

· 病例报告 ·

皮肤炎合并直肠癌一例报道

李谦 尚瑞华 黄宇靖 程舒心 杜爱玲

453000 新乡医学院第二附属医院神经内科(李谦、黄宇靖、程舒心、杜爱玲); 453000 新乡

医学院第一附属医院肾内科(尚瑞华)

通信作者: 杜爱玲, Email: duailing827@163.com

DOI: 10.3969/j.issn.1009-6574.2020.05.015

【关键词】 皮肤炎; 多发性肌炎; 直肠肿瘤

基金项目: 河南省研究生教育教学改革研究与实践资助项目(2017SJGLX078Y)

Dermatomyositis complicated with rectal cancer: a case report Li Qian, Shang Ruihua, Hu Yujing, Cheng Shuxin, Du Ailing

Department of Neurology, the Second Affiliated Hospital of Xinxiang Medical University, Xinxiang 453000, China (Li Q, Huang YJ, Cheng SX, Du AL); Department of Nephrology, the First Affiliated Hospital of Xinxiang Medical College, Xinxiang 453000, China (Shang RH)

Corresponding author: Du Ailing, Email: duailing827@163.com

【Key words】 Dermatomyositis; Polymyositis; Rectal neoplasms

Fund program: Research and Practice Support Project of Postgraduate Education and Teaching Reform in He'nan Province (2017SJGLX078Y)

皮肤炎(dermatomyositis, DM)是一组主要累及皮肤和肌肉的自身免疫性疾病,以亚急性及慢性起病为主,在儿童及成人中均可发生,女性发生率明显高于男性^[1]。皮肤表现是皮肤炎常见的临床症状,主要表现为眶周水肿性红斑、Gottron征、对称性紫红斑、皮肤异色症、颈部V型红斑等症状,也有部分患者以肢体无力前来就诊。皮肤炎及多发性肌炎患者合并肿瘤风险较健康人明显增高,常见的合并肿瘤为乳腺癌、卵巢癌、鼻咽癌、肺癌等^[2-3]。对于皮肤炎患者合并直肠癌的病例,国内类似文献报道相对较少,现对1例皮肤炎合并直肠癌病例临床特点进行分析,报道如下。

临床资料 患者,女,47岁,以“四肢无力一月余”于2019年3月15日收住新乡医学院第一附属医院神经内科。患者1个多月前日常行走时出现双下肢无力,主要表现为下蹲后站立困难,长时间行走易跌倒,以近端为主,休息后可缓解,伴双下肢近端肌肉疼痛,右下肢重于左下肢,后逐渐出现双上肢上抬费力,双手持物可,伴双上肢近端肌肉疼痛,左上肢重于右上肢,伴双手手指发麻感,症状持续存在,逐渐进展无发热、皮疹,四肢皮肤颜色无变化,无尿便障碍,体重无明显变化。既往史:高血压病

史。神经系统查体示:神志清,精神尚可,轮椅入室,双上肢近端肌力IV⁺级,双手握力5级,左下肢肌力IV⁺级,右下肢屈肌肌力IV级,伸肌肌力Ⅲ级,肌张力、肌容积正常,双下肢肌肉压痛明显,双手指鼻试验稳准,双侧跟膝胫试验欠稳准,双上肢腱反射对称消失,左下肢腱反射(++),右下肢腱反射(+),双侧病理征(-)。完善(2019年3月20日新乡医学院第一附属医院)肌电图示:(1)肌源性损害电生理表现,主要表现为近端肌,考虑炎性肌病活动期可能。(2)双侧正中神经腕部损害。后行(2019年3月22日)肌肉活检:被检肌肉可见柱状分布的变性坏死纤维,伴炎性细胞增多。血清肌酸激酶(2019年8月22日新乡医学院第一附属医院):371 U/L(正常值24~170 U/L),便常规提示潜血试验阳性,患者无反酸、烧心,大便颜色正常,且血常规在正常水平,嘱定期复查便常规。凝血六项示:纤维蛋白降解产物5.5 μg/ml, D-二聚体3.0 μg/ml,考虑与肌肉炎性反应有关,抗核抗体谱弱阳性。余红细胞沉降率、类风湿因子、肝肾功能、电解质等未见明显异常,诊断“皮肤炎”,按照皮肤炎给予激素大剂量冲击治疗后,患者诉症状较前明显好转,出院后院外规律给予甲泼尼龙口服药物对症支持治疗。

2019年8月22日因双下肢无力且加重6 d入住新乡医学院第一附属医院,考虑皮炎,再次按照“皮炎”对症治疗,入院期间完善患者血常规后提示血红蛋白下降,大便潜血试验阳性,且患者诉有大量黑便,完善盆腔平扫+动态增强扫描(3.0磁共振),结果显示:(1)直肠中上段管壁异常改变,考虑直肠癌(T3N2Mx);(2)子宫肌瘤;(3)宫颈囊肿(图1、2)。完善结肠镜后及病理检查,结果显示:直肠腺癌(图3)。完善肿瘤五项结果示:甲胎蛋白1.5 ng/ml,癌胚抗原> 100.00 ng/ml,糖类抗原12 525.0 U/ml,糖类抗原199 > 700.00 U/ml,糖类抗原15 310.5 U/ml。考虑患者直肠癌合并转移,手术治疗不佳,联系肿瘤科建议行化疗对症治疗,经家属同意后进行周期性化疗,给予“奥沙利铂+卡培他滨片”对症处理后,患者四肢无力症状较前明显好转,经过多次化疗后复查肿瘤指标后均明显下降,且患者肢体无力症状也较前明显缓解。进行随访后患者可正常生活、下蹲后可自行站立、行走无肌肉酸痛不适及未再次出现跌倒、站立不稳,双上肢上抬正常、正常持物不受影响。

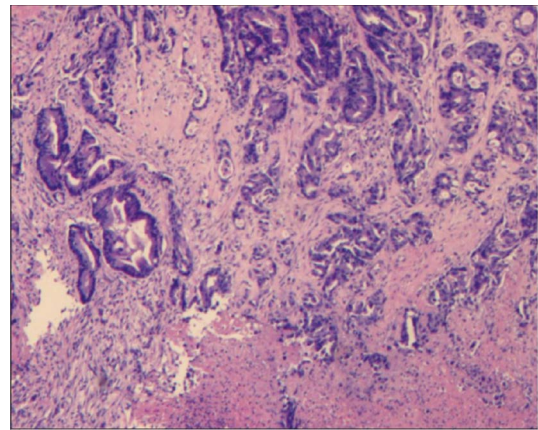


图3 直肠活检癌细胞排列呈腺管及腺泡状排列(HE染色×40)

讨论 目前对于皮炎和多发性肌炎的诊断是由3个实验室检查完全后确诊^[4]:血清肌酸激酶浓度,肌电图和肌肉活检,且目前诊断标准在敏感性、准确性、特异性上较前诊断标准均明显提高。Qiang等^[5]对4 538例皮炎患者进行研究后发现549例患者在诊断皮炎前后诊断为肿瘤,肿瘤在诊断皮炎后第一年发病率最高(17.29%)。Sigurgeirsson等^[6]对1963—1983年间瑞典788例患者进行回顾性分析后得出皮炎及多发性肌炎患者患癌风险较健康人群明显升高,在诊断皮炎前后诊断为肿瘤分别为15%、9%。皮炎合并常见肿瘤有乳腺癌^[7]、卵巢癌^[8]、胸腺癌^[9]、肺癌、白血病^[10]、甲状腺癌^[11]、胆囊癌^[12]、睾丸癌^[2],其中男性常合并肺癌、胃癌、食管癌等,女性常合并乳腺癌、卵巢癌等;西方国家皮炎及多发性肌炎常合并的肿瘤是卵巢癌、肺癌、乳腺癌等^[13],而在中国及中国香港、非洲、新加坡及东南亚地区常合并的肿瘤是鼻咽癌、卵巢癌^[14]。目前直肠癌常见于老年人,其男性患者发病率高于女性,其危险因素包括饮食因素、遗传因素、疾病因素(包括克罗恩病、肠道慢性炎症、息肉)、生活方式等,但是关于皮炎合并直肠癌的病例相对较少,其中有研究表明皮炎伴发肿瘤的机制可能为与隐形抗原表面形成、基因突变及副肿瘤综合征等因素有关,且血清抗TIF- γ 抗体、抗NXP-2抗体、抗SAE抗体阳性与皮炎合并肿瘤密切相关,其中血清抗TIF- γ 抗体在肿瘤相关的皮炎中阳性率最高^[15-16]。此例患者诊断皮炎合并直肠癌,在确诊疾病后一年内出现胃肠道症状,也是皮炎合并肿瘤的好发时间段,主要表现为大便带血,在合并肿瘤早期症状较为隐蔽,多数患者会自以为痔疮、大便习惯改变导致,多不能引起患者的重视。其中Wakata等^[17]



图1 直肠增强矢状位扫描病变段肠管浆膜毛糙,增强回示病变处不均匀强化,提示考虑直肠癌(T3N2Mx)



图2 T2图像矢状位示宫底右侧可见较大团块影

通过对过去30年期间治愈的皮炎炎、多发性肌炎合并肿瘤患者中得到总结,目前对于针对皮炎炎合并肿瘤最大的挑战是早期识别。Bowerman等^[18]通过对宾夕法尼亚大学201例患者的回顾性研究中得出应该对于皮炎炎或多发性肌炎患者在短时间内进行常规恶性肿瘤的筛查。

皮炎炎及多发性肌炎患者年龄通常大于40岁,本来随着年龄的增长,发生恶性肿瘤的概率较高,而且皮炎炎合并肿瘤的风险也较健康人高,因此关于肿瘤方面的筛查都是非常必要的,特别给予药物治疗后患者皮炎炎相关症状快速缓解,但短时间内再次复发者以及确诊皮炎炎前5年内,更应当引起重视。该病例报道患者在多次复发治疗效果差及后来出现血红蛋白持续下降进而引起重视,完善检查后提示皮炎炎合并直肠癌,但考虑手术治疗效果不佳,给予化疗后肌炎症状明显缓解。该病例提示临床医生应该向患者进行详细的讲解,让患者更加清楚地了解疾病,做到对该疾病的早期认识、早期预防、早期治疗。对于患者,应定期就诊医院进行基本的肿瘤标志物筛查。

利益冲突 文章所有作者共同认可文章无相关利益冲突

作者贡献声明 资料收集为李谦、尚瑞华、程舒心,论文撰写为李谦,论文修订为黄宇靖,杜爱玲审核

参 考 文 献

- [1] Dalakas MC, Hohlfeld R. Polymyositis and dermatomyositis[J]. *Lancet*, 2003, 362(9388): 971-982. DOI: 10.1016/S0140-6736(03)14368-1.
- [2] Yang X, Hao Y, Zhang X, et al. Mortality of Chinese patients with polymyositis and dermatomyositis[J]. *Clin Rheumatol*, 2020, 39(5): 1569-1579. DOI: 10.1007/s10067-019-04910-w.
- [3] Olazagasti JM, Baez PJ, Wetter DA, et al. Cancer risk in dermatomyositis: a meta-analysis of cohort studies[J]. *Am J Clin Dermatol*, 2015, 16(2): 89-98. DOI: 10.1007/s40257-015-0120-1.
- [4] Sasaki H, Kohsaka H. Current diagnosis and treatment of polymyositis and dermatomyositis[J]. *Mod Rheumatol*, 2018, 28(6): 913-921. DOI: 10.1080/14397595.2018.1467257.
- [5] 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. DOI: 10.1177/1203475416665601.
- [6] Sigurgeirsson B, Lindelöf B, Edhag O, et al. Risk of cancer in patients with dermatomyositis or polymyositis. A population-based study[J]. *N Engl J Med*, 1992, 326(6): 363-367. DOI: 10.1056/NEJM199202063260602.
- [7] Kubeček O, Soukup T, Paulík A, et al. Dermatomyositis with anti-TIF-1gamma antibodies as a presenting symptom of underlying triple-negative breast cancer: a case report[J]. *BMC Cancer*, 2016, 16(1): 684. DOI: 10.1186/s12885-016-2715-1.
- [8] Teraishi M, Nakajima K, Ishimoto T, et al. Anti-transcription intermediary factor 1 gamma antibody titer correlates with clinical symptoms in a patient with recurrent dermatomyositis associated with ovarian cancer[J]. *Int J Rheum Dis*, 2018, 21(4): 900-904. DOI: 10.1111/1756-185X.13264.
- [9] Karino K, Fujieda Y, Kawamura T, et al. Anti-TIF1gamma antibody predicted malignancy of thymic tumor with dermatomyositis as an "autoimmune tumor marker": A case report[J]. *Medicine (Baltimore)*, 2018, 97(49): 1-3. DOI: 10.1097/MD.00000000000013563.
- [10] Ikeda T, Kimura E, Hirano T, et al. The association between dermatomyositis and papillary thyroid cancer: a case report[J]. *Rheumatol Int*, 2012, 32(4): 959-961. DOI: 10.1007/s00296-010-1763-0.
- [11] Jurcic P. Dermatomyositis as the first manifestation of gallbladder adenocarcinoma: case report and literature overview[J]. *World J Surg Oncol*, 2015, 13(1): 127-130. DOI: 10.1186/s12957-015-0535-4.
- [12] Tan E, Young D, McLaren B, et al. Early-stage testicular cancer: a rare association with dermatomyositis[J]. *Australas J Dermatol*, 2010, 51(2): 139-141. DOI: 10.1111/j.1440-0960.2009.00617.x.
- [13] Hill CL, Zhang Y, Sigurgeirsson B, et al. Frequency of specific cancer types in dermatomyositis and polymyositis: a population-based study[J]. *Lancet*, 2001, 357(9250): 96-100. DOI: 10.1016/S0140-6736(00)03540-6.
- [14] 赵培珠, 李玉叶. 多发性肌炎/皮炎炎伴发恶性肿瘤的治疗[J]. *中国临床医生杂志*, 2016, 44(7): 8-10. DOI: 10.3969/j.issn.2095-8552.2016.07.003.
- [15] Ogawa M, Sugiura K, Yokota K, et al. Anti-transcription intermediary factor 1-gamma antibody-positive clinically amyopathic dermatomyositis complicated by interstitial lung disease and breast cancer[J]. *J Eur Acad Dermatol Venereol*, 2016, 30(2): 373-375. DOI: 10.1111/jdv.12797.
- [16] 王露露, 陈慧敏. 皮炎炎伴发肿瘤相关性研究进展[J]. *国际神经病学神经外科学杂志*, 2019, 46(3): 345-349. DOI: 10.16636/j.cnki.jinn.2019.03.026.
- [17] Wakata N, Kurihara T, Saito E, et al. Polymyositis and dermatomyositis associated with malignancy: A30-year retrospective study[J]. *Int J Dermatol*, 2002, 41(11): 729-734. DOI: 10.1046/j.1365-4362.2002.01648.x.
- [18] Bowerman K, Pearson DR, Okawa J, et al. Malignancy in dermatomyositis: A retrospective study of 201 patients seen at the University of Pennsylvania[J]. *J Am Acad Dermatol*, 2020, 83(1): 117-122. DOI: 10.1016/j.jaad.2020.02.061.

(收稿日期: 2020-03-24)

(本文编辑: 戚红丹)