

Л. Ю. Черненко, Е. И. Краснова, М. С. Карачева

## СЛУЧАЙ ХРОНИЧЕСКОГО РЕЦИДИВИРУЮЩЕГО МУЛЬТИФОКАЛЬНОГО ОСТЕОМИЕЛИТА

*Уральский государственный медицинский университет  
Детская городская клиническая больница №9  
г. Екатеринбург*

### Аннотация

Представлено описание клинического случая редкого аутоиммунного заболевания — хронического мультифокального остеомиелита, протекающего под маской острого гематогенного остеомиелита трубчатых костей.

**Ключевые слова:** мультифокальный остеомиелит, иммунодефицитное состояние, дети.

Аутовоспалительные заболевания — это сравнительно новая группа заболеваний: первый ген — ген семейной средиземноморской лихорадки (FMF) — был идентифицирован в 1997 году. При аутовоспалительных заболеваниях отсутствуют аутоантитела или антигенспецифические Т-лимфоциты, нет четкой связи с антигенами главного комплекса гистосовместимости (HLA) и полом. Это их основное отличие с патогенетической точки зрения от классических аутоиммунных заболеваний, таких как системная красная волчанка, ревматоидный артрит и т. д. Данная патология иммунной системы связана с активацией и поддержанием воспаления в системе врожденного иммунитета, преимущественно в моноцитах и макрофагах. Т- и В- лимфоцитам, которые занимают важное место в развитии аутоиммунных заболеваний, выработке аутоантител, отводится второстепенная роль.

В группу аутовоспалительных заболеваний костей включены такие заболевания, как хронический рецидивирующий остеомиелит (Chronic recurrent multifocal osteomyelitis/osteitis — CRMO), болезнь Меджида (Majeed) и херувизм. CRMO относят к первично-хроническим остеомиелитам. Это синдром неизвестной этиологии, характеризующийся множественными рецидивирующими очагами костной деструкции, из которых невозможно выделить этиологический инфекционный агент. Причинный ген (или гены) для этого заболевания не установлен.

CRMO впервые был описан швейцарским рентгенологом Гедионом в 1972 г. как забо-

левание, протекающее под маской острого гематогенного остеомиелита. CRMO является редким заболеванием, составляет 2-5% из всех остеомиелитов [1-6]. Данная патология встречается в основном в детском возрасте, с дебютом чаще в возрасте от 6 до 12 лет, однако описаны случаи дебюта в более раннем возрасте — до 3 лет [7, 8]. Девочки болеют в 2-5 раза чаще, чем мальчики [9, 10]. Попытки выделить инфекционный агент из очага воспаления при CRMO не дали положительного результата [11, 12].

Патологический процесс при CRMO в основном локализуется в метафизах длинных костей и ключицы, а также могут поражаться грудина, ребра, кости таза, позвоночника, черепа, кистей и стоп. Патоморфологическая картина CRMO характеризуется изменениями, укладывающимися в картину неспецифического воспаления. В очагах с резко выраженными явлениями воспаления определяется склероз мелких сосудов системы питающей артерии, местами с тромбозом и картиной, описываемой в литературе как «луковичный» склероз [13].

Ведущей в клинике CRMO является сильная, пульсирующая боль над пораженной костью, иногда отек мягких тканей над костью, непредсказуемые периоды обострения и ремиссии на несколько лет. Нередко отмечается кожный синдром в виде везикуло-пустулезной сыпи (SAPHO-синдром), наличие или отсутствие лихорадки [3, 13]. Лабораторные изменения при CRMO носят неспецифический характер — лейкоцитоз

с умеренным нейтрофильным сдвигом, увеличение СОЭ, повышение уровня СРБ, нередко повышение уровня РФ, что указывает на аутоиммунный характер заболевания [12, 13].

В современной медицине не существует этиотропной терапии СРМО [11]. По данным современной литературы, препаратами выбора являются нестероидные противовоспалительные препараты (НПВП), при более тяжелых случаях применяют глюкокортикостероиды и цитостатики. Попытки применения антибиотиков не дают ощутимого результата. В иностранной практике применяется биологическая терапия этанерсептом (Энбрел) и инфликсимабом (Ремикейд) у больных СРМО [12].

Диагностика первичных иммунодефицитных состояний, к которым относится и СРМО, представляет известные трудности. Приводим клинический случай хронического рецидивирующего мультифокального остеомиелита.

Клинический пример. Мальчик К., от 1 беременности, протекавшей на фоне токсикоза первой половины (с 13 недель), в 40 недель водянка. Роды 1 срочные, хроническая фетоплацентарная недостаточность. На грудном вскармливании находился до 1,5 лет. На первом году жизни переносил инфекцию мочевыводящей системы, дакриоцистит, в 5 мес. — гнойный менингоэнцефалит неясной этиологии с последующим развитием тугоухости. Не прививался. С 6 мес. до 5 лет болел ОРВИ редко, 1-2 раза в год, в виде острого ринофарингита, без подъемов температуры тела. В 5 лет переносил двухсторонний сальпингоотит, тогда и была выявлена приобретенная сенсо-невральная тугоухость (справа — 2 степени, слева — 4 степени), инфекционно-токсического генеза.

Дебют заболевания СРМО произошел в 5 лет (апрель 2007 г.): тогда у ребенка спонтанно появилась боль в правом коленном суставе в покое и при опоре на ногу, субфебрильная температура, боль при пальпации в нижней трети бедренной кости, без местных признаков воспаления. В стационаре возникло подозрение на острый гематогенный остеомиелит (ОГО) правой бедренной кости и реактивный артрит правого коленного сустава. При обследовании в лабораторных анализах выраженных воспалительных изменений не обнаруживалось, определялась ускоренная СОЭ до 30 мм/ч, умеренная гипоальбуминемия, диспротеинемия. В связи с атипичным течением

процесса было решено провести диагностическую остеоперфорацию бедренной кости, была получена темная кровь и гной под давлением, во взятом на стерильность материале микрофлора не обнаруживалась. Ребенку проводился курс комплексной противовоспалительной терапии, включавший антибиотикотерапию, сосудистые, антигистаминные препараты, специфическую иммунотерапию, УВЧ, местное лечение в виде перевязок с противовоспалительными растворами. На фоне проведенного лечения процесс был купирован, ребенок через 3 недели был выписан в удовлетворительном состоянии. На контрольных рентгенограммах выявлялись умеренная деструкция дистального метадиафиза правой бедренной кости, периостит. В процессе диспансерного наблюдения у хирурга в течение года отмечено полное восстановление структуры кости.

Следующий случай имел место через 1,5 года (октябрь 2010 г.), через 3 дня после травмы (удар палкой в область правого коленного сустава) появилась боль в покое и при движении, резкая боль при пальпации, местно — нарастающий отек и гиперемия на фоне нормальной температуры тела. Был госпитализирован в ДГКБ №9 с диагнозом: ОГО правой большеберцовой кости. В лабораторных анализах выявлялся незначительный лейкоцитоз ( $10,2 \times 10^9/\text{л}$ ), ускоренная СОЭ (35 мм/ч), гипопротеинемия (61 г/л). При остеоперфорации правой большеберцовой кости, был получен гной под давлением, при посеве отделяемого микрофлора не обнаруживалась. Процесс был купирован в течение двух недель. При выписке на рентгенограммах выявлялись признаки неспецифического остеомиелита проксимального метадиафиза правой большеберцовой кости.

В третий раз, мальчик заболел через 3 месяца (январь 2011 г.), накануне он переносил два раза гнойный отит с оперативным лечением (парацетез). У ребенка появились ноющие боли в верхней трети левой голени, хромота, субфебрильная температура. Вновь был госпитализирован в ДГКБ №9 с диагнозом: ОГО левой большеберцовой кости. При поступлении обращало на себя внимание полное отсутствие отека, гиперемии, местной гипертермии мягких тканей в области верхней трети левой голени, нормальная температура тела. В анализах выявлялась ускоренная СОЭ (39 мм/ч), повышение белков острой фазы воспаления — СРБ (31),

АСЛО (300). При исследовании показатели иммуноглобулинов, Т-, В-лимфоцитов существенно не отличались от нормы. Проводился анализ крови на гепатиты В и С, ВИЧ, сифилис, все результаты были отрицательными. Также в полученном из раны гное отсутствовала микрофлора. В анализе содержимого (цитология) выявлялось значительное количество нейтрофилов — до 30 в поле зрения, лимфоидные элементы и эпителиальные клетки — с неясным ядром, флора скудная — кокки в виде цепочек, эритроциты сплошь неизмененные. Ребенок консультирован иммунологом, несмотря на отсутствие отклонений в показателях иммунограммы был заподозрен первичный иммунодефицит по гуморальному звену.

Четвертый эпизод заболевания мы наблюдали через год (декабрь 2011 г.). Боль в покое и при движении в нижней трети левого бедра появилась спонтанно, мальчик не мог встать на ногу, температура тела 37,3. С диагнозом ОГО левой бедренной кости вновь был госпитализирован в хирургическое отделение. В ОАК, ОАМ, ТЭГ, КГ, биохимии крови патологических показателей не выявлялось. Попытка консервативного лечения в течение двух суток успеха не имела. Было выполнено оперативное вмешательство, из гноя микрофлора опять не обнаруживалась.

Пятый эпизод болезни возник через 10 мес. (октябрь 2012 г.) характеризовался внезапным началом, появлением интенсивных болей в верхней трети левой голени, нарастающих в течение двух суток, отеком и гиперемией с синюшным оттенком, субфебрилитетом. Проводилось вскрытие субпериостальной флегмоны, ребенок был выписан через 1 месяц в удовлетворительном состоянии.

В шестой раз ребенок поступил спустя 2 года (ноябрь 2014 г.), клиническая картина не отличалась от вышеописанных эпизодов, не было воспалительных изменений в крови, кроме ускоренного СОЭ. По данным МРТ правого бедра, отмечался отек костного мозга, реактивный выпот в коленном суставе, скопление высокобелковой жидкости по задней поверхности бедренной

кости, отек мягких тканей бедра, сгибательная контрактура коленного сустава. Консервативная противовоспалительная терапия в течение 5 суток была безуспешна. Проводилось УЗИ мягких тканей правого бедра, выявлялся мягкотканый затек по задне-медиальной поверхности бедра на протяжении 10 см. Были выставлены показания к оперативному лечению, вскрыта обширная межмышечная флегмона бедра, вновь проводилась остеоперфорация правой бедренной кости в нижней трети. После проведения комплексного противовоспалительного лечения ребенок в удовлетворительном состоянии был выписан домой.

К моменту последнего эпизода болезни, ребенок в течение 2 лет находился на инвалидности с диагнозом: первичное ИДС недифференцированное.

Таким образом, все эпизоды болезни характеризовались однотипной клинической картиной:

- рецидивирующим течением гнойно-воспалительного процесса в виде острого гематогенного остеомиелита в разных костных сегментах в каждом последующем случае;
- атипичным течением ОГО — без лихорадки, без выраженных лабораторных изменений в анализах крови;
- отсутствием высева возбудителя из крови и пунктатов из очага;
- отсутствием формирования грубых деструктивных изменений в костях в процессе течения заболевания, даже при «позднем» оперативном вмешательстве;
- отсутствием изменений при иммунологических исследованиях.

Решением консилиума врачей хирургов, иммунологов, кардиоревматологов, генетиков, педиатров был диагностирован хронический рецидивирующий мультифокальный остеомиелит. Следует отметить, что поздняя диагностика CRMO имела место в связи с отсутствием настороженности врачей-педиатров разных специальностей в отношении этой патологии у детей.

#### ЛИТЕРАТУРА:

1. Абаев Ю. К. Хронический рецидивирующий многоочаговый остеомиелит в детском возрасте. Вестник хирургии им. И. И. Грекова, 2010. — Т. 169. — № 2. — С. 118-120.
2. Жолобова Е. С., Шахбазян Е. И., Михалева Г. В. Хронический рецидивирующий мультифокальный остеомиелит — новое заболевание в практике ревматолога-педиатра. В кн.: Сложный больной в практике педиатра-ревматолога. М.: МИА, 2008. — С. 262-268.

3. Bousvaros A., Marcon M., Treem W. et al. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis associated with chronic inflammatory bowel disease in children. *Dig. Dis. Sci.* 1999; 44 (12): 2500-2507.
4. Deutschmann A., Mache C. J., Bodo K. et al. Successful treatment of chronic recurrent multifocal osteomyelitis with tumor necrosis factor-alpha blockage. *Pediatrics.* 2005; 116:1231-1233.
5. Eisenstein E. M., Syverson G. D., Vora S. S., Williams C. B. Combination Therapy With Methotrexate And Etanercept For Refractory Chronic Recurrent Multifocal Osteomyelitis. *J. Rheumatol.* 2011; 38: 782-783.
6. Hurtado-Nedelec M., Chollet-Martin S., Nicaise-Roland P. et al. Characterization of the immune response in the synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis, osteitis (SAPHO) syndrome. *Rheumatology.* 2008; 47: 1160-1167.

**И. Б. Чиркова, Х. Т. Абдулкеримов, И. М. Тушнолобов**

## **НАШ ОПЫТ ПРИМЕНЕНИЯ КОМПОЗИТНЫХ МАТЕРИАЛОВ ПРИ РЕКОНСТРУКЦИИ СТРУКТУР СРЕДНЕГО УХА У ДЕТЕЙ С ХРОНИЧЕСКИМ ГНОЙНЫМ СРЕДНИМ ОТИТОМ**

*Детская городская клиническая больница №9  
г. Екатеринбург*

### **Аннотация**

Несмотря на наличие исчерпывающих литературных данных по патологии уха, вопрос о реконструкции структур среднего уха остается всегда открытым. Следует напомнить, что для лечения хронического гнойного среднего отита (ХГСО) необходим дифференцированный подход, учитывающий все особенности анатомического строения. Работа выполнена на основании анализа собственных 78 наблюдений, позволившая уточнить материалы, используемые при реконструкции структур среднего уха.

**Ключевые слова:** хронический гнойный средний отит, холестеатома, реконструкция структур среднего уха.

Распространенность хронического гнойного среднего отита (ХГСО) до настоящего времени остается высокой (до 39,2 на 1000 населения) [1, 2, 3, 4, 5].

Несмотря на многочисленные предложенные способы реконструкции структур среднего уха при хирургическом лечении хронического гнойного среднего отита (ХГСО) и наличия новейших руководств, нет единого стандарта лечения. Вот почему мы считаем необходимым внимательно рассмотреть эту тему.

**Цель работы** — изучение и сравнение используемых материалов в реконструкции структур среднего уха для дальнейшей оптимизации хирургической реабилитации пациентов данной категории.

### **Задачи исследования:**

1. Провести ретроспективный анализ историй болезней (ИБ) пациентов, прооперированных в ЛОР-отделении с диагнозом ХГСО.

2. Уточнить, какие материалы были использованы для реконструкции структур среднего уха за период 2008-2014 гг.

3. Провести сравнительный анализ влияния примененного подхода, использованных материалов и техники вмешательства на конечный результат лечения.

Для анализа были использованы 78 архивных историй болезней на базе ДГКБ №9 в течение 2008-2014 гг. и методы вариационной статистики.