštani tumor smatra se rijetkom varijantom osteohondroma, najčešćega benignog tumora kosti.⁵ SE je obično osamljena lezija palca, ali je opisana i na ostalim

* Klinika za kirurgiju Medicinskog fakulteta Sveučilišta u Zagrebu, KBC Zagreb (prof. dr. sc. Anko Antabak, dr. med.; Dino Papeš, dr. med.; prof. dr. sc. Tomislav Luetić, dr. med.), Klinika za ortopediju Medicinskog fakulteta Sveučilišta u Zagrebu, KBC Zagreb (doc. dr. sc. Tomislav Đapić, dr. med.), Zavod za patologiju Medicinskog fakulteta Sveučilišta u Zagrebu (prof. dr. Sven Seiwert, dr. med.), Opća bolnica Zadar (dr. sc. Robert Karlo, dr. med.)

Adresa za dopisivanje: Prof. dr. sc. A. Antabak, Klinika za kirurgiju, KBC Zagreb, Kišpatićeva 12, 10000 Zagreb. e-mail: aantabak@kbc-zagreb.hr
Primljeno 27. listopada 2014., prihvaćeno 23. svibnja 2015.

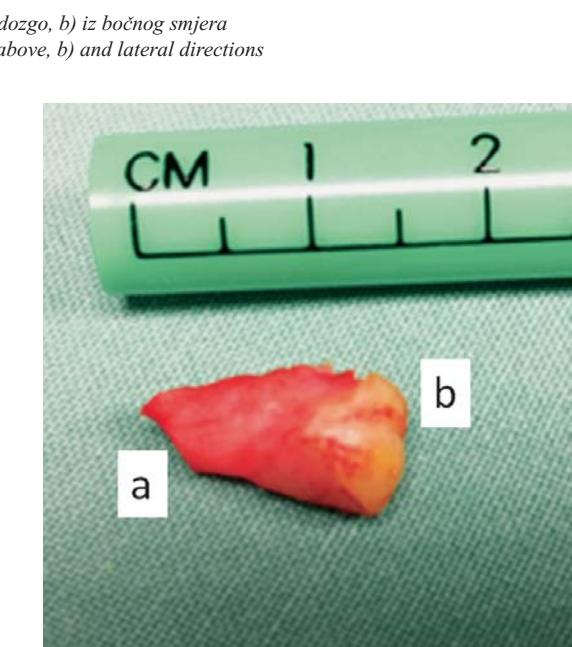


Slika 1. a) Fotografija palca odozgo, b) iz bočnog smjera
Figure 1. a) Photograph of thumb above, b) and lateral directions



Slika 2. Rendgenogram palca: a) anteroposteriorna i b) kosa projekcija
Figure 2. Radiography of thumbs a) anteroposterior projection, b) oblique projection

prstima stopala, pa čak i na prstima šaka.³ Gotovo u pravilu raste bez simptoma i tada postigne veličinu od nekoliko centimetara u promjeru. Katkad rast tumora prate bol i ulceracija nokta ili okolnog tkiva uz pojavu sekundarne infekcije. Pojavnost SE-a je malena. U anglosaskoj literaturi do 1996. godine ukupno je opisano samo 312 bolesnika. U više od polovice njih SE je bio lokaliziran na palcu stopala. Bolesnici su pretežito bili u drugom i trećem desetljeću života.⁵⁻⁷ SE palca stopala vrlo se rijetko vidi u djece mlađe od devet godina. Najmlade do sada objavljeno dijete bila je djevojčica od nepunih sedam godina.⁴ O pojavnosti vezanoj za spol ima više različitih navoda.^{2,4,8} Uzrok subungvalnih egzostoza je nepoznat. Mnogi se faktori povezuju s nastankom SE-a: trauma, kronične infekcije, tumor, naslijedni poremećaj ili aktivacija vezivnih dijelova kosti.⁹ Nerijetko SE-u može prethoditi hrskavična metaplasija kao odgovor na akutne ili kronične iritacije, ali i kao protrahirana mikrotrauma distalne falange prsta.^{10,11} Nedavna identifikacija rekurentnih kromosoma t(X;6)(q24-q26;q15-21) u kratko-



Slika 3. Blok-resekcija subungvalne egzostoze:
a) resecirana baza, b) hrskavična kapa tumors
Figure 3. Block resection subungual exostosis.
a) resected base, b) cartilaginous cap tumors

ročno uzgajanim tumorskim stanicama snažno sugerira da je SE ipak neoplastička lezija uzrokovana preslagivanjem gena u dvije prijelomne točke.¹² SE u ranoj fazi teško je razlikovati od drugih lezija subungvalnog prostora. Budući da se radi o prostoru veličine tek 1 – 2 mm, i najmanji ga procesi deformiraju, bez makroskopski tipične slike za pojedini proces. U diferencijalnoj dijagnozi SE-a treba misliti na procese koji se javljaju subungvalno: glomus-tumor, akrolentiginozni maligni melanom, keratoakantom, subungvalne bradavice, spinocelularni karcinom, piogeni granulom.¹³⁻¹⁷ Novotvorine koje su češće smještene periungvalno jesu: fibromi, bradavice, epidermalne inkluzijske ciste, nevusi, akrolentiginozni maligni melanom, keratoakantom, urastanje nokta.¹⁸⁻²² Ako postoje dileme i nakon načinjenog rendgenograma, korisno je načiniti i UZ i MR obradu.²³ U pravilu dijagnoza SE-a može se postaviti rendgenskom snimkom. Već za ranog rasta tumorsa rendgenske zrake dobro prikazuju strukturu kosti kao trabekularni

koštani izdanak terminalne falange nožnog prsta. Kortikalni i medularni dio izdanaka stapaaju se s matičnom kosti bez njezine destrukcije i periostalne reakcije. Hrskavični pokrov radiološki se ne vidi, a neki se autori koriste MR-om u preoperativnoj pripremi ovih tumora.²⁴ Histopatološkim pregledom SE nalikuje koštanom zadebljanju u morfološkim gradacijama zrelih koštanih trabekula, na čijem je vrhu fibrohrskavična kapa s enhondralnim okostavanjem na bazi kape.²⁵ Liječenje SE-a je kirurško. Izvodi se u digitalnom bloku; tumor treba odstraniti, a matriks nokta sačuvati.²⁶ Ako je tumor prolabilao u meka tkiva, operacija se čini kroz ležište nokta, a za one manjeg promjera mediolateralnom incizijom. Potrebno je potpuno uklanjanje tumora uz kiretiranje baze. Nepotpune resekcije komplikiraju se lokalnim recidivom tumora.^{27,28} Ostale su komplikacije nepravilan ili potpun izostanak rasta nokta.²⁹

Ovim prikazom želimo izvijestiti o rijetkoj pojavi SE-a na palcu u ranoj životnoj dobi. Tako kod subungvalnih ležija treba pomišljati i na SE. Ako se zarana propusti načiniti rendgenogram, tumor brzo i bezbolno naraste na veličinu kada kirurški postupak radikalne resekcije postaje sve drugo, samo ne trivijalan postupak u lokalnoj anesteziji. Bez obzira na dob djeteta, ne smije se dopustiti da se osteohondrom razvije u znatnu masu koja operaciju čini komplikiranom, a ishod upitnim.

L I T E R A T U R A

1. *Dupuytren G.* On the injuries and diseases of the bones. U: Clark F, ur. London: Publications of the Sydenham Society; 1847, p. 408–10.
2. *Davis DA, Cohen PR.* Subungual exostosis: Case report and review of literature. *Pediatr Dermatol* 1996;13:212–8.
3. *Lee J, Kim SE, Park K, Son SJ, Gupta S, Mittal A.* Subungual osteochondroma presenting as verruca vulgaris in a 6-year-old boy. *Pediatr Dermatol* 2007;24(5):584–5.
4. *Gupta S, Mahendra A, Dhull AK.* Subungual exostosis of the thumb – first case report in youngest age. *Indian J Dermatol* 2009;54:46–8.
5. *Karasick D, Schweitzer ME, Eschelman DJ.* Symptomatic osteochondromas: Imaging features. *Am J Roentgenol* 1997;168:1507–12.
6. *Carroll RE, Chance JT, Inan Y.* Subungual exostosis in the hand. *J Hand Surg Br* 1992;17:569–74.
7. *Lizuka T, Kinoshita Y, Fukumoto K.* Subungual exostosis of the finger. *Ann Plast Surg* 1995;35:330–2.
8. *Dickey ID.* Solitary osteochondroma. Emedicine, 2004. <http://emedicine.medscape.com/article/1256477-overview> Accessed 23rd January 2010.
9. *Evision G, Price CH.* Subungual exostosis. *Br J Radiol* 1966;39:451–5.
10. *Dave S, Carounanidy U, Thappa DM, Jayanth S.* Subungual exostosis of the thumb. *Dermatol Online J* 2004;10:15.
11. *Tuzuner T, Kavak A, Parlak AH, Ustundag N.* Subungual osteochondroma. *JAPMA* 2006;96 (2):154–7.
12. *Storlazzi CT, Wozniak A, Panagopoulos I i sur.* Rearrangement of the COL12A1 and COL4A5 genes in subungual exostosis: Molecular cytogenetic delineation of the tumor-specific translocation t(X;6)(q13.14; q22). *Int J Cancer* 2006;118:1972–6.
13. *Olaoye I.* Subungual Squamous Cell Carcinoma: Report Of Two Cases. *The Internet Journal of Surgery.* 2013;30(4) <http://ispub.com/IJS/30/4/14518>.
14. *Lee J, Kim SE, Park K, Son SJ.* Subungual osteochondroma presenting as verruca vulgaris in a 6-year-old boy. *Pediatr Dermatol* 2007;24(5):584–5.
15. *Mohammad A, Kilcoyne A, Blake S, Phelan M.* Second toe swelling: Nora's lesion or glomus tumour, case report and literature review. *Ir J Med Sci* 2012;181(3):357–60.
16. *Tang CYI, Tipoe T, Fung B.* Where is the Lesion? Glomus Tumours of the Hand. *Arch Plast Surg* 2013;40(5):492–5.
17. *Endo M, Hasegawa T, Tashiro T i sur.* Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation with at (1;17) translocation. *Virchows Arch* 2005;447(1):99–102.
18. *Tuzuner T, Kavak A, Parlak AH, Ustundag N.* Subungual osteochondroma: a diagnostic dilemma. *J Am Podiatr Med Assoc* 2006;96(2):154–7.
19. *Nowillo SK, Simpson RL.* Subungual Exostosis of the Finger with Nail Plate Induction. *HAND* 2010;5:203–5.
20. *Yip KM, Lam SL, Shee BW, Shun CT, Yang RS.* Subungual squamous cell carcinoma: report of 2 cases. *J Formos Med Assoc* 2000;99(8):646–9.
21. *Piraccini BM, Bellavista S, Misciali C, Tosti A, de Berker D, Richert B.* Periungual and subungual pyogenic granuloma. *Br J Dermatol* 2010;163(5):941–53.
22. *Hassanein A, Telang G, Benedetto E, Spielvogel R.* Subungual myxoid pleomorphic fibroma. *Am J Dermatopathol* 1998;20(5):502–5.
23. *Baek HJ, Lee SJ, Cho KH i sur.* Subungual tumors: clinicopathologic correlation with US and MR imaging findings. *Radiographics* 2010;30(6):1621–36.
24. *Higuchi K, Oiso N, Yoshida M, Kawada A.* Preoperative assessment using magnetic resonance imaging for subungual exostosis beneath the proximal region of the nail plate. *Case Rep Dermatol* 2011;3(2):155–7.
25. *Lee SK, Jung MS, Lee YH, Gong HS, Kim JK, Baek GH.* Two distinctive subungual pathologies: subungual exostosis and subungual osteochondroma. *Foot Ankle Int* 2007;28(5):595–601.
26. *Starnes A, Crosby K, Rowe DJ, Bordeaux JS.* Subungual exostosis: a simple surgical technique. *Dermatol Surg* 2012;38:258–60.
27. *Letts M, Davidson D, Nizalik E.* Subungual exostosis: Diagnosis and treatment in children. *J Trauma* 1998;44:346–9.
28. *James A, Henderson S.* Multiple recurrences of subungual exostosis in a child: a unique presentation of a Nora's lesion. *Foot Ankle Int* 2013;34(3):445–7.
29. *De Berker DA, Baran R.* Disorders of nails. Subungual exostosis. U: Burns T, Breathnach S, Cox N, Griffiths C, ur. Rook's Textbook of Dermatology. 8. izd. vol 4. Chichester: A John Wiley and Sons, Ltd. Publication; 2010, pp. 6533–4.