

全身性紅斑狼瘡併發薦腸關節炎的不同原因：二例病例報告

羅位庸、劉烈邦、蔡文彬

林口長庚紀念醫院風濕過敏免疫科

摘要

一般而言，薦腸關節炎並不常見於全身性紅斑狼瘡的病人。本篇我們提出兩位紅斑性狼瘡的病人合併薦腸關節炎之病例報告並探討其原因。第一個病人同時符合了紅斑性狼瘡及僵直性脊椎炎的診斷準則。該患者表現典型之發炎性下背痛，同時骨盆腔攝影可見兩側第二級的薦腸關節炎，以及人類白血球抗原（HLA-B27）陽性反應。第二個病人在確定全身性紅斑狼瘡後，有非典型的發炎性下背痛，骨盆腔攝影顯示左側第二級的薦腸關節炎，而 HLA-B27 是陰性反應。此病人並不符合僵直性脊椎炎的診斷，他的薦腸關節炎最可能是由於紅斑性狼瘡侵犯的結果。我們的結論是紅斑性狼瘡合併薦腸關節炎時應由不同的方向來考慮。典型的發炎性下背痛症狀以及 HLA-B27 的陽性反應可做為鑑別診斷的參考依據。

關鍵字：全身性紅斑狼瘡（Systemic lupus erythematosus）、
薦腸關節炎（Sacroiliitis）、
僵直性脊椎炎（Ankylosing Spondylitis）

介紹

薦腸關節炎是僵直性脊椎炎的標記。薦腸關節炎也可見於萊特氏症候群，乾癱性關節炎，腸病變性關節炎，貝塞氏症。除此之外，薦腸關節的病變原因，還包括感染（細菌，結核菌，黴菌），退化性關節炎，類風濕關節炎¹，緻密性腸骨炎，Paget's disease，痛風，副甲狀腺機能亢進，下肢癱瘓^{2,3}，以及惡性腫瘤轉移等。全身性紅斑狼瘡侵犯到薦腸關節炎是相當少見的（在 X 光片上顯現者）。在過去有關於紅斑性狼瘡合併薦腸關節炎的文獻報告中，薦腸關節炎合併紅斑性狼瘡的病例，較常見於男性的病人，可能有輕微的症狀，也可能沒有。薦腸關節炎一般由骨盆腔攝影來診斷，但是早期的薦腸關節炎有時卻無法由骨盆腔攝影來診斷。在這種情形下，可以由核磁共振掃描，電腦斷層攝影⁴，或是核子醫學檢查來做早期診斷⁵。這裡我們提出兩例薦腸關節炎已有 X 光變化的病例報告，並討論紅斑性狼瘡合併薦腸關節炎相關的各種原因。

病例報告

病例一：Y 先生是一位 28 歲的男性病人，他在 1995 年被診斷為僵直性脊椎炎。

他的病狀包括有典型的發炎性下背痛（慢性發作，持續 3 個月以上，合併晨間僵硬，症狀在運動後獲得緩解）。骨盆腔攝影可以見到兩側第二級的薦腸關節炎（圖 1, 2）。在理學檢查方面，包括薦腸關節處壓痛，Schober 檢查：3.5 公分（評估腰椎向前彎曲受限的程度，正常值大於 5 公分），Occiput-to-wall test：1.5 公分（腳跟合併貼壁，枕骨靠牆站立時，枕骨與牆的距離，正常值是 0 公分），胸部擴展測驗是 6.5 公分（由第四肋間處測量胸廓在吐氣末至完全吸氣時增加的程度，正常的年輕人大於 5 公分）。這些特徵符合了僵直性脊椎炎的診斷（1984 年修正的紐約準則）。他的人类白血球抗原 B-27 是陽性反應。除此之外，他沒有尿道或腸胃道症狀，沒有乾癬皮膚病灶，無手部關節炎，且從未有痛風關節炎的症狀。在 1997 年這位病人病情發生新的變化，包括發燒及蝴蝶斑，抗核抗體陽性 1：640（均質型），蛋白尿（每天流失尿蛋白 0.91 克），抗雙股去氧核糖核酸抗體(anti-ds-DNA antibody) >2000 IU/ML（正常值 <40），白血球數目低下（兩次檢查為 2890 /mm³ 及 3000 /mm³）及低補體血症（C3c：52.4 mg%，C4：18 mg%，正常值是 C3c：73-134 mg%，C4：18.2-45.5 mg%）。Y 先生在確定紅斑性狼瘡的診斷後，開始服用 prednisolone 每天 20mg，hydroxychloroquine 及 naproxen 的治療。在日後的門診追蹤中，Y 先生的下背痛以及晨間僵硬的程度，與 C-反應蛋白質的高低有關，而與補體值或抗雙股去氧核糖核酸抗體值無關。在其中兩次門診追蹤中，病人只有輕微的下背痛，且無晨間僵硬，也沒有明顯的狼瘡症狀。此時，病人的 CRP 值是正常的，相當符合僵直性脊椎炎的臨床症狀緩解變化。C3c, C4 也在正常範圍。這代表無論是僵直性脊椎炎或紅斑狼瘡都在不活動期。而在另一次的追蹤中，CRP 上升至 25.3 mg/L，而 C3c, C4 則在正常範圍。病人有嚴重的下背痛及晨間僵硬，但是沒有明顯的狼瘡症狀。這支持了病人的薦腸關節炎應是來自於僵直性脊椎炎，而與紅斑狼瘡無關。在 2000 年時，追蹤此病患的骨盆腔 X 光片，發現與五年前的薦腸關節炎程度並無差別。

病例二：LD 先生是四十歲的男性病人，在 1997 年診斷全身性紅斑狼瘡，符合的診斷標準有蝴蝶斑，肋膜炎，抗核抗體陽性反應（1：640，均質型），抗雙股去氧核糖核酸抗體大於 2000 IU/ML，口腔潰瘍，關節炎，白血球數低下（兩次為 3700 /mm³ 及 3300 /mm³），以及蛋白尿。他同時也有補體低下的情形。兩年後，病人開始有下背疼痛的情形，但無晨間僵硬，也不會在運動後獲得緩解。Schober 測驗，occiput-to-wall 測驗，及胸部擴張測驗，都在正常範圍內。骨盆腔攝影顯示只有左側第二級薦腸關節炎（圖 3, 4），人类白血球抗原 HLA-B27 是陰性反應。他的症狀表現並不符合僵直性脊椎炎的診斷標準，下背痛的程度在非類固醇抗發炎止痛藥治療後逐漸改善。而在其後一年的追蹤治療中，骨盆腔 X 光片並沒有明顯進一步的變化，也沒有出現其他反應性關節炎，腸病變性關節炎，乾癬性關節炎的症狀。感染性關節炎的可能性亦極小，因為病人並沒有出現發燒，白血球上升的情形，或其他感染來源的證據（尤其比照前後一年骨盆腔 X 光片無差別）。也沒有結核菌感染或惡性腫瘤的證據。我們認為是紅斑性狼瘡侵犯薦腸關節的結果。

討論

發炎性下背痛（常見於僵直性脊椎炎，乾癱性關節炎，反應性關節炎，萊特氏症候群等），必須和非發炎性關節炎（即機械性關節炎，如扭傷，椎間盤突出，退化，骨質疏鬆等）做鑑別診斷。發炎性下背痛常見的症狀，包括背部疼痛開始的年齡小於四十歲，慢慢的開始發作，症狀持續超過三個月，合併晨間僵硬，運動可以改善症狀。此外 HLA-B27 和僵直性脊椎炎，萊特氏症候群，反應性關節炎，乾癱性關節炎，腸病變性關節炎等有相當的關聯性。我們認為可以由發炎性下背痛症狀，以及 HLA-B27，來做為全身性紅斑狼瘡合併薦腸關節炎的鑑別診斷之參考依據。薦腸關節炎並不常見於紅斑性狼瘡的病人，Nashel 等人以及 Oliveri 等人作過僵直性脊椎炎合併紅斑性狼瘡的報告。報告中的病人都同時有人類白血球抗原 HLA-DR3 以及 HLA-B27 的基因（分別是和紅斑性狼瘡以及僵直性脊椎炎有關的基因）^{6,7}。後來，Kohli 和 Bennete 也做過紅斑性狼瘡併發薦腸關節炎的報告，結論則是僵直性脊椎炎合併紅斑性狼瘡並不是只由基因來決定的。薦腸關節炎可能是紅斑性狼瘡之不尋常的表現⁸。本報告中的第一個病人，是罕見的紅斑性狼瘡合併僵直性脊椎炎的例子。僵直性脊椎炎的診斷是根據典型的發炎性下背痛並持續三個月，骨盆腔攝影有兩側第二級薦腸關節炎，他的人類白血球抗原 HLA-B27 則是陽性反應。但是並沒有人類白血球抗原 HLA DR-2 或是 HLA-DR3。而在確定僵直性脊椎炎後兩年，紅斑性狼瘡才發生。尤其前後五年間隔 X 光片之無變化確可支持並無細菌感染或惡性腫瘤轉移的可能性。而第二個病患的薦腸關節炎推斷是紅斑性狼瘡所造成的。其表現則為非典型的下背痛，而他的人類白血球抗原 HLA-B27 為陰性。在過去的文獻報告中，紅斑性狼瘡侵犯到薦腸關節的病例，主要發生在男性的病人，症狀大多輕微，或者沒有症狀。第二個病患符合這些描述^{9,10,11}。此外他的 HLA-B27 是陰性反應。這兩個病患在追蹤治療的過程中，都沒有出現其他自體免疫疾病或感染性關節炎的現象，如白血球增多，發燒，畏寒，大腸炎，乾癱病變，反覆的鵝口瘡，虹彩炎，結核，或癌症轉移的證據，都支持我們的看法。我們的結論是，當發現全身性紅斑狼瘡表現薦腸關節炎時，必須做不同病因的鑑別診斷。典型的發炎性下背痛症狀及 HLA-B27 陽性反應是做鑑別診斷的重要參考依據。

作者感謝長庚醫學研究計劃（CMRP 1022）的支助

Reference

1. Olivieri I. et al. Differential diagnosis between osteitis condansans ilii and sacroiliitis. *J Rheumatol.* 1990;17:1504-12.
2. Khan MA, Kushner I, Freehafer AA. Sacroiliac joint abnormal in paraplegia. *Ann Rheum Dis* 1979;38:317-9.
3. Bhate DV, Pizzaro AJ, Seitam A, Mak EB. Axial skeletal changes in paraplegia. *Radiology.* 1979;133:55-8.
4. Wilkinson M, Meikle JAK. Tomography of sacroiliac joints. *Ann Rheum Dis* 1966;25:433-40.
5. Kjallman M, Nylen O, Hanses M. Evaluation of quantitative sacroiliac scintigraphy in the early diagnosis of ankylosing spondylitis. *Scand J Rheumatol* 1986;15:265-71
6. Nashel DJ, Leonard A, Mann DL, Guccion JG, Katz AL, Sliwinssiki AJ. Ankylosing spondylitis and systemic lupus erythematosus: a rare HLA combination. *Arch Intern Med* 1982;142:1227-8.
7. Olivieri I, Gemignani G, Balagi M, Pasquariello A, Gremignai G, Pasero G. Concomitant systemic lupus erythematosus and ankylosing spondylitis. *Ann Rheum Dis* 1990;49:323-4.
8. M Kohli, Bennett RM. Sacroilitis in systemic lupus erythematosus. *J Rheumatol* 1994;170-1.
9. Nasonova VA, Aiekberova ZS, FoIomeyer M Yu, mylov NM. Sacroiliitis in male systemic lupus erythematosus. *Scand J Rheumatol* 1984;suppl 52:23-9.
10. Gosset D, Foucher C, Lecouffe P, Savinel P. Asymptomatic sacroiliitis in systemic lupus erythemaatosus. *J Rheumatol* 1988;15:152-3.
11. Vivas J, Tiliakos NA. Sacroiliitis in male systemic lupus erythematosus. *Scand J Rheumatol* 1985;14:441.

圖片說明



圖 1：病例一的骨盆腔攝影（anterior-posterior view）顯示兩側第二級薦腸關節炎，包括兩側局部侵蝕以及軟骨下硬化的變化。



圖 2：病例一的骨盆腔攝影（Ferguson view）可見更清楚的變化。



圖 3：病例二的骨盆腔攝影（anterior-posterior view）顯示左側第二級薦腸關節炎，包括軟骨下硬化以及微小侵蝕的變化。（病人接受兩側人工髖關節置換術之前）

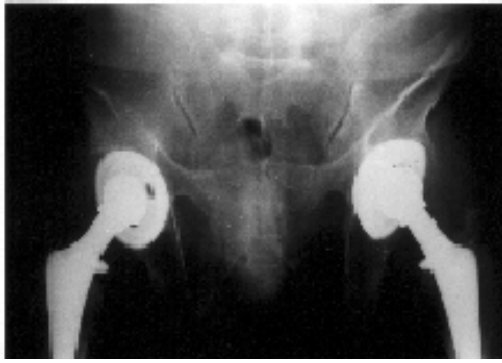


圖 4：病例二的骨盆腔攝影（Ferguson view）可見類似的變化。（病人已接受兩側人工髖關節置換術）

Different Causes of Sacroiliitis Associated with Systemic Lupus Erythematosus : Report of Two Cases

Wei-Yung Lo, Lieh-bang Liou, and Wen-Pin Tsai

Division of Rheumatology, Allergy and Clinical Immunology,
Chang Gung Memorial Hospital

Abstract

Sacroiliac joints are not, as a rule, involved in systemic lupus erythematosus (SLE). We collect two cases of SLE patients with sacroiliitis that were due to different causes. These two patients were all male. The first patient fulfilled the diagnostic criteria for ankylosing spondylitis before SLE was diagnosed (obvious sacroiliitis, positive human leukocyte antigen (HLA)-B27, and typical inflammatory low back pain). The second patient with SLE developed low back pain and was found to have left sacroiliitis on pelvis anteroposterior film. He had a negative HLA-B27 test, and presented with atypical low back pain. Hence, his sacroiliitis was most likely to be an infrequent manifestation of SLE. We conclude that the etiological diagnosis of sacroiliitis in SLE can be possibly made based on HLA-B27 and typical inflammatory low back pain. Therefore, it is suggested that different aspects of sacroiliitis should be considered in patients with SLE.