

Остеопойкилия в практике врача-ревматолога

Н. Ю. Тихомирова^{1,2}, Л. Н. Елисеева¹, Н. П. Белозёрова^{1,2},
Е. С. Каменева^{1,2}, В. А. Шкоков², Т. И. Фролова¹

¹ ФГБОУ ВО «Кубанский государственный медицинский университет» Минздрава России, Краснодар

² ГБУЗ «Краевая клиническая больница № 2», Краснодар, Россия

РЕЗЮМЕ

Остеопойкилия (ОПК) – редкое доброкачественное аутосомно-доминантное заболевание, характеризующееся склеротическими поражениями костей, которое обычно протекает бессимптомно. Обычно его диагностируют случайно при обычной рентгенографии. У большинства пациентов заболевание протекает бессимптомно, но некоторые могут жаловаться на легкую боль в суставах и их припухлость. Дифференциальные диагнозы заболевания включают остеобластические метастазы, первичную опухоль кости, мастоцитоз, туберозный склероз, синовиальный хондроматоз и меланеостоз. В литературе нами найдены сообщения о сосуществовании ОПК с ревматологическими заболеваниями, такими как фибромиалгия, реактивный артрит, семейная средиземноморская лихорадка, псориатический артрит, ревматоидный артрит, серонегативный спондилоартрит. Таким образом, наблюдаемый нами клинический случай интересен не только с позиции важности установки клинического диагноза, а также своевременности начала лечения, что оказывает влияние на прогноз заболевания.

КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА: остеопойкилия, дифференциальная диагностика, ревматоидный артрит, серонегативный спондилоартрит.

КОНФЛИКТ ИНТЕРЕСОВ. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Osteopoikilia in the practice of a rheumatologist

N. Y. Tikhomirova^{1,2}, L. N. Eliseeva¹, N. P. Belozeroва^{1,2}, E. S. Kameneva^{1,2}, V. A. Shkokov², T. I. Frolova¹

¹ Kuban State Medical University, Krasnodar, Russia

² Regional Clinical Hospital No. 2, Krasnodar, Russia

SUMMARY

Osteopoikilia (OPC) is a rare, benign autosomal dominant disease characterized by sclerotic bone lesions, which usually proceeds asymptotically. It is usually diagnosed by accident with conventional radiography. In most patients, the disease is asymptomatic, but some may complain of mild joint pain and swelling. Differential diagnoses of the disease include osteoblastic metastases, primary bone tumor, mastocytosis, tuberous sclerosis, synovial chondromatosis and melanostasis. In the literature, we have found reports of the coexistence of OPC with rheumatological diseases such as fibromyalgia, reactive arthritis, familial Mediterranean fever, psoriatic arthritis, rheumatoid arthritis, seronegative spondyloarthritis. Thus, the clinical case we observed is interesting not only from the standpoint of the importance of establishing a clinical diagnosis, but also the timeliness of starting treatment, which affects the prognosis of the disease.

KEYWORDS: osteopoikilia, differential diagnosis, rheumatoid arthritis, seronegative spondyloarthritis.

CONFLICT OF INTEREST. The authors declare that there is no conflict of interest.

Введение

Остеопойкилия (ОПК) (синонимы: диссеминированная конденсирующая остеопатия, пятнистая болезнь костей, остеопецилия) – редкое доброкачественное аутосомно-доминантное заболевание, характеризующееся склеротическими поражениями костей, которое обычно протекает бессимптомно [1]. Обычно его диагностируют случайно при стандартной рентгенографии. На снимках видны множественные, небольшие, хорошо очерченные, круглые или яйцевидные, рентгеноплотные, склеротические изменения диаметром 2–3 мм. Первичная патология этого состояния включает нарушения в процессе созревания кости, классифицируя его как форму костной дисплазии [2]. Гистологически склеротические участки представляют собой очаговые уплотнения компактной пластинчатой кости внутри губчатой оболочки. ОПК вызывается мутацией в гене LEMD3 [3]. Заболевание впервые описано Альберсом-Шенбергом в 1915 году [4]. Распространенность этого заболевания оценивается как 1 на 50000 человек [5]. Существует три формы заболевания: пятнистая, линейная и смешанная [1]. В некоторых

исследованиях сообщалось о сходной распространенности заболевания у женщин и мужчин, в то время как другие авторы указывали на более высокую распространенность у мужчин. Эта разница может быть объяснена тем, что больше мужчин, как правило, обращаются в отделение неотложной помощи при несчастных случаях и травмах, требующих рентгеновского обследования. В действительности частота заболевания одинакова у обоих полов [6]. Возникающее при первичном осмотре рентгенограмм предположение о наличии остеопороза не подтверждается, так как костная денситометрия практически всегда показывает нормальные результаты [7].

Наиболее частыми анатомическими локализациями поражения костей являются области эпифиза или метафиза длинных костей [1]. Согласно литературным данным, локализация и частота встречаемости поражения костей следующая: фаланга (100%), кости запястья (97,4%), пястная кость (92,5%), пальцы ног (87,2%), плюсневая кость (84,4%), предплюневая кость (84,6%), таз (74,4%), бедренная кость (74,4%), лучевая кость (66,7%), локтевая кость (66,7%), крестец (58,9%), пле-



Рисунок 1. Рентгенография костей таза. Наличие круглых, четко очерченных, околоуставных, симметричных и склеротических поражений

чечая кость (28,2%), большеберцовая кость (20,5%) и малоберцовая кость (2,8%) [1, 8]. Дифференциальная диагностика заболевания включает остеобластические метастазы, первичную опухоль кости, мастоцитоз, туберозный склероз, синовиальный хондроматоз и мелореостоз [1, 5]. При сканировании костей с помощью технеция-99m не наблюдается никаких специфических точек накопления изотопа.

У большинства пациентов заболевание протекает бессимптомно, но некоторые могут жаловаться на легкую боль в суставах и их припухлость [9–11]. ОПК в 25% случаев ассоциируется с дерматологическими проявлениями, в этом случае сочетание носит название синдром Buschke-Ollendorff [8–11]. В литературе нами найдены сообщения о сосуществовании ОПК с ревматологическими заболеваниями, такими как фибромиалгия, реактивный артрит, семейная средиземноморская лихорадка, псориаз, псориатический артрит, ревматоидный артрит, серонегативный спондилоартрит [1, 5, 8, 12–14].

Клинический случай

Пациентка 49 лет была направлена к ревматологу амбулаторного звена участковым терапевтом из поликлиники по месту жительства с диагнозом «вероятный ревматоидный артрит» в связи с появлением жалоб на боль в правом голеностопном суставе до 60 мм по визуальной аналоговой шкале (ВАШ) при ходьбе, его отека, а также повышением при лабораторном исследовании ревматоидного фактора (РФ). Она отрицала наличие каких-либо серьезных заболеваний в прошлом, также отсутствовали проявления утренней скованности и боли в спине воспалительного ритма. Физикальное обследование пациентки не выявило пальпируемых лимфатических узлов, видимые кожные покровы чистые, индекс BASMI (Bath Ankylosing Spondylitis Metrology Index) 0 баллов, симптом «поперечного сжатия» кистей и стоп отрицательный, повышения локальной температуры над пальпируемыми суставами не отмечалось, при пальпации правого голеностопного сустава – болезненность и его легкая деформация. По результатам лабораторных исследований: общий анализ крови и мочи – без патологии,

биохимические показатели (щелочная фосфатаза, аланин-аминотрансфераза, аспаратаминотрансфераза, креатинин, общий белок, общий кальций), острофазовые показатели (С-реактивный белок (СРБ), скорость оседания эритроцитов (СОЭ)) – все в границах референсных значений, РФ 45 МЕ/мл, антитела к циклическому цитруллинированному пептиду (АССР) менее 0,5 Ед/мл, HLA (Human leucocyte antigen) В 27 не выявлен. Рентгеновские снимки кистей и стоп в прямой проекции, обзорный снимок таза показали наличие круглых, четко очерченных, околоуставных, симметричных и склеротических поражений костей таза, кистей и стоп, что соответствовало диагнозу «остеопойкилия» (рис. 1), со стороны крестцово-подвздошных сочленений без особенностей. По результатам ультразвукового исследования (УЗИ) правого голеностопного сустава выявлены признаки минимального синовита. Со слов пациентки, ранее, в возрасте 23 лет, отмечала появление боли в мелких суставах кистей и тазобедренных суставах, спине, а также выявлялось повышение РФ до 25 МЕ/мл, в связи с чем была консультирована травматологом и неврологом краевой клинической больницы г. Краснодара, тогда же после проведения дообследования были выявлены изменения в костях кистей и таза, которые потребовали консультации онколога, после исключения метастатического поражения костей, остеосаркомы, был верифицирован диагноз «остеопойкилия». Впоследствии пациентка предоставила предыдущие рентгеновские снимки, на которых можно было наблюдать описанные изменения.

Пациентке назначена терапия с применением немедикаментозных методов (ортезирование голеностопного сустава), а также прием нестероидных противовоспалительных средств (НПВС) (эторикоксиб 90 мг внутрь 1 таблетка 1 раз в сутки вне зависимости от приема пищи длительностью 14 дней). При следующих посещениях ревматолога через 7 и 14 дней отмечено снижение интенсивности суставного болевого синдрома в правом голеностопном суставе при ходьбе до 30 мм по ВАШ, уменьшение его деформации при объективном исследовании.

В представленном клиническом наблюдении отсутствуют критерии для постановки диагноза «ревматоидный артрит, спондилоартрит периферических суставов». Однако необходимо дальнейшее плановое динамическое наблюдение за пациенткой с целью своевременного выявления патологических изменений, характерных для группы ревматологических заболеваний.

Выводы

Данное клиническое наблюдение иллюстрирует необходимость знакомства врачей всех специальностей с таким редким заболеванием, как остеопойкилия, поскольку данная патология может быть ошибочно принята за метастатические опухоли костей или другие заболевания из-за сходных характеристик визуализации, что может привести к ненужным инвазивным обследованиям и стрессу как для пациента, так и для врача. Пациенты с симптомами остеопойкилии должны быть обследованы на предмет других возможных сопутствующих заболеваний ревматологического профиля, что сократит время постановки диагноза и лечения.

Список литературы / References

1. Ruaro B, Sulli A, Alessandria E, Ravera F, Culolo M. Coexistence of osteopoikilosis with seronegative and Reynoud's phenomenon. First case report with evaluation of the nailfold capillary bed and literature review. *Reumatismo*. 2012;64(5):335-9. DOI: 10.4081/reumatismo.2012.335
2. Aghdashi MA, Aghdashi MM, Rabiepour M. Osteopoikilosis: pain as presenting symptom in three family members. *Clin Med Insight Arthritis Musculoskel Disord*. 2012; 4: 29-32. DOI: 10.4137/cmamd.s7035
3. Baasanjav S, Jamsheer A, Kolanczyk M, Horn D, Latos T, Hoffmann K, Latos-Bielenska A, Mundlos S. Osteopoikilosis and multiple exostoses caused by novel mutations in LEMD3 and EXT1 genes respectively – coincidence within one family. *BMC Med Genet*. 2010;11(110):1-8. DOI: 10.1186/1471-2350-11-110
4. Ruci V, Serani D. Osteopoikilosis – case report. *Open Access Maced J Med Sci*. 2014;2(1):132-4. DOI: 10.3889/oamjms.2014.024
5. Kucukcakil N, Inceoglu LA, Raif SL. Osteopoikilosis – a case report. *Turk J Phys Med Rehab*. 2015; 61: 376-9. DOI: 10.5152/tftrd.2015.39019
6. Rajkumar Jangir R, Laxmikant Mishra D, Kumar M, Mathur AK. Osteopoikilosis and its clinical significance: a review literature. *PRJMHS*. 2014;3(4):11-20. DOI: 10.5152/tftrd.2015.39019
7. Tolunay T, Arslan AK, Bingol I, Bici V, Eren M, Lemine CMM, Kilcarslan K. Bone pathology: osteopoikilosis. *Open J Orthop*. 2013; 3: 17-9. DOI: 10.4236/ojo.2013.35040
8. Negi RS, Manchanda KL, Sanga S, Chand S, Goswami G. Osteopoikilosis-spotted bone disease. *Med J Armed Forces India*. 2013; 69: 196-8. DOI: 10.1016/j.mjafi.2012.05.009
9. Madeira N., Ganhro S., Ferreira RM., Duarte AC., Freitas R., Cunha-Miranda L. Osteopoikilosis: case series from Portuguese Rheumatology centers. *Acta Reumatologica Portuguesa* 2019; 44:78-83. PMID: 31249279.
10. Tsai, S., Wang, S., Shiau, Y. and Wu, Y. Benign incidental findings of osteopoikilosis on Tc-99m MDP bone SPECT/CT: A case report and literature review. *Medicine* 2016; 95(23): e3868. DOI: 10.1097/md.0000000000003868.
11. Woyciechowski, T., Monticeli, M., Keiser, B. and Monticeli, O. Osteopoikilosis: what does the rheumatologist must know about it?. *Clinical Rheumatology* 2012; 31(4): 745-748. DOI: 10.1007/s10067-011-1916-x
12. Krishna D. Osteopoikilosis: a case report with review of literature. *J Orthop Traumatol Rehabil*. 2013;6(1):84-6. DOI: 10.4103/0975-7341.118750
13. Urefen, K. Osteopoikilosis in a patient with rheumatoid arthritis complicated with dry eyes. *Rheumatol Int* 27, 1079-1082 (2007). DOI:10.1007/s00296-007-0334-5
14. Demir S E, Özaras N, Poyraz E, Toprak H, Güler M. Coexistence of osteopoikilosis with seronegative spondyloarthritis and spinal stenosis. *J Phys Ther Sci*. 2015 May;27(5):1625-7. DOI: 10.1589/jpts.27.1625

Статья поступила / Received 21.01.24

Получена после рецензирования / Revised 09.04.24

Принята к публикации / Accepted 12.04.24

Сведения об авторах

Тихомирова Надежда Юрьевна^{1, 2}, к.м.н., доцент, доцент кафедры факультетской терапии. ORCID:0000-0002-5031-6930

Елисеева Людмила Николаевна¹, д.м.н., профессор, зав. кафедрой факультетской терапии. ORCID:0000-0002-5275-3261.

Белозёрова Наталья Павловна^{1, 2}, к.м.н., ассистент кафедры факультетской терапии. ORCID: 0009-0006-8869-2217

Каменева Елена Сергеевна^{1, 2}, к.м.н., ассистент кафедры поликлинической терапии с курсом общей врачебной практики (семейной медицины), ФПК и ППС. ORCID: 0000-0002-3720-1346

Шкоков Владимир Алексеевич, врач-рентгенолог рентгенологического отделения².

Фролова Татьяна Ивановна, к.м.н., доцент кафедры факультетской терапии¹ ORCID: 0009-0005-7711-3817

¹ ФГБОУ ВО «Кубанский государственный медицинский университет» Минздрава России, Краснодар

² ГБУЗ «Краевая клиническая больница № 2», Краснодар, Россия

Автор для переписки: Тихомирова Надежда Юрьевна.
E-mail: tihomirovum@rambler.ru

About authors

Tikhomirova Nadezhda Yu.^{1, 2}, PhD Med, associate professor of Dept of Faculty Therapy. ORCID:0000-0002-5031-6930

Eliseeva Lyudmila N.¹, DM Sci (habil.), professor, head of Dept of Faculty Therapy. ORCID:0000-0002-5275-3261

Belozeroval Natalia P.^{1, 2}, PhD Med, assistant professor at Faculty Therapy. ORCID: 0009-0006-8869-2217

Kameneva Elena S.^{1, 2}, PhD Med, assistant at Dept of Polyclinic Therapy with a Course of General Medical Practice (family medicine), Faculty of Advanced Education and Professional Retraining of Specialists. ORCID: 0000-0002-3720-1346

Shkokov Vladimir A., radiologist, Radiology Dept²

Frolova Tatyana I., PhD Med, associate professor at Dept of Faculty Therapy¹ ORCID: 0009-0005-7711-3817

¹ Kuban State Medical University, Krasnodar, Russia

² Regional Clinical Hospital No. 2, Krasnodar, Russia

Corresponding author: Tikhomirova Nadezhda Yu. E-mail: tihomirovum@rambler.ru

Для цитирования: Тихомирова Н.Ю., Елисеева Л.Н., Белозёрова Н.П., Каменева Е.С., Шкоков В.А., Фролова Т.И. Остеопойкилия в практике врача-ревматолога. *Медицинский алфавит*. 2024; (10): 51-53. <https://doi.org/10.33667/2078-5631-2024-10-51-53>

For citation: Tikhomirova N.Y., Eliseeva L.N., Belozeroval N.P., Kameneva E.S., Shkokov V.A., Frolova T.I. Osteopoikilia in the practice of a rheumatologist. *Medical alphabet*. 2024; (10): 51-53. <https://doi.org/10.33667/2078-5631-2024-10-51-53>



DOI: 10.33667/2078-5631-2024-10-53-56

Дебют ревматоидного артрита с поражениями глаз (клиническое наблюдение)

А. И. Акулова, А. Р. Авакян, Г. Р. Долишняя, Н. М. Никитина

ФГБОУ ВО «Саратовский государственный медицинский университет им. В.И. Разумовского» Минздрава России, г. Саратов, Россия

РЕЗЮМЕ

Цель исследования – продемонстрировать клинический случай дебюта ревматоидного артрита с поражениями глаз.

Материалы и методы. Проанализирован клинический случай ревматоидного артрита с нетипичным дебютом, а также проведен анализ литературы на данную тему.

Результаты. В описанном клиническом наблюдении у пациента развился двусторонний язвенный кератит, трудно поддающийся стандартному лечению, осложнившийся выпадением оболочек глаза. В связи с нетипичным течением офтальмологической патологии и неэффективностью стандартной терапии пациент был дообследован, выявлены иммунологические нарушения – серопозитивность по РФ, АЦП, анти-МЦВ. Типичная клиническая картина симметричного артрита развилась через 8 месяцев после дебюта офтальмологической патологии. Базисная терапия ревматоидного артрита оказалась эффективной не только в отношении суставной патологии, но и в предотвращении рецидивов кератита.

Заключение. Развитие поражения глаз может предшествовать суставному синдрому при РА. При ведении пациентов с рецидивирующими, двусторонними кератитами необходимо быть настороженными в отношении ревматологической патологии.

КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА: ревматоидный артрит, системные проявления, кератит, синтетические базисные противовоспалительные препараты (БПВП), метотрексат.

КОНФЛИКТ ИНТЕРЕСОВ. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Источники финансирования. Авторы заявляют об отсутствии финансирования при проведении исследования.