

• 个例报道 •

SAPHO 综合征合并银屑病性关节炎及人工性荨麻疹 1 例

李 颀¹, 孙 帆², 殷丽楠¹, 李俊怡¹, 王瑞琛¹, 刘宇宏^{2*}

(1. 延安大学延安医学院, 陕西 延安 716000; 2. 延安大学附属医院, 陕西 延安 716000)

中图分类号: R593.2

文献标识码: A

文章编号: 1672-2639(2026)03-0086-04

SAPHO 综合征, 即滑膜炎(synovitis)、痤疮(acne)、脓疱病(pustulosis)、骨肥厚(hyperostosis)和骨髓炎(osteomyelitis), 是一种累及骨、关节和皮肤的罕见炎症性疾病, 由于缺乏特异性的诊断标准, 且其临床表现常与其他疾病相似, 极易诊断延迟或误诊。本研究报道 1 例 55 岁女性患者, 其有长达 7 年的多关节疼痛、2 年的掌跖脓疱病、典型的银屑病样甲损害以及近期出现的人工性荨麻疹, 最终明确诊断为 SAPHO 综合征与银屑病性关节炎共存, 合并人工性荨麻疹。经 IL-17A 抑制剂(司库奇尤单抗)治疗后, 其皮肤、关节症状及荨麻疹均得到缓解。本病例展示了 SAPHO 综合征与银屑病性关节炎共存的现象, 提示对于骨痛合并皮肤病变的患者需注意鉴别, 也为使用 IL-17 抑制剂治疗此类患者提供了参考。

1 病历资料

1.1 一般资料

患者, 女, 55 岁, 因“双手远端指骨、双足跖趾关节疼痛 7 年余, 皮疹 2 年”入院。患者 2018 年 9 月受凉后出现双手远端指骨及双足跖趾关节疼痛, 伴晨僵, 持续约十分钟, 活动后可自行缓解, 未重视。2023 年 8 月无明显原因及诱因出现双手掌、足底针尖样疱疹, 伴瘙痒及脱屑(图 1A); 同期足背间断出现直径约 0.5 cm 的类圆形、泛红、质硬结节, 突出于皮肤表面, 局部无发热、疼痛, 偶感胸骨后不适, 双手十指指甲变脆、甲床分离、指甲远端甲下角化、甲

板增厚、粗糙变黄、出现 Beau 线, 于延安大学附属医院皮肤科诊断为“银屑病”。2025 年 7 月患者出现全身皮肤瘙痒, 搔抓后起风团, 半小时后可自行消退, 无痕迹残留, 于延安大学附属医院皮肤科诊断为“人工性荨麻疹”。患者近 2 周无明显原因及诱因出现双手掌和足底脱屑、瘙痒加重, 于 2025 年 9 月 15 日来延安大学附属医院风湿免疫科就诊, 门诊收治入院。患者自发病以来, 有牙齿片状脱落、指甲脆弱易断。既往有“银屑病”病史 2 年; 有“人工性荨麻疹”病史 2 月; 否认家族遗传病史。查体示双手掌面、指尖皮肤发红, 可见针尖样疱疹, 伴脱屑(图 1B), 典型银屑病样甲改变(图 1C), 右足背可见一直径约 0.5 cm 的类圆形、泛红、质硬的结节性丘疹, 突出于皮肤表面(图 1D), 余未见异常。

1.2 辅助检查

1.2.1 实验室检查 血常规: 白细胞计数 $7.31 \times 10^9/L$, 淋巴细胞绝对值 $4.07 \times 10^9/L$, 均轻度升高; 尿常规: 红细胞 56.1 个/ μL , 潜血+2, 白细胞 23.7 个/ μL , 透明管型 2.50 个/ μL ; 粪常规未见异常; 余未见异常。

1.2.2 炎症指标 红细胞沉降率(erythrocyte sedimentation rate, ESR)与 C 反应蛋白(C-reactive protein, CRP)均在正常范围内。

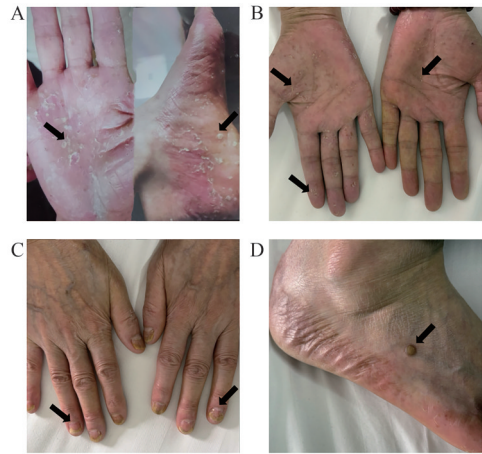
1.2.3 免疫指标 抗核抗体(antinuclear antibody, ANA)、抗可提取性核抗原抗体谱(Extractable nuclear antigen, ENA 谱)、类风湿因子(rheumatoid factor, RF)、抗环瓜氨酸肽(cyclic citrullinated peptide, CCP)

基金项目: 延安大学科研计划项目(SJRC006)

作者简介: 李 颀(2002—), 女, 陕西延安人, 在读硕士研究生。研究方向: 临床免疫病学。

* 通信作者: 刘宇宏(1975—), 女, 陕西榆林人, 医学博士, 主任医师。研究方向: 临床免疫病学。sxlyh514@163.com

抗体、免疫球蛋白、人类白细胞抗原 B27(human leucocyte antigen-B27, HLA-B27) 检测均为阴性, 25-羟基维生素 D3:4.94 ng/mL。



A: 双手掌、足底针尖样疱疹, 伴脱屑表现(2023年8月); B: 双手掌及指尖皮损伴脱屑表现(2025年9月); C: 双手指甲病变表现(示甲板增厚、变黄、Beau线及甲床分离, 2025年9月); D: 右足背结节性丘疹表现(2025年9月)。图中箭头指示关键病变。

图1 患者不同时期皮肤及指甲病变表现

1.2.4 影像学检查 髋髂关节CT平扫:示双侧髋髂关节退行性改变,表现为关节面下骨质增生、硬化、毛糙(图2虚线框);全身骨显像(ECT):示左侧胸锁关节区域呈现局灶性放射性核素异常浓聚(图3虚线圈),表现为局部显像剂摄取增高、信号强度显著高于周围正常骨组织,此征象高度提示该处存在活动性骨炎或骨代谢异常活跃,此表现高度提示SAPHO综合征;手指关节软组织彩超未见明显异常;胸部CT未见明显异常。

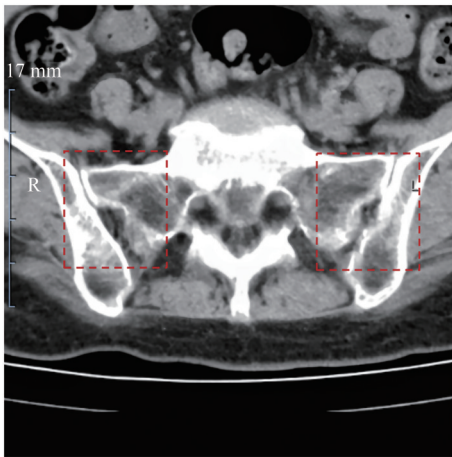
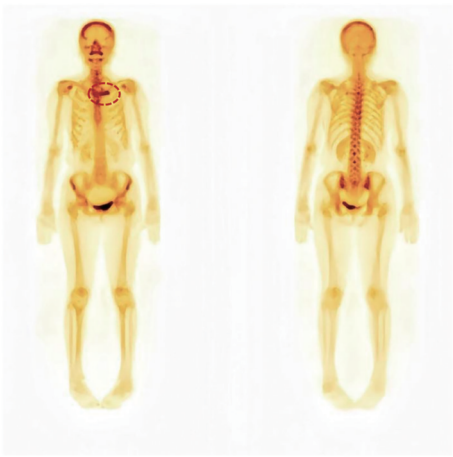


图2 髋髂关节轴位CT(虚线框示双侧髋髂关节退行性改变)



前/后位,虚线圈示左侧胸锁关节放射性浓聚灶。

图3 患者Tc-99 m MDP全身骨显像

1.3 诊断、治疗及转归

依据检查结果诊断:① SAPHO综合征;② 银屑病;③ 银屑病性关节炎;④ 人工性荨麻疹。该患者的治疗以免疫调节为核心。针对皮肤脓疱病、关节炎及甲损害,在明确诊断后,制订了具体治疗方案。司库奇尤单抗注射液300 mg,每周1次皮下注射(连续5次后改为每月1次),联合甲氨蝶呤片10 mg,每周1次口服,同时予以碳酸钙D3及骨化三醇补充治疗。治疗反应良好,在完成首次5次每周给药后,患者双手掌、足底的针尖样疱疹及脱屑在2周内开始消退,瘙痒感明显减轻。治疗期间人工性荨麻疹也得到控制,未再发作。患者耐受性良好,未报告注射部位反应、感染或其他明显不良反应。目前患者处于司库奇尤单抗每月1次的维持治疗期,病情稳定。

2 讨论

2.1 SAPHO综合征与银屑病谱系疾病的共性与鉴别

2.1.1 共性特征 二者在皮肤、指甲和关节方面存在大量共同表现,极易造成诊断上的延误^[1-2]。患者所表现的掌跖脓疱病,是这两种疾病在皮肤层面的一个共同表现。大量文献^[3]指出,SAPHO相关的掌跖脓疱病与局限性脓疱型银屑病在临床形态学甚至组织病理学上均难以区分,均表现为表皮内中性粒细胞聚集形成的脓疱。因此,有学者^[4-5]认为掌跖脓疱病可被视为SAPHO综合征的特征性皮肤标志,亦可归类于银屑病的一个特殊亚型。在指甲层面,患者双手指甲所见的甲板增厚、甲床分离及Beau线,同样是银屑病性甲病的常见表现,进一步

佐证了二者在攻击皮肤附属器方面的共同靶点^[6-7]。关节层面:外周关节炎和指炎是银屑病关节炎的典型特征,也同样可见于SAPHO综合征^[3],提示二者在滑膜炎机制上可能存在交集^[8]。

当前研究^[9]公认,IL-23/Th17通路的异常活化是SAPHO综合征与银屑病共享的重要发病机制。IL-23驱动Naive T细胞分化为Th17细胞,后者产生大量效应细胞因子,如IL-17A、IL-22等。在本病例中,推测异常活化的IL-17A可能同时作用于皮肤角质形成细胞(导致角化过度 and 脓疱)与骨骼关节(促进破骨细胞活化和滑膜炎)^[10],这解释了皮肤与骨骼病变同步出现的原因。

本例患者在接受司库奇尤单抗(一种IL-17A抑制剂)治疗后,皮肤及关节症状明显改善,这说明IL-17通路在该患者的疾病发展中发挥了作用。已有研究^[11]证实,IL-17抑制剂对中重度斑块状银屑病及银屑病关节炎疗效显著;同时,越来越多的个案报告和研究^[12]也显示,这类药物对难治性SAPHO综合征,尤其是伴有严重皮肤脓疱病和骨炎的患者,同样具有较好疗效。因此,本病例的治疗结果,从临床实践角度体现了SAPHO综合征与银屑病在IL-17通路上存在一定的关联。

2.1.2 鉴别要点 本病例的诊断突破口在于影像学检查。全身骨显像提示,患者左侧胸锁关节区域核素异常浓聚,高度提示局部存在活动性骨炎。这一表现与SAPHO综合征特征性的前胸壁骨关节受累(如典型的“牛头征”,即双侧胸锁关节、锁骨近端及上部胸肋关节区域的对称性骨炎)相符^[13]。相比之下,典型的银屑病关节炎多累及外周关节或骶髋关节,极少出现前胸壁骨骼的孤立性、特征性炎性改变^[3]。此外,SAPHO综合征的骨病变中常包含慢性复发性多灶性骨髓炎,这与银屑病关节炎的常见骨关节受累模式存在明显差异,也为两者的鉴别提供了重要的影像学支撑^[14]。在本例患者中,其有关节炎前提,且同时具备患银屑病(2分)、存在典型的银屑病甲改变(1分)、RF检测为阴性(1分),CASPAR评分4分(≥ 3 分即可诊断为银屑病关节炎)^[15]。结合CASPAR评分,本例患者同时满足银屑病关节炎的诊断标准,而影像学特征又高度支持SAPHO综合征的诊断,提示两种疾病在本例中为并存关系。

在脊柱关节炎的谱系中,HLA-B27是重要的遗传标志物,其诊断价值在不同疾病间存在差异。在

强直性脊柱炎中,HLA-B27的阳性率高达90%以上,而在银屑病关节炎中,阳性率仅为20%~30%,且多见于伴有中轴受累(如骶髋关节炎)的亚型患者^[16]。本例患者HLA-B27为阴性,这一结果降低了典型强直性脊柱炎或与HLA-B27强相关的银屑病关节炎的患病概率,从而将诊断思路向其他方向拓展。而SAPHO综合征与HLA-B27的关联性较弱,多数研究^[17-18]报道其阳性率低于30%,甚至有低至1.4%的报道。因此,结合本例患者典型的掌跖脓疱病及前胸壁骨炎表现,HLA-B27阴性的结果既进一步支持了SAPHO综合征的诊断,也为区分强直性脊柱炎及典型银屑病关节炎提供了重要的实验室依据。

2.2 人工性荨麻疹作为自身炎症状态的延伸

人工性荨麻疹作为一种物理性荨麻疹,其核心病理生理学机制是皮肤肥大细胞的高反应性,在受到搔抓等物理刺激后,肥大细胞易于脱颗粒,释放组胺等炎症介质,导致风团和瘙痒^[19]。该病常与多种自身免疫性疾病共存,如桥本甲状腺炎、类风湿关节炎和系统性红斑狼疮等^[20-21],这提示其背后可能存在共同的免疫失调机制。

本病例中合并的人工性荨麻疹,其出现可能受到SAPHO综合征与银屑病共有的慢性炎症状态影响,其关联性有部分研究支持。周博洋等^[22]的Meta分析整合了11项研究共1139名研究对象,证实慢性荨麻疹患者血清中的IL-17水平显著高于健康对照组;周培媚等^[23]进一步发现,慢性自发性荨麻疹患者血清IL-17不仅升高,且其水平与疾病严重程度评分呈正相关,提示IL-17可能直接参与病情调控。如本文前文所述,IL-23/Th17通路异常活化已被认为可能是SAPHO综合征与银屑病共同的发病机制^[9],在本病例中,患者使用司库奇尤单抗治疗后,不仅皮肤与关节症状改善,其人工性荨麻疹也随之缓解,从临床疗效反证了IL-17通路在多重表现中的作用,虽然IL-17对肥大细胞的直接作用尚未完全明确,但研究表明它可刺激角质形成细胞释放干细胞因子、IL-31等,进而调节肥大细胞的存活与活化^[24]。因此,异常活化的IL-17通路可能通过改变局部微环境,间接促进肥大细胞对轻微刺激产生强烈反应。这为理解IL-17通路同时导致骨炎、皮肤病变和荨麻疹样表现提供了一个新的方向。

2.3 结论与启示

本病例提示,对同时伴有掌跖脓疱病和骨痛的患者,临床医师需重视皮肤与骨骼病变的关联性。针对IL-17通路的靶向治疗为此类复杂共病提供了新的选择,未来仍需更多研究明确其疗效并形成规范,从而提升对此类疾病的诊疗水平。

参考文献:

- [1]Liu S, Tang M W, Cao Y H, et al. Synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis, and osteitis syndrome: Review and update[J]. Therapeutic Advances in Musculoskeletal Disease, 2020, 12: 1759720X20912865.
- [2]王志军,丛英珍,高燕飞,等. SPECT/CT骨显像对SAPHO综合征的诊断价值[J]. 国际放射医学核医学杂志, 2018, 42(4): 321-327.
- [3]Das G, Mathur M, Shrestha A, et al. Palmoplantar psoriasis: A clinicopathological correlation in a tertiary care hospital[J]. Skin Research and Technology, 2024, 30(8): e13882.
- [4]Aljuhani F, Tournadre A, Tatar Z, et al. The SAPHO syndrome: A single-center study of 41 adult patients[J]. The Journal of Rheumatology, 2015, 42(2): 329-334.
- [5]Michalek I M, Loring B, John S M. A systematic review of worldwide epidemiology of psoriasis [J]. Journal of the European Academy of Dermatology and Venereology, 2017, 31(2): 205-212.
- [6]Klaassen K M G, Dulak M G, Van De Kerkhof P C M, et al. The prevalence of onychomycosis in psoriatic patients: A systematic review[J]. Journal of the European Academy of Dermatology and Venereology, 2014, 28(5): 533-541.
- [7]Nguyen M T, Borchers A, Selmi C, et al. The SAPHO syndrome[J]. Seminars in Arthritis and Rheumatism, 2012, 42(3): 254-265.
- [8]Zimmermann P, Curtis N. Synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis, and osteitis (SAPHO) syndrome - A challenging diagnosis not to be missed [J]. Journal of Infection, 2016, 72: S106-S114.
- [9]Przepiera-Będzak H, Fischer K, Brzosko M. Serum IL-6 and IL-23 levels and their correlation with angiogenic cytokines and disease activity in ankylosing spondylitis, psoriatic arthritis, and SAPHO Syndrome [J]. Mediators of Inflammation, 2015, 2015: 785705.
- [10]Brembilla N C, Senra L, Boehncke W H. The IL-17 family of cytokines in psoriasis: IL-17A and beyond[J]. Frontiers in Immunology, 2018, 9: 1682.
- [11]范小冬,向霞,张春燕,等. 抗白细胞介素-17抗体治疗斑块状银屑病的系统评价[J]. 南方医科大学学报, 2017, 37(9): 1274-1279.
- [12]Cheng W, Li F, Tian J, et al. New insights in the treatment of SAPHO Syndrome and medication recommendations [J]. Journal of Inflammation Research, 2022, 15: 2365-2380.
- [13]Yamamoto K, Honda H, Hagiya H, et al. Bull's Head Sign. JMA Journal. 2022, 5(1): 130-131.
- [14]Przepiera-Będzak H, Brzosko M. SAPHO syndrome: Pathogenesis, clinical presentation, imaging, comorbidities and treatment: A review [J]. Advances in Dermatology and Allergology, 2021, 38(6): 937-942.
- [15]Taylor W, Gladman D, Helliwell P, et al. Classification criteria for psoriatic arthritis: Development of new criteria from a large international study [J]. Arthritis & Rheumatism, 2006, 54(8): 2665-2673.
- [16]Mease P J, Chakravarty S D, Mclean R R, et al. Treatment responses in patients with psoriatic arthritis axial disease according to human leukocyte antigen-B27 status: An analysis from the CorEvitas psoriatic arthritis/spondyloarthritis registry [J]. ACR Open Rheumatology, 2022, 4(5): 447-456.
- [17]Tu W, Nie D A, Chen Y X, et al. Successful treatment of SAPHO Syndrome complicated with ankylosing spondylitis by secukinumab: A case report [J]. Journal of Personalized Medicine, 2023, 13(3): 516.
- [18]El Harras Y, Imrani K, Setti S E, et al. The challenging diagnosis of synovitis-acne-pustulosis-hyperostosis-osteitis (SAPHO) syndrome: A rare case report [J]. SAGE Open Medical Case Reports, 2024, 12: 2050313X241259395.
- [19]中华医学会皮肤性病学分会荨麻疹研究中心. 中国荨麻疹诊疗指南(2022版) [J]. 中华皮肤科杂志, 2022, 55(12): 1041-1049.
- [20]Najafipour F, Najafipour M, Zareizadeh M. Relationship between Chronic urticaria and autoimmune thyroid disease [J]. Journal of Advanced Pharmaceutical Technology & Research, 2018, 9(4): 158.
- [21]Yang M Y, Su Y N, Xu K, et al. Common autoimmune diseases and urticaria: The causal relationship from a bidirectional two-sample Mendelian randomization study [J]. Frontiers in Immunology, 2023, 14: 1280135.
- [22]周博洋,柳舟,林励,等. 白细胞介素17与慢性荨麻疹相关性的Meta分析[J]. 中国麻风皮肤病杂志, 2020, 36(3): 142-146.
- [23]周媚媚,付丽新,陈涛,等. 慢性自发性荨麻疹血清IL-17的表达及其与病情的相关性研究[J]. 中国中西医结合皮肤性病学杂志, 2019, 18(4): 299-301.
- [24]Huangfu L J, Li R Y, Huang Y M, et al. The IL-17 family in diseases: From bench to bedside [J]. Signal Transduction and Targeted Therapy, 2023, 8: 402.

[收稿日期 2026-03-26;责任编辑 梁毅]