

# Trudności w diagnostyce dolegliwości bólowych narządu ruchu spowodowanych kłębczakiem. Opis przypadków

## Problems with Diagnostic Work-up of Musculoskeletal Pain due to Glomus Tumour. Case reports

Małgorzata Puchała<sup>1(B,D,E,F)</sup>, Jacek Kruczyński<sup>1(A,D,E)</sup>, Jacenty Szukalski<sup>2(D,E)</sup>

<sup>1</sup> Katedra i Klinika Ortopedii i Traumatologii Narządu Ruchu, Collegium Medicum im. L. Rydygiera, Bydgoszcz, Uniwersytet Mikołaja Kopernika, Toruń

<sup>2</sup> Zakład Patomorfologii Klinicznej, Collegium Medicum im. L. Rydygiera, Bydgoszcz Uniwersytet Mikołaja Kopernika, Toruń

<sup>1</sup> Department of Orthopaedic Surgery and Traumatology, L. Rydygier Collegium Medicum, Bydgoszcz, Nicolaus Copernicus University, Toruń

<sup>2</sup> Department of Clinical Pathology, L. Rydygier Collegium Medicum, Bydgoszcz, Nicolaus Copernicus University, Toruń

### STRESZCZENIE

**Wstęp.** Kłębczaki są rzadkimi nowotworami łagodnymi pochodzenia mioepitelialnego. Ze względu na charakterystyczne i dotkliwe dla chorych objawy, są istotnym problemem klinicznym.

**Materiał i metody.** Opis przypadków czterech chorych z glomangioma o różnych lokalizacjach, z rozpoznaniem potwierdzonym histopatologicznie. Chorzy byli leczeni w Klinice Ortopedii i Traumatologii w latach 1999-2007.

**Wyniki.** W obrazie klinicznym na czoło wysuwał się dotkliwy ból, powodujący pogorszenie jakości życia wszystkich chorych. Bez względu na lokalizację, prawidłowa diagnoza stawiana była z opóźnieniem od 1,5 roku do 3 lat.

**Wnioski.** Z powodu rzadkiego występowania glomangioma jest pomijany w diagnostyce różnicowej dolegliwości bólowych narządu ruchu. Objawy kliniczne są niezwykle dotkliwe dla chorych, co czyni kłębczaki problemem klinicznym, o którym należy pamiętać, tym bardziej, że po leczeniu operacyjnym występuje spektakularna poprawa.

**Slowa kluczowe:** guzy, kłębczak, leczenie operacyjne

### SUMMARY

**Background.** Glomus tumours are rare benign neoplasms of myoepithelial origin. Due to characteristic and painful symptoms, glomus tumours are a major clinical problem.

**Material and methods.** Four histologically confirmed cases of glomangioma treated at the Orthopaedics & Traumatology Department between 1999 and 2007.

**Results.** The most significant symptom was extreme pain causing a decrease in the quality of life. Regardless of the location of the tumour, the correct diagnosis was delayed by 1.5 to 3 years.

**Conclusions.** Due to its rare occurrence, glomus tumours are often missed out in the differential diagnosis of musculoskeletal pain. The agonising pain makes glomus tumours a significant clinical problem that should be remembered about, especially as surgery brings about spectacular improvement.

**Key words:** tumors, glomangioma, operative treatment

## WSTĘP

Kłębczaki stanowią ok. 1,5% guzów tkanek miękkich [1]. Wyróżniane są trzy odmiany morfologiczne, tj.: kłębczak (glomus tumour), naczyniako-kłębczak (glomangioma) i naczyniako-mięśniako-kłębczak (glomangiomyoma). Są to rzadko występujące nowotwory łagodne o różnorodnej lokalizacji [1,2,3,4]. Za najbardziej typową uznawana jest ręka – 70-75% [5,6], a konkretnie okolica paliczka dystalnego i okolica podpalznokciowa. W literaturze można spotkać opisy kłębczaków żołądka [7], płuc [8], tchawicy [9], kości [10,11,12,13], jelit [4]. Kłębczaki zasługują na szczególną uwagę z powodu charakterystycznych objawów, spośród których na czoło wysuwają się bardzo silne, napadowe dolegliwości bólowe, powodujące znaczne obniżenie jakości życia chorych. Do klasycznej triady objawów należy dodać: nadwrażliwość na zimno oraz miejscową przeczulicę [1,2,3,6]. Istnieją doniesienia o wieloletnim przebiegu choroby, opóźnionej diagnozie i spektakularnych wynikach leczenia chirurgicznego [14,15]. Czyni to kłębczaka istotnym problemem klinicznym. W niniejszej pracy przedstawiono własne doświadczenia ukazujące różnorodność obrazu klinicznego związanego z tym nowotworem, na przykładzie 4 chorych, leczonych w latach 1999-2007.

## OPIS PRZYPADKU 1

69-letni chory leczony był w maju w 1999 r. z powodu silnych dolegliwości bólowych prawego stawu kolanowego. Około 8 lat przed hospitalizacją doznał urazu ww. stawu, w tym stłuczenia rzepki. Początkowo leczony był zachowawczo, z unieruchomieniem opatrunkiem gipsowym. Podczas rutynowej kontroli na rentgenogramach uwidoczniono rzepkę dwudzielną. W 3 lata po urazie pojawiły się dolegliwości bólowe prawego stawu kolanowego, które początkowo wiązano z przebytym urazem.

W badaniu klinicznym rzepka prawa była nieboleśna, prawidłowo ruchoma, bez balotowania. Nad jej przyśrodkowo-górnym kwadrantem, w okolicy krawędzi widoczny był miękki guz, prześwitujący sinalo przez skórę. Podczas palpacji był żywo bolesny. Chory poruszał się samodzielnie, bez utykania.

Wykonano zabieg operacyjny – z cięcia skórnego nad zmianą dotarto do guza, który łatwo wypreparowano. Zmiana była koloru sinawego, wielkości pestki od wiśni. Gwiazdzieście dochodziły do niej naczynia krwionośne. Zmianę usunięto w całości i przesłano do badania histopatologicznego, które wykazało obecność kłębczaka.

Przebieg pooperacyjny był niepowikłany. Dolegliwości bólowe ustąpiły całkowicie i nie nawróciły.

## BACKGROUND

Glomus tumours make up approximately 1.5% of all soft tissue tumours [1]. Three morphological variants of glomus tumour are distinguished: glomus tumour, glomangioma and glomangiomyoma. They are rare benign neoplasms developing in various locations [1,2,3,4]. The most common location for these tumours is the hand (70-75% of all cases), and more specifically the distal phalanx and subungual areas [5,6]. Cases of glomus tumours of the stomach [7], lungs [8], trachea [9], bones [10,11,12,13] and intestines [4] have been described in the literature. Glomus tumours are a major problem due to their characteristic symptoms, the most significant of which is severe paroxysmal pain causing a decrease in the quality of life. Hypersensitivity to cold as well as local hyperesthesia complement the classical triad of symptoms as well [1,2,3,6]. A chronic course of the disease, delayed diagnosis and spectacular improvement after surgery have been reported [14, 15]. This makes glomus tumours a significant clinical problem. This paper presents our experience showing the variety of clinical presentations of this type of tumour on the basis of four patients treated between 1999 and 2007.

## CASE REPORT 1

A 69-year-old male was treated in May 1999 due to severe pain in the right knee joint. The patient had suffered an injury to the joint including patellar contusion approximately eight years before the hospitalisation. Initially, the treatment had been conservative with immobilisation in a cast. A routine follow-up radiograph revealed a bipartite patella. Pain in the right knee joint appeared within three years after the injury and was initially attributed to the injury.

On clinical examination the right patella was painless with normal mobility and there was no ballottement. A soft tumour appearing bluish through the skin was visible in the marginal area over the medial upper quadrant of the patella. It was very painful on palpation. The patient walked on his own without limping.

A surgery was performed during which the tumour was exposed via a skin incision over the lesion and dissected easily. The lesion was of bluish colour and the size of a cherry with a network of blood vessels radiating towards it. The lesion was resected completely and sent for histological examination which revealed a glomus tumour.

The postoperative course was not complicated. The pain resolved completely and did not recur.

## OPIS PRZYPADKU 2

46-letni pacjent został przyjęty w listopadzie 1999 r. z powodu silnych dolegliwości bólowych prawej ręki, po stronie łokciowej, na wysokości V kości śródręcza. Okresowo występuły parestezje prawej ręki. Chory nie umiał podać od kiedy występują dolegliwości, aczkolwiek miały one długotrwały przebieg, a ich nasilenie ograniczało prawidłową funkcję ręki.

W badaniu fizykalnym stwierdzono przczulicę okolicy V kości śródręcza prawej ręki.

Wykonano zabieg operacyjny – z cięcia prostego po łokciowej stronie prawej ręki dotarto do niewielkiego guzka położonego w tkance podskórnej, który usunięto w całości i wysłano do badania hist.-pat. Wynik badania wskazał na glomangioma. Przebieg pooperacyjny był niepowikowany, dolegliwości bólowe i przczulica ustąpiły od pierwszej doby po zabiegu.

## OPIS PRZYPADKU 3

48-letnia chora była hospitalizowana dwukrotnie w 2007 r. (w odstępie 5 miesięcy) z powodu silnych dolegliwości bólowych i ograniczenia ruchomości czynnej i biernej oraz uczucia „blokowania” prawnego stawu kolanowego. W wywiadzie podawała przebyty przed trzema laty uraz skrętny prawnego stawu kolanowego, leczony zachowawczo w innym ośrodku. Po urazie wystąpiło wysiękowe zapalenie stawu – wykonano jednorazową punkcję. Od tamtej pory utrzymywało się ograniczenie ruchomości i dolegliwości bólowe. Chora przyjmowała leki przeciwbólowe, niesterydowe leki przeciwzapalne, poddawana była fizykoterapii. Wykonano dostawową iniekcję sterydów. Leczenie zachowawcze nie przyniosło efektów. Wykonano artroskopię prawnego stawu kolanowego. Stwierdzono uszkodzenie chrząstki rzepki II<sup>o</sup> wg ICRS (Międzynarodowe Towarzystwo Leczenia Uszkodzeń Chrząstki) [16], zastarzałe uszkodzenie rogu tylnego łykotki przyśrodkowej, uszkodzenie chrząstki stawowej II/III<sup>o</sup> wg ICRS powierzchni nośnej kłykcia przyśrodkowego kości udowej i zastarzałe oderwanie przyczepu udowego więzadła krzyżowego przedniego. Chora odczuła po zabiegu nieznaczną poprawę.

Ból miał charakter napadowy, nie był związany z obciążaniem stawu. Miejsce największej bolesności zlokalizowane było po przyśrodkowej stronie guzowatości piszczeli. Chora zauważała, że ataki bólu występują częściej przy zmianach pogody. Negowała ich związek z działaniem niskiej temperatury. Ból był na tyle silny, że uposadzał prawidłowe funkcjonowanie, a poruszanie się było możliwe za pomocą kul łokciowych.

W badaniu fizykalnym stwierdzono otyłość (BMI 33,20), ograniczenie ruchomości prawnego stawu ko-

## CASE REPORT 2

A 46-year-old male was admitted in November 1999 due to severe pain on the ulnar side of the fifth metacarpal bone of his right arm. He reported occasional paraesthesiae of the right arm. The patient was not able to specify the time of onset of the pain; however, it was chronic pain and its exacerbation limited normal hand function.

A physical examination revealed hyperesthesia of the fifth metacarpal bone of his right hand.

A surgery was performed during which a small tumour located in the subcutaneous tissue was exposed via straight skin incision on the ulnar side of the right arm. The tumour was resected completely and sent for histological examination which revealed a glomangioma. The postoperative course was not complicated, the pain and hyperesthesia resolved within twenty-four hours after the surgery.

## CASE REPORT 3

A 48-year-old female was hospitalised twice (with a 5-month break) in 2007 due to severe pain, limited active and passive motion and a feeling of 'blockage' in the right knee joint. The patient reported a torsion injury to the right knee joint which she had suffered three years before. The injury had been treated conservatively at another centre. The patient had a puncture on one occasion due to exudative inflammation of the knee joint following the injury. The pain and limited mobility of the joint had been present since that time. The patient was treated with analgesics, NSAIDs and was subjected to physical therapy. An intra-articular steroid injection was performed. The conservative treatment was not effective. Therefore, the patient underwent an arthroscopy of the right knee joint which revealed ICRS (International Cartilage Repair Society) grade 2 cartilage damage [16], inveterate damage to the posterior horn of the medial meniscus, grade 2/3 cartilage damage of the articular surface of the femoral medial condyle as well as inveterate avulsion of the femoral attachment of the anterior cruciate ligament. The patient felt slight improvement after the procedure.

The pain was paroxysmal and was not related to joint loading. The most tender site was located on the medial side of the tibial tuberosity. The patient observed that episodes of pain were more frequent with changes in weather. However, she denied their connection with low temperature. The pain was extremely severe and it impaired normal functioning. The patient was only able to walk with the help of forearm crutches.

lanowego: zgięcie 80°, deficyt wyprostu 20°. Chód był utykający prawostronnie.

Na klasycznych radiogramach prawego stawu kolanowego widoczne były zmiany zwyrodnieniowe I° wg Ahlbacka.

W 5 miesięcy po zabiegu artroskopowym chora ponownie zgłosiła się do Kliniki z powodu utrzymujących się dolegliwości bólowych. Nadal poruszała się za pomocą kul łokciowych. Badanie palpacyjne okolicy guzowatości prawej kości piszczelowej było praktycznie niemożliwe z powodu przeczułicy.

Wykonano zabieg operacyjny – z cięcia przyśrodkowo od guzowatości kości piszczelowej odsłonięto guz o wymiarach ok. 1,5x2 cm, o fioletowym zabarwieniu, z widocznymi „biegnącymi” do niego naczyniami. Zmianę usunięto w całości, naczynia skauteryzowano. Na powierzchni kości piszczelowej był widoczny wycisk odpowiadający usuniętemu guzowi. Zmianę usunięto z marginesem tkanek niezmienionych.

Materiał wysłano do badania histopatologicznego, które potwierdziło kliniczne rozpoznanie glomangioma. Otrzymano wynik badania immunohistochemicznego: SMA dodatni, desmina dodatni, chromogranina ujemny.

Już w zerowej dobie po zabiegu operacyjnym stan chorej uległ „teatralnej” poprawie – początkowo dolegliwości bólowe zmniejszyły nasilenie, przeczułica zniknęła całkowicie. Kilka dni po zabiegu chora poruszała się samodzielnie bez kul łokciowych, a dolegliwości bólowe zupełnie ustąpiły.

#### OPIS PRZYPADKU 4

33-letnia pacjentka została hospitalizowana w lipcu 2007 r. z powodu silnych dolegliwości bólowych opuszki palca serdecznego lewej ręki. Dolegliwości trwały ok. 1,5 roku. Leczenie zachowawcze nie przyniosło efektu. Wykonano badanie USG, które wykazało guz tkanek miękkich okolicy paliczka dystalnego, po stronie dloniowej, o wymiarach 3x5mm.

W badaniu fizykalnym test Love'a był dodatni, Hildretha ujemny; występowała również nadwrażliwość na zimno.

Wykonano zabieg operacyjny. W znieczuleniu nasiękowym, w polu niedokrwionym, z cięcia półkolisteego dotarto do niewielkiego guzka, do którego dochodziły naczynia krwionośne. Zmianę usunięto w całości i przesłano do badania histopatologicznego i immunohistochemicznego. Otrzymano wynik: SMA dodatni, desmina i chromogranina ujemny; potwierdzono rozpoznanie glomangioma.

Po zabiegu dolegliwości ustąpiły, chorą w stanie ogólnym i miejscowym dobrym wypisano do domu.

A physical examination demonstrated obesity (BMI 33.20), limited mobility of the right knee joint: flexion of 80°, extension deficit of 20°, and limping gait of the right leg.

Standard radiographs of the right knee joint displayed grade 1 degenerative changes according to Ahlback.

The patient was readmitted to the Department due to chronic pain five months after the arthroscopy. She still walked with the help of forearm crutches. Palpation over the right tibial tuberosity was practically impossible due to hyperesthesia.

A surgery was performed where a purplish tumour measuring approximately 1.5x2 cm with visible vessels radiating towards it was exposed via a skin incision made medially to the tibial tuberosity. The lesion was completely resected and the vessels were cauterised. An impression corresponding to the resected tumour could be seen on the fibula. The lesion was resected with a margin of normal tissue.

The mass was sent for histological examination which revealed a glomangioma. On immunohistochemical examination the specimen was positive for SMA, positive for desmin and negative for chromogranin.

The patient's condition improved dramatically within twenty four hours from the surgery – with an initial reduction in pain and complete resolution of hyperesthesia. A few days after the operation, the patient was able to walk on her own without forearm crutches and the pain had resolved completely.

#### CASE REPORT 4

A 33-year-old female was hospitalised in July 2007 due to an 18-month history of severe pain in the pulp of the left ring finger. Conservative treatment had not been effective. Ultrasonography revealed a 3 x 5 mm soft tissue tumour on the palmar side of the distal phalanx.

On physical examination the patient had a positive Love's test and a negative Hildreth's test. There was also hypersensitivity to cold.

A surgery was performed in ischaemia under infiltration anaesthesia where a small tumour with blood vessels radiating towards it was exposed via a semicircular incision. The tumour was resected completely and sent for histological and immunohistochemical examination. The specimen was positive for SMA, negative for desmin and negative for chromogranin. The diagnosis of glomangioma was confirmed.

The pain resolved after the surgery and the patient was discharged home in good general and local condition.

## DYSKUSJA

Kłębczak jest nowotworem wywodzącym się ze zmodyfikowanych komórek mięśni gładkich ścian naczyń tworzących anastomozy tętniczo-żyłne, zwane kanałami Sucquet-Hoyera. Są one podatne na bodźce nerwowe. Odpowiadają za skurcz naczyń krwionośnych skóry, co ma znaczenie w regulacji temperatury ciała i ciśnienia krwi. Komórki mioepitelialne są częścią ciałek kłębkowych, zlokalizowanych w warstwie siateczkowej skóry. W skład ich wchodzi tętniczka doprowadzająca, żyłka odprowadzająca i łączące je liczne anastomozy. Końcowy odcinek tętniczki otoczony jest przez komórki kłębkowe [1,2,5].

Ciałka kłębkowe są zlokalizowane w obrębie skóry całego ciała, szczególnie dużą ich koncentrację można zaobserwować na dloniach i podeszwach, stąd też okolice te są najczęstszą lokalizacją kłębczaka [1,3,6].

W obrazie klinicznym wyróżnić można dwie postacie kłębczaka: pojedynczą i mnogą. Etiologia postaci pojedynczej jest niejasna, zaś za postać mnogą odpowiedzialna jest mutacja genu glomulin, zlokalizowanego na chromosomie 1p 21-22. Jest on odpowiedzialny za syntezę białka glomulin i jest dziedziczony autosomalnie dominująco [17,18]. We wszystkich prezentowanych przypadkach były to kłębczaki pojedyncze, z ujemnym wywiadem rodzinnym.

Kłębczaki występują częściej u kobiet, niż u mężczyzn (stosunek 6:1). Szczyt zachorowań obserwuje się pomiędzy 30 a 60 r.ż. Nie stwierdzono zachorowań poniżej 1 r.ż., ponieważ rozwijają się po tym okresie i u osób w wieku podeszłym, gdyż ulegają atrofii [2].

W klinicznym rozpoznaniu kłębczaka wykorzystuje się 3 testy. Pierwszym jest test Love'a, w którym badany jest punktowy nacisk, co pozwala zlokalizować miejsce największej bolesności. Test ten był dodatni we wszystkich prezentowanych przypadkach. Drugi to test Hildretha, polegający na wykonaniu testu Love'a po założeniu opaski uciskowej na podstawę badanego palca. Test jest dodatni, jeżeli pacjent nie odczuwa bólu. Był on przeprowadzony jedynie u chorej #4 i dał wynik pozytywny. Trzecim testem jest badanie, czy ekspozycja na zimno wywołuje ból określonej okolicy. Tu wynik dodatni stwierdzono u chorych #3, #4 [1,2,3].

Testy te mają ograniczoną przydatność, gdyż nie są w 100% specyficzne. Ponadto test Hildretha może być przeprowadzony tylko w obrębie palców [1,2,3,5]. Znajduje to odzwierciedlenie w materiale własnym – zaledwie jedna osoba prezentowała typową triadę

## DISCUSSION

The glomus tumour is a neoplasm which originates from the modified smooth muscle cells of vessel walls which form arteriovenous anastomoses called Sucquet-Hoyer canals. They are sensitive to nerve impulses and are responsible for contractions of cutaneous blood vessels, contributing to temperature regulation and blood pressure. The myoepithelial cells are a part of glomus bodies located in the stratum reticulum. They are made up of an afferent arteriole, an efferent venule and multiple anastomoses connecting them. The terminal part of the arteriole is surrounded by glomerular cells. [1,2,5]

Glomus bodies are located within the skin in all parts of the body, with particularly high concentrations on the palm and sole. Therefore, these regions constitute the most common locations of glomus tumours [1,3,6].

Two clinical variants of glomus tumour exist: solitary glomus tumours and multiple glomus tumours. The aetiology of solitary glomus tumours is unclear. Multiple glomus tumours are associated with a mutation in the glomulin gene located on chromosome 1p 21-22. This gene is responsible for the synthesis of the glomulin protein; and is inherited by autosomal-dominant pattern [17,18]. All four patients developed solitary glomus tumours and had negative family histories.

Glomus tumours are more common in females than in males (a ratio of 6:1). The peak of incidence of glomus tumour is between 30 and 60 years of age. Incidence below 1 year of age as well as in older people has not been observed due to the fact that glomus bodies develop after the first year of life and they undergo atrophy in the elderly. [2]

Three tests are used in the clinical diagnosis of glomus tumours. The first one is Love's test consisting in the examination of point pressure allowing for the localisation of the area of the greatest tenderness. This test was positive in all of our patients. The next test is Hildreth's test consisting in the performance of Love's test after the application of a tourniquet on the examined finger. It is positive if the patient does not feel pain. This test was only performed in patient #4 and was positive. The third test consists in observing whether exposure of the area to cold causes pain. The test was positive in patients #3 and #4. [1,2,3]

These tests have limited usefulness as they are not entirely specific. Moreover, Hildreth's test can be performed only within fingers [1,2,3,5]. The above is reflected in our findings as the classical triad of symptoms with a glomus tumour located within

objawów – była to chora #4, z kłębczakiem zlokalizowanym w obrębie palca ręki.

W badaniach dodatkowych wykorzystywany jest rezonans magnetyczny (MR) jako badanie najbardziej czułe [1,19] oraz USG [20]. W opisywanych przypadkach badanie USG wykonano u dwóch chorych i za każdym razem było pomocne. Należy podkreślić jego wartość ze względu na łatwą dostępność i niskie koszty, co zdecydowanie skraca czas diagnostyki i oczekiwania na zabieg operacyjny. W naszych doświadczeniach USG okazało się badaniem przydatnym, szczególnie w przypadku #4, gdzie na podstawie obrazu ultrasonograficznego zasugerowano diagnozę. W przypadku #3 stwierdzono obecność bogato unaczynionej zmiany, lecz bez jednoznacznego rozpoznania.

W badaniu histopatologicznym wykorzystuje się barwienie hematoksyliną i eozyną oraz badanie immunohistochemiczne w kierunku miocytów gładkich, jako pozwalające na dokładne rozpoznanie. Histologicznie większość tych guzów jest dobrze odgraniczona i zbudowana w różnych proporcjach z komórkami kłębczaka, naczyń krwionośnych i mięśni gładkich. Guzy zawierające w swojej budowie co najmniej 60% komórek kłębczaka uznawane są za prawdziwe kłębczaki i stanowią ok. 1% wszystkich tego typu zmian. Tworzą je komórki liczne, o jednolitym wyglądzie, okrągłego kształtu, zawierające kwasochlonną cytoplazmę i okrągłe lub ovalne jądro z jąderkiem (Ryc. 1). Granice pomiędzy komórkami są wyraźne. Naczynia w obrębie takiego guza często są uciśniezione, w związku z czym trudno je wykazać bez specjalnych metod barwienia (jak metody immunohistochemiczne w kierunku desminy, chromograniny i SMA) (Ryc. 2) [21].

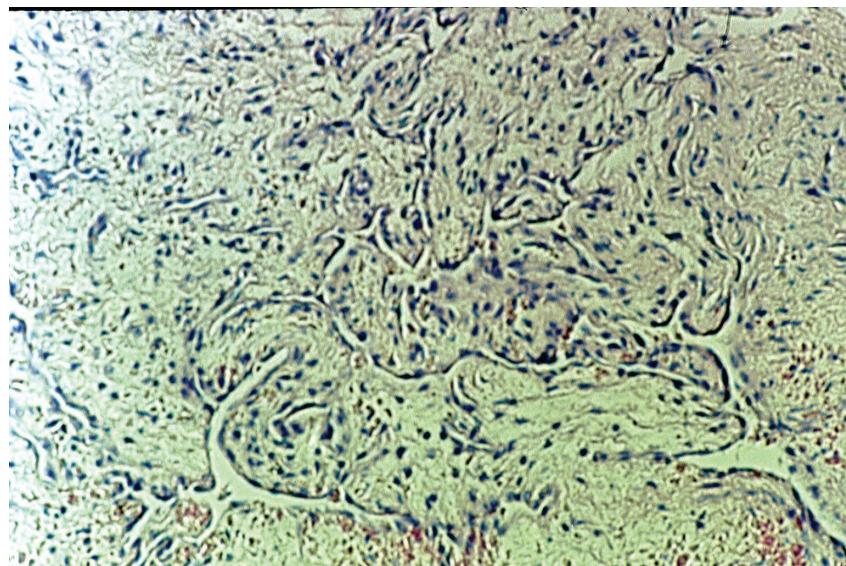
W naczyniako-kłębczakach i naczyniako-kłębczako-mięśniakach występowanie komórek kłębczaka jest różnorodne – w niektórych przypadkach stanowią one jedynie cienką obwódkę dookoła ściany naczynia. Występowanie miocytów gładkich w ścianie naczynia, szczególnie w naczyniako-mięśniako-kłębczakach, również bywa zróżnicowane [21]. Wydaje się, że rozpoznanie histopatologiczne nie powinno nastręczać trudności, jednak bez dodatkowego barwienia immunohistochemicznego obraz może być niejednoznaczny. Na podstawie doświadczenia Kliniki zasadne jest zaznaczenie sugestii, co do rozpoznania podczas przesyłania materiału do badania histopatologicznego, gdyż barwienie immunohistochemiczne nie jest wykonywane standardowo.

a finger was only observed in one person, namely, patient #4.

Follow-up examinations include MRI, which is the most sensitive examination [1,19] as well as ultrasonography [20]. Ultrasonography was performed in two of the patients and it was helpful in both cases. The value of ultrasonography should be emphasised due to its easy availability and low cost, which definitely accelerates diagnosis and surgery. It turned out to be useful in our studies, especially in the case of patient #4, in whom the diagnosis was suggested on the basis of ultrasonographic evidence. In patient #3, a highly vascularised lesion was observed but no unequivocal diagnosis was made.

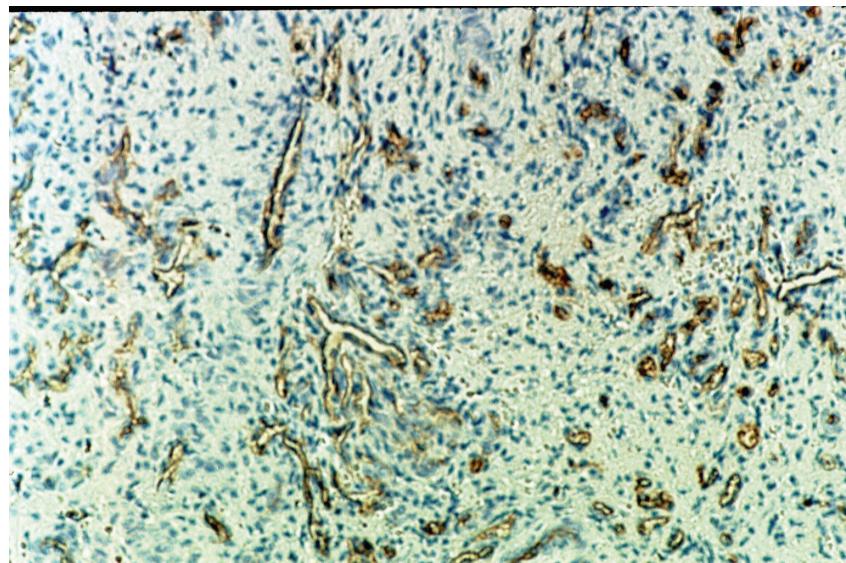
Haematoxylin and eosin staining as well as immunohistochemical examination to detect smooth myocytes allowing for the correct diagnosis are used in histological examination. Histologically, most of these tumours are well circumscribed and consist of various proportions of glomus cells, blood vessels and smooth muscles. The tumours containing at least 60% of glomus cells in their structure are regarded as "proper" glomus tumours and constitute approximately a fourth of all lesions of this type. They consist of clusters of round uniform cells with an eosinophilic cytoplasm and a round or oval nucleus or nucleolus (Fig. 1). Borders between cells are clear. Vessels within such tumour are frequently compressed, and are therefore difficult to display without the use of special staining methods (such as immunohistochemical methods to detect desmin, chromogranin and SMA) (Fig. 2) [21].

The presence of glomus cells varies in glomangiomas and glomangiomomas; in some cases they are only present as a thin margin around the vessel wall. The presence of smooth myocytes in the vessel wall in glomangiomyomas in particular may vary as well [21]. While it seems that histological diagnosis should not cause any problems, the image may be unequivocal without additional immunohistochemical staining. On the basis of the Department's experience, it is advisable to include the preliminary diagnosis of a glomus tumour with the specimen sent for histological examination since immunohistochemical staining is not routinely performed.



Ryc. 1. Tkanki kłębczaka wybarwione hematoksyliną i eozyną – opis w tekście

Fig. 1. Haematoxylin- and eosin-stained tissue of glomus tumour – see description in text



Ryc. 2. Tkanki kłębczaka w badaniu immunohistochemicznym – opis w tekście

Fig. 2. Immunohistochemical specimen of glomus tumour tissue – see description in text

## WNIOSKI

1. W prezentowanym materiale zwraca uwagę różnorodność lokalizacji kłębczaków – zaledwie jeden przypadek miał typowe umiejscowienie.
2. Nietypowe lokalizacje kłębczaka mogą być przyczyną istotnych trudności diagnostycznych.
3. W każdym prezentowanym przypadku rozpoznego guza następowe leczenie nie sprawiało trudności chirurgicznych i było skuteczne.
4. Rzadkie występowanie kłębczaka bywa przyczyną pomijania go w diagnostyce różnicowej.

## CONCLUSIONS

1. Different locations of glomus tumours in the four patients are especially interesting as the typical location of a glomus tumour was observed only in patient.
2. Non-standard locations of glomus tumours may cause significant diagnostic difficulties.
3. The treatment did not represent surgical difficulty and was effective in each of our patients.
4. Due to their rare occurrence, glomus tumours are sometimes missed out in the differential diagnosis.

## PIŚMIENIĘCTWO / REFERENCES

1. McDermott EM, Weiss APC. Glomus Tumors. J Hand Surg. Oct 2006; 31A,8. ProQuest Medical Library pg.1397
2. Hee HT, Das De S, Chong SM. Glomus tumour of the musculoskeletal system. J Orthop Surg. Dec 1997; 5,2
3. Schiefer TK, Parker WL, Anakwenze OA, Amadio PC et al. Extradigital glomus tumors: a 20-year experience. Mayo Clinic Proceedings. Oct 2006; 81,10
4. Apfelberg DB, Teasley JL. Unusual locations and manifestations of glomus tumors (glomangiomas). Am J Surg. 1968;116:62-4
5. Carroll RE, Berman AT. Glomus Tumors of the Hand. J Bone Joint Surg. 1972;54:691-703
6. Van Geertruyden J, Lorea P, Goldschmidt D et al. Glomus tumours of the hand: a retrospective study of 51 cases. J Hand Surg Br. 1996;21:257-260
7. Kay S, Callahan WP Jr, Murray MR, Randall HT, Stout AP. Glomus tumors of the stomach. Cancer. 1951;4:726-736
8. Tank CK, Toker C, Foris NP, Trump BF. Glomangioma of the lung. Am J Surg Pathol. 1978;2:103-109
9. Kim Yi, Kim JH, Suh JS, Ham EK, Suh KP. Glomus tumor of the trachea: report of a case with ultrastructural observation. Cancer. 1989;64:881-886
10. Chan CW. Intraosseous glomus tumor- case report. J Hand Surg. 1981;6:368-369
11. Pucher A, Piskorski Z. Glomangioma as the cause of pain in the heel. Chir Narządów Ruchu Ortop. Pol. 1987; 52 (6):487-9.
12. Sugiura I. Intra-osseous glomus tumour: a case report. J Bone Joint Surg. May 1976;58-B:245-247
13. Sunderraj S, Al-Khalifa AA, Pal AK, Pim HP, Sabri SH. Primary intraosseous glomus tumor. Histopathology. 1989;14:532-536
14. Panagiotopoulos E, Maraziotis T, Karageorgos A, Dimopoulos P, Koumoundourou D. A Twenty Year Delay in Diagnosing a Glomus Knee Tumor. Orthopedics. May 2006; Vol 29, Number 5:451-452
15. Nebreda CL, Urban BJ, Taylor AE. Upper Extremity Pain of 10 Years Duration Caused by a Glomus Tumor. Regional Anesthesia and Pain Medicine. Jan-Feb 2000; 25,1
16. Brittberg M. Clinical evaluation of cartilage defects and repair. Proceedings of the Third Symposium of International Cartilage Repair Society "Cartilage and Cartilage Repair in the New Millenium". 2000; Göteborg
17. Bonn LM, Brouillard P, Irrthum A. A gene for inherited cutaneous venous anomalies ("glomangiomas") localizes to chromosome 1p 21-22. Am J Hum Genet. 1999;65:125-133
18. Culvert JT, Burns S, Riney TJ. Additional glomangioma family link to chromosome 1p: no evidence for genetic heterogeneity. Hum Hered. 2001;51:180-182
19. Matloub HS, Muoneke VN, Prevel CD, Sanger JR, Yousif NJ. Glomus tumor imaging: use of MRI for localization of occult lesions. J Hand Surg Am. 1992;17:472-475
20. Fornage BD. Glomus tumors of the fingers: diagnosis with US. Radiology. 1988;167:183-185
21. Fletcher CDM. Diagnostic Histopathology of Tumors. Third Edition. Churchill Livingstone Elsevier 2007; vol.1:70-71. Okahashi K, Sugimoto K, Iwai M, Kaneko K, Samma M, Fujisawa Y, Takakura Y. Glomus tumor of the lateral aspect of the knee joint. Arch Orthop Trauma Surg. 2004;124:636-638
22. Caughey DE, Highton TC. Glomus Tumour of the Knee: Report of a Case. J Bone Joint Surg Br. Feb 1966;48-B:134-137
23. Marbit C, Pecout C, Arnaud JP. Glomus tumor in the patellar ligament. A case report. J Bone Joint Surg Am. 1995;77:140-141.

Liczba słów/Word count: 4415

Tabele/Tables: 0

Ryciny/Figures: 2

Piśmiennictwo/References: 23

Adres do korespondencji / Address for correspondence  
dr n. med. Małgorzata Puchała

Szpital Uniwersytecki im. A. Juraska  
85-096 Bydgoszcz, ul. M. Skłodowskiej-Curie 9, tel/fax: +48 52 5854720, e-mail: m\_puchala@o2.pl

Otrzymano / Received 13.08.2007 r.  
Zaakceptowano / Accepted 25.11.2007 r.