

- [8] Collins JA, Ping B, Bishop JA, et al. Carcinoma showing thymus like differentiation (castle): cytopathological features and differential diagnosis[J]. Acta Cytol, 2016, 60(5): 421-428.
- [9] Gao R, Jia X, Ji T, et al. Management and prognostic factors for thyroid carcinoma showing thymus-like elements (castle): a case

series study[J]. Front Oncol, 2018, 8(1): 477.

- [10] 刘颖, 郭海龙, 景洪标. 甲状腺内胸腺瘤临床病理学分析[J]. 局解手术学杂志, 2021, 30(2): 174-177.

(收稿日期: 2022-09-13)

· 病例报道 ·

Carotid artery ultrasonic manifestations of SAPHO syndrome: a case report SAPHO 综合征颈动脉超声表现 1 例

付瑶 刘春梅 孔令伟 聂颖 张菡 刘红军

[中图分类号] R445.1

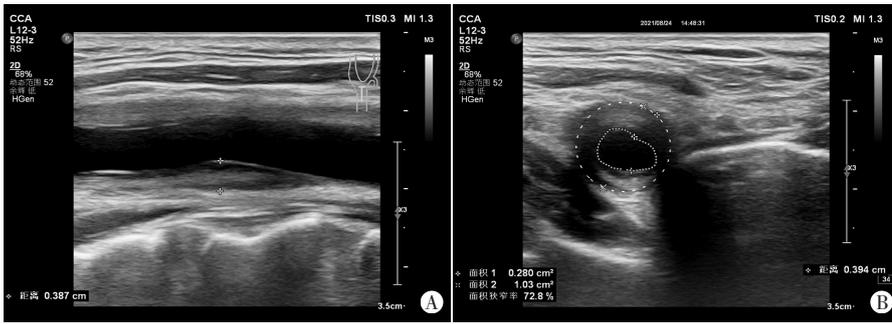
[文献标识码] B

患者男, 39岁, 因“间断关节疼痛6年, 皮疹3年, 右颈近下颌部疼痛10 d”就诊。自述6年前饮酒后出现手指关节、腰部晨起僵硬感, 活动后症状减轻, 后每个月出现1~2次, 未予重视。4年前双侧足部出现散在小水泡, 胸和后背散在毛囊炎, 并逐渐增多, 无瘙痒, 无疼痛, 偶有双髌、双肩疼痛, 于外院对症治疗1个月未见好转, 双手亦出现水泡。2年前手掌、足部皮疹加重, 偶有胸骨、骶尾部疼痛, 外院诊断为掌跖脓疱病, 给予外用药物及中药(具体不详)治疗后皮疹减少, 后皮疹时轻时重。1年前出现右颈近下颌部疼痛, 无咽痛、发热, 口服头孢呋辛酯治疗10 d未见好转, 遂来我院就诊。患者既往体健, 否认高血压、糖尿病、冠心病及高脂血症病史, 无吸烟史。家族史无特殊。自发病以来无发热、肢体酸麻乏力、头晕、恶心、腹泻、血尿, 体质量无改变。颈部常规超声检查: 右侧颈总动脉中段至颈总动脉分叉处内膜呈弥漫性增厚, 最厚处3.94 mm(图1), 正常管壁三层结构消失, 血管外膜与周围组织分界模糊, 增厚处以等回声为主, 近边缘处呈带状低回声, 纵切面观示管壁呈“通心粉”征。右侧颈部I区、II区及III区见数个团状低回声, 较大者约16 mm×12 mm, 短长轴比值>0.5, 淋巴结内见淋巴门型血流信号。四肢动脉、肾动脉、脾动脉血管超声及超声心动图检查均未见异常。超声提示: 右侧颈总动脉中段及远心段管壁增厚, 考虑动脉炎性改变; 右侧颈部多发淋巴结肿大。患者转往上级医院诊治, 查见患者一般情况良好, 双手及足部见水泡疹, 前胸及后背可见毛囊炎, 四肢关节无红肿压痛, 右侧颈动脉处有压痛, 未闻及血管杂音, 余未见异常。实验室检查: C反应蛋白1.098 mg/dl, 白细胞介素-6 7.61 pg/ml, 红细胞沉降率28 mm/h; 血脂、血糖、肝功、肾功、HLA-B27、类风湿因子、抗链O、抗核抗体、抗双链DNA抗体均正常。超声造影检查: 右侧颈总

动脉管壁增厚处出现多发点线状增强, 管腔内可见增强。超声造影提示: 右侧颈总动脉管壁增厚处活动性病变可能性大。全身骨显像检查: 右侧第1前肋及上、下颌骨见放射性摄取增高灶; 余全身骨显像未见异常。全身骨显像提示: 右侧第1前肋异常结合临床符合SAPHO综合征病变累及所致; 上、下颌骨异常考虑炎性病变可能性大。临床诊断为SAPHO综合征, 给予柳氮磺胺嘧啶(1.0 g, 2次/d)治疗3个月后, 复查C反应蛋白、白细胞介素-6及红细胞沉降率均正常。加用甲氨蝶呤片(每次7.5 mg, 每周1次)治疗2个月后因肝功能异常停药, 改为托法替布(每次5 mg, 2次/d)治疗至今。

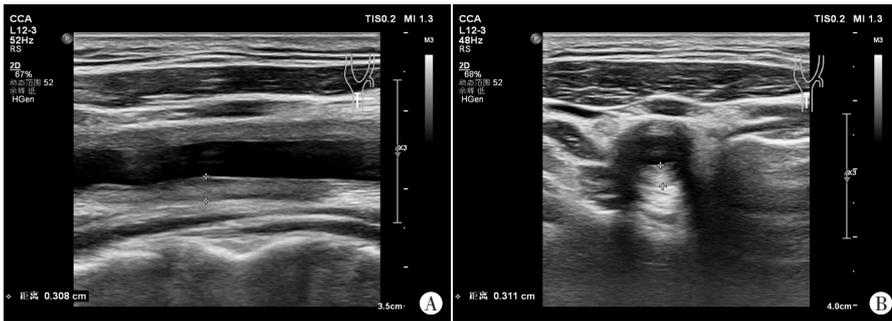
7个月前患者来我院随访, 未见新发皮疹, 关节无疼痛, 颈部无压痛。颈部常规超声检查: 右侧颈总动脉中段至颈总动脉分叉处内膜呈弥漫性增厚, 最厚处3.11 mm(图2), 正常管壁三层结构消失, 血管外膜与周围组织分界模糊, 增厚处以等回声为主, 近边缘处带状低回声变窄, 纵切面示管壁呈“通心粉”征。超声提示: 右侧颈总动脉中段及远心段管壁增厚程度较1年前好转; 右侧颈部未见淋巴结肿大。6个月前复查颈部常规超声: 右侧颈总动脉中段至颈总动脉分叉处内膜呈弥漫性增厚, 最厚处3.0 mm(图3), 正常管壁三层结构消失, 血管外膜与周围组织分界欠清, 增厚处呈等回声, 近边缘处带状低回声范围进一步缩小, 纵切面观示管壁呈“通心粉”征。超声提示: 右侧颈总动脉中段及远心段管壁增厚程度较前改变不明显。

讨论: SAPHO综合征是一组罕见的慢性无细菌性炎症性疾病, 发病原因尚未清楚, 目前多认为其是一种自身炎症性疾病, 可能与遗传因素、环境因素及免疫失调相关。有学者^[1]认为慢性扁桃体炎或其病原微生物可能与本病的发生、发展有关。SAPHO综合征较罕见, 临床诊断主要依据病史、症状、辅助检



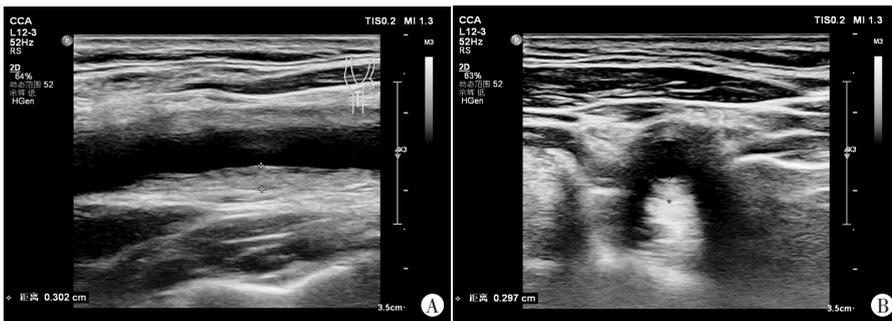
常规超声纵切面(A)和横切面(B)示右侧颈总动脉中段至颈总动脉分叉处内膜呈弥漫性增厚,最厚处3.94 mm

图1 1+年前初诊时颈部常规超声图



常规超声纵切面(A)和横切面(B)示右侧颈总动脉中段至颈总动脉分叉处内膜呈弥漫性增厚,最厚处3.11 mm

图2 7+个月前随访颈部常规超声图



常规超声纵切面(A)和横切面(B)示右侧颈总动脉中段至颈总动脉分叉处内膜呈弥漫性增厚,最厚处3.02 mm

图3 6+个月前随访颈部常规超声图

查,尚无明确的病理依据或特异性抗体。目前临床广泛应用2003年美国风湿病学会发布的SAPHO综合征诊断标准:①骨关节受累伴严重痤疮;②骨关节受累伴随掌趾脓疱病或指(趾)甲改变;③成人无菌型骨质增生/骨炎;④儿童慢性复发性多病灶性骨炎,符合以上任一标准即可诊断。本例患者存在多发性骨痛,影像学可见多发骨关节病灶性骨质破坏、硬化及增厚,皮肤存在痤疮和掌趾脓疱病,故诊断为SAPHO综合征。目前尚

未见SAPHO综合征合并颈动脉炎性改变的病例报道。既往有文献^[2-3]报道大动脉炎合并SAPHO综合征病例,具体发病原因不清。本例患者颈部超声表现为颈动脉内膜弥漫性增厚,正常管壁三层结构消失,血管外膜与周围组织分界模糊,增厚处以等回声为主,近边缘处呈带状低回声,纵切面观示管壁呈“通心粉”征。本病需与大动脉炎、动脉粥样硬化、纤维肌发育不良等鉴别:①大动脉炎多见于年轻女性,超声表现为动脉内膜呈向心性弥漫性增厚,正常血管壁结构消失,血管外膜与周围组织分界不清^[4]。本例患者颈动脉超声表现与大动脉炎相似,结合病史及体格检查可排除大动脉炎。②动脉粥样硬化多见于中老年,既往多有高血压、血脂异常、糖尿病等慢性病史,超声表现为动脉中内膜局限性增厚和斑块形成,多为偏心性,常合并强回声斑块。③纤维肌发育不良多见于年轻女性,超声表现为动脉管壁一系列隆起性病变,回声增强,可见“串珠样”改变。本例患者经抗炎及免疫抑制剂治疗,随访至今各项炎症指标均正常,未再出现皮疹及关节疼痛,超声检查提示右侧颈总动脉内膜增厚程度减轻,增厚处近边缘的带状低回声范围明显缩小。超声在SAPHO综合征颈动脉炎性改变的诊断、随访及疗效评估中有一定的临床价值。

参考文献

[1] 王轶,栾岚,赵杨,等.SAPHO综合征耳鼻喉表现的临床研究[J].医学研究杂志,2021,50(1):42-46.
 [2] 陆磊,孔令斌,邵莉.大动脉炎合并SAPHO综合征一例[J].中华风湿病学杂志,2021,25(4):253-254.
 [3] 刘存学,樊家俐,张慧敏,等.以胸痛起病的大动脉炎合并SAPHO综合征1例[J].中国分子心脏病学杂志,2021,21(6):4384-4386.
 [4] 苏娜.大动脉炎继发中主动脉综合征13例并文献回顾[D].长春:吉林大学,2022.

(收稿日期:2022-11-22)