



[DOI] 10.3969/j.issn.1001-9057.2022.01.017

http://www.lcnkzz.com/CN/10.3969/j.issn.1001-9057.2022.01.017

• 病例报告 •

成人皮炎合并直肠肛管出血一例

潘锦婷 易斌

[关键词] 皮炎; 直肠; 肛管; 出血

[中图分类号] R593.26

[文献标识码] B

患者,女,45岁,因“全身皮疹3月余,气促、吞咽困难3天”于2020年7月28日入我院肾风湿科。2020年4月患者出现颜面部及胸前区鲜红色皮疹,后延至全身,伴乏力及肌肉酸痛。7月4日患者就诊于外院,经肌肉活检诊断为“皮炎”,予以甲泼尼龙静脉滴注治疗(具体剂量不详)后,患者症状好转,于7月23日出院。出院后,患者规律服用甲泼尼龙片40 mg/天,7月25日患者劳累后出现气促、吞咽困难,遂来我院急诊,后转入肾风湿科。入院体格检查:T 36.5℃,P 89次/分,R 20次/分,Bp 135/86 mmHg。面部、颈部、躯干及四肢可见鲜红色皮疹,胸前区皮疹呈“V”字形分布,双肺呼吸音粗,未闻及干、湿啰音,四肢肌肉压痛。辅助检查:WBC计数 $13.58 \times 10^9/L$ ($3.50 \sim 9.50 \times 10^9/L$,括号内为正常参考值范围,以下相同),Hb 151 g/L($115 \sim 150$ g/L),PLT计数 $93 \times 10^9/L$ ($125 \sim 350 \times 10^9/L$);大便隐血阳性;ALT 101 U/L($7 \sim 40$ U/L)、AST 247 U/L($13 \sim 35$ U/L);肌酸激酶4 383 U/L($40 \sim 200$ U/L),乳酸脱氢酶862 U/L($20 \sim 250$ U/L);抗核抗体1:320(颗粒型)阳性、抗dsDNA抗体及抗ENA抗体谱均阴性;肌炎抗体谱示:抗转录中介因子1- γ (TIF1- γ)抗体IgG(+++),余抗体阴性;肿瘤标志物阴性;心电图呈肌源性改变;肺部增强CT未见明显异常;全腹增强CT检查示:右肾小结石,盆腔少量积液。入院后予以甲泼尼龙250 mg/天和入免疫球蛋白20 mg/天治疗4天,辅以泮托拉唑抑酸,患者气促、吞咽困难及皮疹明显好转,甲泼尼龙渐减量至80 mg/天。2020年8月4日患者开始出现暗红色血便,量约50 ml,无腹痛、

头晕等不适,考虑消化道出血,遂将甲泼尼龙减量至60 mg/天,使用生长抑素及酚磺乙胺止血、艾司奥美拉唑抑酸治疗。8月6日下午患者解鲜红色血便2次,总量约500 ml,伴明显头晕、心慌、乏力,Bp降至94/46 mmHg,Hb降至72 g/L,完善腹部增强CT、胃肠镜检查未见明显出血点,将甲泼尼龙逐渐减量至10 mg/天,并予以输血、药物止血等治疗后,患者仍有间断鲜血便。8月14日再次行肠镜检查示:直肠近肛门处可见疤痕形成及血管断端,近肛门周围散在小血管扩张,于断端周边黏膜下多点注射聚桂醇,针眼渗血处予以氩气烧灼,出血停止,见图1。术后2天患者再次出现鲜血便,急诊行肛管直肠缝扎止血术,术中见肛管上下方多处活动性出血,周围组织质脆,考虑为直肠肛管糜烂出血,予以缝合出血处周围组织。术后3天患者又解鲜红色血便约300 ml,Bp降至86/54 mmHg,Hb降至68 g/L,再次行肛管直肠缝扎止血术,术中见肛管下方多处新发活动性渗血,周围组织炎性水肿。术后患者未再解血便,复查Hb 113 g/L,大便隐血阴性,ALT 27 U/L,AST 42 U/L,肌酸激酶165 U/L,乳酸脱氢酶352 U/L,甲泼尼龙增量至40 mg/天,患者病情好转出院。该患者明确诊断为:1.皮炎 吞咽肌及呼吸肌受累;2.下消化道出血 失血性休克。出院后患者于我院门诊或住院规律复查及行甲泼尼龙、环磷酰胺、羟氯喹、甲氨蝶呤等药物治疗,目前病情平稳,仍在规律治疗中。

讨论

皮炎是一种免疫介导的慢性炎症性疾病,主要累及皮肤

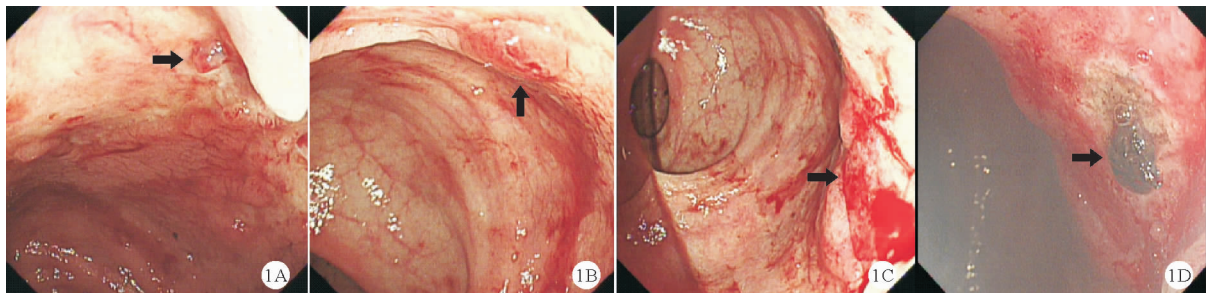


图1 患者2020年8月14日肠镜检查结果(A:直肠近肛门血管断端;B:直肠近肛门黏膜紫红隆起;C:直肠近肛门硬化剂治疗后;D:直肠近肛门小血管氩气烧灼后;如箭头所示)

和肌肉,典型表现为特征性皮疹和对称性近端肌肉无力^[1]。目前皮肤炎的发病率不及 1/10 万,男女比例约为 1:2^[2]。皮肤炎可累及全身多个系统,累及消化道时多表现为吞咽困难,合并消化道出血穿孔少见。成人皮肤炎合并消化道出血穿孔的发生率不足 1%^[3],出血部位以食管至结肠为主,也有咽部出血的报道,但直肠肛管出血罕见,本文报道了成人皮肤炎患者合并直肠肛管出血 1 例。此外,我们检索 Pubmed、万方数据及中国知网等数据库 2000 年以来成人皮肤炎合并消化道出血的报道,共检索到相关文献 9 篇^[4-12],结合本例共 11 例患者,对这些病例的临床特点进行以下总结。

11 例成人皮肤炎合并消化道出血患者中,男 3 例,女 8 例,年龄 18~85 岁,皮肤炎病程 10 天~6 年。消化道出血症状包括黑便 6 例,腹痛 4 例,便血 4 例,呕血 3 例,咯血 1 例。多部位出血 5 例(2 例累及胃和十二指肠,1 例累及胃和结肠,1 例食管下段、胃底及十二指肠可见出血性溃疡,1 例胃肠黏膜出血),余 6 例仅累及单个部位(咽部、食管、食管-主动脉瘘、胃、十二指肠及直肠肛管各 1 例)。5 例患者完善了病理检查,1 例为小血管炎,1 例为慢性十二指肠炎,1 例肌纤维可见炎性细胞浸润,但无血管炎迹象,2 例为黏膜弥漫性炎性反应及黏膜层、黏膜下层血管扩张。11 例患者中,6 例死亡,其中 4 例主因消化道出血或穿孔死亡。由此可见,成人皮肤炎消化道出血的主要表现为黑便、血便、腹痛及呕血,出血以食管至结肠等部位为主,咽部和直肠肛管少见,可表现为多部位、多次出血,出血量大者严重威胁生命。

关于皮肤炎合并消化道出血的原因,有学者认为与血管炎有关,已有胃及十二指肠溃疡出血处病检结果证实为血管炎的病例^[4],也有合并消化道穿孔为血管炎所致的病例^[13],但如上文所述,并非所有病例均可见血管炎改变,一些病检标本仅显示非特异性炎症表现,类固醇和免疫抑制剂的使用可能会掩盖病变中的血管炎。此外,糖皮质激素的使用增加了消化道出血的风险^[14]。糖皮质激素可促进胃酸和胃蛋白酶的分泌,减少胃黏液分泌,使胃肠黏膜保护和修复能力降低,并促使多种细胞因子和炎症介质表达异常,从而诱发或加剧溃疡,甚至导致出血穿孔。皮肤炎患者恶性肿瘤的患病率高达 20%,尤其以确诊后第 1 年的风险最高^[15],出血也可为消化道恶性肿瘤所致。本例患者的出血部位为直肠及肛管,鉴于直肠肛管并非糖皮质激素常见损伤部位,且肠镜及术中未见明显溃疡形成,糖皮质激素逐渐减量后仍反复出血,考虑糖皮质激素并非导致出血的主要原因。该患者抗 TIF1- γ 抗体阳性,此抗体无论滴度高低,合并恶性肿瘤的风险均升高^[16],但患者完善肿瘤标志物、肺部及全腹增强 CT、胃肠镜等检查均未见肿瘤迹象,因此不考虑患者存在消化道恶性肿瘤。本例患者直肠肛管出血推测主要为皮肤炎的血管病变所致。消化道出血穿孔通常是皮肤炎的延迟并发症,也有皮肤炎患者皮疹及肌无力改善后出现消化道出血穿孔的病例^[10,17],这可能与治疗期间血管病变进展有关。该患者入院时大便隐血即为阳性,但无鲜红色血便,在皮疹、气促、吞咽困难明显好转的情况下出现便血,与消化道延迟并发症相符,且患者既往无肛周疾病、直肠炎、消化道慢性出血病史,在本次病情重,累及呼吸肌时出现消化道出血,考虑与皮肌

炎疾病活动有关。

腹部 CT 和胃肠镜检查是明确消化道出血部位的重要手段,且如该患者一样,必要时需多次行内镜检查以明确出血点。大量持续出血,无法进行内镜检查或内镜无法定位出血来源时,可选择 CTA 和血管造影术。皮肤炎合并消化道出血的治疗原则与常规消化道出血相同,止血方法包括药物、内镜下、手术及介入止血。激素有诱发和加重消化道出血的风险,而皮肤炎疾病本身需要使用激素治疗,临床医生应根据患者具体情况予以激素减量或停用,协调好治疗原发病及出血并发症的关系,同时还需警惕后期病程中消化道再次出血的发生。

成人皮肤炎患者合并消化道出血的病例少见,但死亡率高,尤其是大量出血及继发穿孔者。本文报道了 1 例成人皮肤炎合并直肠肛管出血并对相关文献进行总结,提示当患者出现消化道出血症状时,不仅需考虑食管至结肠等常见部位,还应考虑直肠肛管等罕见部位,当药物及内镜下止血无效时,应及时行手术或介入治疗。

参 考 文 献

- [1] 朱兴旺,左芳芳,宣亚男,等. 皮肤炎合并坏死性筋膜炎一例[J]. 临床内科杂志,2020,37(2):136-137.
- [2] Meyer A, Meyer N, Schaeffer M, et al. Incidence and prevalence of inflammatory myopathies: a systematic review [J]. Rheumatology (Oxford), 2015, 54(1): 50-63.
- [3] Robinson AB, Reed AM. Clinical features, pathogenesis and treatment of juvenile and adult dermatomyositis[J]. Nat Rev Rheumatol, 2011, 7(11): 664-675.
- [4] Marie I, Levesque H, Caillex N, et al. Intravenous immunoglobulin for treatment of gastro-intestinal haemorrhage in dermatomyositis[J]. Ann Rheum Dis, 2001, 60(7): 723-724.
- [5] Chen GY, Liu MF, Lee JY, et al. Combination of massive mucinosis, dermatomyositis, pyoderma gangrenosum-like ulcer, bullae and fatal intestinal vasculopathy in a young female[J]. Eur J Dermatol, 2005, 15(5): 396-400.
- [6] Tweezer-Zaks N, Ben-Horin S, Schiby G, et al. Severe gastrointestinal inflammation in adult dermatomyositis: characterization of a novel clinical association[J]. Am J Med Sci, 2006, 332(6): 308-313.
- [7] Al-Haddad M, Raimondo M. Upper gastrointestinal bleed from esophageal diverticula in a patient with dermatomyositis[J]. Dig Dis Sci, 2007, 52(1): 137-139.
- [8] 张宁,费允云,吴东,等. 成人皮肤炎合并消化道出血 1 例[J]. 中华临床免疫和变态反应杂志, 2012, 6(4): 318-320.
- [9] Kusano J, Takahashi Y, Misaki Y, et al. Adult dermatomyositis with bleeding ulcer in the pharynx[J]. Case Rep Otolaryngol, 2014, 2014: 854841.
- [10] 张梦然,张玫. 成年人皮肤炎合并消化道出血和穿孔八例分析[J]. 中国医师进修杂志, 2017, 40(7): 601-603.
- [11] Ju TR, Lee CG, Lin YC. Aortoesophageal Fistula Causing Massive Gastrointestinal Bleeding and Death in a Patient with Dermatomyositis: A Case Report[J]. Am J Case Rep, 2018, 19: 1025-1029.
- [12] Watanabe T, Takizawa N, Nagasaka T, et al. Fatal and extensive multiorgan hemorrhages in anti-melanoma differentiation-associated gene 5 antibody-positive dermatomyositis: An autopsy case report[J]. Medicine (Baltimore), 2020, 99(3): e18600.
- [13] Lee D, Jeong WS, Hyun CL, et al. Jejunal perforation complicating dermatomyositis[J]. Int J Surg Case Rep, 2019, 65: 245-248.
- [14] Narum S, Westergren T, Klemp M. Corticosteroids and risk of gastrointestinal bleeding: a systematic review and meta-analysis [J]. BMJ Open, 2014, 4(5): e4587.
- [15] Qiang JK, Kim WB, Baibergenova A, et al. Risk of Malignancy in Dermatomyositis and Polymyositis [J]. J Cutan Med Surg, 2017, 21(2): 131-136.
- [16] 甘雨舟,李玉慧,张丽华,等. 临床无肌病性皮肌炎与皮肌炎临床及免疫学特征比较[J]. 北京大学学报(医学版), 2020, 52(6): 1001-1008.
- [17] Kibbi N, Bekui A, Buckley LM. Colonic vasculopathy and perforation in the initial presentation of adult dermatomyositis in a patient with improving muscle weakness[J]. BMJ Case Rep, 2016, 2016: BCR2015213460.

(收稿日期:2021-06-28)

(本文编辑:张一冰)