

## Case report

### Fibromatose plantaire (maladie de Ledderhose) au cours d'une polyarthrite rhumatoïde sous anti-TNF



*Plantar fibromatosis (Ledderhose's disease) in a patient with rheumatoid polyarthritis treated with anti-tumour necrosis factor*

Faten Frikha<sup>1,&</sup>, Yosr Hentati<sup>2</sup>, Yosra Bouattour<sup>1</sup>, Fatma Rekik<sup>1</sup>, Mouna Snoussi<sup>1</sup>, Zouhir Bahloul<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Service de Médecine Interne CHU Hédi Chaker 3029, Sfax, Tunisie, <sup>2</sup>Service de Radiologie CHU Hédi Chaker 3029, Sfax, Tunisie

<sup>&</sup>Auteur correspondant: Faten Frikha, Service de Médecine Interne CHU Hédi Chaker 3029, Sfax, Tunisie

Received: 22 Oct 2019 - Accepted: 28 Oct 2019 - Published: 09 Dec 2019

Domain: Rheumatology

Mots clés: Fibromatose, maladie de Ledderhose, étanercept, polyarthrite rhumatoïde

#### Résumé

La fibromatose plantaire ou « maladie de Ledderhose » ou « Morbus Ledderhose » est caractérisée par une fibrose nodulaire progressive de l'aponévrose plantaire superficielle due à une prolifération de fibroblastes. C'est une pathologie rare et bénigne du fascia dont l'étiopathogénie reste incertaine. Nous rapportons ici un cas de fibromatose plantaire survenue chez une patiente traitée par inhibiteurs du TNF $\alpha$  pour une polyarthrite rhumatoïde et rappelons les caractéristiques épidémiologiques, cliniques, thérapeutiques et évolutives de cette affection.

Case report | Volume 1, Article 45, 09 Dec 2019 | 10.11604/pamj-cm.2019.1.45.20769

Available online at: <https://www.clinical-medicine.panafrican-med-journal.com/content/article/1/45/full>

© Faten Frikha et al PAMJ - Clinical Medicine (ISSN: 2707-2797). This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution International 4.0 License (<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.



## Abstract

*Plantar fibromatosis (Ledderhose's disease or Morbus Ledderhose) is characterized by progressive nodular fibrosis of the superficial plantar aponeurosis due to fibroblast proliferation. It is a rare and benign disease involving the plantar fascia whose etiology and pathogenesis are uncertain. We here report a case of plantar fibromatosis in a female patient with rheumatoid polyarthritis treated with antitumour necrosis factor  $\alpha$  (TNF  $\alpha$ ). The purpose of this study was to highlight the epidemiological, clinical, therapeutic and evolutionary features of this disease.*

**Key words:** *Fibromatosis, Ledderhose's disease, etanercept, rheumatoid arthritis*

## Introduction

---

La fibromatose plantaire ou « maladie de Ledderhose » ou « Morbus Ledderhose » est caractérisée par une fibrose nodulaire progressive de l'aponévrose plantaire superficielle due à une prolifération de fibroblastes. C'est une pathologie rare et bénigne du fascia dont l'étiopathogénie reste incertaine. Nous rapportons ici un cas de fibromatose plantaire survenue chez une patiente traitée par inhibiteurs du TNF $\alpha$  pour une polyarthrite rhumatoïde et rappelons les caractéristiques épidémiologiques, cliniques, thérapeutiques et évolutives de cette affection.

## Patient et observation

---

Une femme de 39 ans chez qui le diagnostic de polyarthrite rhumatoïde déformante et destructrice à sérologie rhumatoïde positive (facteur rhumatoïde et anticorps anti-peptide cyclique citrulliné) a été posé en 2010 et a été traitée initialement par méthotrexate (15 mg/semaine) et anti-inflammatoire non stéroïdien (AINS). En 2015, un traitement par anti TNF $\alpha$  (étanercept) à 50 mg/semaine a été instauré devant l'échec du DMARDs classique et la forte activité de la maladie avec un DAS 28 à 6,18. L'étanercept a permis une rapide amélioration clinique et biologique. En janvier 2019, soit 4 ans après le début de la biothérapie par anti-TNF $\alpha$ , des nodules douloureux rapidement évolutifs se sont développés

à la surface plantaire des 2 pieds (Figure 1 A,B). L'échographie a retrouvé un épaissement nodulaire hypoéchogène de l'aponévrose plantaire superficielle des 2 pieds. Un examen d'imagerie par résonance magnétique (IRM) a révélé de multiples masses bien circonscrites au niveau de l'aponévrose plantaire des pieds en hyposignal en pondération T1 (Figure 1 C), en hypersignal en pondération T2 (Figure 1D) après saturation du signal de la graisse se réhaussant de façon intense après injection de Gadolinium évoquant le diagnostic d'une fibromatose plantaire. Nous avons opté pour un traitement orthopédique avec prescription de semelles adaptées, et en raison d'une progression de la polyarthrite rhumatoïde, nous avons décidé de remplacer l'étanercept par du certolizumab pégol sous-cutané à 200 mg/2 semaines.

## Discussion

---

La fibromatose plantaire ou « maladie de Ledderhose » ou « Morbus Ledderhose » est caractérisée par une fibrose nodulaire progressive de l'aponévrose plantaire superficielle due à une prolifération de fibroblastes et rattachée aux groupes des fibromatoses. C'est une pathologie rare [1,2] et bénigne du fascia qui se manifeste le plus souvent chez des hommes entre 30 et 50 ans et dont l'atteinte est bilatérale dans 20 à 50% des cas. Elle peut être associée à d'autres fibromatoses: maladie de Dupuytren dans 9-25% des cas et maladie de la Peyronie dans 4% des cas [3]. La présence d'une lésion de la région plantaire soulève d'autres diagnostics:

aponévrosite plantaire, fibrosarcome aponévrotique, leiomyome, rhabdomyosarcome, sarcome à cellules claires, lipome, synoviosarcome et dans le contexte de notre patiente les nodules rhumatoïdes. Le diagnostic est avant tout clinique: il s'agit d'un ou plusieurs nodules plantaires, fermes de 2-3cm de diamètre, qui siègent au niveau du bord interne de l'aponévrose plantaire, gênant le chaussage voire douloureux [4]. La peau en regard et les muscles restent intacts, ce qui explique l'absence de rétraction digitale et de déformation. Ce diagnostic peut être complété par l'échographie voire l'IRM comme chez notre patiente. L'IRM montre la lésion qui apparaît en iso signal ou en hypersignal en T1, en T2: l'image est hétérogène. L'injection de gadolinium entraîne un rehaussement de signal des lésions. L'examen anatomopathologique avec étude immunohistochimique permet de confirmer le diagnostic avec certitude. Divers facteurs ont été décrits, notamment les traumatismes répétés, le diabète et l'hérédité. Les formes familiales représentent 10 à 25% des cas. À notre connaissance, il s'agit de la troisième description de la survenue d'une fibromatose plantaire sous traitement par anti-TNF- au cours d'un rhumatisme inflammatoire chronique ce qui nous conduit à s'interroger sur le rôle causal du traitement par anti-TNF $\alpha$ . Dans les 2 cas précédemment décrits, la fibromatose plantaire est survenue sous traitement par étanercept au cours d'une spondyloarthrite axiale et périphérique et au cours d'un rhumatisme psoriasique respectivement [1]. Nous ne pouvons non plus exclure qu'il s'agisse d'une évolution normale de la maladie. Le traitement de cette pathologie dépend des symptômes et du degré d'invasion des lésions. Il est souvent conservateur reposant sur les semelles orthopédiques. Les autres moyens de traitement sont les anti-inflammatoires non stéroïdiens, les infiltrations de corticoïdes, les infiltrations par collagénases et hyaluronidases, la physiothérapie et les ondes de choc extra corporelles [2]. Parfois localement invasive, elle nécessite un traitement chirurgical. Le risque de récurrence est augmenté en cas de lésions multiples et bilatérales.

## Conclusion

---

Notre cas soulève le rôle causal de l'étanercept dans la survenue d'une fibromatose plantaire et pourrait constituer un nouvel effet secondaire.

## Conflits d'intérêts

---

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêts.

## Contributions des auteurs

---

Tous les auteurs ont lu et approuvé la version finale du manuscrit.

## Figure

---

**Figure 1:** (A,B) multiples nodules douloureux à la surface plantaire des 2 pieds; (C,D) multiples masses bien circonscrites au niveau de l'aponévrose plantaire des pieds en hyposignal en pondération T1, en hypersignal en pondération T2 après saturation du signal de la graisse se réhaussant de façon intense après injection de Gadolinium

## Références

---

1. Couderc M, Kemeny JL, Lhoste A, Soubrier M, Dubost JJ. Active plantar fibromatosis occurring under anti-TNF $\alpha$  therapy for spondyloarthritis. *Joint Bone Spine*. 2017;84(3):371-372. **PubMed | Google Scholar**

2. Souza DF, Micaelo L, Cuzzi T, Silva MR. Ledderhose disease an unusual presentation. The journal of Clinical and Aesthetic Dermatology. 2010;3(9):45-7. **PubMed** | **Google Scholar**
3. Heyd R, Dorn AP, Herkstroter M, Rodel C. Radiation therapy for early stages of Morbus Ledderhose. Strahlentherapie und Onkologie. 2009;186(1): 24-9. **PubMed** | **Google Scholar**
4. Walker EA, Petscavage JM, Brian PL, Logi CI, Montini KM, Murphey MD. Imaging features of superficial and deep fibromatoses in the adult population. Sarcoma. 2012;2012:215810. **PubMed** | **Google Scholar**



**Figure 1:** (A,B) multiples nodules douloureux à la surface plantaire des 2 pieds; (C,D) multiples masses bien circonscrites au niveau de l'aponévrose plantaire des pieds en hyposignal en pondération T1, en hypersignal en pondération T2 après saturation du signal de la graisse se rehaussant de façon intense après injection de Gadolinium