

Подагра с тофусом, имитирующим опухоль грудного отдела позвоночника

Сороцкая В.Н.¹, Елисеев М.С.²

¹Медицинский институт ФГБОУ ВО «Тульский государственный университет» Минобрнауки России, Тула, Россия; ²ФГБНУ «Научно-исследовательский институт ревматологии им. В.А. Насоновой», Москва, Россия
¹300028 Тула, ул. Болдина, 128;
²115522, Москва, Каширское шоссе, 34А

¹Medical Institute, Tula State University, Ministry of Education and Science of Russia, Tula, Russia;
²V.A. Nasonova Research Institute of Rheumatology, Moscow, Russia
¹128, Boldin St., Tula 300028; ²34A, Kashirskoe Shosse, Moscow 115522

Контакты: Максим Сергеевич Елисеев;
 elicmax@rambler.ru

Contact:
 Maxim Eliseev;
 elicmax@rambler.ru

Поступила 01.11.17

В статье представлен редкий случай поражения грудного отдела позвоночника у пациента 28 лет с подагрой, проявившийся острой неврологической симптоматикой (парапарез нижних конечностей с нарушением функции органов малого таза) и потребовавший экстренного хирургического вмешательства. Отдельно обсуждены подобные случаи, описанные ранее, включая возможные варианты клинических проявлений, локализации тофусов, хирургического лечения, факторов риска аксиального варианта формирования тофусов.

Ключевые слова: подагра; тофусы; поражение поясничного отдела позвоночника при подагре.

Для ссылки: Сороцкая ВН, Елисеев МС. Подагра с тофусом, имитирующим опухоль грудного отдела позвоночника. Научно-практическая ревматология. 2018;56(1):113-116.

GOUT WITH TOPHUS MIMICKING A TUMOR OF THE THORACIC SPINE

Sorotskaya V.N.¹, Eliseev M.S.²

The paper describes a rare case of thoracic spine involvement in a 28-year-old patient with gout that was manifested by acute neurologic symptoms (lower extremity paresis with pelvic organ dysfunction) and that required emergency surgery. Similar cases that are previously described, including the possible variants of the clinical manifestations, tophus localization, surgical treatment, risk factors for axial tophus formation, are separately discussed.

Keywords: gout; tophi; lumbar spine involvement in gout.

For reference: Sorotskaya VN, Eliseev MS. Gout with tophus mimicking a tumor of the thoracic spine. Nauchno-Prakticheskaya Revmatologiya = Rheumatology Science and Practice. 2018;56(1):113-116 (In Russ.).

DOI: <http://dx.doi.org/10.14412/1995-4484-2018-113-116>

Подагра — хроническое аутовоспалительное заболевание, развитие которого связано со стойкой гиперурикемией. Она обусловлена внешнесредовыми и/или генетическими факторами и приводит к формированию в различных тканях кристаллов моноурата натрия, индуцирующих воспаление [1, 2]. Распространенность подагры в Европе достигает 2,5% (Великобритания), в США — почти 4%, и она является самой частой причиной острого артрита [3, 4].

Если гиперурикемия адекватно не контролируется, заболевание непрерывно прогрессирует: вначале возникает симптоматическая гиперурикемия, которая сопровождается формированием кристаллов моноурата натрия при отсутствии клинической симптоматики, затем появляются приступы острого подагрического артрита, классические атрибуты которого — поражение I плюснефаланговых, плюсневых суставов, реже — голеностопных, коленных, локтевых, еще реже — лучезапястных, плечевых суставов, мелких суставов верхних конечностей. Позднее происходит постепенная хронизация артрита, в патологический процесс вовлекаются новые суставы, формируются подкожные тофусы, типичная локализация которых — локтевые сгибы, I пальцы стоп, ушные раковины, хотя они могут располагаться и в области мелких суставов кистей (чаще у женщин и в пожилом возрасте), а также сухожилий,

однако осевое поражение суставов, особенно позвоночника, и рост тофусов в данной части тела считаются хоть и не казуистической, но редкостью [5–9].

Тофус представляет собой скопление кристаллов моноурата натрия в виде макроскопического субстрата. От появления первых клинических признаков подагры до формирования подкожных тофусов проходит в среднем около 10 лет, но в некоторых случаях, например при массивной терапии глюкокортикоидами, приеме диуретиков, злоупотреблении алкоголем, при тяжелой патологии почек, в том числе у пациентов с посттрансплантационной подагрой, принимающих циклоспорин А, они могут возникать довольно быстро, а иногда их появление даже предшествует другим клиническим проявлениям заболевания [6, 10]. Поражение позвоночника при этом традиционно относят к наиболее поздним проявлениям подагры.

Вовлекаться в патологический процесс могут любые отделы позвоночника. По данным J.C. King и соавт. [11], почти в половине случаев (44%) это поясничный, чуть реже (39%) — шейный и в одном из шести случаев (17%) — грудной отдел. Тем удивительнее обнаружение подобных случаев поражения позвоночника, особенно грудного отдела, в молодом возрасте, вскоре после дебюта подагры.

Приводим описание такого случая.

Пациент К., 27 лет. Первый приступ острого артрита произошел у него в возрасте 21 года, когда развился типичный для подагры артрит I плюснефалангового сустава (внезапное начало, в течение нескольких часов усиление боли до максимальной, появление гиперемии, припухлости, гипертермии сустава, функциональных ограничений из-за сильнейшей боли), который был за несколько дней самостоятельно купирован с помощью приема нестероидных противовоспалительных препаратов (НПВП). Среди факторов риска подагры у пациента — алиментарное ожирение с детского возраста (на момент обращения масса тела — 135 кг при росте 195 см, индекс массы тела — 35,5 кг/м²). В дальнейшем приступы рецидивировали, тем не менее, учитывая хорошую эффективность НПВП, к врачам не обращался. Через 4 года от дебюта болезни стали беспокоить боли в грудном отделе позвоночника, был консультирован неврологом, поставлен диагноз «остеохондроз». Симптоматическая терапия, включавшая короткие курсы НПВП, на данном этапе также была эффективной и на время полностью купировала боль. Тогда же отметил появление подкожных узлов, вначале на локтевых сгибах, затем — на ушных раковинах, в области суставов стоп, позже — кистей. Уровень мочевой кислоты (МК) в крови не контролировал.

Еще через 2 года, в 27 лет, у больного остро развилась неврологическая симптоматика: усиление болей в грудном отделе позвоночника, онемение и слабость в нижних конечностях, задержка мочеиспускания более суток. Экстренно был госпитализирован в ЦРБ г. Тула, где диагностирован парализующий нижних конечностей с нарушением функции органов малого таза, по результатам магнитно-резонансной томографии (МРТ) — подозрение на опухолевый процесс Th_{VII–IX} (рис. 1). По данным компьютерной томографии (КТ) и КТ с контрастированием (юбнигексол 80 мл внутривенно) — участки костной деструкции на уровне поперечных отростков тел Th_{VII–IX} позвонков преимущественно справа с распространением мягкотканного компонента интравертебрально с выраженной компрессией структур спинного мозга (рис. 2). При этом накопления контрастного препарата в зоне поражения выявлено не было.

Тогда же был оперирован. Из протокола оперативного вмешательства: «...проведена ламинэктомия Th_{VII–IX}.

Удалена экстрадуральная опухоль на уровне поперечных отростков Th_{VII–IX} справа».

Однако по результатам морфологического исследования опухолевые клетки обнаружены не были, выявлены «элементы поперечно-полосатой мышечной, пластинчатой костной ткани, а также структуры с преобладанием полиморфных многоядерных гигантских клеток, которые местами формируют скопления вокруг мономорфных бледно-эозинофильных масс с включениями кристаллов». Было сделано заключение о соответствии указанных изменений подагре.

При осмотре определялись бурситы в области локтевых суставов, там же — подкожные тофусы. Кроме того, визуализировались тофусы на ушных раковинах, в области дистальной фаланги IV пальца правой кисти, III пальца левой кисти, левой пятки.

Сывороточный уровень МК во время госпитализации составлял 593–628 мкмоль/л, креатинина — 76 мкмоль/л.

Ультразвуковое исследование выявило мелкие гиперэхогенные включения с выраженной эхогенностью в структуре чашечно-лоханочной системы обеих почек.

После оперативного лечения неврологическая симптоматика полностью регрессировала, была инициирована терапия аллопурином в стартовой дозе 100 мг/сут с постепенным увеличением до 600 мг/сут (уже амбулаторно).

На настоящий момент описано немногим более 20 случаев поражения грудного отдела позвоночника при подагре. Недавно было опубликовано описание случая компрессии спинного мозга экстрадуральными тофусными депозитами на уровне Th_{X–XI} у женщины 52 лет с неконтролируемой подагрой, чуть раньше появилось сообщение о развитии у 43-летнего мужчины парализующего нижних конечностей, вызванного тофусными массами, на том же уровне (Th_{X–XI}) с исходным подозрением на мягкотканый абсцесс [12–14]. По данным R.M. Konatalapalli и соавт. [15], у пациентов с длительностью подагры >3 лет при проведении КТ изменения позвоночника, которые расцениваются как проявления подагры (внутрикостные тофусы), обнаруживаются в 35% случаев. Это сопоставимо с частотой обнаружения соот-

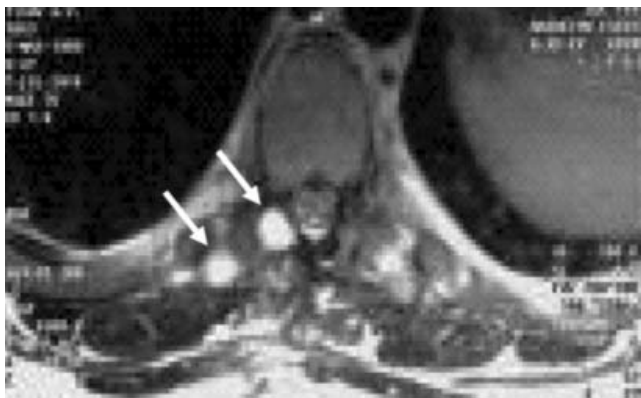


Рис. 1. МРТ грудного отдела позвоночника и спинного мозга пациента К. T2-изображение в диффузионно-взвешенном режиме демонстрирует наличие изо- и гиперинтенсивных мягкотканых структур в области поперечных отростков и дужек на уровне Th_{VII–IX} (указаны стрелками)

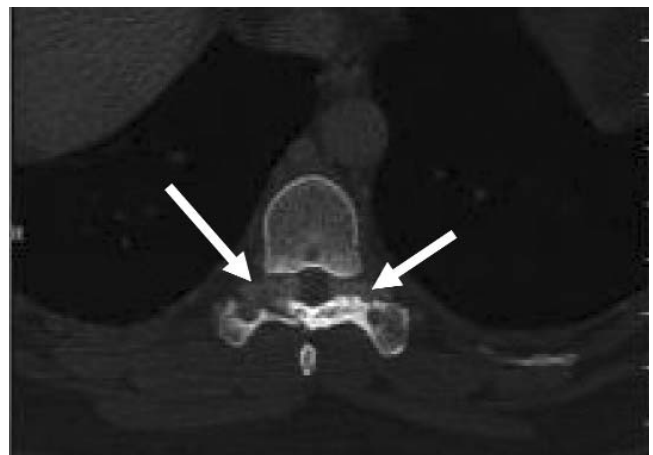


Рис. 2. КТ с контрастированием (юбнигексол 80 мл внутривенно): участки костной деструкции на уровне поперечных отростков Th_{VII}, больше справа (указаны стрелками)

ветствующих изменений при рентгенографии стоп, являющейся одним из обязательных компонентов диагностики заболевания.

Конкретная локализация поражения позвоночника при подагре, определяющая клиническую симптоматику, весьма различна. Могут паравертебрально поражаться мягкие ткани, анатомические компоненты позвоночника, например фасеточный сустав, тело, ножка и сама дужка позвонков, желтая связка. Помимо боли, такие изменения могут проявляться компрессионными синдромами, параличом, плегиями, задержкой мочеиспускания, синдромом конского хвоста, сенсорными нарушениями, туннельными синдромами, мышечной слабостью и другими симптомами миелопатии, имитируя метастазы, инфекционные процессы тел позвонков, перидуральный абсцесс, спондилит [12–24]. В нашем случае формирование подагрического тофуса привело к компрессии спинного мозга на уровне Th_{VII–IX}, проявившейся парапарезом и задержкой мочеиспускания. Кроме того, по данным КТ была выявлена костная деструкция поперечных отростков на этом уровне, а отсутствие накопления контрастного препарата в данной зоне показало аваскулярную структуру образования, что не характерно для опухолевых заболеваний и могло поставить диагноз опухоли под сомнение уже на этом этапе, особенно учитывая явные клинические проявления подагры, включая подкожные тофусы. С другой стороны, контрастирование может демонстрировать гомогенное или гетерогенное маргинальное усиление сигнала, если структурно тофус помимо кристаллов моноурата содержит хорошо васкуляризованную фиброзную ткань, наличие которой обусловлено хроническим микрокристаллическим воспалением [11, 25].

Гистологическая картина, как и в описанном нами случае, бывает представлена, помимо собственно тофусных масс, многоядерными гигантскими клетками (гистиоцитами) [12]. При этом в случае плохой подготовки биоптата кристаллы могут и не обнаруживаться, так как они растворяются в формалине.

Имевшаяся у пациента локализация тофусов (Th_{VII–IX}) встречается наиболее часто (для грудного отдела это Th_{VII–X}). У таких больных самым частым вариантом оперативного вмешательства является ламинэктомия (более 2/3 описанных случаев) [12–14].

Однако столь молодой возраст (27 лет) не был зафиксирован ни в одном из 24 опубликованных ранее случа-

ев поражения подагрой грудного отдела [12–14]. Группой авторов из Тайваня описано развитие острой параплегии и потери чувствительности ниже пупка у пациента 28 лет, страдающего подагрой на протяжении 5 лет, с выявленным поражением грудного отдела позвоночника на уровне Th_{IX–XI} [26]. Как и в большинстве других случаев, больному потребовалось экстренное хирургическое вмешательство.

Интересно, что тофусы в позвоночнике нередко бывают изолированными и не сочетаются с подкожными тофусами. Зачастую они формируются уже в первые годы (описаны потребовавшие оперативного вмешательства случаи поражения грудного отдела уже через 2 года от первого приступа подагрического артрита) [25, 26].

Хотя этиопатогенез депонирования кристаллов в осевом скелете не изучен, есть мнение, что исходное наличие дегенеративных заболеваний позвоночника, тканевые некрозы, травмы позвоночника могут быть триггерными факторами подобных процессов [11, 27–29]. В нашем случае подобных факторов, ассоциирующихся с увеличенным риском образования тофусов, не было. Но локализация поражения именно в нижней части грудного отдела, встречающаяся в большинстве случаев, возможно, связана с большей вероятностью травмирования именно этой зоны [12].

В заключение необходимо подчеркнуть, что мы ставили перед собой цель не только описать редкий случай тяжелой подагры с необычными проявлениями, включая парапарез и тазовые расстройства, и требующий экстренной хирургической помощи, но и привлечь внимание к проблеме подагры, поскольку несвоевременная диагностика, неадекватная терапия, неправильная трактовка симптомов заболевания – основные причины того, что подобные случаи не стали встречаться реже и, более того, уже не воспринимаются как казуистические.

Прозрачность исследования

Исследование не имело спонсорской поддержки. Авторы несут полную ответственность за предоставление окончательной версии рукописи в печать.

Декларация о финансовых и других взаимоотношениях

Все авторы принимали участие в разработке концепции статьи и в написании рукописи. Окончательная версия рукописи была одобрена всеми авторами. Авторы не получали гонорар за статью.

ЛИТЕРАТУРА

1. Насонова ВА, Барскова ВГ. Ранняя диагностика и лечение подагры – научно обоснованное требование улучшения трудового и жизненного прогноза больных. Научно-практическая ревматология. 2004;42(1):5–7 [Nasonova VA, Barskova VG. Early diagnostic and treatment of gout – is scientifically based requirements for improvement of labour and living prognosis of patients. *Nauchno-Prakticheskaya Revmatologiya = Rheumatology Science and Practice*. 2004;42(1):5–7 (In Russ.)]. doi: 10.14412/1995-4484-2004-1374
2. Насонов ЕЛ, Елисеев МС. Роль интерлейкина 1 в развитии заболеваний человека. Научно-практическая ревматология. 2016;54(1):60–77 [Nasonov EL, Eliseev MS. Role of interleukin 1 in the development of human diseases. *Nauchno-Prakticheskaya Revmatologiya = Rheumatology Science and Practice*. 2016;54(1):60–77 (In Russ.)]. doi: 10.14412/1995-4484-2016-60-77
3. Kuo CF, Grainge MJ, Mallen C, et al. Rising burden of gout in the UK but continuing suboptimal management: a nationwide population study. *Ann Rheum Dis*. 2015;74(4):661–7. doi: 10.1136/annrheumdis-2013-204463
4. Zhu Y, Pandya BJ, Choi HK. Prevalence of gout and hyperuricemia in the US general population: the National Health and Nutrition Examination Survey 2007–2008. *Arthritis Rheum*. 2011;63(10):3136–41. doi: 10.1002/art.30520
5. Dalbeth N, Stamp L. Hyperuricaemia and gout: time for a new staging system? *Ann Rheum Dis*. 2014;73:1598–600. doi: 10.1136/annrheumdis-2014-205304
6. Perez-Ruiz F, Castillo E, Chinchilla SP, Herrero-Beites AM. Clinical manifestations and diagnosis of gout. *Rheum Dis Clin North Am*. 2014 May;40(2):193–206. doi: 10.1016/j.rdc.2014.01.003

7. Елисеев МС. Алгоритм диагностики и лечения подагры. Русский медицинский журнал. 2015;23(7):410-4 [Eliseev MS. Algorithm for the diagnosis and treatment of gout. *Russkii Meditsinskii Zhurnal*. 2015;23(7):410-4 (In Russ.)].
8. Елисеев МС, Барскова ВГ, Денисов ИС. Динамика клинических проявлений подагры у мужчин (данные 7-летнего ретроспективного наблюдения). Терапевтический архив. 2015;87(5):10-5 [Eliseev MS, Barskova VG, Denisov IS. Dynamics of clinical manifestations of gout in men (data from a 7-year retrospective observation). *Terapevticheskii Arkhiv*. 2015;87(5):10-5 (In Russ.)].
9. Елисеев МС. Поражение позвоночника при подагре. Русский медицинский журнал. 2016;24(2):85-9 [Eliseev MS. Spine injury in gout. *Russkii Meditsinskii Zhurnal*. 2016;24(2):85-9 (In Russ.)].
10. Wernick R, Winkler C, Campbell S. Tophi as the initial manifestation of gout. Report of six cases and review of the literature. *Arch Intern Med*. 1992;152:873-6. doi: 10.1001/archinte.1992.00400160155032
11. King JC, Nicholas C. Gouty arthropathy of the lumbar spine: a case report and review of the literature. *Spine (Phila Pa 1976)*. 1997;22:2309-12. doi: 10.1097/00007632-199710010-00023
12. Zheng Z-F, Shi H-L, Xing Y, et al. Thoracic cord compression due to ligamentum flavum gouty tophus: a case report and literature review. *Spinal Cord*. 2015;53:881-6. doi: 10.1038/sc.2015.93
13. Arevalo-Saenz A, Gonzalez-Alvaro I, Pulido-Rivas P, et al. Medullar thoracic compression by tophaceous gout: presentation of a case and review of the literature. *Rev Neurol*. 2017;65(8):368-72.
14. Subrati N, Werndle MC, Tolias CM. Spinal tophaceous gout encasing the thoracic spinal cord. *BMJ Case Rep*. 2016 Oct 4;2016. pii: bcr2016214869.
15. Konatalapalli RM, Lumezanu E, Jelinek JS, et al. Correlates of axial gout: a cross-sectional study. *J Rheumatol*. 2012;9:1445-9. doi: 10.3899/jrheum.111517
16. Thornton FJ, Torreggiani WC, Brennan P. Tophaceous gout of the lumbar spine in a renal transplant patient: a case report and literature review. *Eur J Radiol*. 2000;36(3):123-5. doi: 10.1016/S0720-048X(00)00214-X
17. Ntsiba H, Makosso E, Moyikoua A. Thoracic spinal cord compression by a tophus. *Joint Bone Spine*. 2010;77(2):187-8. doi: 10.1016/j.jbspin.2009.12.004
18. Hasturk AE, Basmaci M, Canbay S, et al. Spinal gout tophus: a very rare cause of radiculopathy. *Eur Spine J*. 2012;21:S400-3. doi: 10.1007/s00586-011-1847-x
19. Dharmadhikari R, Dilley P, Hide IG. A rare cause of spinal cord compression: imaging appearances of gout of the cervical spine. *Skeletal Radiol*. 2006;35:942-5. doi: 10.1007/s00256-006-0088-2
20. Chan AT, Leung JL, Sy AN, et al. Thoracic spinal gout mimicking metastasis. *Hong Kong Med J*. 2009;15:143-5.
21. Елисеев МС, Мукагова МВ, Смирнов АВ и др. Атипичная подагра: тофусное поражение позвоночника. Научно-практическая ревматология. 2013;51(5):586-9 [Eliseev MS, Mukagova MV, Smirnov AV, et al. Atypical gout: spinal tophaceous injury. *Nauchno-Prakticheskaya Revmatologiya = Rheumatology Science and Practice*. 2013;51(5):586-9 (In Russ.)]. doi: 10.14412/1995-4484-2013-1553
22. Cabot J, Mosel L, Kong A, Hayward M. Tophaceous gout in the cervical spine. *Skeletal Radiol*. 2005;34:803-6. doi: 10.1007/s00256-005-0920-0
23. Sanmillan Blasco JL, Vidal Sarro N, Marnov A, et al. Cervical cord compression due to intradiscal gouty tophus. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2012;37:E1534-6. doi: 10.1097/BRS.0b013e31826f2886
24. Bonaldi VM, Duong H, Starr MR, et al. Tophaceous gout of the lumbar spine mimicking an epidural abscess: MR features. *AJNR Am J Neuroradiol*. 1996;17(10):1949-52.
25. Hsu CY, Shih TT, Huang KM, et al. Tophaceous gout of the spine: MR imaging features. *Clin Radiol*. 2002;57:919-25. doi: 10.1053/crad.2001.1001
26. Wang LC, Hung YC, Lee EJ, Chen HH. Acute paraplegia in a patient with spinal tophi: a case report. *J Formos Med Assoc*. 2001;100:205-8.
27. Dhote R, Roux FX, Bachmeyer C, et al. Extradural spinal tophaceous gout: evolution with medical treatment. *Clin Exp Rheumatol*. 1997;15:421-3.
28. Beier CP, Hartmann A, Woertgen C, et al. A large, erosive intraspinal and paravertebral gout tophus. Case report. *J Neurosurg Spine*. 2005;3:485-7. doi: 10.3171/spi.2005.3.6.0485
29. Draganescu M, Leventhal LJ. Spine gout: case report and review of the literature. *J Clin Rheumatol*. 2004;10:74-9. doi: 10.1097/01.rhu.0000120898.82192.f4