

Püstülotik artro-osteitis (Sonozaki sendromu) ile sakroiliit birlikteliği: Olgu sunumu

Pustulotic arthro-osteitis (Sonozaki syndrome) associated with sacroiliitis: a case report

Soner Şenel¹, Bahattin Aydın², Ali Uğur Uslu², Ferhat Sezer³, Şafak Şahin⁴

¹Erciyes Üniversitesi Tıp Fakültesi, İç Hastalıkları Anabilim Dalı, Romatoloji Bilim Dalı, Kayseri

²Cumhuriyet Üniversitesi Tıp Fakültesi, İç Hastalıkları Anabilim Dalı, Sivas

³Cumhuriyet Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyoloji Anabilim Dalı, Sivas

⁴Gaziosmanpaşa Üniversitesi Tıp Fakültesi, İç Hastalıkları Anabilim Dalı, Tokat

Özet

İlk olarak Sonozaki tarafından tarif edilen püstülotik artro-osteitis nispeten nadir görülen kronik inflamatuvar bir hastalıktır. Klinik bulguların erken tanınması yanlış tanı ve tedaviyi önleyebilir. Olgumuzda tipik hastalık bulguları ve beraberinde sakroiliitin eşlik ettiği bir püstülotik artro-osteitis vakası sunulmuştur.

Anahtar sözcükler: Sonozaki sendromu, püstüloz, artrit, osteitis, sakroiliit

Summary

Pustulotic arthro-osteitis, firstly described by Sonozaki, is a relatively rare, chronic inflammatory disorder. Early recognition of the clinical findings could prevent misdiagnosis and delay in treatment. We presented a case of pustulotic arthro-osteitis that shows typical signs of disease and accompanying sacroiliitis.

Key words: Sonozaki syndrome, pustulosis, arthritis, osteitis sacroiliitis

Püstülotik artro-osteitis (PAO) ilk Sonozaki tarafından tanımlanan palmoplantar püstüler lezyonlar ve anterior torasik eklem tutulumu ile seyreden, etiyojisi bilinmeyen kronik inflamatuvar bir hastalıktır.^[1] PAO remisyon ve alevlenmelerle kronik bir seyir gösterir. Artrit non-eroziv ve geçici karakterdedir. Klinik seyrinde eklemlerde deformite ve kontraktür görülmez. Hastaların küçük bir kısmında eklem ve cilt bulgularının ortaya çıkma süreleri eş zamanlı iken, büyük çoğunluğunda bir-iki yılı bulabilir.^[2] Bu nadir görülen hastalığın iyi tanınması erken teşhis ve tedavisi için önemlidir. Püstülotik artro-osteitiste sternoklaviküler eklem sıklıkla tutulurken, %13 oranında sakroiliak eklem tutulumu da görülebilir.^[3] Olgumuzda, tipik has-

talık bulguları ve beraberinde sakroiliitin eşlik ettiği bir PAO vakası sunulmuştur.

Olgu Sunumu

Elli üç yaşında bayan hasta 15 gündür devam eden ateş, halsizlik, göğüs ağrısı, bel ağrısı, bilateral el ayası ve ayak tabanında püstüler döküntü şikayeti ile başvurdu. Bel ağrısı şikayeti egzersiz veya hareketle azalan, bazen geceleri uykudan uyandıran ve özellikle sabahları olan ağrı ve eklem hareket kısıtlılığı tarzında idi. Özgeçmişinde bilinen sistemik ve dermatolojik hastalığı yoktu. Yapılan fizik muayenesinde bilateral palmar (Şekil 1) ve ayakların plantar yüzünde çok sayıda püstüler lezyonlar izlendi (Şekil 2).

İletişim / Correspondence:

Doç. Dr. Soner Şenel, Erciyes Üniversitesi Tıp Fakültesi, İç Hastalıkları Anabilim Dalı, Romatoloji Bilim Dalı, Kayseri.
e-posta: drsonersenel@gmail.com

Çıkar çakışması / Conflicts of interest: Çıkar çakışması bulunmadığı belirtilmiştir. / No conflicts declared.

www.raeddergisi.org
doi:10.2399/raed.13.32042
Karekod / QR code:





Şekil 1. Sol elde erken püstüler lezyonlar.



Şekil 2. Her iki ayak tabanında erken püstüler lezyonlar.

Hastanın göğüs ağrısına yönelik yapılan değerlendirmesinde kardiyak patoloji saptanmadı ve birinci sternokostal eklemlerde ağrı ve şişlik tespit edildi. Hastanın laboratuvar değerlendirmesinde eritrosit sedimentasyon hızı (ESH) 55 mm/saat (0-12 mm/saat), CRP 68 mg/L (0-8 mg/L), WBC 12.860 mm³/L (4-10.5000 mm³/L) idi. Serum romatoid faktör (RF), anti-siklik sitriline peptid (anti-CCP), anti-nükleer antikor (ANA), anti-ds DNA, anti-Ro, anti-La ve anti-Sm antikorları negatif saptandı. Böbrek ve karaciğer fonksiyonları, serum ürik asit düzeyi ve diğer biyokimyasal parametreleri normaldi. HLA-B27, HLA-B51 ve 52 negatif bulundu. Püstüler cilt lezyonlarından biyopsi yapıldı. Histopatolojik incelemede; steril, bazal çizgide, orto-keratotik epidermis altında polimorfonükleer hücreler ile birlikte spongiosis ve diskeratotik hücre infiltrasyonu görüldü. Kostokondrit açısından çekilen sterno-kostal bilgisayarlı tomografik değerlendirilmesinde sternokostokondral



Şekil 3. Direkt grafide solda evre 1 ve sağda evre 2-3 sakroiliit.

eklemlerinde düzensizlik ve destrüksiyon bulundu. Tüm vücut kemik sintigrafisinde (MDP-TC 99m) sternokostal ve sağ sakroiliak eklemlerde fokal artmış aktivite kümülasyonu tespit edildi. Hastanın bel ağrısı nedeni ile X-ray sakroiliak eklemlerinde solda evre 1, sağda evre 2-3 sakroiliit saptandı (Şekil 3). Sakroiliak manyetik rezonans görüntülemesinde subkondral skleroz tespit edildi.

Hastaya mevcut klinik ve laboratuvar değerlendirilmesi sonucu ile Sonozaki sendromu tanısı konuldu. İndometazin 150 mg/gün tedavisi ile hastada bel ağrısı şikayetinde görsel analog skorlamada %65 düzelme kaydedildi ama cilt ve kostokondral tutulumunda düzelme olmadı. Hastaya 15 mg/hafta metotreksat ve akut kostokondrit için 3 gün süreli i.v. 40 mg/gün metilprednizolon verildi; sonrasında 12 saatte bir 400 mg etodolak tedaviye eklendi. İkinci hafta kontrolünde laboratuvar değerlerinde düzelme kaydedildi (ESH 55'den 38 mm/saat'e, CRP 68'den 14.2 mg/L'ye indi). Altıncı haftadan itibaren takiplerinde ESH 16 mm/saat, CRP 2.1 mg/L değerlerine geriledi. Klinik olarak ise palmaplantar püstüller tamamen kayboldu, kostokondral eklemlerde hafif şişlik dışında ağrı şikayeti geçti.

Tartışma

Püstülotik artro-osteit nadir görülen avuç içi ve ayak tabanında tekrarlayan steril püstüler lezyonlar ve sıklıkla anterior torasik eklemlerin osteiti ile karakterize bir hastalıktır. Hastalığın başlangıç yaşı 30-40 arası olup her iki cinste de eşit olarak görülür.^[1] Püstülotik artro-osteit ilk zamanlar psöriatik artrit olarak değerlendirilmişse de şu an HLA-B27 ile ilişkisi olmayan seronegatif spondilartirit grubu içerisinde yer alır.^[2] Etiyolojisi bilinmeyen hastalığın, cilt ve eklemlerin histopatolojik incelenmesinde bir mikroorganizma üretilememiştir.^[1,2]

Püstülotik artro-osteitiste genel olarak sternoklaviküler tutulum görülürken pelvik eklemler, lomber vertebral ve

periferik eklem tutulumu da olabilir. Diğer seronegatif spondilartritlerde sternoklaviküler eklem tutulumu %15'den azdır. Bu özelliği ile diğer seronegatif artritlerden ayrılır. Püstülotik artro-osteitist püstüler döküntü ve artrit kliniği ile psoriatik artrit (PsA) karışabilir. Psoriatik artritteki artrit PAO'dan farklı olarak, sıklıkla proksimal interfalangeal, distal interfalangeal, metakarpofalangeal, metatarsofalangeal, ayak bileği, el bileği, diz ve dirsek eklemlerinin tutulduğu periferik poliartiküler karakterdedir.^[2] Sonozaki ve ark.^[3] PAO'lu 53 hasta üzerindeki klinik özellikleri değerlendirmelerinde en sık sternoklaviküler eklem tutulumu olduğunu, manubrium sterni tutulumunun %77, aksial tutulumun %34, periferik eklem tutulumunun %32 ve sakroiliit %13 oranlarında olduğunu bildirmişlerdir. Artritin özelliği ve RF ile anti-CCP negatifliği ile romatoid artrit farklıdır. Ayrıca psoriatik artrit, ankilozan spondilit ve Reiter sendromu HLA-B27 pozitifliği ile PAO'dan ayrılmaktadırlar.^[4] Burada sunulan vakada sternoklaviküler eklem tutulumuna sakroiliit eşlik ediyor ve RF, Anti-CCP, ANA ve HLA-B27 negatiftir.

Püstülotik artro-osteitisin, benzer klinik özelliklerin görüldüğü sternoklaviküler hiperostozis (SCCH) ve SAPHO (sinovit, akne, püstülozis, hiperostozis ve osteit) sendromu ile ayırıcı tanısı iyi yapılmalıdır. SCCH oldukça nadir görülen, göğüs ön duvarını tutan steril kronik osteomyelit ve beraberinde palmoplantar cilt lezyonlarının da eşlik edebildiği kronik inflamatuvar bir hastalıktır. SAPHO sendromu kemik, eklem ve deri tutulumunun görüldüğü kronik inflamatuvar bir hastalıktır. En belirgin özelliği steril inflamatuvar osteittir. Cilt lezyonları arasında palmoplantar püstülozis, püstüler psöriazis, akne konglobata, akne fulminans ve süpüratif hidradenitis görülür. Püstülotik artro-osteitis, hiperostozis yokluğu ile SCCH'den ve SAPHO sendromundan ayrılır.^[5]

Behçet hastalığı (BH) her türlü çapta arter ve venleri tutabilen multisistemik bir vaskülitir. Hastalığın tanı kriterleri arasında tekrarlayan oral ve genital aftlar, göz tutulumu, cilt tutulumu ve paterji testi pozitifliği yer alır. BH klinik seyirindeki eklem tutulumu genelde alt ekstremitelerde yerleşimli mono-oligoartrit tarzında olup seyrek olarak sakroiliak eklem tutulumu da görülebilir.^[6] Chang ve ark.^[7] BH ve spondilartritli hastalarda yaptıkları çalışmada BH'nın %51.7'sinde HLA-B51 ve %10.3'ünde sakroiliit olduğunu saptamışlardır. Behçet hastalığı cilt tutulumu yüz, boyun ve sırtta görülen foliküllit, akne benzeri püstüller lezyonlar, eritema nodosum ve yüzeysel tromboflebiti kapsar. HLA-B51 ile ilişkilidir. Bizim vakamızda HLA-B51 negatiftir, hastanın oral ve genital aftları bulunmamakta idi. Cilt ve

eklem tutulumu (anterior torasik eklem tutulumu) BH ile uyumlu değildi. Göz muayenesi normal olarak değerlendirilen hastaya paterji testi yapılmadı. Palmoplantar püstülozis ve artro-osteitis dahil olmak üzere hastamızın semptom ve bulguları PAO (Sonozaki sendromu) ile uyumlu idi.

Püstülotik artro-osteitis tedavisinde, analjezik ve anti-inflamatuvar ilaçlar semptomatik tedavinin temelini oluşturur. Diğer tedavi seçenekleri arasında kortikosteroidler, kolsişin, hastalığı modifiye edici ajanlardan sülfosalazin ile immünesüpresif ilaçlardan metotreksat ve siklosporin kullanılabilir.^[8] Medikal tedaviye rağmen sternoklaviküler eklem tutulumu hastanın yaşam kalitesini etkileyecek düzeyde ise klavikulanın cerrahi ile rezeksiyonu alternatif tedavi seçenekleri arasında önerilebilir.^[9]

Sonuç olarak, PAO çok nadir görülür ve benzer eklem ve cilt tutulumu yapan çok sayıda hastalık ile karışabilir. Özellikle ciltte püstüler döküntüler ve göğüs ağrısı olan hastalarda PAO akla gelmelidir. Bu hastalık saptandığında, klinisyen inflamatuvar bel ağrısını sorgulanmalı ve radyolojik olarak sakroiliit varlığını araştırmalıdır.

Kaynaklar

1. Takagi M, Oda J, Tsuzuki N, Sonozaki H. Palmoplantar pustulotic artro-osteitis of the peripheral joints with no sternocostoclavicular lesions. *Ann Rheum Dis* 1992;51:558-60.
2. Mejjad O, Daragon A, Louvel JP, et al. Osteoarticular manifestations of pustulosis palmaris et plantaris and of psoriasis: two distinct entities. *Ann Rheum Dis* 1996;55:177-80.
3. Sonozaki H, Mitsui H, Miyanaga Y, et al. Clinical features of 53 cases with pustulotic arthro-osteitis. *Ann Rheum Dis* 1981;40:547-53.
4. Winchester R. Psoriatic arthritis. In: Fitzpatrick TB, Eisen AZ, Wolff K, et al., editors. *Dermatology in general medicine*. Fourth ed. New York: Mc Graw Hill Inc; 1993:515-27.
5. Brandsen RE, Dekel S, Yaron M, et al. SAPHO syndrome. *Dermatology* 1993;186:176-80.
6. Yurdakul S, Hatemi G. Locomotor system disease in Behçet's syndrome. In: Yazici H, Yazici Y ed. *Behçet's syndrome*. New York: Springer, 2010:149-65.
7. Chang HK, Lee DH, Jung SM, et al. The comparison between Behçet's disease and spondyloarthritides: does Behçet's disease belong to the spondyloarthropathy complex? *J Korean Med Sci* 2002;17:524-9.
8. Vaccaro M, Borgia F, Guarneri F, Blandino A, Cannavo SP, Guarneri B. Successful treatment of pustulotic arthro-osteitis (Sonozaki syndrome) with systemic cyclosporine. *Clin Exp Dermatol* 2001;26:45-7.
9. Jurik AG, Helmig O, Gradual H. Skeletal disease, arthro-osteitis, in adult's patients with pustulosis palmoplantaris. *Scand J Rheumatol Suppl* 1988;70:3-15.