

Table 1

Median Nerve Area (MNA) and Median Nerve Perimeter (MNP) comparison between the 3 phases of skin involvement among Systemic Sclerosis patients.

	Edematous (n=22)	Fibrotic (n=24)	Atrophic (n=2)	p value
Median MNA (mm ²)	9.25 [7.5 to 11.5]	7.25 [6.5 to 8.4]	7.25	<0.05
Median MNP (mm ²)	14.5 [13.5 to 16.9]	13.4 [12.4 to 13.9]	12.8	<0.05

was found between mRSS and both MNA (Spearman's rho=0.335, p=0.02) and MNP values (rho=0.336, p=0.02). There was no correlation between MN US parameters and age, disease duration, HAMIS or SScSS. MNA and MNP were also similar in relation to gender and subset of disease (p>0.05). However, median of MNA and MNP were significantly different between the 3 phases of skin involvement, being higher in patients in the edematous phase (Table 1).

Our study showed an increased MNA and MNP in SSc patients in comparison with controls while few data available from previous studies yielded mixed results^{3–5}. Contrarily to Bandinelli F et al³ who did not find any correlation between MN US measurements and SSc clinical features, we found some interesting correlations. In our study, patients in the edematous phase of skin involvement and patients with higher skin thickness assessed by mRSS showed higher MNA and MNP values. The presence of tissue edema and thick skin may contribute as mechanical factors for MN entrapment in the CT. Larger studies are needed to draw definite conclusions.

Bibliografía

1. Amaral TN, Peres FA, Lapa AT, Marques-Neto JF, Appenzeller S. Neurologic involvement in scleroderma: A systematic review. *Semin Arthritis Rheum.* 2013;43:335–47.
2. Morer IC, Marco JV, Aznar JLH, Lafita CA, Caballo RB, Juste AO. Manifestaciones neurológicas en la esclerosis sistémica. *Rev Clin Esp.* 2003;203:373–7.
3. Bandinelli F, Kaloudi O, Candelieri A, Conforti ML, Casale R, Cammarata S, et al. Early detection of median nerve syndrome at the carpal tunnel with high-resolution 18MHz ultrasonography in systemic sclerosis patients. *Clin Exp Rheumatol.* 2010;28:15–8.
4. Bignotti B, Ghio M, Panico N, Tagliafico G, Martinoli C, Tagliafico A. High-resolution ultrasound of peripheral nerves in systemic sclerosis: a pilot study of computer-aided quantitative assessment of nerve density. *Skeletal Radiol.* 2015;44:1761–7.
5. Tagliafico A, Panico N, Resmini E, Derchi LE, Ghio M, Martinoli C. The role of ultrasound imaging in the evaluation of peripheral nerve in systemic sclerosis (scleroderma). *Eur J Radiol.* 2011;77:377–82.

Joana Sousa-Neves*, Marcos Cerqueira, Carmo Afonso, Filipa Teixeira

Rheumatology Department, Conde de Bertandos Hospital, Ponte de Lima, Portugal

* Corresponding author.

E-mail address: joanasvsneves@gmail.com (J. Sousa-Neves).

<https://doi.org/10.1016/j.reuma.2017.07.019>

1699-258X/

© 2017 Elsevier España, S.L.U. and Sociedad Española de Reumatología y Colegio Mexicano de Reumatología. All rights reserved.

Edema y dermatomiositis. Edema migratorio y solapamiento de dermatomiositis edematosa y vesiculoampollosa



Edema and dermatomyositis. Migratory edema and edematous and vesiculobullous dermatomyositis overlap

Sr. Editor:

El edema extrafacial es una manifestación rara de la dermatomiositis (DM). A continuación se describen 2 casos.

Caso 1. Mujer de 86 años ingresada por disfagia, disnea, debilidad de las 4 extremidades (2/5) y edemas. Cuatro años antes había sido diagnosticada de neumonía organizada criptogénica mediante pruebas funcionales pulmonares, imagen e histología. Se observó que, además de edema periorbitario, presentaba edema con fovea en miembros superiores e inferiores. Destacaban unas placas con vesiculoampollas en antebrazos y eritematoedematosas en muslos (fig. 1). La biopsia del muslo mostró atrofia epidérmica, ampolla subepidérmica, queratinocitos necróticos, infiltrado perivascular superficial, mucina y edema dérmico. La inmunofluorescencia directa fue negativa, así como los anticuerpos anti-Jo-1, anti-PL7, anti-PL12, anti-SRP-54, anti-Mi2, anti-Ku y anti-PM/Scl. La CK fue de 1.267 U/L. El electromiograma demostró los cambios miopáticos y la biopsia muscular mostró atrofia perifascicular, infiltrado inflamatorio perimisial y perivascular CD4+.

Se descartó un origen cardíaco, renal, hepático y tiroideo del edema. La albúmina, en múltiples ingresos por disnea, astenia y edemas, estaba descendida (2,5–3,2 g/dL) con normalidad tras corticoterapia. Tras revisar su historia, se descubrió, ya al diagnóstico de

su neumopatía, una CK elevada (1.370 U/L). La tomografía computarizada evidenció una lesión mamaria que resultó ser un carcinoma ductal infiltrante. Se trató con prednisona 1 mg/kg/día y 5 sesiones de plasmaféresis. Tras la mastectomía, persistió la disfagia y se descubrió un adenocarcinoma difuso de células en anillo de sello diseminado. A los 4 meses, se produjo el exitus por insuficiencia respiratoria.

Caso 2. Varón de 71 años, tratado de cáncer de cavum 7 meses antes, que consultó por debilidad de miembros superiores (2/5), inferiores (3/5), lesiones cutáneas y tumefacción migratoria: al comienzo en cuello y región supraclavicular, siguiéndose de tobillos, abdomen y miembros superiores. Se descartaron otras causas de edema. La CK fue de 728 U/L y el mismo panel de anticuerpos fue negativo. El electromiograma y la biopsia muscular fueron similares al caso anterior. Tras una semana con prednisona 1 mg/kg/día el edema se resolvió; se incrementó el tratamiento con metotrexato 20 mg/semana pero falleció a los 7 meses por insuficiencia muscular respiratoria.

La DM edematosa^{1–5} podría suponer hasta el 6% de las DM¹. Se caracteriza por edema extrafacial, localizado o generalizado, con o sin fovea, sin otra causa de edema. Es más prevalente en mujeres (2:1), con edades entre los 23 y 93 años. El retraso en el diagnóstico supera los 2 meses². Se especula que se origine por isquemia de la microvasculatura. Hasta la fecha, no se había descrito la localización migratoria tan característica de nuestro caso. La DM vesiculoampollosa consiste en vesiculoampollas subepidérmicas con biopsia típica de DM, sin otra dermatosis ampollosa. Se propone que su causa sea la fricción, el edema dérmico y la mucina. La biopsia del primer caso fue tomada del muslo, donde no se observó despegamiento clínico, luego consideramos que el despegamiento es secundario al edema y que ambas formas clínicas, edema-

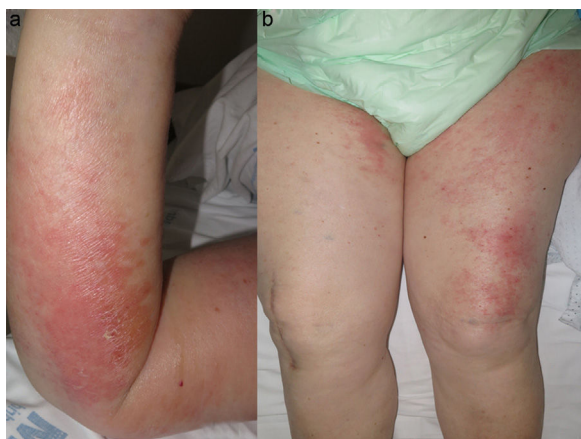


Figura 1. a: Placa eritematoedematosa con vesiculoampollas en superficie en miembro superior derecho. b. Edema y placas eritematoedematosas en los muslos.

tosa y vesiculoampollosa, podrían ser la misma manifestación o solaparse. Tampoco la distribución indica una causa mecánica y existen casos similares con intenso edema sobre el que aparece el despegamiento^{5–7}.

La causa de la hipoalbuminemia del primer caso se debe al estado proinflamatorio de la enfermedad pulmonar intersticial y la DM aún no diagnosticada^{8,9}. Esta hipoalbuminemia podría ser causa de edema generalizado, pero no de placas eritematoedematosas y vesiculoampollosas.

La literatura muestra que la DM edematosa podría estar asociada a miopatía más grave y disfagia, dato que ocurre en nuestros pacientes^{1–3}. Asimismo, la DM vesiculoampollosa estaría fuertemente asociada a neoplasia y peor pronóstico^{6,10}. El edema extrafacial en DM, en cualquiera de sus variantes, debería alertar de una mayor gravedad y llevar a una búsqueda activa de neoplasia.

Bibliografía

- Milisenda JC, Doti PI, Prieto-González S, Grau JM. Dermatomyositis presenting with severe subcutaneous edema: Five additional cases and review of the literature. *Semin Arthritis Rheum.* 2014;44:228–33.
- Goussot R, Wettlé C, le Coz C, Cribier B, Lipsker D. Severe edematous dermatomyositis. *Ann Dermatol Venereol.* 2016;143:202–9.
- Chai Y, Bertorini TE, Li YD, Mitchell C, Guan H. Limb edema and anasarca associated with severe dermatomyositis: Report of four cases. *Neuromuscul Disord.* 2011;21:439–42.
- Jung KD, Kim PS, Park HY, Kim CR, Byun JY, Lee DY, et al. Dermatomyositis associated with generalized subcutaneous edema and Evans syndrome. *J Am Acad Dermatol.* 2012;66:144–7.
- Watanabe M, Natsuga K, Arita K, Abe R, Shimizu H. Generalized acute subcutaneous edema as a rare cutaneous manifestation of severe dermatomyositis. *J Eur Acad Dermatol Venereol.* 2016;30:e151–2.
- Mitsuya J, Hara H, Hattori A, Matsunaga A, Terui T. Vesicle formation in dermatomyositis associated with colon carcinoma. *Clin Exp Dermatol.* 2009;34:e221–2.
- Nishigori K, Yamamoto T, Yokozeki H. Vesiculo-bullous dermatomyositis: Report of three cases. *Dermatol Online J.* 2009;15:6.
- Bohan A, Peter JB. Polymyositis and dermatomyositis (first of two parts). *N Engl J Med.* 1975;292:344–7.
- Bohan A, Peter JB. Polymyositis and dermatomyositis (second of two parts). *N Engl J Med.* 1975;292:403–7.
- Kubo M, Sato S, Kitahara H, Tsuchida T, Tamaki K. Vesicle formation in dermatomyositis associated with gynecologic malignancies. *J Am Acad Dermatol.* 1996;34:391–4.

Belén Lozano-Masdemont^{a,*}, Ana Pulido-Pérez^a,
Verónica Parra-Blanco^b y José Antonio Avilés-Izquierdo^a

^a Servicio de Dermatología, Hospital General Universitario Gregorio Marañón, Madrid, España

^b Servicio de Anatomía Patológica, Hospital General Universitario Gregorio Marañón, Madrid, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: belenmasdemont@gmail.com

(B. Lozano-Masdemont).

<https://doi.org/10.1016/j.reuma.2017.09.003>

1699-258X/

© 2017 Elsevier España, S.L.U. y Sociedad Española de Reumatología y Colegio Mexicano de Reumatología. Todos los derechos reservados.

Rice Bodies in Tuberculous Tenosynovitis of Wrist



Cuerpos de arroz en la tenosinovitis tuberculosa de la muñeca

Dear Editor,

Rice body formation is an uncommon inflammatory process occurring in joints and tendon sheaths in systemic disorders.¹ Since their first description in 1895 in a patient with tuberculosis, these have been described in various rheumatic diseases including rheumatoid arthritis, juvenile idiopathic arthritis, and seronegative inflammatory arthritis, in infections with atypical mycobacteria, and in subacromial bursitis.^{2–5} Generally involving shoulder and knee joints, we describe here a rare case report of a patient with isolated wrist tenosynovitis with rice bodies on magnetic resonance imaging (MRI) who was diagnosed as tuberculosis based on results of microbiologic investigations.

A 50-year-old lady came with progressive pain and isolated swelling of the right wrist of 9 months duration. Physical examination revealed an oblong swelling on the volar aspect of wrist extending into the forearm. Attempted active flexion at the wrist was painful though passive range of movement was normal. Laboratory investigations showed raised erythrocyte sedimentation rate of 50 mm/h. Radiograph of the wrist was normal. MRI revealed well-defined fluid intensity collection along the flexor tendon sheath with presence of hypointense-layered lucencies within suggestive of tenosynovitis with rice bodies (Fig. 1A and B). The adjacent bone and soft tissues were normal. Fluid obtained by ultrasound-guided aspiration from the tenosynovial swelling was positive for Acid Fast Bacilli. Culture grew *Mycobacterium Tuberculosis* and hence, diagnosis of tuberculosis was reached. The patient did not have diabetes and was not on any immunosuppressive drugs. Serology for Human Immunodeficiency Virus (HIV) was non-reactive. The patient responded to six months of anti-tuberculous therapy with complete resolution of pain and swelling.