



[DOI] 10.3969/j.issn.1001-9057.2020.02.022

http://www.lcnkzz.com/CN/10.3969/j.issn.1001-9057.2020.02.022

· 病例报告 ·

皮炎炎合并坏死性筋膜炎一例

朱兴旺 左芳芳 宣亚男 陈国奋 肖长虹

[关键词] 皮炎炎; 坏死性筋膜炎; 结核杆菌

患者,男,57岁,因“全身多关节对称性肿痛伴四肢乏力、肌肉酸痛2周”于2018年5月首次就诊于我科。患者2周前开始出现双侧手多关节、肩关节、肘关节肿痛,曾至外院予消炎止痛等对症治疗症状无明显改善,后关节肿痛逐渐加重,并累及双侧膝、踝关节,伴乏力、肌肉酸痛、肢体活动困难,同时出现双侧手掌、指腹、甲周及背部皮疹,来我院就诊。入院体格检查:体温36.5℃,脉搏86次/分,呼吸18次/分,血压134/75 mmHg。肿痛关节局部皮肤温度升高,伴双侧手掌指关节、双侧肘关节伸侧面鲜红色皮疹,双侧手指甲增厚、甲周轻度红肿,四肢活动困难,双下肢水肿;心、肺、腹体格检查未见明显异常。辅助检查结果示:自身抗体:抗核抗体及抗JO-1抗体(+);肌酶:肌酸激酶(CK)3457 U/L(26~174 U/L,括号内为正常参考值范围,以下相同),肌酸激酶同工酶(CK-MB)69.1 U/L(0~20 U/L), α -羟丁酸脱氢酶(HBDH)386 U/L(95~255 U/L),乳酸脱氢酶(LDH)491 U/L(95~245 U/L);肝功能:ALT 151 U/L(9~50 U/L),AST 289 U/L(15~45 U/L)。心电图检查:肌源性损害(运动单位电位呈现低波幅、短时限多相波,募集充分但波幅低)。临床诊断考虑为皮炎炎。予甲泼尼龙(500 mg 每天1次静脉滴注,共3天)冲击治疗、球蛋白(20 mg 每天1次静脉滴注,共5天)、甲氨蝶呤(15 mg 每周1次口服)、环孢素(50 mg 每天2次口服)、免疫吸附治疗(HA280 珠海建帆免疫吸附柱,3次)及其他对症治疗后症状缓解,肌酶恢复正常。予强的松(10 mg 每天1次口服)、环孢素(50 mg 每天2次口服)、甲氨蝶呤(10 mg 每周1次口服)维持治疗2年半后自行停药。停药半年后患者再次出现四肢酸痛乏力、活动困难。肌酶检查结果示:CK 3292 U/L、CK-MB 98.4 U/L、HBDH 396.2 U/L、LDH 589.2 U/L。考虑病情复发,予甲泼尼龙(40 mg 每天1次口服)、吗替麦考酚脂片(0.25 g 每天3次口服)、环磷酰胺(0.8 g 每月1次静脉滴注)及免疫吸附治疗(3次)。治疗20天后,患者开始出现发热,体温最高达38.7℃,伴右侧大腿腓窝上10 cm处肌肉红肿热痛。体格检查示:体温波动于38.7~39.8℃,心率波动于78~90次/分,右侧大腿腓窝上10 cm处明显肿胀,局部皮肤温度升高,肤色潮红,肿胀部位压痛,右侧腓上10 cm腿围57 cm,左侧腓上10 cm腿围52 cm。血常规:白细胞计数 $5.88 \times 10^9/L$ [($3.6 \sim 9.7$) $\times 10^9/L$],中性粒细胞比例76.9%,血小板计数 $320 \times 10^9/L$ [($125 \sim 350$) $\times 10^9/L$];肝功能:ALT 148 U/L,AST

257 U/L。肌酶:CK 3049.9 U/L、CK-MB 66.02 U/L、HBDH 575.1 U/L、LDH 517.7 U/L;血培养:未见细菌生长;真菌-D葡聚糖45.5 pg/ml;降钙素原0.46 ng/ml;红细胞沉降率100 mm/h(<15 mm/h),C反应蛋白56.39 mg/L(0~6 mg/L)。考虑诊断为“皮炎炎合并急性蜂窝织炎”,予头孢哌酮他唑巴坦(4 g 每天1次静脉滴注)、强的松(50 mg 每天1次口服)、吗替麦考酚脂(0.25 g 每天3次口服)。治疗3天后患者仍反复发热,呈间歇性发作,体温最高可达40.3℃。右侧大腿肿胀面积持续性扩大,腿围增加至65 cm。右侧大腿肌肉活检结果示:慢性炎症急性活动,局部可见肉芽肿形成伴出血,周边可见横纹肌组织(图1A)。对比健侧上肢肌肉活检结果示:少量横纹肌组织及纤维组织(图1B)。右侧大腿MRI检查示:肌肉及筋膜间隙见散在片絮状异常信号影,以大收肌为著,T1呈等信号,快速自旋回波T2呈稍高信号影,边界模糊不清;未见肿物及结节信号影;皮下脂肪层内见片状稍高信号影(图2A)。经多学科会诊后考虑诊断为坏死性筋膜炎(NF)。根据文献^[1]报道的NF常见感染类型调整使用万古霉素(1 g 每2 h 1次静脉滴注)抗感染治疗,并立即进行右大腿感染灶清创+负压引流术(共行6次),高压氧舱治疗3次。术后组织病理检查结果示:(右侧大腿炎性组织)符合NF。术后引流液查结核杆菌DNA定性(+),多次血培养、坏死组织细菌培养、真菌培养、结核杆菌培养、结核菌素试验皮试、结核感染T细胞斑点试验(T-SPOT.TB)检查结果等均未见异常,考虑存在结核杆菌感染的可能,调整抗感染方案为“利福平(0.45 g 每天1次口服)+吡嗪酰胺(0.45 g 每天1次口服)+乙胺丁醇(0.75 g 每天1次口服)+异烟肼(300 mg 每天1次口服)”,并停用抗生素,经抗结核治疗后患者发热、右大腿肿痛逐渐消退,于2018年9月病情好转出院。出院后随访半年,肢体状况良好,活动正常。复查右侧大腿MRI结果示:肌肉、筋膜间隙及周围皮下脂肪内仍见散在片絮状异常信号影,范围较前减小,信号较前相仿,T1呈等信号,T2/FSE呈稍高信号影,边界模糊不清;未见肿物及结节信号影(图2B)。

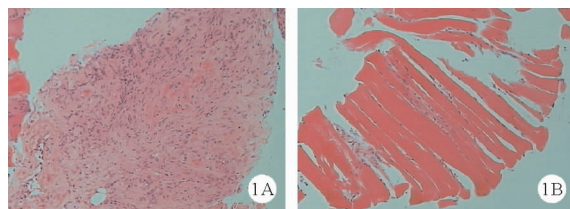


图1 患者大腿肌肉活检结果(A:右侧,B左侧;HE染色,×200)

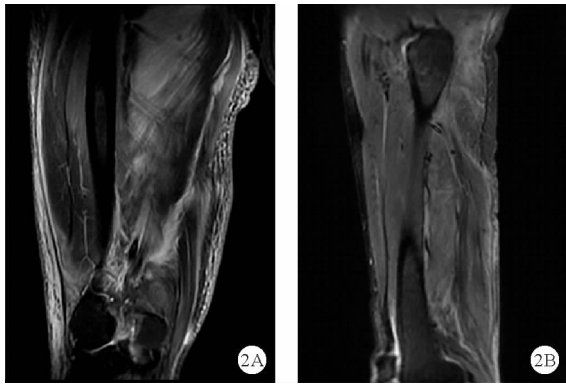


图 2 患者右侧大腿 MRI 检查结果(A:术前;B:术后半年)

讨 论

皮肌炎是一组获得性、炎症性肌肉疾病,其特征是慢性肌肉炎症伴肌无力,可并发皮肤血管炎等。NF 在临床较为少见,是由多种细菌入侵引起的以皮肤、皮下组织及深浅筋膜进行性坏死为特征的软组织感染,其发展迅速、病情凶险^[2]。皮肌炎出现 NF 时可能并发有皮肤血管炎,引起局部血管闭塞,导致皮肤组织微循环障碍,外部感染源经皮肤进入组织最终导致 NF;另一个可能原因为免疫功能障碍者在长期使用糖皮质激素类药物及免疫抑制剂时发生感染的风险增高^[3],感染的细菌可通过血运播散至其他组织部位;而皮肌炎合并感染往往是复杂的,其感染可由结核分枝杆菌、水痘-带状疱疹病毒等引起^[4]。四肢筋膜由于组织致密,容易导致细菌聚集^[5],最终可能发生 NF。

肢体 NF 早期表现大多为非特异性,很难与丹毒、蜂窝织炎鉴别,三者均有皮肤红肿、发热、疼痛等表现,鉴别点在于 NF 的病变部位可达筋膜层,可伴有全身中毒症状、血性水疱、异味分泌液等;丹毒主要是由于链球菌等引起的真皮浅层淋巴管感染,病变部位边界清晰;而蜂窝织炎的主要病变部位为真皮及皮下组织,但三者之间在疾病早期的区别并不明显,导致临床诊断困难。为了能更准确地诊断 NF,有学者提出了 NF 诊断的评分标准(表 1)^[6]。本病例评分为 9 分,并结合影像、病理检查结果才明确诊断,提示我们在高度怀疑 NF 时,也需完善影像学 and 病理学检查等,以避免漏诊、误诊。在明确诊断后,需进行病原学检测以寻找感染源。令人意外的是,该病例整个过程仅在一次术后引流液中检测出结核杆菌 DNA 定性阳性,其余结核相关检测均为阴性,但经抗结核治疗后病情好转,提示我们在寻找 NF 的感染源时,应结合基础疾病进行相关高危的感染因素进行筛查,如结核杆菌、疱疹病毒等。

对 NF 的治疗,为了避免病情急剧加重,需要早期使用广谱抗生素,并且尽早清创^[7],同时积极寻找感染源以调整治疗方案。对于 NF 的清创,如术中出现筋膜完整性丧失、筋膜灰白色、洗碗水色脓液、恶臭分泌物、坏死、明显水肿等典型表现,需对这类病灶进行清除^[8,9],同时使用负压引流,有利于创面恢复及控制感染^[10]。

综上所述,对于皮肌炎出现肢体疼痛、肿胀、发热等情况时,需高度怀疑 NF 可能,并且及早进行抗感染、清创引流治疗。

表 1 NF 诊断的评分标准

项目		评分(分)
实验室参数		
C 反应蛋白	>1 500 mg/L	4
白细胞计数	<15 × 10 ⁹ /L	0
	15 ~ 25 × 10 ⁹ /L	1
	>25 × 10 ⁹ /L	2
红细胞计数	<4 × 10 ¹² /L	1
血红蛋白	>135 g/L	0
	110 ~ 135 g/L	1
	<110 g/L	2
肌酐	<135 mmol/L	2
纤维蛋白	>7 500 g/L	2
临床参数		
疼痛	轻度/无	0
	中度	1
	强烈	2
体温	≤37.5 °C	0
	37.6 ~ 37.9 °C	1
	≥38 °C	2
心率	>100 次/min	1
急性肾损伤征象	有/无	1/0

注: ≥8 分:强烈怀疑 NF; 6 ~ 7 分:怀疑 NF; ≤5 分:排除 NF

参 考 文 献

- [1] Leiblein M, Marzi I, Sander AL, et al. Necrotizing fasciitis; treatment concepts and clinical results[J]. Eur J Trauma Emerg Surg, 2018, 44 (2): 279-290.
- [2] Romanoff A, Freed J, Heimann T. A case report of necrotizing fasciitis of the abdominal wall: A rare, life-threatening complication of a common disease process[J]. Int J Surg Case Rep, 2016, 28: 355-356.
- [3] Alarcon GS. Infections in systemic connective tissue diseases: systemic lupus erythematosus, scleroderma, and polymyositis/dermatomyositis [J]. Infect Dis Clin North Am, 2006, 20(4): 849-875.
- [4] Chen IJ, Tsai WP, Wu YJ, et al. Infections in polymyositis and dermatomyositis; analysis of 192 cases[J]. Rheumatology (Oxford), 2010, 49 (12): 2429-2437.
- [5] Misiakos EP, Bagias G, Papadopoulos I, et al. Early Diagnosis and Surgical Treatment for Necrotizing Fasciitis A Multicenter Study[J]. Front Surg, 2017, 4: 5.
- [6] Borschitz T, Schlicht S, Siegel E, et al. Improvement of a Clinical Score for Necrotizing Fasciitis: 'Pain Out of Proportion' and High CRP Levels Aid the Diagnosis[J]. PLoS One, 2015, 10(7): e132775.
- [7] Bechar J, Sepehrpour S, Hardwicke J, et al. Laboratory risk indicator for necrotising fasciitis (LRINEC) score for the assessment of early necrotising fasciitis; a systematic review of the literature[J]. Ann R Coll Surg Engl, 2017, 99(5): 341-346.
- [8] Herr M, Grabein B, Palm HG, et al. Necrotizing fasciitis. 2011 update [J]. Unfallchirurg, 2011, 114(3): 197-216.
- [9] Ryssel H, Germann G, Kloeters O, et al. Necrotizing fasciitis of the extremities; 34 cases at a single centre over the past 5 years[J]. Arch Orthop Trauma Surg, 2010, 130(12): 1515-1522.
- [10] 付焱, 王自兵, 张冰, 等. 改良负压封闭引流术治疗肛周坏死性筋膜炎的临床疗效观察[J]. 中华结直肠疾病电子杂志, 2019, 8(1): 54-57.

(收稿日期: 2019-06-10)

(本文编辑: 张一冰)