

Sinovite vilonodular pigmentada da articulação temporomandibular: uma revisão integrativa

Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: an integrative review

Sinovitis vilonodular pigmentada de la articulación temporomandibular: una revisión integradora

RESUMO

Objetivo: Avaliar os casos nos quais os pacientes apresentassem SVNP na ATM, incluindo aspectos clínicos, imaginológicos, histopatológicos e tratamento. **Metodologia:** Trata-se de uma revisão integrativa com dados obtidos nas bases de dados SciELO, PubMed, Medline e Lillacs entre 1982 e 2021, através dos descritores: “Case report”, “Temporomandibular Joint”, “Pigmented Villonodular Synovitis”. Critérios de inclusão: estudos de relato de caso, textos completos disponíveis, idiomas de publicação em inglês, português ou espanhol. Critérios de exclusão: estudos sem presença de aspectos clínicos, relatos não localizados na ATM, artigos de metanálise, revisão sistemática e de literatura, ensaios clínicos, capítulos de livro, dissertações e teses. Dos 156 resultados, apenas 23 compuseram a revisão. **Resultados:** Como tratamento, a ressecção total através da cirurgia aberta é recomendada. Os sintomas mais comuns foram: dor na mastigação, trismo, dor pré-auricular, dormência, parestesia, perda auditiva e inchaço da glândula parótida. **Conclusão:** Os aspectos imaginológicos revelam erosão de fossa glenóide e côndilo, histopatologicamente, células gigantes com depósito de hemossiderina, e o tratamento recomendado, ressecção via cirurgia aberta com posterior curetagem. **Palavras-chaves:** Sinovite Vilonodular Pigmentada; Articulação Temporomandibular; Células Gigantes.

Lyvson Matheus Veloso de Medeiros

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7468-6629>

Graduando do Curso de Odontologia da Universidade do Estado do Rio Grande do Norte (UERN), Campus Avançado de Caicó, Brasil
E-mail: lyvson22@outlook.com

Nilton Freitas Medrado Filho

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1090-4727>

Graduando do Curso de Odontologia da Universidade do Estado do Rio Grande do Norte (UERN), Campus Avançado de Caicó, Brasil
E-mail: niltonfreitasfilho@hotmail.com

Fabianna da Conceição

Dantas de Medeiros

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-0169-4898>

Doutora em Odontologia, Professora Efetiva do Curso de Odontologia da Universidade do Estado do Rio Grande do Norte (UERN), Campus Avançado de Caicó, Brasil
E-mail: fabiannaconceicao@uern.br

ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA:

Lyvson Matheus Veloso de Medeiros
Av. Rio Branco, 725 – Centro
59300-000, Caicó – RN, Brasil
E-mail: lyvson22@outlook.com

ABSTRACT

Objective: To evaluate the cases in which patients presented PVNS in the TMJ, including clinical, imaging, histopathological and treatment aspects. **Methodology:** This is an integrative review with data obtained from the SciELO, PubMed, Medline and Lillacs databases between 1982 and 2021, using the descriptors: “Case report”, “Temporomandibular Joint”, “Pigmented Villonodular Synovitis”. Inclusion criteria: case report studies, full texts available, languages of publication in English, Portuguese or Spanish. Exclusion criteria: studies without the presence of clinical aspects, reports not located in the TMJ, meta-analysis articles, systematic and literature reviews, clinical trials, book chapters, dissertations and theses. Of the 156 results, only 23 made up the review. **Results:** As a treatment, total resection through open surgery is recommended. The most common symptoms were: chewing pain, trismus, pre-auricular pain, numbness, paresthesia, hearing loss and parotid gland swelling. **Conclusion:** The imaging findings reveal erosion of the glenoid fossa and condyle, histopathologically, giant cells with hemosiderin deposits, and the recommended treatment, resection via open surgery with subsequent curettage. **Key-words:** Pigmented Villonodular Synovitis; Temporomandibular Joint; Giant Cells.

RESUMEN

Objetivo: Evaluar los casos en que los pacientes presentaron SVNP en la ATM, incluyendo aspectos clínicos, imagenológicos, histopatológicos y tratamiento. **Metodología:** Se trata de una revisión integradora con datos obtenidos de las bases de datos SciELO, PubMed, Medline y Lillacs entre 1982 y 2021, utilizando los descriptores: “Caso clínico”, “Articulación temporomandibular”, “Sinovitis villonodular pigmentada”. Criterios de inclusión: estudios de casos clínicos, textos completos disponibles, idiomas de publicación en inglés, portugués o español. Criterios de exclusión: estudios sin aspectos clínicos, informes no localizados en la ATM, artículos de metanálisis, revisiones sistemáticas y de literatura, ensayos clínicos, capítulos de libros, disertaciones y tesis. De los 156 resultados, 23 conformaron la revisión. **Resultados:** Como tratamiento se recomienda la resección total mediante cirugía abierta. Los síntomas más frecuentes fueron: dolor masticatorio, trismus, dolor preauricular, entumecimiento, parestesia, hipoacusia e inflamación de glándula parótida. **Conclusión:** Los hallazgos imagenológicos revelan erosión de fosa glenoidea y cóndilo, histopatológicamente células gigantes con depósitos de hemosiderina y el tratamiento recomendado, resección abierta con posterior curetaje. **Palabras clave:** Sinovitis villonodular pigmentada; Articulación temporomandibular; Células Gigantes.

INTRODUÇÃO

O tumor de células gigantes tenossinovial (TGCT) é um tumor benigno, porém localmente agressivo, que surge da membrana sinovial das articulações, bainha dos tendões e bursas. É considerado um tumor fibrohistiocítico pela classificação da Organização Mundial de Saúde (OMS) para tumores ósseos e tecidos moles.¹

Em termos gerais, o TGCT é classificado de acordo com o padrão de crescimento, incluindo as formas localizada e difusa. A forma localizada é mais prevalente, afetando frequentemente as pequenas articulações, mãos e pés. Em contrapartida, a forma difusa, também denominada sinovite vilonodular pigmentada (SVNP), é menos comum, geralmente afetando joelho, quadril ou ombro e raramente se apresenta na articulação temporomandibular (ATM).¹ A Articulação Temporomandibular (ATM) é um elemento do sistema estomatognático e dela dependem as funções como mastigação, deglutição e fonação. Sua estabilidade, saúde e função contribui

para o equilíbrio das funções de todo o corpo, inclusive na postura corporal.²

O primeiro caso documentado de SVNP foi em 1852, quando as lesões da bainha do tendão flexor do dedo foram relatadas por Chassaignac e em 1941 quando Jaffe estabeleceu a patologia do SVNP.³ A nomenclatura atualmente utilizada é a descrita por Granowitz, na qual o termo “sinovite vilonodular pigmentada” é utilizada para achados intra-articulares; “bursite vilonodular pigmentada” para lesões localizadas nas bursas; e “tenossinovite vilonodular pigmentada” para as lesões originadas das bainhas tendinosas.⁴

A SVNP quando acometida na ATM é considerada uma doença muito rara que tem uma incidência de 1,8 casos por milhão de pessoas. A doença se trata de um distúrbio benigno, localmente agressivo e proliferativo da sinóvia que frequentemente mostra osteoinvasão. A apresentação típica envolve cefaleia, deficiência auditiva, massa expansiva e sintomas da ATM, como trismo e estalidos.⁵ A maioria dos casos é monoarticular e sua etiologia permanece indefinida, porém as possíveis etiologias incluem: distúrbios do metabolismo lipídico, neoplasias, inflamação, trauma e hemorragia.⁶

Baseado nos poucos casos de SVNP na ATM apresentados, relacionados à sua etiologia indefinida e seu comportamento incomum, surgem os seguintes questionamentos: por que a doença acomete apenas alguns poucos indivíduos? Quais os requisitos que o indivíduo precisa para apresentar essa condição? Como saber se o indivíduo a apresenta e como trata-la? Com isso, o presente estudo teve como objetivo avaliar os casos de SVNP na ATM presentes na literatura, bem como seus aspectos clínicos, imaginológicos, histopatológicos e o tratamento desta condição.

METODOLOGIA

Esse artigo trata-se de uma revisão integrativa da literatura, com a finalidade de expor e debater casos de uma condição rara e, por isso, pouco descrita na literatura. A revisão integrativa é uma metodologia que proporciona a síntese do conhecimento e a incorporação da aplicabilidade de resultados de estudos significativos na prática.⁷

Para a realização da pesquisa, foi realizado um levantamento bibliográfico para a seleção dos estudos nas seguintes bases de dados: SciELO, Medline via BVS (Biblioteca Virtual de Saúde), LILACS via BVS e PubMed, onde chegou-se a um total de 23

artigos selecionados por meio dos descritores: “Case report”, “Temporomandibular Joint” e “Pigmented Villonodular Synovitis”, sendo estes retirados do DeCS (Descritores em Ciências da Saúde) e MeSH (Medical Subject Heading). Foram utilizados os operadores booleanos “AND” e “OR” para fazer as combinações entre os termos selecionados (Tabela I). O levantamento bibliográfico foi realizado no mês de dezembro de 2021.

Tabela 1 - Combinações de termos com operadores booleanos utilizados nas bases selecionadas (Autoria própria, 2022).

Base de Dados	Estratégia de Busca Utilizada
SciELO	“Case report” AND “Temporomandibular Joint” AND “Pigmented Villonodular Synovitis”
MEDLINE via BVS	“Temporomandibular Joint” OR “Articulação Temporomandibular” AND “Pigmented Villonodular Synovitis” OR “Sinovite Pigmentada Vilonodular”
LILACS via BVS	“Temporomandibular Joint” OR “Articulação Temporomandibular” AND “Pigmented Villonodular Synovitis” OR “Sinovite Pigmentada Vilonodular”
PubMed	“Case report” AND “Temporomandibular Joint” AND “Pigmented Villonodular Synovitis”

Foram considerados os seguintes critérios de inclusão: a) estudos do tipo relato de caso; b) textos completos; c) idiomas de publicação o inglês, português ou espanhol; Os critérios de exclusão foram estudos do tipo relatos de caso que não apresentavam os aspectos clínicos, radiológicos, histopatológicos e tratamento, relatos que não fossem descritos na ATM, estudos que apresentassem mais de 1 caso, artigos de metanálise, revisão sistemática, revisão da literatura, ensaios clínicos, capítulos de livro, dissertações, teses, resumo de anais ou quaisquer outros estudos que não possuíssem relação com a área em vigor.

Ao final, foram selecionados 23 artigos nas referidas bases de dados, os quais foram enviados para um gerenciador de referências e software de processamento (Mendeley® Desktop, Elsevier) para uma melhor coleta das informações. Os dados foram organizados em planilhas Excel (Microsoft®, USA).

RESULTADOS

Dos 156 artigos obtidos no registro inicial nas bases de dados, 63 foram removidos devido ao fato de serem trabalhos duplicados. Posteriormente, a seleção ocorreu por meio da leitura do título de cada artigo, obtendo-se 93 estudos e excluindo-se 17 textos que não estavam de acordo com os critérios pré-estabelecidos. Em

seguida, pelos mesmos critérios, realizou-se a próxima etapa da seleção, na qual os resumos de 76 artigos foram lidos e 26 excluídos. Por fim, 50 estudos foram lidos de maneira integral, sendo 27 considerados inelegíveis e a composição da amostra final do presente trabalho em 23 resultados. Os anos de publicação dos 23 relatos de caso estão representados na Figura I e as etapas de seleção dos estudos, bem como o número e a justificativa dos artigos excluídos estão na Figura II, seguindo a metodologia Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses PRISMA.8

Em relação aos principais aspectos metodológicos e resultados, estes podem ser observados na Tabela II.

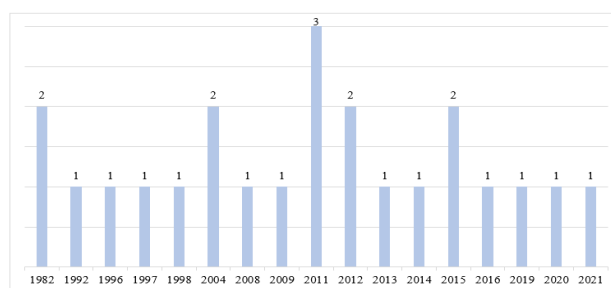


Figura 1 - Quantidade de publicações por ano no período de 1982 a 2021 dos 23 relatos de caso selecionados (Autoria própria, 2022).

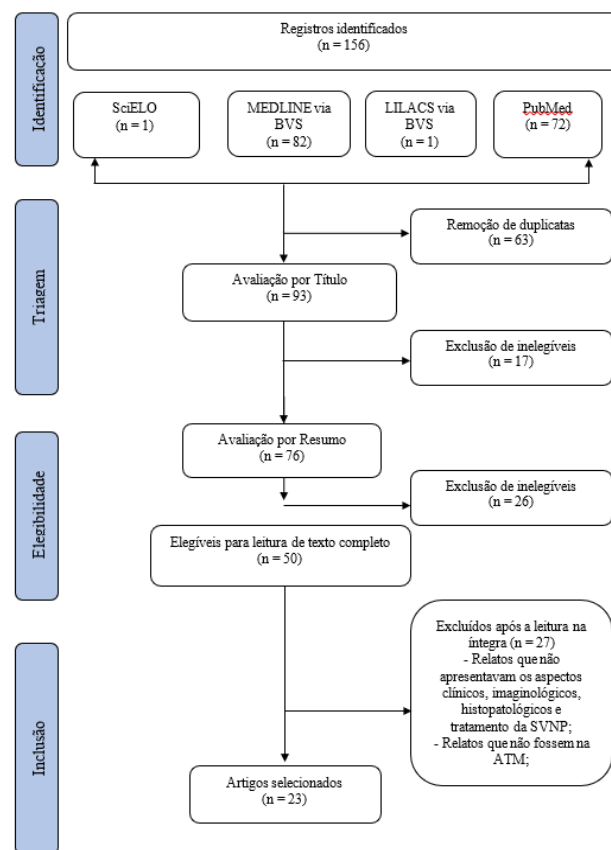


Figura 2 - Diagrama de fluxo PRISMA de estudos selecionados (Autoria Própria, 2022).

Tabela 2 - Síntese dos relatos de casos incluídos na revisão integrativa (Autoria Própria, 2022).

Autores/Ano	Idade (anos)	Gênero	Localização Clínica	Características Clínicas	Características imaginológicas	Características histopatológicas	Tratamento	Complicações
Yang et al, 20193	59	F	Massa heterogênea de tecido mole na ATM direita	Zumbido no ouvido direito com perda auditiva	Os ossos ao redor das meninges adjacentes ao local estavam comprimidos e deslocados	Polimorfismo de nucleotídeo único contendo células gigantes multinucleadas	Ressecção intracraniana da fossa craniana média e radioterapia	Náusea grau 1/2, perda de apetite e alopecia devido à radioterapia
Damodar, Chan, Kokot, 20155	51	M	Massa facial de crescimento lento no lado esquerdo da face	Dor na mastigação e dores ocasionais na cabeça	Erosão sutil da face lateral do côndilo, além da calcificação heterotópica ântero-lateral do mesmo	Células gigantes multinucleadas espalhadas e aglomeradas de forma irregular e células histiocitoides mononucleadas dispersas individualmente, algumas contendo pigmentos de hemossiderina	Excisão completa da ATM, de uma porção da raiz zigomática e da base do crânio da fossa craniana média com retalho do músculo temporal para reconstrução	Leve fraqueza temporária no ramo temporal do nervo facial
Chen et al, 20156	47	F	Sem edema ou massa na região pré-auricular esquerda	Dor com aumento progressivo na ATM e abertura oral limitada	Fossa da ATM e base do crânio afinadas e perfuradas	Histiócitos redondos com células gigantes multinucleadas intercaladas e distribuídas de forma variável, com a massa fortemente pigmentada com hemossiderina	Excisão cirúrgica da lesão por via pré-auricular	Sem complicações
Wong et al, 20128	51	F	Edema na área pré-auricular esquerdo	Otite externa esquerda, dor no pescoço e sensibilidade na ATM esquerda, músculo temporal e processo coronóide	Côndilo esquerdo achatado e junto com a fossa glenóide, esclerótico, mas com erosões císticas arredondadas	Sinóvia hiperplásica com áreas de fibrose e proliferação subsinovial de células mononucleadas brandas com núcleos ovais e hemossiderina focal, além de células gigantes multinucleadas raras	Ressecção da ATM esquerda com abordagem pré-auricular estendida	Aumento temporário da dor e inchaço na ATM com a abertura máxima da boca
Seneldir et al, 202112	44	F	Inchiação gradual na ATM direita	Dormência no lado direito da face, acompanhada de fortes dores de cabeça	Massa encapsulada com contorno regular centrado ao lado direito do topo da ATM	Células gigantes mononucleadas e multinucleadas semelhantes a osteoclastos, além de eritrócitos extravasados e pigmentos de hemossiderina	Remoção cirúrgica com incisão horizontal na massa localizada na região temporal sobre a glândula parótida direita	Sem complicações
Gianakopoulos, Chou, Quinn, 201315	48	M	Massa sobreposta à ATM direita	Dor progressiva e mínima massa pré-auricular	Artropatia da ATM com sinovite proeminente e um pequeno derame. A sinóvia espessada demonstrou hipointensidade ponderada (T1, T2)	Células mononucleares com deposição de hemossiderina, células gigantes e focos de metaplasia óssea	Excisão da lesão via parotidectomia modificada com preservação do nervo facial	Leve fraqueza temporária no ramo temporal do nervo facial

Vassali et al, 202017	42	M	Massa expansiva quase incluindo o canal auditivo esquerdo	Perda auditiva subjetiva e ruído ao comer	Extensa remodelação do osso temporal e da fossa craniana média	Pigmentos de hemossiderina e células gigantes tenossinoviais	Ressecção total macroscópica do tumor por abordagem combinada da fossa infratemporal transcanal e pré-auricular	Sem complicações
Vellutini et al, 201618	37	F	Edema mandibular na ATM esquerda	Cefaleia na região da ATM e do músculo temporal, além de tonuras e dor na mastigação	Ressonância mostrou destruição do côndilo esquerdo e da fossa glenóide	Neoplasia mesenquimal com várias células gigantes e multinucleadas com núcleos regulares e focos de hemorragia	Ressecção de margem livre com craniotomia pterional esquerda para atingir a base temporal do crânio e ressecar o tumor	Dor leve na ATM, com parestesia facial e hipes-tosia. Todos temporários
Kim et al, 201419	38	M	Edema indolor na área pré-auricular direita	Abertura bucal limitada e leve desvio mandibular para a direita	Erosão osteolítica e óssea lobulada no côndilo mandibular direito	Células fusiformes e redondas, agrupadas e dispersas contendo pigmentos de hemossiderina e várias células gigantes multinucleadas dispersas	Excisão da massa por incisão pré-auricular com extensão temporal e reconstrução do côndilo	Recorrência da SVNP e cirurgia secundária
Aimoni et al, 201220	80	M	Massa sobreposta à ATM esquerda	Dor de ouvido, cefaleia e perda auditiva progressiva	Presença de tecido inflamatório da ATM esquerda que se estendeu até a rinofaringe	Hipertrofia por proliferação de células semelhantes a histiócitos sinoviais, além de conjuntos de polinucleares e pigmentos de hemossiderina	Artroscopia aberta da ATM esquerda para a remoção dos tecidos flogísticos	Sem complicações
Cai, Cai, Gao, 201121	59	F	Massa pré-auricular esquerda	Dor na região e abertura mandibular limitada	Destrução do côndilo, base temporal do crânio, o arco da raiz do zigoma, e a parede anterior do meato acústico externo	Células histiocíticas mononucleadas, células gigantes multinucleadas, células espumosas, depósito de hemossiderina e infiltração de células histiocíticas nas camadas sinoviais	Excisão completa da massa por via temporo-frontal, com realização de condilectomia e craniectomia temporal para a ressecção completa da massa	Sem complicações
Yoon et al, 201122	29	M	Inchaço pré-auricular direito	Dor na região descrita	Destrução de fossa glenóide e eminência articular, além do osso temporal	Crescimento infiltrativo de lâminas e lóbulos difusos de células tumorais, deposição de hemossiderina, células histiocíticas pequenas, ovas e fusiformes e células arredondadas maiores	Remoção da massa extra e intracraniana, mas com sobre de um infiltrado dural	Sem complicações
Romañach et al, 201123	26	M	Edema difuso pré-auricular esquerdo	Restrição na abertura oral e perda progressiva auditiva esquerda	Extensa destruição do côndilo esquerdo, infratemporal e infiltração da dura-máter	Ninhos, tecido fibroso, de células grandes e pequenas mononucleares epitelioides que se infiltraram na cortical óssea do côndilo, além de células grandes multinucleadas e de grânulos de hemossiderina	Remoção cirúrgica por via pré-auricular e radioterapia	Paralisia temporária do nervo facial

Herman et al, 200924	36	M	Edema pré-auricular esquerdo	Restrição na abertura oral, dor na região descrita	Destruição da fossa craniana média e infratemporal, além da erosão do arco zigomático	Células ovóides e fusiformes com células gigantes intercaladas, além de áreas com pigmentos de hemossiderina	Incisão por abordagem hemiconoral, com incisão coronal e extensão pré-auricular esquerda	Sem complicações
Day, Yoo, Muckle, 200825	38	M	Massa progressiva na área do processo zigomático esquerdo	Dor na área descrita e desconforto na mastigação	Erosão do osso temporal, além da destruição e remodelação da escama temporal e assoalho da fossa média	Histiócitos e restos celulares	Ressecção da massa com abordagem frontotemporal combinada com infratemporal. O defeito ósseo sobre a escama temporal foi reconstruído com tela de titânio e o osso anormal, removido	Perda auditiva condutiva leve e temporária
Tosun, Carrau, Weissman, 200426	60	M	Massa sobre a região zigomática esquerda	Otite média crônica na região, associada a dormência e parestesia sobre os ramos do V2 e V3	Destruição do ramo superior esquerdo da mandíbula e fossas glenóide e craniana média, além de erosão do forame oval, canal carotídeo petroso e meato acústico externo	Sinoviócitos com pigmentação hiperplásica, além de histiócitos pigmentados e células gigantes multinucleadas	Remoção através de uma craniotomia temporal, com dissecação da lesão através da dura-máter, iniciando com abordagem da fossa infratemporal pré-auricular	Sem complicações
Aoyama et al, 200427	33	M	Inchaço gradual e indolor na área pré-auricular direita	Clique intermitente ao abrir a boca e restrição na abertura oral	Destruição da fossa mandibular e alargamento do côndilo	Células gigantes multinucleadas, células espumosas e histiócitos redondos ou fusiformes com hialinização focal, além da presença da hemossiderina	Remoção cirúrgica da massa através de uma incisão pré-auricular cervical direita	Paralisia temporária do nervo facial
Omura et al, 199828	18	M	Inchaço difuso e sensível na área pré-auricular esquerda	Dor progressiva na ATM esquerda e abertura mandibular restrita	Reabsorção do côndilo esquerdo e um aprofundamento da fossa mandibular	Células gigantes mononucleadas e multinucleadas, células fusiformes e macrófagos carregados de hemossiderina	Remoção da massa de tecido mole através de uma incisão pré-auricular, com curetagem do côndilo e da fossa mandibular	Sem complicações
Tanaka et al, 199729	47	M	Inchaço na área pré-auricular direita	Dor progressiva na ATM direita durante a mastigação e dificuldade progressiva na abertura oral	Destruição do côndilo direito	Células gigantes multinucleadas e pequenas, arredondadas ou fusiformes, além de depósitos de hemossiderina	Excisão da massa através da incisão temporocervical direita combinada com abordagem na fossa infratemporal e ressecção da fossa mandibular e realização da condilectomia	Paralisia temporária do nervo facial

Youssef, Roszkowski, Richter, 199630	41	F	Inchaço gradual na ATM esquerda	Dor na ATM, sendo mais intensa na mastigação	Lesão pré-auricular de 2 cm contínua com a ATM esquerda da cápsula erodindo no aspecto anterior do canal auditivo	Células redondas e fusiformes juntas com células gigantes além de abundância de hemossiderinas	Remoção cirúrgica através de uma parotidectomia, com abertura da cápsula da ATM esquerda	Sem complicações
Eisig et al, 199231	50	F	Massa no conduto auditivo direito	Perda auditiva do lado direito	Destrução da fossa mandibular e extensão para as fossas craniana média e infratemporal	Histiócitos, células gigantes multinucleadas e hemossiderina	Excisão da massa através de uma abordagem na região temporocerical, com realização de uma craniotomia	Em 1 ano, o paciente apresentou evidências de recorrência
Gallia, Johnson, Myers, 198232	47	F	Edema pré-auricular esquerdo	Abertura oral limitada, dor progressiva na mastigação, otalgia e perda auditiva subjetiva	A cabeça condilar apresentava a superfície articular irregular	Macrófagos carregados de hemossiderina e proliferação de células gigantes na cartilagem	Excisão da massa através de uma parotidectomia pré-auricular com extensão superior em direção ao couro cabeludo da região temporal, além de uma curetagem na região	Sem complicações
Rickert, Shapiro, 198233	39	F	Inchaço da parótida do lado esquerdo	Assintomática	Radiografias da mandíbula no pré-operatório foram relatados como normais	Células gigantes dispersas, numerosas células epitelióides e fusiformes, com abundante hemossiderina	Excisão do tumor da ATM através de uma lobectomia da parótida	Paralisia facial completa, dor e movimento restrito da mandíbula. Todos temporários

RESULTADOS

Dos 156 artigos obtidos no registro inicial nas bases de dados, 63 foram removidos devido ao fato de serem trabalhos duplicados. Posteriormente, a seleção ocorreu por meio da leitura do título de cada artigo, obtendo-se 93 estudos e excluindo-se 17 textos que não estavam de acordo com os critérios pré-estabelecidos. Em seguida, pelos mesmos critérios, realizou-se a próxima etapa da seleção, na qual os resumos de 76 artigos foram lidos e 26 excluídos. Por fim, 50 estudos foram lidos de maneira integral, sendo 27 considerados inelegíveis e a composição da amostra final do presente trabalho em 23 resultados. Os anos de publicação dos 23 relatos de caso estão representados na Figura I e as etapas de seleção dos estudos, bem como o número e a justificativa dos artigos excluídos estão na Figura II, seguindo a metodologia Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses PRISMA.⁸

Em relação aos principais aspectos metodológicos e resultados, estes podem ser observados na Tabela II.

DISCUSSÃO

A Sinovite Vilonodular Pigmentada é a forma difusa (intra-articular) do TGCT. Se trata de um tumor benigno raro da sinóvia e localmente agressivo, com características de distúrbio inflamatório e neoplasia, que afeta apenas articulações sinoviais, predominantemente junções monoarticulares. Contudo, um tipo maligno de existência questionável foi relatado através de 8 casos na ATM. Os casos apresentaram características histopatológicas com padrão infiltrativo nodular sólido com bordas indistintas e necrose, além de células ovais com citoplasma eosinofílico e núcleos hipertróficos. Um dos pacientes teve múltiplas recorrências que foram eventualmente inoperáveis e morreu de metástases pulmonares apesar da radioterapia.⁹

A taxa de ocorrência dessa lesão é de 1,8 caso por milhão de pessoas, por ano, sendo que a predominância é da sua forma difusa, onde apenas 25% dos casos referentes à sua forma localizada.¹⁰ O caso é ainda mais raro quando se

trata da lesão localizada na ATM, existindo apenas 116 casos descritos na literatura.¹¹

Segundo Stryjowska et al., (2005)¹², a lesão afeta mais comumente pacientes adultos com idade entre 30 a 50 anos, confirmando o resultado do presente estudo, que mostra que, entre os 23 casos: 14 apresentam essas características, 3 apresentam pacientes com idade inferior, e 6 apresentam pacientes com idade superior a essa.

Já em relação à predileção por sexo, segundo De Carvalho Godoy et al., (2011)⁴, há uma leve predileção a pessoas do sexo feminino, o que vai em desacordo com o presente estudo, no qual 13 dos 23 casos relataram pacientes do sexo masculino. Ainda em relação ao mesmo tópico, Stryjowska et al., (2005)¹², afirmaram não haver nenhuma predileção por sexo, ideia essa que vai de acordo com a maioria dos autores.

Entre os sintomas da Sinovite Vilonodular Pigmentada na ATM, o presente estudo identificou os seguintes: dor na mastigação, trismo, ruídos ao comer, dor pré-auricular, edema, dormência, parestesia, perda auditiva, cefaleia e inchaço na área da glândula parótida, todas atingindo o lado da face afetada.

Devido à sua localização e características clínicas, a SVNP pode mimetizar um tumor de parótida, apresentando predominância na erosão e destruição de algumas estruturas, como na cabeça do côndilo, fossa glenóide, eminência articular e, em casos extremos, a fossa infratemporal e partes do osso temporal.

Atualmente a ressecção cirúrgica é o tratamento preferido para a SVNP, mas com o avanço das técnicas cirúrgicas, a ressecção artroscópica tem alcançado bons resultados nas massas intra-articulares. Além disso, a radioterapia isolada ou como terapia adjuvante após a sinovectomia tem sido estudada. Um estudo aponta que devido à possível toxicidade da radioterapia, esta não é recomendada de forma adjuvante pós-operatória.³

De acordo com os resultados obtidos no presente estudo, não há complicações severas no pós-operatório, apenas parestesia facial temporária, mas também pode ser que haja algumas situações, como a não recuperação da capacidade auditiva completa. Alguns pacientes também demonstram sintomas de recorrência da SVNP, necessitando de uma cirurgia secundária. Quanto aos benefícios pós cirúrgicos, todos os casos do estudo relataram aumento do grau de abertura bucal, e os que apresentavam sintomas de cefaleia, parestesia, zumbidos e dormência,

relataram uma melhora considerável.

Embora existam alguns casos relatando o uso de radioterapia pós-operatória para a SVNP, os dados disponíveis ainda são bastante limitados em relação ao seu uso na SVNP localizada na ATM.¹³ Segundo Joshi et al., (2015)¹⁴, a radioterapia após a cirurgia (30–50 Gy) tem resultados bastante positivos para o controle local de tumores extensos, mas o efeito não é claro quando se trata da SVNP na ATM.

A etiologia ainda é desconhecida, sendo tema de diversas discussões. Jaffe, Lichtenstein, Sutro (1941)¹⁵, sugeriram que a condição resulta de uma resposta inflamatória a um culpado desconhecido. Vários outros autores propuseram diversas etiologias, como a proliferação neoplásica crônica, um trauma repetitivo, um distúrbio localizado no metabolismo lipídico, inflamações, hemorragias e disfunção da regulação imunológica, mas nenhum apresenta certeza.¹⁶

A histopatologia revelada no estudo apresenta predominância de células mononucleadas intercaladas com células mononucleadas gigantes, heritrócitos extravasados, depósitos de hemossiderina, histiócitos, células fusiformes e redondas.

O presente estudo teve como principal limitação a escassez de informações e materiais na literatura, tendo em vista a natureza rara da condição-foco. Desta forma, fica evidente a necessidade de ampliação de pesquisas sobre a condição, objetivando a disseminação das informações e inovações, evitando o negligenciamento por se tratar de uma situação incomum.

CONCLUSÃO

Os exames imaginológicos normalmente retratam fossa glenóide e côndilo desgastado, pois o diagnóstico geralmente é tardio. Histopatologicamente, a SVNP apresenta células gigantes intercaladas com depósito de hemossiderina. Os sintomas clínicos apresentam-se comumente como edema pré-auricular, parestesia e trismo. Apesar da biópsia por agulha fina conseguir chegar a um diagnóstico, a ressecção por cirurgia aberta com posterior curetagem é a forma mais eficaz de diagnóstico e tratamento, atualmente. Contudo, vale ressaltar que as informações acerca da lesão ainda são obscuras, fazendo-se necessário a realização de mais estudos para se obter formas satisfatórias de tratamento.

REFERÊNCIAS

1. Hu Y, Kuang B, Chen Y, Shu J. Imaging features for diffuse-type tenosynovial giant cell tumor of the temporomandibular joint: A case report. *Medicine (United States)*. 2017; 96(26):4-7.
2. Souza A, Moreira L, Rela M, Canuto M. Relationship of vestibular changes in individuals with temporomandibular dysfunction: a pilot study. *Revista Odontológica de Araçatuba*. 2021; 42 (1): 49-53.
3. Yang X, Sun Y, Yu W, Fu J. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: Case report and the literature review for postoperative radiotherapy. *Journal of Radiology Case Reports*. 2019;13(8):31-9.
4. Andrea de Carvalho Godoy F, Alberto Cury Faustino C, Santos Meneses C, Tadao Nishi S, Eduardo Giancoli Góes C, Leite do Canto A. Sinovite vilonodular pigmentada localizada: relato de caso. *Revista Brasileira de Ortopedia*. 2011; 46(4): 468-81.
5. Damodar D, Chan N, Kokot N. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: Case report and review of the literature. *Head and Neck*. 2015; 36(10).
6. Chen Y, Cai XY, Yang C, Chen MJ, Qiu YT, Zhuo Z. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint with intracranial extension. *Journal of Craniofacial Surgery*. 2015; 26(2): 115-118.
7. Tavares De Souza, M., Dias Da Silva, M., & de Carvalho, R. Revisão integrativa: o que é e como fazer. *Einstein*. 2021; 9(1):102-06.
8. Moher, D., Liberati, A., Tetzlaff, J., Altman, D. G., & PRISMA Group (2009). Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses: the PRISMA statement. *PLoS medicine*. 6(7).
9. Wong JJS, Phal PM, Wiesenfeld D. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: A radiologic diagnosis and case report. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*. 2012; 70(1): 126-34.
10. Silva RR, Almeida MA, Passos AS, Laytinher MFA, Paixão FLB, Sant'ana FR, et al. Localized pigmented villonodular synovitis simulating meniscal injury: case report. *Rev Bras Ortop*. 2004; 39(9): 536-42.
11. Anbinder AL, Geraldo BMC, Guimarães Filho R, Pereira DL, de Almeida OP, Carvalho YR. Chondroid tenosynovial giant cell tumor of the temporomandibular joint: A rare case report. *Brazilian Dental Journal*. 2017;28(5): 647-52.
12. Stryjawska KK, Martel M, Sasaki CT. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: Differential diagnosis of the parotid mass. *Auris Nasus Larynx*. 2005; 32(3): 309-14.
13. Seneldir L, Celep S, Yildiz S, Verim A, Zer Toros S, Ozcan Z. A severe headache due to pigmented villonodular synovitis in a rare location: facial nerve on temporomandibular joint. A case report. *The Journal of Craniomandibular & Sleep Practice*. 2021; 1(1): 1-4.
14. Joshi K, Huang B, Scanga L, Buchman C, Chera BS. Postoperative radiotherapy for diffuse pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint. *American Journal of Otolaryngology. Head and Neck Medicine and Surgery*. 2015; 36(1): 106-13.
15. Jaffe HL, Lichtenstein L, Sutro CJ. Pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis. A discussion of synovial and bursal equivalents of the tenosynovial lesion commonly denoted as xanthoma, xanthogranuloma, giant cell tumor or myeloplaxoma of the tendon sheath, with some consideration of this tendon sheath lesion itself. *Arch Pathol*. 1941;31(1):731-65.
16. Giannakopoulos H, Chou JC, Quinn PD. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint. *Ear, Nose and Throat Journal*. 2013; 92(7):10-13.
17. Vassalli G, Vassalli L, Black M, Lim JH. Tenosynovial Giant Cell Tumor of Temporomandibular Joint and Skull Base Presenting as Ear Canal Mass. *Ear, Nose and Throat Journal*. 2020;99(3): 190-191.
18. Vellutini E, Alonso N, Arap S, Godoy L, Souza e Souza R, Mattedi R, et al. Functional

- Reconstruction of Temporomandibular Joint after Resection of Pigmented Villonodular Synovitis with Extension to Infratemporal Fossa and Skull Base: A Case Report. *The Surgery Journal*. 2016; 02(03): 78–82.
19. Kim IK, Cho HY, Cho HW, Seo JH, Lee DH, Peng W. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint - computed tomography and magnetic resonance findings: a case report. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg*. 2014; 40(3):140.
 20. Aimoni C, Ciorba A, Cappiello L, Giuriato R, Denes SA, Galie M. Pigmented Villonodular Synovitis of the Temporomandibular Joint. *Journal of Craniofacial Surgery*. 2012; 23(2): 168–70.
 21. Cai J, Cai Z, Gao Y. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: Case report and the literature review for postoperative radiotherapy. *J. Oral Maxillofac. Surg*. 2011; 40(1):1314-22.
 22. Yoon HJ, Cho YA, Lee J il, Hong SP, Hong SD. Malignant pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint with lung metastasis: A case report and review of the literature. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology and Endodontology*. 2011;111(5): 30-36.
 23. Romañach MJ, Brasileiro BF, León JE, Alves DB, de Almeida OP, Vargas PA. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: Case report and review of the literature. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology and Endodontology*. 2011;111(3): 17-18.
 24. Herman CR, Swift JQ, Schiffman EL. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint with intracranial extension: a case and literature review. *International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*. 2009;38(7):795–801.
 25. Day JD, Yoo A, Muckle R. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: A rare tumor of the temporal skull base. *Journal of Neurosurgery*. 2008;109(1):140–3.
 26. Tosun F, Carrau RL, Weissman J. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: An extensive case with skull-base involvement. *American Journal of Otolaryngology*. 2004;25(3):204–7.
 27. Aoyama S, Iwaki H, Amagasa T, Kino K, Okada N, Kishimoto S. Pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint: Differential diagnosis and case report. *British Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*. 2004;42(1):51–4.
 28. Omura S, Mizuki N, Bukawa H, Fujita K. OMURA ET AL Diffkse Variant Tenosynovial Giant Cell Tumor of the Temporomandibular Joint: Report of a Case. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*. 1998; 56(8):991-96.
 29. Tanaka K, Suzuki M, Nameki H, Sugiyama H. Pigmented Villonodular Synovitis of the Temporomandibular Joint. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 1997; 123(1):536-39.
 30. Youssef R, Roszkowski M, Richter K. Pigmented Villonodular Synovitis of the Temporomandibular Joint. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*. 1996; 54:224–7.
 31. Eisig S, Dorfman HD, Cusamano R 9, Kantrowitz AB, Bronx NY. Pigmented Villonodular Synovitis of the Temporomandibular Joint. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology*. 1992; 73:328-33.
 32. Gallia LJ, Johnson JT, Myers EN. Pigmented villonodular synovitis of thetemporomandibular joint: a case report. *Otolaryngol Head Neck Surgery*. 1982; 90:691-95.
 33. Ricket R, Shapiro M. Pigmented villonodular synovlts of the temporomandibular joint. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 1982; 90:668-70.