УДК 617.3

РЕДКИЕ СЛУЧАИ ОСТЕОПОЙКИЛИИ В ПРАКТИКЕ ТРАВМАТОЛОГА-ОРТОПЕДА

Федоров В. Г. ORCID ID 0000-0002-4811-6067

Федеральное государственное бюджетное образовательное учреждение высшего образования «Ижевский государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, Ижевск, Российская Федерация, e-mail: doctorfvg@ya.ru

Цель исследования - поделиться собственными наблюдениями клинических случаев трех обратившихся к травматологу-ортопеду с 1997 по 2024 год пациентов, у которых после изучения жалоб и объективных обследований на рентгенограмме была выявлена сопутствующая патология остеопойкилия, а также описать выбранную тактику лечения. Остеопойкилия в настоящее время трактуется как системное врожденное заболевание скелета, встречающееся не чаще, чем 1,5 случая на 100 тысяч родившихся. В зарубежной литературе остеопойкилия в большинстве изученных автором источников - это заболевание, описанное как остеопойкилез. В представленных случаях главной причиной обращения за медицинской помощью явилась боль. Сопутствующий диагноз «остепойкилия» был выставлен в процессе консилиума смежных специалистов. В первом случае причиной боли являлся «Остеохондроз пояснично-крестцового отдела позвоночника…», второй случай – «Закрытый пронационный перелом Дюпюитрена…», а в третьем случае выставлен диагноз: «Частичное повреждение связочного аппарата левого голеностопного сустава». Все случаи представляют определенный интерес в связи с редкостью данного заболевания и необходимостью своевременной дифференциальной диагностики, чтобы избежать ненужных лечебных и диагностических процедур. Своевременное диагностирование крайне важно, поскольку рентгенологическая картина при остеопойкилии напоминает костные метастазы.

Ключевые слова: остеопойкилия, костные метастазы, остеохондроз, перелом, ушиб, клинический случай, дисплазия.

RARE CASES OF OSTEOPOIKILIA IN THE PRACTICE OF AN ORTHOPEDIC TRAUMATOLOGIST

Fedorov V. G. ORCID ID 0000-0002-4811-6067

Federal State Budgetary Educational Institution of Higher Education Izhevsk State Medical University of the Ministry of Health of the Russian Federation, Izhevsk, Russian Federation, e-mail: doctorfvg@ya.ru

The purpose of the study is to share our own observations of the clinical cases of three patients who applied to an orthopedic traumatologist from 1997 to 2024, who, after examining complaints and objective X-ray examinations, revealed a concomitant pathology of osteopoikilia, as well as describe the chosen treatment tactics. Osteopoikilia is currently interpreted as a systemic congenital skeletal disease that occurs no more often than 1.5 cases per 100,000 births. In the foreign literature, osteopoikilia in most of the sources we have studied is a disease described as osteopoikilosis. In these cases, the main reason for seeking medical help was pain. The concomitant diagnosis of " ostepoikilia" was made in the course of a consultation of related specialists. In the first case, the cause of the pain was "Osteochondrosis of the lumbosacral spine ...", the second case was "Closed pronation fracture of Dupuytren...", and in the third case, the diagnosis was "Partial damage to the ligamentous apparatus of the left ankle joint". All cases are of particular interest due to the rarity of this disease and the need for timely differential diagnosis to avoid unnecessary medical and diagnostic procedures. Timely diagnosis is extremely important, since the X-ray picture in osteopoikilia resembles bone metastases.

Keywords: osteopoikilia, bone metastases, osteochondrosis, fracture, contusion, clinical case, dysplasia.

Введение

Заглянуть внутрь кости без хирургического вмешательства стало возможным благодаря открытию Х-лучей Вильгельмом Конрадом Рентгеном в 1895 году [1]. С того времени, а именно с первого применения рентгенографии в травматологии и ортопедии, началась эра расцвета нашей специальности и появления новых заболеваний. Первые рентгенограммы

остеопойкилии как заболевания в литературе описал в 1905 г. A. Stieda, а более подробное описание этого заболевания принадлежит H. Albers-Schonberg (1915) [2]. Термин «остеопойкилия» образован сочетанием греческих слов: «osteon» - «кость» + «poikilia» - «пестрота, пятнистость». В современной литературе интерпретируется как системное врожденное заболевание скелета. Синонимами данного заболевания, описанными в научной литературе, являются: гиперпластическая остеопойкилия, диссеминированная уплотняющая остеопатия, врожденная пятнистая рассеянная склерозирующая остеопатия [3]. В зарубежной литературе остеопойкилия в большинстве изученных автором источников - это заболевание, описанное как остеопойкилез. Необходимо отметить, что достаточно удачное образное определение остепойкилии для широкого круга читателей дала в своей монографии «Клинико-рентгенологическая диагностика дисплазий скелета» Лагунова И. Г. Она указала, что это не участки локализованной компактной кости, а спрессованная густотрабекулярная сеть губчатого вещества без морфологических особенностей строения, при этом само костеобразование не нарушено [2].

В eLIBRARY.RU поисковый запрос по ключевым словам «остеопойкилия», «остеопойкилез» с 1960 года по настоящее время выдал всего 14 ссылок на публикации. Все ссылки – это полнотекстовые статьи. Первая статья датирована 2007 годом. Всего в статьях приведены клинические примеры 14 пациентов, при этом только в 4 случаях пациенты с остеопойкилией выявлены при обращении к врачу хирургического профиля (хирургу или травматологу). В поисковой системе PubMed запрос «остеопойкилия» показал 18 ссылок. Первая публикация датирована 1952 годом, при этом только в четырех источниках имеются относительно подробные аннотации. Запрос «остеопойкилоз» продемонстрировал 535 ссылок с 1942 по 2022 год включительно. Только 15 статей в полнотекстовой версии были связаны со специальностью «Травматология и ортопедия». Фактически остеопойкилия - это редко выявляемое заболевание не только в нашей стране, но и во всем мире.

Цель исследования

Поделиться собственными наблюдениями клинических случаев трех обратившихся к травматологу-ортопеду с 1997 по 2024 год пациентов, у которых после изучения жалоб и объективных обследований на рентгенограмме была выявлена сопутствующая патология остеопойкилия, а также описать выбранную тактику лечения.

Материалы и методы исследования

Данная работа выполнена в соответствии с этическими нормами Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения научных медицинских исследований с участием человека» с поправками 2013 г. и «Правилами клинической практики в Российской Федерации», утвержденными Приказом Минздрава РФ

от 19.06.2003 г. № 266. Пациенты подписали информированное согласие на проведение хирургического вмешательства и публикацию полученных данных без идентификации личности. В третьем клиническом случае от родителей пациента получено письменное добровольное информированное согласие на публикацию описания клинического случая.

Первый клинический случай

1997 год. Пациентка И., 46 лет. Госпитализирована в ортопедическое отделение Первой республиканской клинической больницы (1 РКБ МЗ УР) по направлению из районной больницы на оперативное лечение с диагнозом: «Остеосклероз верхней трети правой бедренной кости, выраженный болевой синдром». При поступлении предъявляет жалобы на боль в верхней трети правого бедра, усиливающуюся при физических нагрузках, иррадиирущую по бедру; при длительной нагрузке появляется онемение по задней поверхности бедра и голени.

Анамнез заболевания: болеет в течение 9 месяцев. Боль появилась после травмы - падение на правое бедро. Обратилась к хирургу по месту жительства. Назначено лечение - обезболивающие и покой; эффект от проводимой терапии был кратковременный. На контрольной рентгенограмме тазобедренного сустава и верхней трети правого бедра грубой костной травматической патологии не выявлено. В межвертельной области определялись участки округлой формы размером 3,5 на 4 см.

Учитывая неэффективность лечения и отсутствие по контрольной рентгенограмме динамики, пациентка направлена в республиканскую больницу на оперативное лечение опухолевидного образования.

При госпитализации в ортопедическом отделении болевой синдром был детализирован: боль в течение длительного времени носила ноющий, «мозжащий» характер неопределенной локализации от ягодичной области до коленного сустава. При клиническом осмотре выявлена болезненность как в области пояснично-крестцового отдела (L4-S1) по ходу остистых отростков, так и в парвертебральных точках. Движения в поясничной области были заблокированы во всех направлениях. При глубокой пальпации паравертебральной области в положении пациента лежа боль иррадиировала в ягодичную область. При исследовании лежа на спине выявлялся симптом Лассега под углом 45 градусов справа; ротационные движения в тазобедренном суставе при медленном выполнении были в полном объеме, безболезненные; при форсированном ротационном движении появлялась умеренно выраженная боль по ходу седалищного нерва. Пальпация ягодичной области в положении пациента на животе выявила болезненность грушевидной мышцы, а пальпация в точке выхода седалищного нерва из-под грушевидной мышцы сопровождалась резкой стреляющей болью вниз до средней трети

голени. Внутренняя ротация в тазобедренном суставе с одновременным пальцевым нажимом на грушевидную мышцу также усиливала боль в области верхней трети правого бедра.

Выставлены предварительный диагноз основной: «Остеохондроз пояснично-крестцового отдела позвоночника с преимущественным поражением L4-S1, мышечно-тонический болевой синдром, подострая фаза, выраженный синдром грушевидной мышцы справа» и сопутствующий диагноз: «Локальный остеосклероз вертельной области».

Лечение основного заболевания было начато с сакральной блокады (новокаин 0,5%, дексаметазон, витамин В1), которая первый раз была одновременно и диагностической. После блокады боль практически исчезла, а проведенный консилиум смежных специалистов заменил сопутствующий диагноз с остеосклероза на остеопойкилию. В результате проведенного лечения, а именно: вытяжения поясничного отдела за подмышечные впадины на наклонной плоскости, применения нестероидных противовоспалительных препаратов, витаминов группы В, мануальной терапии (2 сеанса), лечебной гимнастики, - пациентка выписана с выздоровлением на 24-й день после госпитализации. При выписке было рекомендовано пользоваться в течение двух месяцев полужестким корсетом, далее - только при физических нагрузках в течение всей жизни, а также ЛФК. Контрольный осмотр через два года с рентгенограммами: жалоб особых не предъявляет, рентгенологическая картина без динамики.

Второй клинический случай

2014 год. Пациент Г., 25 лет. Доставлен в приемный покой 1 РКБ МЗ УР. Предъявлял жалобы на боль, отек в области левого голеностопного сустава, невозможность активно пользоваться конечностью. Анамнез: бытовая травма, во время спуска по лестнице подвернул ногу. При осмотре левая конечность иммобилизирована шиной Крамера. Осмотр без шины показал, что имеется деформация, отечность в области левого голеностопного сустава +3 см, наблюдается локальная болезненность при пальпации и попытке пассивных движений в голеностопном суставе, отсутствие активных движений из-за болевого синдрома.

После контрольной рентгенограммы (рис. 1 а, б) выставлен диагноз: «Закрытый перелом внутренней лодыжки, краевой перелом заднего края большеберцовой кости, разрыв дистального межберцового синдесмоза, подвывих стопы кнаружи». В приемном покое под местной анестезией по Белеру произведена одномоментная ручная репозиция и наложена U-образная и задняя гипсовая иммобилизация (рис. 1 в, г).

а б в г

Рис. 1 (архив автора). Пациент Г., 25 лет. Рентгенограмма в день обращения за медицинской помощью: до репозиции (а, б); после репозиции (в, г)

Госпитализирован в травматологическое отделение в экстренном порядке. На рентгенограмме костей, образующих голеностопный сустав травмированной ноги, выявлено наличие очагов склероза, в связи с чем решено было сделать сравнительную рентгенограмму правого голеностопного сустава. В заключении рентгенолога добавлено в описании: «…также определяются очаги остеосклероза размерами от 0,3х0,3 см до 0,8х0,9 см с ровными чистыми контурами». Сопутствующий рентгенологический диагноз: «Фиброзная дисплазия» (рис. 2 а, б). Диагноз «фиброзная дисплазия» после проведения консилиума по рентгенограммам более опытными рентгенологами заменен на диагноз «остеопойкилия».

Учитывая то, что стояние после репозиции внутренней лодыжки было неудовлетворительным, после спадения отека, через 10 дней произведена операция: «Открытая репозиция наружной лодыжки, остеосинтез пластинкой, внутренняя лодыжка синтезирована винтом и деротационными спицами. Остеосинтез дистального межберцового синдесмоза позиционными винтами» (рис. 2 в, г).

а б в г

Рис. 2 (архив автора). Пациент Г., 25 лет. Сравнительная рентгенограмма правого (а, б) и левого (после операции) голеностопного сустава (в, г)

На 7-й день после операции пациент был выписан на амбулаторное наблюдение по месту медобслуживания.

Окончательный диагноз при выписке: «Закрытый перелом внутренней лодыжки, краевой перелом заднего края большеберцовой кости, разрыв дистального межберцового синдесмоза, подвывих стопы кнаружи. Остеопойкилия дистального эпиметафиза обеих большеберцовых, малоберцовых костей и костей корня стопы (таранной, пяточной, кубовидной, ладьевидной и клиновидной костей обеих стоп)».

Сращение перелома произошло в обычные сроки. Динамизация межберцового синдесмоза произведена через два месяца со дня операции. Через три месяца иммобилизация прекращена. Рекомендовано удалить металлические конструкции через 8-12 месяцев. На контрольный осмотр пациент не явился.

Третий клинический случай

2024 год. Пациент Н., 7 лет, обратился с жалобами на боли (по шкале ВАШ 5 баллов) в левом голеностопном суставе. Со слов пациента: упал, подвернув левую ногу вовнутрь. Осмотр: контуры голеностопного сустава сглажены, отечны (+3 см), цвет кожных покровов физиологической окраски. Пальпация области наружной лодыжки болезненная. Подвижность в левом голеностопном суставе активная и пассивная ограничена из-за отека, при этом активная - болезненная, пассивная - безболезненна. Тест с осевой нагрузкой положительный: поколачивание по пяточной кости вызывает болевые реакции в области наружной лодыжки. На рентгенограмме в двух проекциях (рис. 3а) грубой костной патологии не выявлено.

а б

Рис. 3. Пациент Н., 7 лет. Рентгенограмма левого голеностопного сустава в двух проекциях (а); компьютерная томограмма обоих голеностопных суставов (б) (архив автора)

Выставлен диагноз: «Частичное повреждение связочного аппарата левого голеностопного сустава». Назначено лечение: иммобилизация фиксирующей повязкой, холод в течение суток, двигательный покой. С учетом наличия очагов склероза на рентгенограмме рекомендовано для уточнения диагноза сделать компьютерную томограмму (КТ) голеностопных суставов, контрольный осмотр с результатами назначен через 7 дней.

Повторный прием. Боль в области левого голеностопного сустава уменьшилась (по шкале ВАШ 2-3 балла), отёчность +1,5 см сохраняется. Активные движения в левом голеностопном суставе малоболезненные.

Заключение рентгенолога (рис. 3б): КТ картина соответствует остеопойкилии.

Через 1 месяц бы проведен повторный осмотр. Жалоб не предъявляет.

Результаты исследования и их обсуждение

В представленных случаях главной причиной обращения за медицинской помощью явилась боль. Сопутствующий диагноз «остепойкилия» был выставлен в процессе консилиума смежных специалистов. При этом необходимо отметить, что в лексикон травматологов-ортопедов нашей клиники (как и у части молодых в то время рентгенологов) термин «остеопойкилия» вошел лишь в конце XX века. По истечении 17 лет (второй клинический случай) об этой патологии практически все забыли, кроме того, к 2014 году пришло новое молодое поколение травматологов-ортопедов, которые никогда об этой патологии не слышали. В связи с редкостью данной патологии у обоих поколений, то есть у докторов, работавших в 1997 году, и у травматологов-ортопедов и рентгенологов, работавших в 2014 году, возникало определенное беспокойство и неуверенность в выставлении сопутствующего диагноза. А третий случай уже не вызывал сомнений в том, что у пациента остеопойкилия (кроме того, диагноз подтвержден компьютерной томографией), т. к. память об этой патологии еще сохранялась.

По литературным данным, боль в области пояснично-крестцового отдела позвоночника - не редкость в возрасте старше 35 лет. В статьях [4-6] описаны клинические случаи у пациентов в возрасте 25-46 лет, аналогичные первому случаю, приведенному в нашей статье. По данным рентгенологического обследования, выявляется картина остеопойкилии как сопутствующей патологии, не имеющей ничего общего с клинической картиной.

В результате рентгенологического исследования по причине, не связанной с основной патологией, может неожиданно выявиться остеопойкилез [7-9]. Обнаружение остеопойкилеза возможно при экстренных исследованиях, проводимых при травмах опорно-двигательной

системы [10; 11], и может вызвать беспокойство у пациента и врача, особенно если ранее не было известно о его наличии.

Таким образом, остеопойкилия может быть выявлена в любом возрасте случайно при необходимости рентгенологического исследования опорно-двигательной системы [12], что является неожиданным и пугающим для врача и самого пациента, т. к. возникает страх наличия у пациента онкологического заболевания [13; 14].

Остеопойкилия – это заболевание, относящееся к группе склеротических остеодисплазий. Боголюбский Ю. А. и [др.] [15] отметили некоторые особенности оперативного лечения при данном заболевании: авторами указано, что проведение спиц «в области участков остеосклероза потребовало больших усилий. Две из трех проведенных спиц значимо изменили траекторию, отклонившись от островков остеосклероза, что потребовало их перепроведения». Травматологу необходимо учитывать данный факт при выполнении операции на участке, имеющем очаги склероза.

По данным Subbarao K. (2013 г.), распространенность данной группы заболеваний составляет 1,5 на 100 тысяч родившихся [16]. Выявляемость остепойкилии, по данным Kucukcakir N. et al., Войцеховского Т. Г. и др. [17; 18], составляет 1 случай на 50 тысяч человек. В статье Sim E. [19] писал, что он наблюдал 5 случаев остеопойкилоза за 32 года (с 1956 по 1988 год); в нашей клинике с 1997 по 2024 год (27 лет) было выявлено только три случая.

Заключение

Таким образом, по данным Sim E., случай остеопойкилии в прошлом веке выявлялся каждые 6,4 года, по наблюдениям автора - каждые 8 лет. Теоретически эти цифры сопоставимы, но недостаточны для статистических выводов. Однако целесообразно в учебной литературе по специальности «Травматология и ортопедия» упоминать о данной патологии, акцентируя, что патология выявляется случайно и не имеет клинического значения.

Список литературы

1. Леднев С. А., Разуваева Ю. Ю., Леднева В. С. Нобелевский лауреат Вильгельм Конрад Рентген // Молодежный инновационный вестник. 2021. Т. 10. № S2. С. 91-92. EDN: BQMEDQ.
2. Лагунова И. Г. Клинико-рентгенологическая диагностика дисплазий скелета. М.: Медицина, 1989. 255 с. ISBN: 5-225-01534-4
3. Петрушин А. Л., Тюсова Н. Н., Нехорошкова Т. В. Склеротические остеодисплазии (обзор литературы) // Травматология и ортопедия России. 2016. Т. 22. № 1. С. 136-150. EDN: VVYDHX.

4. Liu S, Zhou X, Song A, Huo Z, Liu Y, Wang Y. Osteopoikilosis. Postgrad Med J. 2019 Dec;95(1130):679. DOI: 10.1136/postgradmedj-2019-136705. Epub 2019 Aug 1. PMID: 31371461.
5. Mohsenpour B, Ahmadi A. Osteopoikilosis: a case report. J Med Case Rep. 2023 Jul 12;17(1):292. DOI: 10.1186/s13256-023-04025-6. PMID: 37434212; PMCID: PMC10337142.
6. Meena S, Saini P, Chowdhary B. Multiple spots on bone: diagnostic challenge or spot diagnosis? Osteopoikilosis. Neth J Med. 2013 Sep;71(7):372, 376. PMID: 24038566.
7. Cherif I, Maatallah K, Ferjani H, Triki W, Ben Nessib D, Kaffel D, Hamdi W. Case report of Osteopoikilosis in patient with psoriatic arthritis. Clin Case Rep. 2022 Jan 12;10(1):e05263. DOI: 10.1002/ccr3.5263. PMID: 35059199; PMCID: PMC8755598.
8. Paparella M. T., Gangai I., Porro C., Eusebi L., Silveri F., Cammarota A., Guglielmi G. Osteopoikilosis in the ribs, pelvic region and spine: a case report // Digital Diagnostics. 2021. Vol. 2. № 4. P. 481-487. DOI: 10.17816/DD79504.
9. Mukai T, Morita Y. Osteopoikilosis. Rheumatology (Oxford). 2022 Feb 2;61(2):879-880. DOI: 10.1093/rheumatology/keab436. PMID: 33989397.
10. Hill CE, McKee L. Osteopoikilosis: an important incidental finding. Injury. 2015 Jul;46(7):1403-5. DOI: 10.1016/j.injury.2015.02.005. Epub 2015 Feb 11. PMID: 25707878.
11. Gupta P, Paul J, Nandipati VS, Cherian KE, Kapoor N, Paul TV. Visual Vignette. Endocr Pract. 2020 Aug;26(8):932. DOI: 10.4158/EP-2019-0578. PMID: 33471688.
12. Ye C, Lai Q, Zhang S, Gao T, Zeng J, Dai M. Osteopoikilosis found incidentally in a 17-year-old adolescent with femoral shaft fracture: A case report. Medicine (Baltimore). 2017 Nov;96(47):e8650. DOI: 10.1097/MD.0000000000008650. PMID: 29381938; PMCID: PMC5708937.
13. Tin AW, Hardman J, Naisby G. Two cases of mimics of bone metastasis in breast cancer. BJR Case Rep. 2017 Dec 16;4(2):20170091. DOI: 10.1259/bjrcr.20170091. PMID: 30363150. PMCID: PMC6159113.
14. Sefidbakht S. [et al.] Osteopoikilosis: a sign mimicking skeletal metastasis in a cancer patient // Middle East J. Cancer. 2011. Vol. 2. № 1. P. 37-41.
15. Боголюбский Ю. А., Файн А. М., Ваза А. Ю., Гнетецкий С. Ф., Титов Р. С., Бондарев В. Б., Сергеев А. Ю., Скуратовская К. И. Остеосинтез шейки бедренной кости у пациента с остеопойкилозом // Практическая медицина. 2021. Т. 19. № 3. С. 116-118. DOI: 10.32000/2072-1757-2021-3-116-118.
16. Subbarao K. Skeletal dysplasia (Sclerosing dysplasias – part 1) // NJR. 2013.Vol. 3. № 2. Is. 5. P. 2–10. DOI: 10.3126/njr.v3i2.9603.
17. Kucukcakir N, Inceoglu LA, Raif SL. Osteopoikilosis - a case report. Turk J Phys Med Rahab. 2015;61:376–379. DOI: 10.5152/tftrd.2015.39019.

18. Войцеховский Т. Г., Монтисиело М. Р., Кейзерман Б., Монтисьелу О. А. Остеопойкилоз: что должен знать о нем ревматолог? // Clin Rheumatol 2012. № 31 (4). С. 745-748. DOI: 10.1007/s10067-011-1916-x.
19. Sim E. Osteopoikilie-Frakturheilung [Osteopoikilosis--fracture healing]. Unfallchirurgie. 1989 Dec;15(6):303-5. German. PMID: 2626814.

Конфликт интересов: Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Conflict of interest: The authors declare that there is no conflict of interest.