

Liikuntaa harrastaneen miehen voimakas jalkateräkipu ja paikalliset luustomuutokset

Sairastettua keuhkojen sarkoidoosia lukuun ottamatta aiemmin terveelle 38-vuotiaalle miehelle kehittyi yhtäkkinen toispuolinen jalkateräkipu ja asteittainen etenevät osteoporoottiset, osin lyyttiset jalkaterän luustomuutokset. Potilas sai bisfosfonaattihoidon. Seurannan aikana kliininen ja radiologinen tilanne alkoivat korjaantua. Diagnoosi perustui kliiniseen taudinkuvaan.

Potilas on toimistotyötä tekevä, jääkiekkoa harrastava mies, jolla oli todettu 1999 sattumalöydöksenä keuhkosarkoidoosi. Siihen hän oli saanut kahden vuoden ajan prednisolonia. Hänen oikeaa olkapäätänsä oli operoitu ilmeisesti impingement-tyyppisten vaivojen ja oikeaa polvea nivelkierukkarepään vuoksi.

Elokuussa 2007 potilaan vasen jalkaterä kipeytyi juoksulenkillä. Hän ei pystynyt kivun vuoksi varaamaan jalalleen. Jalkaterän röntgenkuvassa näkyi radiologin lausunnon mukaan os cuneiformen dorsaalipinnalla kortikaalista luun paksuuntumaa. Sitä ei todettu enää syyskuussa 2007 otetussa kuvassa. Sen sijaan samaan aikaan otetussa jalkaterän magneettikuvassa nähtiin luuödeemaa toisen ja kolmannen metatarsaaliluun alueella ja molemmissa luissa poikittaiset fissuuralinjat. Jalkaterän röntgenkuvauksessa kuukausi myöhemmin arvioitiin os cuneiformen muuttuneen skleroottisemmaksi ja metatarsaaliluiden distaalipäiden luurakenne oli selvästi läiskäistä. Marraskuun 2007 röntgenkuvauksessa jalkaterässä oli havaittavissa voimakas periartikulaarinen osteoporoosi. Laboratoriotutkimuksissa lasko, CRP-pitoisuus, perusveren-

kuva ja plasman glukoosipitoisuuden paastoarvo olivat normaalit. Reumatekijätestin tulos oli kielteinen.

Joulukuussa 2007 potilas otettiin tutkittavaksi reumaosastolle. Hän liikkui kyynärsauvoihin turvautuen. Vasemmalle jalalle varoaminen aiheutti kipua jalkaterän keskiosaan. Yleistutkimuksessa ei tullut esiin poikkeavaa. Vasen nilkka oli normaali, mutta siitä distaalisuuntaan jalkaterän iho oli hieman punoittava ja diffuusisti turpea. Palpaatioarkuutta ei ollut todettavissa. Kliinisen tutkimuksen yhteydessä tehtiin nilkkanivelnen kaikukuvaus, ja siinä ei todettu nivel- tai jännetuppialueiden turvotusta. Kliinisen tilan katsottiin olevan refleksi-dystrofiatyypinen.

Seuraavissa laboratoriotutkimuksissa saatiin normaalit tulokset: seerumin ionisoitunut kalsium, vuorokausivirtsan kalsium, seerumin alkalinen fosfataasi, kreatiniini, uraatti, ACE ja elektroforeesi. Seerumin lysotsyymipitoisuus oli lievästi suurentunut. Mantoux'n testin tulos oli negatiivinen. Vasemman nilkan ja jalkaterän magneettikuvauksessa tarsometatarsaalinelvten ja varpaiden tyvinivelten alueella oli subkondraalista periartikulaarista ödeemaa ja lateraaliossa sekä keskimmaisessä os cuneiformessa laaja-alaisempaa ödeemaa. Keuhkojen röntgenkuvassa todettiin neljän vuoden takaiseen vertailukuvaan nähden ennallaan olevaa keuhkoparenkyymin fibroottistyyppistä juosteisuutta. Luustokartassa ei havaittu oirehtivan vasemman jalkaterän alueella poikkeavaa, mutta oikeassa jalkaterässä oli paikallista kertymäisiä. Myös vasemmalla häpyluun ramuksessa oli pieni paikallinen merkkiaineen kertymä, jonka katsottiin voivan olla genitaalialueen virtsakontaminaatio.

Potilaalle annettiin 4 mg:n tsoledronihappo-infuusio ja aloitettiin kalsium- ja D-vitamiinilääkitys. Lisäksi hän sai fysioterapeutin ohjausta. Toukokuussa 2008 todettiin, että kliininen tilanne oli alkanut korjaantua. Jalkaterän röntgenkuvassa nähtiin tarsometatarsaaliluiden ja varpaiden tyvinivelten periartikulaarisen mineraalikadon lähes normaalistuneen.

Pohdinta

Käytettävissä olleiden röntgenlausuntojen perusteella tuli vaikutelma, että jalkaterän luustossa vaihtelivat osteolyttiset ja skleroottiset muutokset. Magneetikuvassa oli havaittu metatarsaaliluiden fissuuralinjoja. Tämä tuo mieleen Pagetin taudin mahdollisuuden (**TAULUKKO 1**) (Schalin-Jäntti 2007). Erotusdiagnosiksi sopii ensisijaisesti monimuotoinen paikallinen kipuoireyhtymä (complex regional pain syndrome, CRPS) (Littlejohn 1998, Pakkasjärvi ja Kallio 2006). Röntgenlöydöksen perusteella muita erotusdiagnostisia vaihtoehtoja ovat metastaattinen luusairaus, krooninen osteomyeliitti ja fibroottinen dysplasia. Näistä viimeksi mainittu on luuston hyvänlaatuisen kehityshäiriö (Schalin-Jäntti ym. 2007). Sairaus todetaan joskus ensi kertaa vasta aikuisiällä, mutta potilas on yleensä oireeton. Röntgenkuvassa nähdään tarkkarajainen, usein skleroosireunainen lyyttinen tai mattalasimainen leesio. Seerumin AFOS-aktiivisuus on usein lisääntynyt. Bisfosfonaattihoitoa suo-

sitellaan, mutta se ei korjaa luuleesioita.

Potilas oli sairastanut sarkoidoosin. Kroonisen sarkoidoosin kliininen kulku on vaihteleva. Yli 90 %:lla havaitaan laajat keuhkoinfiltraatit ja ACE-pitoisuus on suurentunut yli puolella potilaista. Hyperkalsiuria ja AFOS-arvon lievä suureneminen ovat tavallisia. Luuston röntgenkuvassa nähdään kystia. Luusairauteen liittyy usein ihomuutoksia, joita ovat lupus pernio ja daktyliitit. Näitä ei potilaalla havaittu.

Tarkasteltavaksi jää Pagetin taudin tai CRPS:n mahdollisuus. Pagetin tautia sairastavista suurin osa on oireettomia, jolloin kyseistä diagnoosia aletaan epäillä sattumalöydöksenä todetun suurentuneen AFOS-arvon tai patologisen röntgenlöydöksen perusteella. Luukipu liittyy luun deformeetteihin ja murtumiin. Affisoituneen alueen iho voi kuumoittaa verenkierron kiihtymisen seurauksena. Sairaus saattaa vaurioittaa yhtä luuta (monostoottinen tauti) tai useampaa luuta (polyostoottinen tauti). Jalkaterämuutoksia esiintyy 10 %:lla Pagetin tautia sairastavista. AFOS-arvo on yleensä selvästi suurentunut kuvaten osteoblastien aktiivisuutta. Seerumin ionisoituneen kalsiumin ja lisäkilpirauhashormonin pitoisuudet ovat normaalit. Hyperkalsiuriaa voi esiintyä. Luun syntetisoitumista kuvaavat tyypin I kollageenin merkkiaineet ovat lisääntyneet. Kuvantamistutkimuksista röntgenkuvaus on avainasemassa diagnostiikassa. Isotooppikartoitus on herkkä, mutta epäspesifinen menetelmä. Luun histologiassa todetaan kaoottinen rakenne.

TAULUKKO 1. Pagetin taudin ja monimuotoisen paikallisen kipuoireyhtymän (CRPS) röntgenologista erotusdiagnostiikkaa.

Pagetin tauti	CRPS
Luun läpimitan kasvu	Luun demineralisaatio alkuvaiheessa läiskäinen osteopenia myöhemmin diffuusit muutokset
Luun kuorikerroksen paksuuntuminen	Nivelenviereiset muutokset eroosiot mahdollisia
Poikittaiset valemurtumat	
Karkea trabekulaarinen luurakenne	
Lyyttiset alueet	
Skleroottiset muutokset	

Pagetin taudin puolesta puhuvat luukipu ja se, että potilaalla ei ollut todettavissa nivel-tulehdusta. Kipualueen iho oli ilmeisesti kuumoittava, mikä sopii kiihtyneeseen verenkiertoon. Vaikka normaali AFOS-arvo puhuu Pagetin tautia vastaan, arvo voi olla viitealueella rajoittuneessa taudissa. Isotooppikuvausta käytetään Pagetin taudin laajuuden arvioon. Tässä tapauksessa oirehtivan vasemman jalkaterän löydös oli normaali, mutta oikealla näkyi lisääntynyttä merkkiaineen kertymää. Luun resorptiovaiheessa isotooppikartoitus voi aliarvioida sairauden aktiivisuutta, ja on huomattava, että oikean nilkan löydös ei ollut normaali. Viimeksi mainittu löydös oli toisaalta tulkittu raajojen kuormituserosta johdettavaksi. Pagetin taudin puolesta puhui hyvä vaste bisfosfonaattihoidon.

Röntgenkuvat oli otettu suurimmaksi osaksi avohoidossa, ja tilanne oli lausuntojen perusteella vaikeasti tulkittavissa. Kun kuvat saatiin nähtäväksi ja ne katsottiin kronologisessa järjestyksessä, niin jalkaterän alueella oli todettavissa etenevä osteoporoottinen (lyytinen) prosessi, johon liittyi luun korteksin oheneminen ja paikoitellen eroosiot tarsometatarsaalinielissä ja varpaiden tyvinivelissä (KUVA). Merkittäväksi tulkittavia skleroottisia luumuutoksia ei havaittu; skleroosiin viitattiin ensivaiheen kuvista annetuissa lausunnoissa. Myöskään metatarsaaliluiden fissuuroita ei pystytty nyt havaitsemaan CD:lle tallennetuista magneettikuvista.

Diagnoosiehdotus. Tässä tapauksessa CRPS:n puolesta puhuvat kipu ja ihon kliininen löydös. Edelleen tähän diagnoosiin sopii se, että laboratoriolöydökset olivat normaalit. Röntgenkuvauksessa todettiin tässä tilassa kuvatut kortikaalinen luuresorptio, nivelenviereiset eroosiot ja muutosten

ilmaantuminen viikkojen tai muutaman kuukauden kuluessa. Negatiivinen isotooppikuvauslöydös ei ole pois sulkeva, vaikkakin sen olisi odottanut olevan poikkeava (Littlejohn 1998). Bisfosfonaattihoidon tehosta on näyttöä CRPS:ssä (Hsu 2009). CRPS:ää vastaan puhuvat näinkin suuret luustomuutokset röntgenkuvassa ja toisaalta se, että reumatogille on annettu arvioitavaksi näin ilmeinen tapaus. CRPS:n diagnoosi on kliininen ja perustuu tyypillisiin kliinisiin piirteisiin ja muiden syiden kuten infektion, luusairauden ja trauman



KUVA. Kolmen kuukauden seuranta-aikana elokuusta (A) marraskuuhun 2007 (B, C) vasempaan jalkaterään on kehittynyt voimakas osteoporoosi päkiäalueelle ja tarsometatarsaalialueelle.

pois sulkemiseen. Diagnostiikassa käytetään kuvantamistutkimuksia, joista keskeisin on röntgenkuvaus. Usein taustalla on vamma, monesti mikrotrauma (TAULUKKO 2).

Keskustelu

MARJATTA LEIRISALO-REPO: Tapaus käsiteltiin nopeasti, joten aikaa jää hyvin keskusteluun. Onko yleisöllä kysyttävää tai kommentoitavaa?

TOM PETTERSSON: Mikä merkitys on kalloaffisioin puuttumisella ajatellen Pagetin taudin diagnoosia?

MARKKU HAKALA: Kalloaffisiota ei vaadita diagnoosiin.

JOHANNA PARONEN: Oliko potilaalle tehty luuston tiheysmittaus?

MARKKU HAKALA: Ei ollut.

CAMILLA SCHALIN-JÄNTTI: Mikä oli potilaan D-vitamiinipitoisuus?

MARKKU HAKALA: D-vitamiinia ei ollut tutkittu.

VELI-PEKKA LEHTO: Mitä termi CRPS kuvaa? Mikä on taudin patogeenesi?

MARKKU HAKALA: Kyseessä on ns. paikallinen kipuoireyhtymä, jossa keskeistä on autonomisen hermoston häiriö (de Mos ym. 2009). Taudista on käytetty mm. nimiä sympaattinen refleksidystrofia ja algoneurodystrofia. Alkuvaiheessa hallitsee verisuonten laajeneminen, myöhemmin supistuminen, ja raajaan voi kehittyä lihasten ja ihon atrofisia muutoksia.

MARJATTA LEIRISALO-REPO: Esittelijä tarjoaa siis kahta diagnoosia: Pagetin tautia ja CRPS:ää. Potilas tuli meille työterveyshuolosta, jossa hoitavana lääkärinä oli ollut reumatologi. Hän lähetti potilaan aluksi ortopedille. Ortopedi piti diagnoosina joko Charcot'n jalkaa tai osteomyeliittiä. Tulivatko esittelijälle mieleen tällaiset vaihtoehdot?

MARKKU HAKALA: Veren glukoosipitoisuus oli normaali. Kliinisesti kaikki sopi CRPS:ään. Nuoremmille lääkäreille korostan, että on tärkeää katsoa röntgenkuvat myös itse. Pelkkien röntgenlausuntojen perusteella diagnostiikka voi ajautua väärille linjoille. Kuviahan oli otettu eri hoitopaikoissa. Kun katsottiin rönt-

TAULUKKO 2. Monimuotoisen paikallisen kipuoireyhtymän (CRPS) taustatekijöitä.

Taustatekijä	Esiintyvyys (%)
Trauma	50
Idiopaattinen	25
Muut	25
keskushermostosairaus	
sydäninfarkti	
perifeerisen hermon vaurio	
laskimotukos	
lääkkeet	
barbituraatit	
isoniatsidi	

genkuvat aikasarjassa, kyseessä oli etenevä osteoporoottinen, paikoin lyyttinen prosessi. Pagetin tautiin sopivaa lyyttisten ja skleroottisten muutosten vaihtelua ja luurakenteen karkeutumista ei ollut havaittavissa.

MARJATTA LEIRISALO-REPO: Sekä lähettävä ortopedi että radiologi pitivät murtumavaaraa suurena. Siksi annettiin bisfosfonaattihoito. Sarkoidoosia ei todettu, ei myöskään infektiota. Pagetin tautia ei edes epäilty.

TUOMAS ROSBERG: Miten potilaan kipuja hoidettiin?

MARKKU HAKALA: Etorikoksibilla ja fysioterapialla.

RAILI KAUPPINEN: Mikä merkitys oli steroidihoidolla ajatellen potilaalla todettua vahvaa osteoporoosia?

MARKKU HAKALA: Steroidihoidolla ei ole osoitettua etiologista merkitystä tässä sairauudessa.

MARJATTA LEIRISALO-REPO: Osteoporoosi oli tässä tilanteessa paikallinen löydös.

CAMILLA SCHALIN-JÄNTTI: Charcot'n jalka olisi voinut sopia kliinisesti, mutta potilaalla ei ollut diabetesta eikä neuropaattisia oireita. Tiedetäänkö, laskeutuiko potilaan jalkaholvi?

MARKKU HAKALA: Jalkaterän röntgensivukuva potilaan jalkaholvin kaari oli normaalin näköinen. Charcot'n pitäisi käsitykseni mukaan olla paikallisempi löydös.

CAMILLA SCHALIN-JÄNTTI: Vaikeassa muodossa se voi olla laaja.

MARJATTA LEIRISALO-REPO: Jalan karkea anatomia säilyi.

MARJATTA LEIRISALO-REPO: CRPS:n hoidossa käytetään suonensisäistä bisfosfonaattihoidoa, kipulääkitystä ja mobilisointia. Potilasta yritettiin mobilisoida mahdollisimman nopeasti. Tähän tilaan on kokeiltu myös ns. peilihoitoa, joka kuuluu toimintaterapian alaan. Onko esittäjällä vielä jotakin lisättävää tai kommentoitavaa?

MARKKU HAKALA: Kiitokset mahdollisuudesta tulla puhumaan tähän tilaisuuteen.

MARJATTA LEIRISALO-REPO: Onnittelut Markku Hakalalle ja kiitos yleisölle vilkkaasta keskustelusta. ■

MARKKU HAKALA, ma. professori
Tampereen yliopisto, lääketieteen laitos
33014 Tampereen yliopisto
ja Reumasäätiön sairaala

IRMA SOINI, radiologian dosentti
Reumasäätiön sairaala

MARJATTA LEIRISALO-REPO, professori
HUS, sisätaudit

KIRJALLISUUTTA

- Hsu Es. Practical management of complex regional pain syndrome. *Am J Ther* 2009;16:147–54.
- Littlejohn GO. Algodystrophy (reflex sympathetic dystrophy syndrome). Kirjassa: Maddison PJ, Isenberg DA, Woo P, Glass DN, toim. *Oxford textbook of rheumatology*. 2. painos. Oxford: Oxford University Press 1998, s. 1679–88.
- de Mos M, Sturkenboom MC, Huygen FJ. Current understandings on complex regional pain syndrome. *Pain Pract* 2009;9:86–99.
- Pakkasjärvi N, Kallio P. Urheilijapojan kipeä nilkka. *Duodecim* 2006;47:2279.
- Schalin-Jäntti C. Miten tutkitaan ja hoidetaan Pagetin tautia? *Suom Lääkäril* 2007;62:1499–504.
- Schalin-Jäntti C, Vikki M, Mäkitie O. Fibroottinen dysplasia. *Suom Lääkäril* 2007;62:2259–66.

Summary

Strong metatarsal pain and localized bone lesions in a physically active male (clinico-pathological conference report)

With the exception of a previous history of pulmonary sarcoidosis, a previously healthy 38-year old man developed a sudden unilateral metatarsal pain and gradually progressing osteoporotic, partly lytic metatarsal bone lesions. The patient received a bisphosphonate treatment. Clinical and radiological situation began to improve during the follow-up observation. The diagnosis was based on clinical picture.