

استئومیلیت گزانتوگرانولوماتوز فمور

(گزارش یک مورد)

*دکتر محمد مهدی نژاد کاشانی، *دکتر بهیه ظریف ذاکریان، *دکتر خسرو شایان، ***دکتر فاطمه ریاسی

«دانشکده پزشکی دانشگاه آزاد اسلامی مشهد»

خلاصه

استئومیلیت گزانتوگرانولوماتوز یکی از بیماری‌های نادر استخوانی است که تظاهر اولیه آن مشابه تومورهای استخوانی می‌باشد. طبق بررسی ما، تنها ۳ مورد از این بیماری در جهان گزارش شده است. در این گزارش، بیمار ۲۲ ساله‌ای با درد ران راست، تب و کاهش وزن قابل توجه به همراه نمای پرتونگاری سارکوم یوینگ و با تشخیص استئومیلیت گزانتوگرانولوماتوز طبق بررسی آسیب‌شناسی، معرفی شده است. بیمار تحت درمان آنتی‌بیوتیکی وسیع قرار گرفت و کاملاً بهبود یافت. **واژه‌های کلیدی:** گزانتوماتوزیس، فمور، استئومیلیت

دریافت مقاله: ۵ ماه قبل از چاپ؛ مراحل اصلاح و بازنگری: ۱ بار؛ پذیرش مقاله: ۱ ماه قبل از چاپ

Xanthogranulomatous Osteomyelitis of Femur

(Report of One Case)

*Mohammad Mehdihezah Kashani, MD; **Behiyeh Zarif Zakerian, MD; *Khosro Shayan, MD; ***Fatemeh Riyasi, MD

Abstract

Xanthogranulomatous osteomyelitis is a rare bone disease. Its primary presentation is similar to bone tumors. According to our research, only 3 cases of this disease have been reported in the literature. In this case report, a 22 years old patient with right thigh pain, fever and significant weight loss, associated with radiographic features resembling signs of Ewing's sarcoma is presented. The pathologic diagnosis was xanthogranulomatous osteomyelitis. The patient underwent wide spectrum antibiotic therapy and achieved complete recovery.

Keyword: Xanthomatosis; Femur; Osteomyelitis

Received: 5 months before printing ; Accepted: 1 month before printing

گزانتوگرانولوماتوز بافت‌های مختلف مانند کیسه صفرا، مثانه، لوله‌های فالوپ، تخمدان، واژن، بیضه، اپیدیدیم، کولون، آپاندیس و ندرتاً ریه، مغز، پروستات و استخوان را درگیر می‌کند.^(۳) درگیری استخوان از موارد بسیار نادر می‌باشد و طبق مطالعه ما، این بیمار چهارمین مورد گزارش شده در دنیا و اولین مورد استئومیلیت گزانتوگرانولوماتوز استخوان ران می‌باشد.

ضایعات استئومیلیت با تجمع ماکروفاژهای کف‌آلود، ارتشاح نوتروفیل، تعداد زیادی پلاسماسل و تغلیظ فیبرین مشخص می‌شود.^(۱) این بیماری برای اولین بار در سال ۱۹۸۴ توسط «کوزوتو»^۱ در دو بیمار گزارش شد و با توجه به شباهت نمای آسیب‌شناسی آن با درگیری سایر ارگان‌ها، استئومیلیت گزانتو-گرانولوماتوز نام گرفت.^(۲)

استئومیلیت گزانتوگرانولوماتوز^۲ اغلب به صورت التهاب مزمن شدید استخوان همراه درد، تب، لکوسیتوز و افزایش ESR تظاهر پیدا می‌کند و می‌تواند نمای کارسینوم را تقلید نماید. ضایعات

1. Cuzzutto

2. Xanthogranulomatous osteomyelitis

*Orthopaedic Surgeon, Islamic Azad University, Mashhad branch, Mashhad, IRAN.

**Clinical Pathologist, Islamic Azad University, Mashhad branch, Mashhad, IRAN.

***General Physician, Mashhad, IRAN.

Corresponding author: Mohammad Mehdihezah Kashani, MD

Arya Hospital, Orthopaedic Unit, East Golestan Street, Mashhad, IRAN.

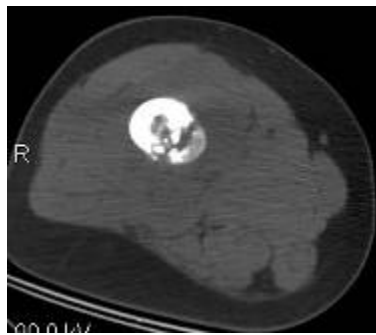
E-mail: drmahdinejad@gmail.com

معرفی بیمار

بیمار مرد ۲۲ ساله تبعه افغانستان و ساکن مشهد بود که در اواخر آبان ۱۳۸۷ با شکایت درد شدید ران راست، به صورت سرپایی مراجعه کرد. درد به دنبال پرش از ارتفاع حدوداً یک متری شروع شده بود. درد در هنگام شب افزایش می‌یافت و همراه با تب، تعریق، بی‌اشتهایی، لنگش و کاهش وزن ۲۰ کیلوگرمی طی سه ماه اخیر بود. بیمار به‌جز درد در ناحیه ران راست و علایم سیستمیک، در سایر ارگان‌ها علامتی نداشت.

بیمار در طی یک ماه اخیر با تشخیص هرنی دیسکال کمبری، تحت درمان علامتی از جمله تزریق دگزامتازون قرار گرفته و به‌دنبال آن دچار تشدید علایم شده بود.

پرتونگاری اولیه ران، ضایعه لیتیک مدیال فمور راست با تخریب کورتکس و واکنش پریوستی نشان داد (شکل‌های ۱ و ۲).



شکل ۳. تخریب استخوان در مدیال فمور



شکل ۴. تخریب کورتکس پوستر و مدیال

با توجه به تب ۳۸/۵ درجه‌سانتی‌گراد، کاهش وزن، ESR بالا، لکوسیتوز و نتایج تصویربرداری، بیمار با تشخیص اولیه سارکوم یووینگ تحت جراحی بیوپسی قرار گرفت.

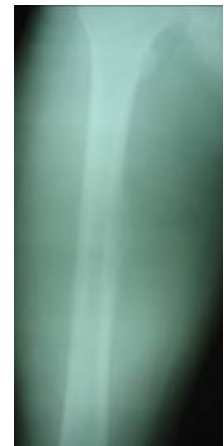
با برش ۴ سانتی‌متری در مدیال ران به‌دنبال باز کردن عضله واستوس مدیالیس و باز کردن پریوست ضخیم شده، حدود ۵ سی‌سی نسج ژله مانند بدون قوام و به رنگ کرم روشن، از برش ایجاد شده در پریوست خارج شد. بیوپسی تهیه و به دو مرکز مختلف آسیب‌شناسی ارسال گردید. یک نمونه نیز برای کشت ارسال شد. نمونه‌ای برای آزمایش برش فریز شده ارسال نشد. بدون هیچ‌گونه اقدام اضافی روی استخوان، شکاف با گذاشتن درن ترمیم شد.

براساس روتین بخش ارتوپدی، بعد از هر عمل، برای بیمار سفالکسین خوراکی با دوز ۵۰۰ میلی‌گرم ۴ بار در روز تجویز شد (تا زمان دریافت پاسخ آسیب‌شناسی، تشخیص اولیه بیمار سارکوم یووینگ فرض شد).

پاسخ بیوپسی: در نمای ماکروسکوپی، قطعات نامنظم بافت نرم کرم تا خاکستری رنگ؛ و در بررسی میکروسکوپی سلول‌های ماکروفاژ چند هسته‌ای کف‌آلود و انفیلترای آماسی پلی‌مورف با هیستوسیت‌های فراوان و نکروز استخوان مشاهده گردید. کشت



شکل ۲. واکنش پریوستی در نمای اتر و پوستر یور ران



شکل ۱. ضایعه لیتیک مدیال فمور راست با تخریب کورتکس و واکنش پریوستی

سی‌تی‌اسکن نیز موید همین نکته بود (شکل‌های ۳ و ۴). به دلیل مشکلات مالی، ام‌آر‌آی و اسکن استخوان انجام نشد.

آزمایش‌ها به شرح زیر بودند:

WBC: 10000 [Seg: 80% , Lym: 17% , Mono: 4% Eosin: 2%]
Hgb: 9.5
Hct: 29.7 Microcytosis: +
PLT: 514000
ESR[1st hour]: 81
CRP: 3+

دو ماه پس از درمان، بیمار به خوبی، بدون لنگش و بدون کمک چوب زیر بغل راه می‌رفت و نسبت به معاینه قبل، ۵ کیلوگرم دیگر افزایش وزن پیدا کرده بود. حال عمومی وی کاملاً خوب بود. در هر دو پرتونگاری کنترل، واکنش پریوستی متراکم شده بود (شکل ۸). سدیمان، CRP و فرمول شمارش در این زمان طبیعی بود.



شکل ۸. پرتونگاری
۲ ماه بعد از عمل

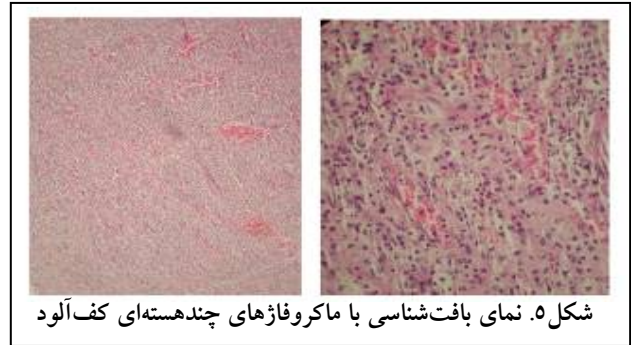
بحث

استئومیلیت گزانتوگرانولوماتوز اولین بار در سال ۱۹۸۴ توسط «کوزوتو» در ۲ بیمار سنین زیر ۲۰ سال در دنده اول و اپی‌فیز تی‌بیا گزارش شد^(۳). مورد بعدی زن ۵۰ ساله هندی در سال ۲۰۰۶ با درگیری اولنا بود که توسط «وانکالاکانتی»^۱ معرفی گردید^(۴).

بیمار ما چهارمین مورد گزارش شده در دنیا با درگیری فمور و در دهه سوم زندگی بود. ضایعه گزانتوگرانولوماتوز در بافت‌های مختلف از جمله کیسه صفرا، مثانه، لوله‌های فالوپ، تخمدان، واژن، تستیس، اپیدیدیم، کولون، آپاندیس و ندرتاً ریه، مغز، پروستات و استخوان دیده می‌شود^(۴). در آزمایش‌های ماکروسکوپی و پرتونگاری، نمای بدخیمی را تقلید کرده و در کیسه صفرا، کلیه و پروستات به صورت توده بروز می‌کند^(۵).

در نمای ماکروسکوپی، یک کانون چرکی به همراه هموراژی در اطراف آن دیده می‌شود. در بررسی آسیب‌شناسی، ماکروفاژهای کف‌آلود به همراه انفیلترای آماسی پلی‌مورف و هیستوسیت‌های PAS مثبت، ائوزینوفیلیک و گرانولار در مراحل ابتدایی جلب نظر می‌کند^(۲). بافت‌شناسی چنین ضایعاتی طبیعت التهابی مزمن

نمونه منفی گزارش شد (شکل ۵). بر این اساس تشخیص استئومیلیت گزانتوگرانولوماتوز داده شد.



شکل ۵. نمای بافت‌شناسی با ماکروفاژهای چند هسته‌ای کف‌آلود

بیمار پس از عمل تا زمان دریافت نتیجه بیوپسی، به مدت ۵ روز تحت درمان با سفالکسین خوراکی قرار گرفت. طی این چند روز تب کاملاً قطع شد و درد بیمار نیز کاهش یافت. پس از قطعی شدن تشخیص، با توجه به عدم وجود هیچ‌گونه سابقه قبلی از نحوه درمان این نوع استئومیلیت، نوع آنتی‌بیوتیک و مدت درمان کاملاً تجربی و باتوجه به سیر بیماری پس از شروع درمان انتخاب شد. به دلیل پاسخ بالینی مناسب درمان با سفالکسین ۵۰۰ میلی‌گرم چهار بار در روز ادامه یافت و سیپروفلوکساسین ۱ گرم دو بار در روز نیز به آن اضافه شد. تجویز آنتی‌بیوتیک به مدت دو ماه ادامه یافت. بیمار هیچ‌گونه آنتی‌بیوتیک وریدی دریافت نکرد.

یک ماه بعد از شروع درمان، بیمار ۱۵ کیلوگرم افزایش وزن داشت. درد بیمار کاملاً برطرف شد و با کمک یک چوب زیر بغل راه می‌رفت. بیمار تب نداشت و حال عمومی کاملاً رضایت بخش بود. پرتونگاری انجام شد و یافته‌های آن بهبودی به صورت ضایعات کیستیک با دیواره مشخص نشان دادند (شکل‌های ۶ و ۷).



شکل ۶. پرتونگاری کنترل
یک ماه پس از درمان

شکل ۷. پرتونگاری لاترال
یک ماه پس از شروع درمان

در تشخیص افتراقی باید تومورهای استخوانی، بیماری‌های ذخیره‌ای ارتشاحی، استئومیلیت‌های مولتی فوکال راجعه، زانتوما، مالاکوپلاکیا، هیستوسیتوز سلول لانگرهانس و RCC متاستاتیک را در نظر داشت^(۶-۹). در بیمار گزارش شده نیز، تظاهر اولیه بیماری، نمای تومور اولیه استخوان را داشت.

آن را نشان می‌دهد^(۵). سبب‌شناسی این بیماری دقیقاً مشخص نمی‌باشد، اما عوامل پاتوژن میکروبی، واکنش ازدیاد حساسیت تأخیری با واسطه ایمنی سلولی یا تروما می‌توانند در پاتوژنز آن نقش داشته باشند^(۱).

References

- Nakashiro H, Haraoka S, Fujiwara K, Harada S, Hisatsugu T, Watanabe T.** Xanthogranulomatous cholecystis. Cell composition and a possible pathogenetic role of cell-mediated immunity. *Pathol Res Pract.* 1995;191(11):1078-86.
- Cozzutto C.** Xanthogranulomatous osteomyelitis. *Arch Pathol Lab Med.* 1984;108(12):973-6.
- Rafique M, Yaqoob N.** Xanthogranulomatous prostatitis: a mimic of carcinoma of prostate. *World J Surg Oncol.* 2006; 4:30.
- Vankalakunti M, Saikia UN, Mathew M, Kang M.** Xanthogranulomatous osteomyelitis of ulna mimicking neoplasm. *World J Surg Oncol.* 2007;5:46.
- Unni KK, McLeod RA, Dahlin DC.** Conditions that simulate primary neoplasms of bone. *Pathol Annu.* 1980; 15(Pt 1):91-131.
- Hamada T, Ito H, Araki Y, Fujii K, Inoue M, Ishida O.** Benign fibrous histiocytoma of the femur: review of three cases. *Skeletal Radiol.* 1996;25(1):25-9.
- Kossard S, Chow E, Wilkinson B, Killingsworth M.** Lipid and giant cell poor necrobiotic xanthogranuloma. *J Cutan Pathol.* 2000;27(7):374-8.
- Girschick HJ, Huppertz HI, Harmsen D, Krauspe R, Müller-Hermelink HK, Papadopoulos T.** Chronic recurrent multifocal osteomyelitis in children: diagnostic value of histopathology and microbial testing. *Hum Pathol.* 1999;30(1):59-65.
- Kayser R, Mahlfeld K, Grasshoff H.** Vertebral Langerhans-cell histiocytosis in childhood: a differential diagnosis of spinal osteomyelitis. *Klin Padiatr.* 1999;211(5):399-402. German.