



disponibile su [www.sciencedirect.com](http://www.sciencedirect.com)



journal homepage: [www.elsevier.com/locate/itjm](http://www.elsevier.com/locate/itjm)



## CASO CLINICO

# Spondiloartrite sieronegativa indifferenziata con familiarità per psoriasi e malattia infiammatoria intestinale. Sindrome secca

*Undifferentiated seronegative spondyloarthritis with inflammatory bowel disease and a family history of psoriasis. Sicca syndrome*

Norma Marigliano<sup>a</sup>, Domenico Galasso<sup>b,\*</sup>

<sup>a</sup> *Facoltà di Farmacologia, Università degli Studi "Magna Graecia", Catanzaro*

<sup>b</sup> *Direttore Emerito di Medicina Interna, Azienda Ospedaliera "Pugliese-Ciaccio", Catanzaro*

Ricevuto il 16 ottobre 2009; accettato il 23 ottobre 2009  
disponibile online il 27 aprile 2010

### KEYWORDS

Undifferentiated spondyloarthritis;  
Family history of psoriasis;  
Inflammatory bowel disease;  
Sicca syndrome.

### Summary

**Background:** Seronegative spondyloarthritis is characterized by the presence of subcutaneous nodules, asymmetrical peripheral arthritis, sacroileitis with or without spondylitis, and rheumatoid-factor negativity. Other common clinical manifestations include oral ulcers, conjunctivitis, and cutaneous lesions such as psoriasis. Familial aggregation has also been described. According to the 1986 classification, corresponding clinical entities include ankylosing spondylitis, psoriatic arthritis, Reiter's syndrome, arthritis associated with inflammatory bowel disease (IBD), and undifferentiated spondyloarthritis. The disease is also frequently associated with the HLA B27 antigen. From the clinical point of view, there are often incomplete forms of spondyloarthritis, such as reactive arthritis triggered by asymptomatic infections, psoriatic arthritis without psoriasis itself, initial phases of specific forms of spondyloarthritis or the phase of ankylosing spondylitis characterized by sacroiliac lesions, and all forms that remain undifferentiated for long periods of time. Moreover, there are close relations between arthropathy and IBDs, such as Crohn's disease, ulcerative colitis, and Whipple's syndrome. Recently, microscopic inflammatory bowel lesions and psoriatic arthritis have been described.

**Case report:** A 30-year-old man (HLA B27-negative) who had been vaccinated against TBC and HBV presented with a 6-year history of recurrent episodes of predominantly left-sided sciatica. The pain was worse at night and during rest. He was suffering from bilateral sacroileitis without spondylitis. Three to five times a day, usually after eating, he passed watery feces containing mucous and small amounts of bright red blood. Colonoscopy revealed pancolitis with histological

\* Corrispondenza: Direttore Emerito di Medicina Interna, Azienda Ospedaliera "Pugliese-Ciaccio", via V. Cortese 10 - 88100 Catanzaro.  
E-mail: [domenico.galasso@libero.it](mailto:domenico.galasso@libero.it) (D. Galasso).

evidence of chronic inflammation interspersed with areas of acute inflammation, edema, hyperemia, and glandular distortion. One year later, the clinical manifestations and histological findings were essentially unchanged: glandular distortions, chronic and acute inflammation of the lamina propria and crypt microabscesses. There were no granulomas and no evidence of uveitis. The inflammatory index was positive; FR, ENA, ANA titers were negative. He began therapy with adalimumab (loading dose 80 mg followed by 40 mg every 15 days) and mesalazine (2.4 g per os), and the clinical manifestations of the disease improved significantly.

© 2010 Elsevier Srl. All rights reserved.

## Introduzione

Le spondiloartriti sieronegative sono malattie caratterizzate da assenza del fattore reumatoide e di noduli sottocutanei, artrite periferica asimmetrica, sacroileite con o senza spondilite, manifestazioni cliniche comuni (ulcere orali, congiuntiviti, lesioni cutanee di tipo psoriasico), aggregazione familiare. Numerose sono le entità cliniche corrispondenti, secondo la classificazione del 1986: dalla spondilite anchilosante all'artrite psoriasica, all'artrite reattiva e alla sindrome di Reiter, all'artrite associata a malattia infiammatoria intestinale, alle spondiloartriti indifferenziate. Frequente è l'associazione con l'antigene HLA B27 [1,2].

Dal punto di vista clinico si tratta spesso di forme incomplete di spondiloartriti, definite come: l'artrite reattiva, con infezione scatenante asintomatica; l'artrite psoriasica sine psoriasi; le fasi iniziali di spondiloartriti definite che precedono le lesioni alle articolazioni sacro-iliache, come nella spondilite anchilosante; e, infine, tutte le forme che rimangono indifferenziate per molto tempo. Esistono, inoltre, stretti rapporti fra artropatia, enteso-artropatie e malattie infiammatorie intestinali come il morbo di Crohn, la rettocolite ulcerosa, la malattia celiaca, il morbo di Whipple e recentemente sono state descritte alterazioni infiammatorie intestinali microscopiche e artrite psoriasica [3–8].

## Caso clinico

Maschio, anni 30, vaccinato per TBC e per epatite da virus B. Da circa 6 anni accusa episodi ricorrenti di sciatica mozza, con accentuazione notturna e con il riposo, prevalentemente dal lato di sinistro. La radiografia, eseguita un anno fa, ha evidenziato: sclerosi delle sincondrosi sacroiliache, numerose erosioni subcondrali in particolare a destra, pseudoallargamento della rima articolare. Alla risonanza magnetica delle articolazioni sacroiliache sono presenti sacroileite bilaterale (fig. 1) con addensamento delle superfici articolari contrapposte alle sincondrosi sacroiliache e irregolarità dei profili. La scintigrafia scheletrica total body evidenzia iperfissazione del tracciante in corrispondenza dell'articolazione scapolo-omerale bilateralmente, dei polsi e delle mani, specie metacarpi e pollici, delle ginocchia, delle tibio-tarsiche e dei metatarsi, soprattutto a sinistra (fig. 2). Il paziente accusa, inoltre, 3-5 scariche al dì di feci liquide, con muco, specialmente in fase postprandiale, leggermente striate di sangue rosso vivo.

Alla colonscopia si osservano: iperemia della mucosa del cieco, di tutto il colon, del sigma; retto indenne; mucosa iperemica con minute erosioni a colpo di unghia e a stampo;

nel trasverso, ulcere rotonde di 3-4 mm, ricoperte di fibrina. Quadro macroscopico di pancolite.

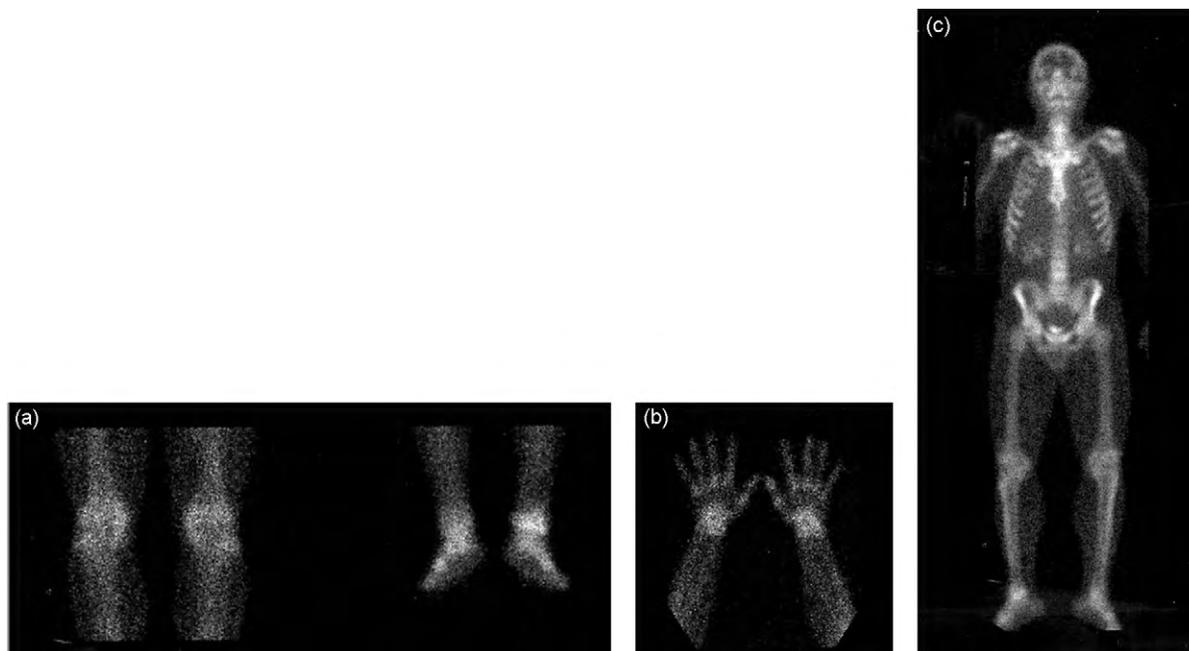
Istologicamente sono presenti discreta flogosi cronica, con distribuzione disomogenea, talora attiva, associata a edema e iperemia, e marcata distorsione ghiandolare.

Al controllo effettuato dopo un anno, il quadro macroscopico e istologico è sovrapponibile, con distorsione ghiandolare, flogosi cronica attiva della lamina propria, criptite e microascessi criptici. Non vi è evidenza di microgranulomi. Assenza di uveite. L'HLA è risultato negativo per il B27. Fibrinogeno 893. PCR 75. Negativi FR, ANA, ENA, quantiferon, anti-HCV. Positivi gli anticorpi anti-HBs (> 1.000). Intensa positività alla Mantoux (paziente vaccinato). Radiografia del torace negativa e TAC polmonare ad alta risoluzione normale. Test di Schirmer di base: OD 4; OS 4. Schirmer 1: OD 25; OS 25. La scintigrafia delle ghiandole salivari ha evidenziato: ridotta capatazione del radionuclide in entrambe le parotidi, come nella sindrome secca. Normale la risposta allo stimolo scialagogo (fig. 3).

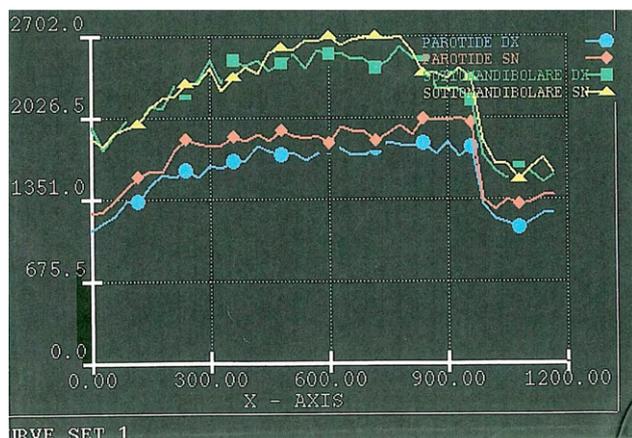
Alla seconda osservazione, dopo un anno di terapia con metotrexato 15 mg intramuscolo ogni 7 giorni e folina 1 compressa il secondo giorno dopo il metotrexato, iniziato una terapia con biologici (adalimumab 40 mg ogni 15 giorni



Figura 1 Sacroileite bilaterale.



**Figura 2** a) Iperfissazione del tracciante a carico di ginocchia, articolazioni tibio-tarsiche e metatarsi, soprattutto a sinistra; b) iperfissazione del tracciante a carico dei polsi e delle mani (soprattutto metacarpi e pollici); c) iperfissazione del tracciante a carico delle scapolo-omerali.



**Figura 3** Scintigrafia delle ghiandole salivari: ridotta captazione in entrambi le parotidi; pronta e rapida risposta allo stimolo scialagogo.

dopo un'induzione effettuata con 80 mg) associando mesalazina 2,4 g/die per os, con significativo miglioramento clinico.

Non pratica la terapia con farmaci antinfiammatori non steroidei, essendo allergico ai Coxib.

Il paziente è sottoposto a un programma di follow-up per monitorare l'evoluzione delle lesioni intestinali e dell'impegno assile.

Gli autori dichiarano che lo studio presentato è stato realizzato in accordo con gli standard etici stabiliti nella

Dichiarazione di Helsinki, e che il consenso informato è stato ottenuto da tutti i partecipanti prima del loro arruolamento allo studio.

### Conflitto d'interesse

Gli autori dichiarano di essere esenti da conflitto di interessi.

### Bibliografia

- [1] Olivieri I, van Tubergen A, Salvarani C, van der Linden S. Sero-negative spondyloarthritides. *Best Pract Res Clin Rheumatol* 2002;16(5):723–39.
- [2] Brewerton DA, Caffrey M, Nicholls A, Walters D, James DC. HL-A 27 and arthropathies associated with ulcerative colitis and psoriasis. *Lancet* 1974;1(7864):956–8.
- [3] Scarpa R, Peluso R, Attenu M, Del Puente A, Olivieri I. Psoriasi, artrite psoriasica o malattia psoriasica? *Reumatismo SIR* 2007 17/ 20 Ottobre;59:484.
- [4] Scarpa R, Del Puente A, D'Arienzo A, Di Girolamo C, Della Valle G, Panarese A, et al. The arthritis of ulcerative colitis: clinical and genetic aspects. *J Rheumatol* 1992 Mar;19(3):373–7.
- [5] Scarpa R, Manguso F, D'Arienzo A, et al. Microscopic inflammatory changes in colon of patients with both active psoriasis and psoriatic arthritis without bowel symptoms. *J Rheumatol* 2000; 27(5):1241–6.
- [6] Scarpa R, Mathieu A. Psoriatic arthritis: evolving concepts. *Curr Opin Rheumatol* 2000 Jul;12(4):274–80.
- [7] Scarpa R. What do rheumatologists think about psoriatic arthritis today? *J Rheumatol* 1999;26(12):2509–10.
- [8] Cervini C, Leardini G, Mathieu A, Punzi L, Scarpa R. Psoriatic arthritis: epidemiological and clinical aspects in a cohort of 1306 italian patients. *Reumatismo* 2005;57(4):283–90.