❖骨骼肌肉影像学

$^{99}Tc^{m}$-MDP SPECT/CT observation on bone and joint involvement of SAPHO syndrome

CAO Xiaomei[1,2]，LI Jiamiao[1,2]，LI Dongju[1,2]，MA Xiaowei[1]，WU Yuting[1,2]，WANG Rong[1]，WANG Ying[1]，YANG Jiqin[1*]

(1. Department of Nuclear Medicine，General Hospital of Ningxia Medical University，Yinchuan 750000，China；2. College of Clinical Medicine，Ningxia Medical University，Yinchuan 750000，China)

[**Abstract**] **Objective** To observe bone and joint involvement of synovitis-acne-pustulosis-hypertrophy-osteitis (SAPHO) syndrome on $^{99}Tc^{m}$-MDP SPECT/CT imaging. **Methods** Data of 69 cases with SAPHO syndrome were retrospectively analyzed. The mode of bone and joint involvement of SAPHO syndrome showed on $^{99}Tc^{m}$-MDP SPECT/CT images observed and classified using Cluster analysis. **Results** Whole body bone and joint lesions could be classified as rib type (n=19)，spine type (n=32) and sternoclavicular joint type (n=18) using cluster analysis. Totally 145 lesions were detected in 19 rib type cases，including 60 rib involvements (distributed in all 19 cases) and 95 other lesions. More than half rib lesions showed low to moderate uptake，half showed osteolytic bone destruction，while a few without obvious density changes. In 32 cases of spinal type，the axial bones were involved in 84.38% (27/32)，and most spinal lesions involved one side of the costovertebral joint and showed continuous distributions，as well as low to moderate uptake. The sternoclavicular joint was involved in all 18 cases of sternoclavicular joint type，typically characterized by "bull head sign" or "half bull head sign"，and more than half lesions located in sternoclavicular joint and showed moderate to high uptake，with hyperosteogeny and hypertrophy of bone cortex. **Conclusion** SAPHO syndrome involved bone and joint might be classified as rib type，spinal type and sternoclavicular joint type. When whole body imaging failed to detect typical characteristics like "bull head sign" or "half bull head sign"，combining with clinical data and SPECT/CT findings were helpful for diagnosing SAPHO syndrome.

[**Keywords**] SAPHO syndrome；tomography，emission-computed，single-photon

DOI：10.13929/j.issn.1003-3289.2024.03.021

SAPHO 综合征累及骨及关节$^{99}Tc^{m}$-MDP SPECT/CT 显像表现

曹小梅[1,2]，李佳苗[1,2]，李冬菊[1,2]，马小伟[1]，吴玉婷[1,2]，王　蓉[1]，王　莹[1]，杨吉琴[1*]

(1. 宁夏医科大学总医院核医学科，宁夏 银川　750000；2. 宁夏医科大学临床医学院，宁夏 银川　750000)

[**摘　要**] **目的**　观察$^{99}Tc^{m}$-MDP SPECT/CT 显像所示滑膜炎、痤疮、脓疱病、骨肥厚及骨炎(SAPHO)综合征累及骨与关节表现。**方法**　回顾性分析 69 例 SAPHO 综合征患者$^{99}Tc^{m}$-MDP SPECT/CT 资料，以聚类分析法评估 SAPHO 综合征累及骨、关节模式。**结果**　根据聚类分析，SAPHO 所致骨与关节病变可分为肋骨型(n=19)、脊柱型(n=32)和胸锁关节型(n=18)。共于 19 例肋骨型检出 145 处病灶，包括 60 处肋骨病灶及 95 处其他病灶，半数以上呈低、中度摄取；半数呈溶骨性骨质破坏、边缘呈低度摄取；少数肋骨密度无明显改变。脊柱型多累及中轴骨 (27/32，84.38%)；椎体病变多累及

[**第一作者**] 曹小梅(1996—)，女，甘肃定西人，在读硕士，医师。研究方向：肿瘤核医学。E-mail：medcxm@163.com

[**通信作者**] 杨吉琴，宁夏医科大学总医院核医学科，750000。E-mail：qin-yj06@163.com

[**收稿日期**] 2023-10-11　　[**修回日期**] 2023-12-16

一侧肋椎关节、呈连续性分布及低、中度摄取。胸锁关节型均累及胸锁关节，半数以上病灶位于胸锁关节并呈高度摄取，以“牛头征”和“半牛头征”为典型表现，多见骨质增生硬化、骨皮质肥厚。**结论**　SAPHO 综合征累及骨关节可分为肋骨型、脊柱型及胸锁关节型。全身骨显像缺乏“牛头征”或“半牛头征”等典型表现时，结合临床表现及 SPECT/CT 融合显像有助于诊断。

[**关键词**]　SAPHO 综合征；体层摄影术，发射型计算机，单光子
[**中图分类号**]　R68；R817　[**文献标识码**]　A　[**文章编号**]　1003-3289(2024)03-0420-05

滑膜炎、痤疮、脓疱病、骨肥厚及骨炎（synovitis-acne-pustulosis-hyperostosis-osteitis，SAPHO）综合征少见，临床表现多样[1-3]，诊断困难[4]。骨关节受累是确诊 SAPHO 综合征必要条件，在疾病不同阶段具有不同影像学特征[5-6]。本研究观察 SAPHO 综合征累及骨及关节$^{99}Tc^{m}$-MDP SPECT/CT 显像表现。

1　资料与方法

1.1　研究对象　回顾性分析 2016 年 4 月—2023 年 6 月宁夏医科大学总医院确诊的 69 例 SAPHO 综合征患者，男 22 例、女 47 例，年龄 24～80 岁、平均（50.3±12.1）岁，平均发病年龄（46.3±12.8）岁；满足以下诊断 SAPHO 综合征标准[7]之一：①骨关节表现及聚集性痤疮或爆发性痤疮或化脓性汗腺炎；②骨关节表现及掌趾脓疱病；③（前胸壁、四肢或脊柱）骨质增生伴或不伴皮肤病；④慢性多灶性复发性骨髓炎累及中轴或外周骨，伴或不伴皮肤损害。除外化脓性骨髓炎、感染性胸壁关节炎、感染性掌跖脓疱病、掌跖皮肤角化症、弥漫性特发性骨肥厚、骨关节炎及药物性骨关节病变。本研究通过院伦理委员会批准（KYLL-2024-0090）。患者均签署知情同意书。

1.2　仪器与方法　采用 Siemens Symbia T 双探头 SPECT/CT 显像仪或 GE Discovery NM/CT670 Pro 型 SPECT/CT 仪，均配备低能高分辨准直器，显像剂为$^{99}Tc^{m}$-亚甲基二膦酸盐（methylene diphosphonate，MDP）（北京原子高科股份有限公司钼-锝发生器，江苏原子医学研究所 MDP 药盒），放射化学纯度＞95%。经静脉注射 7.4×10^{8} Bq $^{99}Tc^{m}$-MDP 3 h 后嘱患者排空膀胱仰卧于检查床，先行全身骨显像；参数：能峰 140 keV，窗宽 20%，矩阵 256×1 024，床速 20 cm/min；之后以所见异常放射性摄取部位为中心行局部 SPECT/CT 断层融合显像，采集能峰及窗宽同前，矩阵 128×128，5.6°/帧，20 秒/帧，共采集 32 帧；CT 扫描参数：管电压 120 kV，管电流 30 mA，矩阵 512×512。利用 Syngo 工作站 Esoft 软件和 MI VA70 软件进行重建并获得融合图像。

1.3　图像分析　由 2 名具有 15 年以上工作经验的核医学科副主任医师分别观察图像，将骨骼放射性异常摄取灶或稀疏、缺损区判定为异常病灶。以目测法根据全身骨显像判断病灶摄取程度[8]：1 级，无摄取，等于本底；2 级，低度摄取，略高于周围骨组织；3 级，中度摄取，高于周围骨组织；4 级，高度摄取，明显高于周围骨组织。2 名医师意见不一时，经协商达成共识。

1.4　统计学分析　采用 SPSS 26.0 统计分析软件。以 SAPHO 综合征最具特征性和最易受累及骨关节部位作为变量，采用施瓦兹贝叶斯准则二阶聚类法进行聚类分析，以自动确定聚类数目方法判断最佳聚类数目。以 $\bar{x}\pm s$ 表示符合正态分布的计量资料，行独立样本 t 检验。$P<0.05$ 为差异有统计学意义。

2　结果

2.1　临床表现　骨痛 47 例（47/69，68.12%），包括前胸壁痛 33 例、胸腰骶部疼痛 11 例、肩颈部疼痛 3 例；55 例出现皮肤症状（55/69，79.71%），其中脓疱病 45 例、银屑病 6 例、面部痤疮 4 例；35 例（35/69，50.72%）同时存在骨痛及皮肤症状，15 例先出现骨痛症状、10 例先出现皮肤症状、10 例骨痛及皮肤症状同时发生；最长间隔 18 年先后出现皮肤与骨痛症状。

2.2　聚类分析　共于 69 例检出 379 处病灶，其中 68 例（68/69，98.55%）SAPHO 累及前胸壁。根据 SPECT 全身平面显像将全身骨与关节病变分为肋骨型（$n=19$）、脊柱型（$n=32$）及胸锁关节型（$n=18$）3 类，聚类分析结果显示分类质量良好，见图 1；肋骨型发病年龄［（40.3±14.1）岁］早于脊柱型［（48.7±12.5）岁］（$t=0.041$，$P=0.968$）及胸锁关节型［（48.7±10.6）岁］（$t=2.072$，$P=0.046$）。

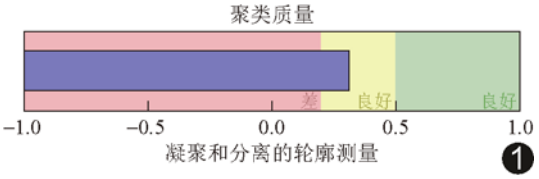

图 1　聚类分析 $^{99}Tc^{m}$-MDP SPECT/CT 显像中 SAPHO 综合征骨与关节病灶质量图

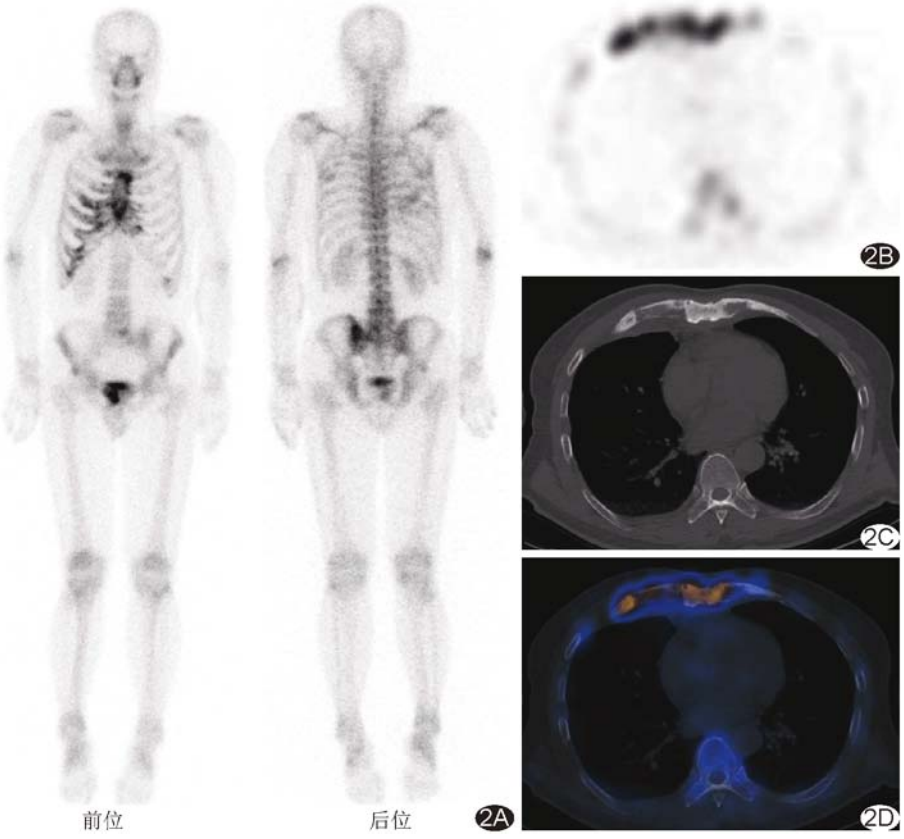

图 2　SAPHO 综合征患者，男，57 岁，四肢脓疱伴胸痛 1 年　A. 全身骨显像图示双侧第 2～10 前肋放射性摄取增高，右侧为著，左侧骶髂关节放射性摄取增高；B～D. 胸部轴位 SPECT/CT 图示右侧第 4 前肋放射性摄取增高，呈溶骨性骨质破坏并边缘硬化

2.2.1　肋骨型　全身骨显像于 19 例肋骨型患者中检出 145 处病灶呈条形或团块状放射性摄取，其中 61 处(61/145，42.07%)呈低度摄取、16 处(16/145，11.03%)呈中度摄取、68 处(68/145，46.90%)呈高度摄取；7 例见“牛头征”、5 例见“半牛头征”。19 例均累及肋骨，其中 13 例(13/19，68.42%)累及第 1 前肋；共检出 60 处(60/145，41.38%)肋骨病灶，主要位于第 1～5 前肋软骨交界区；另外 85 处分布于锁骨 9 处、胸锁关节 23 处、胸肋关节 15 处、胸骨角 9 处、胸骨体 5 处、胸椎 11 处、腰椎 7 处、骶髂关节 4 处及股骨 2 处。SPECT/CT 融合显像显示，30 处(30/60，50.00%)肋骨病灶呈溶骨性骨质破坏伴边缘硬化，其中 27 处(27/30，90.00%)骨质破坏灶边缘呈低度放射性摄取；7 处(7/60，11.67%)病灶骨质密度未见改变，其中 5 处(5/7，71.43%)呈低度放射性摄取；23 处(23/60，38.33%)骨质增生硬化，其中 19 处(19/23，82.61%)呈中、高度放射性摄取、4 处(4/23，17.39%)呈低度放射性摄取。85 处其他病灶中，62 处(62/85，72.94%)呈中、高度放射性摄取，骨质增生硬化、骨皮质肥厚及关节融合，其中 43 处(43/85，50.59%)位于胸锁关节、胸肋关节、胸骨角及骶髂关节。见图 2。

2.2.2　脊柱型　全身骨显像于 32 例脊柱型 SAPHO 综合征检出 177 处病灶，可见灶状或条带状放射性摄取，包括 45 处(45/177，25.42%)低度摄取、44 处(44/177，24.86%)中度摄取及 88 处(88/177，49.72%)呈高度摄取；9 例见“牛头征”、7 例见“半牛头征”；其中 27 例(27/32，84.38%)累及中轴骨(脊柱及骶髂关节)，20 例骶髂关节受累(20/32，62.50%)。81 处(81/177，45.76%)中轴骨病灶中，6 处(6/177，3.39%)位于颈椎、34 处(34/177，19.21%)位于胸椎、13 处(13/177，7.34%)位于腰椎、28 处(28/177，15.82%)位于骶髂关节；其余 96 处分布于胸锁关节 38 处、胸肋关节 32 处、锁骨 4 处、胸骨 18 处及肋骨 4 处。SPECT/CT 融合显像显示，53 处脊柱病灶中，38 处(38/53，71.70%)位于椎体肋椎关节，39 处(39/53，73.58%)呈连续性分布，46 处(46/53，86.79%)病变关节边缘或骨质密度变化明显处呈低、中度放射性摄取；28 处骶髂关节病灶表现为一侧低-中度骶髂关节炎，其中 24 处(24/28，85.71%)髂骨侧广泛增生硬化，20 处(20/28，71.43%)呈低、中度摄取。其余 96 处病灶中，70.83%(68/96)表现为骨质增生硬化、骨皮质肥厚及关节融合，其中 97.06%(66/68)呈中、高度摄取；12 处(12/96，12.50%)骨密度未见明显改变而呈中、高度摄取，6 处(6/96，6.25%)呈溶骨性骨质破坏改变，骨质破坏灶边缘均呈高度摄取。见图 3。

2.2.3　胸锁关节型　18 例胸锁关节型 SAPHO 综合征全身骨显像主要表现为“牛头征”(5 例)或“半牛头征”(4 例)；共检出 57 处病灶，18 处(18/57，31.58%)呈低度、10 处(10/57，17.54%)呈中度、29 处(29/57，50.88%)呈高度摄取。18 例胸锁关节均受累，其中 15 例(15/18，83.33%)仅双侧胸锁关节受累，而肋骨、脊柱及骶髂关节未受累。33 处(33/57，57.89%)病灶位

于胸锁关节、10 处（10/57，17.54%）位于胸肋关节、9 处（9/57，15.79%）位于胸骨角、2 处（2/57，3.51%）位于胸骨体、3 处（3/57，5.26%）位于锁骨。SPECT/CT 融合显像显示，52 处胸锁关节、胸肋关节及胸骨角病灶中，47 处（47/52，90.38%）见骨质增生硬化、骨皮质肥厚及关节融合，其中 34 处（34/47，72.34%）呈中、高度摄取；5 处（5/52，9.62%）骨密度未见异常，其中 4 处（4/5，80.00%）呈低度摄取，1 处（1/5，20.00%）呈中、高度摄取。锁骨及胸骨体病灶均见骨质增生硬化、骨皮质肥厚并呈中度摄取。见图 4。

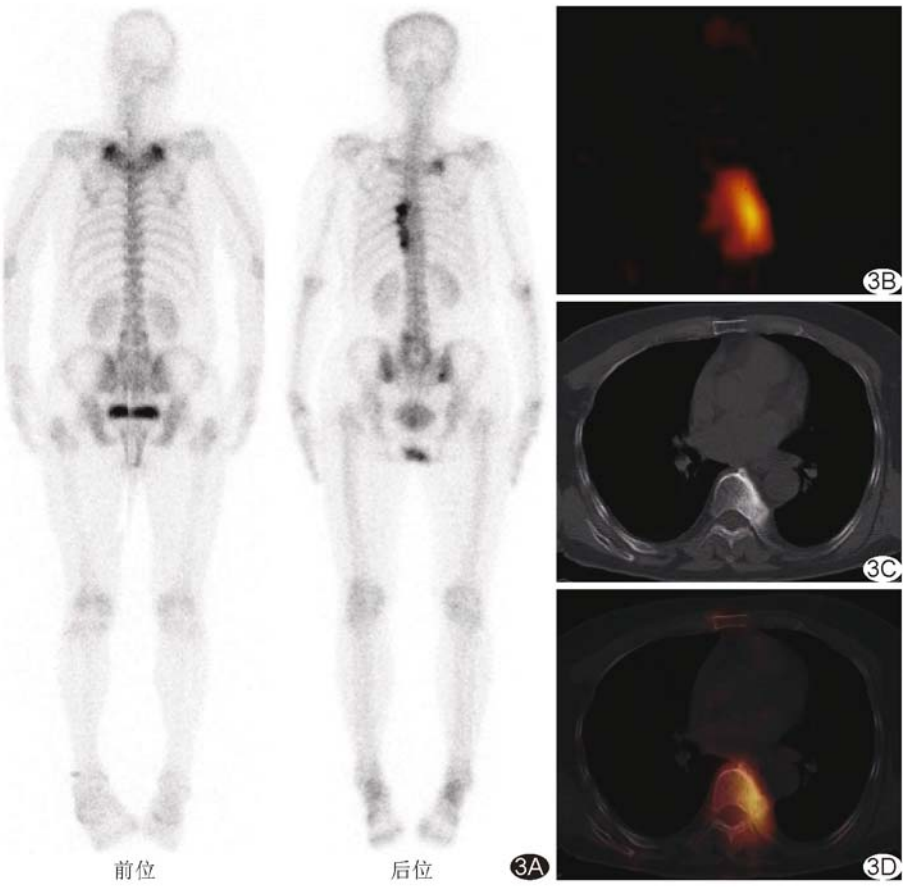

图 3　SAPHO 综合征患者，女，57 岁，腰背痛 2 月余　A. 全身骨显像图示双侧胸锁关节、T8～11 椎体左侧放射性摄取增高；B～D. 胸部轴位 SPECT/CT 图示 T8 椎体左侧肋椎关节放射性摄取增高，椎旁骨化伴部分骨桥形成

3　讨论

SAPHO 综合征为无菌性骨关节病变伴特征性皮肤病变，常累及多处骨骼[9]，但皮肤与骨关节症状常非同时存在，故无皮肤症状并不能排除 SAPHO 综合征；且病理学检查并非诊断 SAPHO 综合征的必要条件[10]，仅作为排除其他疾病的方法。既往研究[11]显示，60% 患者骨关节受累出现于皮肤受累之前，24%同时存在皮肤及骨关节受累；本研究结果与之相符。以累及骨诊断 SAPHO 综合征具有高度特异性，骨质肥厚、增生硬化为其表现[12]。全身骨显像可通过一次检查发现多处骨骼病灶及其放射性分布特征；SPECT/CT 融合显像还可反映病变局部骨质形态、密度变化，有利于全面检出并分析 SAPHO 综合征病灶。

聚类分析法是通过数据建模简化数据，根据共有特征将其归类，进而探讨数据内在关联的探索性统计学方法。本研究通过聚类分析法将 SAPHO 综合征累及骨关节表现形式分为肋骨型、脊柱型及胸锁关节型，并发现肋骨受累常见。CAO 等[6]报道，84.6% SAPHO 患者肋骨受累，75%病变发生于第 1 前肋，且发病年龄较小；本研究所见与之相符。本研究 60.00%（36/60）肋骨病灶表现为低度放射性摄取，呈溶骨性骨质破坏伴周围骨质硬化或骨密度未见明显变化，既往研究[7]认为上述所见提示患者处于 SAPHO 综合征疾病早期。肋锁关节和第 1 对胸肋关节关节面末端出现 5 mm 以上骨质增生灶对诊断 SAPHO 综合征具有重要价值[5]。因此，本研究将肋骨受累列为独立亚型进行分析。

本研究显示 98.55%（68/69）患者前胸壁受累，53.62%（37/69）可见典型“牛头征”[13-14]或“半牛头征”；全身骨显像未见上述典型表现时，可结合 SPECT/CT 融合所见进行分析。

综上，根据聚类分析结果，可将 SAPHO 综合征累及骨关节分为肋骨型、脊柱型及胸锁关节型；而将肋骨受累单独列出具有重要临床意义。全身骨显像缺乏“牛头征”或“半牛头征”等典型表现时，结合临床表现及 SPECT/CT 融合显像有助于诊断。但本研究为单中心回顾性分析，未能结合炎性标志物分析放射性摄取程度、溶骨性破坏与疾病活动性是否相关，有待进一步观察。

利益冲突：全体作者声明无利益冲突。

作者贡献：曹小梅查阅文献、统计分析、撰写文章；李佳苗、李冬菊、马小伟和吴玉婷数据分析；王蓉和王莹图像分析和处理；杨吉琴研究设计、指导、修改文章、经费支持。

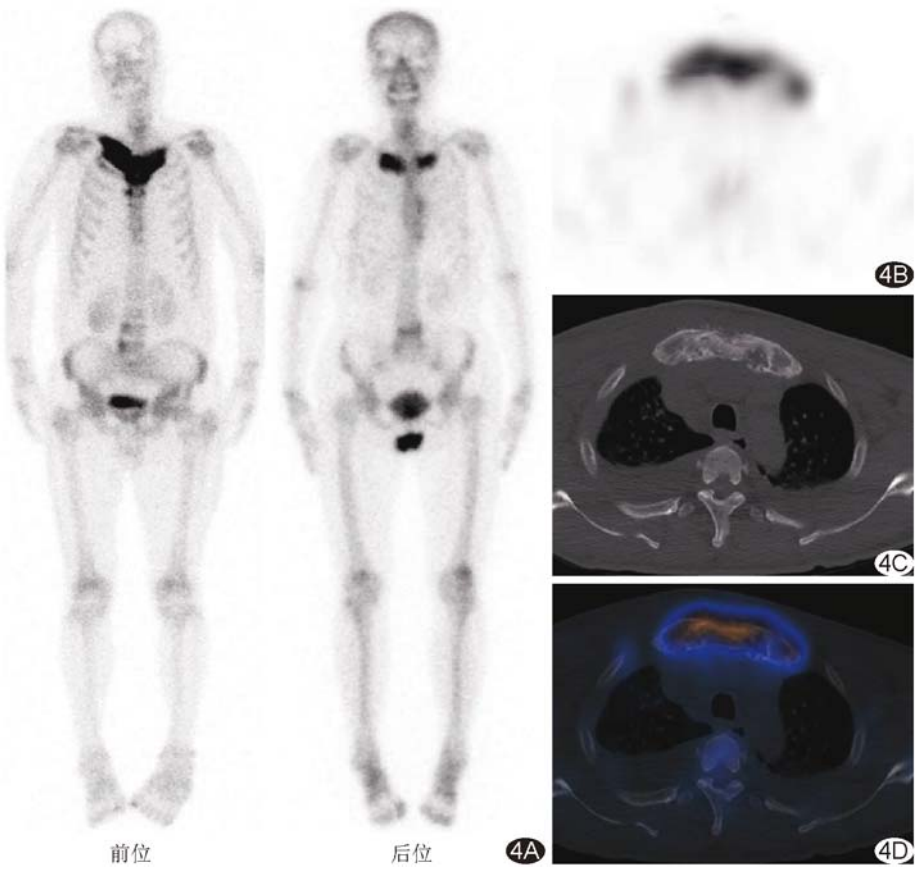

图 4　SAPHO 综合征患者，男，53 岁，四肢脓疱疹 2 年　A. 全身骨显像图示双侧锁骨胸骨端、胸骨局部、双侧胸锁关节、双侧第一胸肋关节放射性摄取增高，前位相表现为典型“牛头征”；B～D. 轴位 SPECT/CT 图示双侧胸锁关节骨质融合、放射性摄取增高

[参考文献]

[1] LI C, ZUO Y, WU N, et al. Synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis and osteitis syndrome: A single centre study of a cohort of 164 patients[J]. Rheumatology (Oxford), 2016,55(6):1023-1030.

[2] XU W, LI C, ZHAO X, et al. Whole-spine computed tomography findings in SAPHO syndrome[J]. J Rheumatol, 2017,44(5):648-654.

[3] LI C, JIANG H, ZHANG Y, et al. Sexual function assessment in patients with SAPHO syndrome: A cross-sectional study[J]. Orphanet J Rare Dis. 2023,18(1):217-224.

[4] van der KLOOT W A, CHOTKAN S A, KAPTEIN A A, et al. Diagnostic delay in sternocostoclavicular hyperostosis: Impact on various aspects of quality of life[J]. Arthritis Care Res (Hoboken), 2010,62(2):251-257.

[5] DEPASQUALE R, KUMAR N, LALAM R K, et al. SAPHO: What radiologists should know[J]. Clin Radiol, 2012,67(3):195-206.

[6] CAO Y, LI C, YANG Q, et al. Three patterns of osteoarticular involvement in SAPHO syndrome: A cluster analysis based on whole body bone scintigraphy of 157 patients[J]. Rheumatology (Oxford), 2019, 58(6):1047-1055.

[7] NGUYEN M T, BORCHERS A, SELMI C, et al. The SAPHO syndrome[J]. Semin Arthritis Rheum, 2012,42(3):254-265.

[8] 李艳梅，杨吉琴，王莹，等. 全身骨显像联合 SPECT/CT 显像对骨纤维异常增殖症的诊断价值[J]. 中华核医学与分子影像杂志，2015，35(6)：470-473.

[9] 倪建明，唐平，华茜，等. SAPHO 综合征的$^{99}Tc^{m}$-MDP SPECT/CT 表现及其诊断价值[J]. 中华核医学与分子影像杂志，2015，35(6)：474-477.

[10] 张强，次旦旺久，孙洪赞，等. CT 与核素骨显像诊断 SAPHO 综合征的对比分析[J]. 中国临床医学影像杂志，2016，27(8)：589-593.

[11] SALLÉS M, OLIVÉ A, PEREZ-ANDRES R, et al. The SAPHO syndrome: A clinical and imaging study[J]. Clin Rheumatol, 2011,30(2):245-249.

[12] 刘爱维，潘文萍，侯岩峰，等. SAPHO 综合征的临床及影像学表现[J]. 中国中西医结合影像学杂志，2018，16(2)：179-181.

[13] FU Z, LIU M, LI Z, et al. Is the bullhead sign on bone scintigraphy really common in the patient with SAPHO syndrome? A single-center study of a 16-year experience[J]. Nucl Med Commun, 2016,37(4):387-392.

[14] 付占立，范岩，张建华，等. SAPHO 综合征 25 例$^{99}Tc^{m}$-MDP 全身骨显像分析[J]. 中华核医学杂志，2011，31(5)：324-327.