

A rare case of Sonozaki Syndrome (Pustulotic Arthro-Osteitis)

Department of Internal Medicine, Kosin University College of Medicine, Busan, Korea

\*Hyun-Seung Je, Hee-Sang Tag, Geun-Tae Kim

**Introduction:** Sonozaki syndrome is a rare, chronic rheumatic disease, which includes pustulosis of palms and soles and arthro-osteitis. Pustules are localized in the palms and soles, and arthro-osteitis is prominent in the sternoclavicular and costochondral joints. Reported herein is the case of Sonozaki syndrome. **Case Report:** A 32-year-old male visited to our hospital with chest pain and pustules for two months. The chest pain was pleuritic in nature and started from left anterior to the right anterior and posterior chest wall areas. Multiple pustules were observed on the palms and soles without pain, but no other skin lesions were found. Laboratory data indicated mild leukocytosis, increased C-reactive protein and erythrocyte sedimentation rate. However, rheumatoid factor, anti-CCP antibody, anti-nuclear antibody and HLA-B27 gene results were negative. Bone scans showed isotope uptake in multiple costochondral junctions on both sides of the sternum. Skin biopsies of the palms and soles revealed subcorneal pustules and superficial perivascular dermatitis. With a thorough history, physical and relevant laboratory tests, trauma and other inflammatory diseases were excluded and Sonozaki syndrome was diagnosed. Prednisolone and aceclofenac were administered for two weeks until the symptoms were completely resolved. The patient returned two months later with recurrent chest pain and skin symptoms. He was treated using the same medication regimen as before with the addition of sulfasalazine. His symptoms improved, and he is currently due for a follow-up without medications. **Conclusions:** Sonozaki syndrome usually has a chronic and relapsing-remitting course. The therapies are largely for symptomatic management (with analgesics and NSAIDs). When patients do not respond to these drugs or symptoms recur, then glucocorticoid, colchicine, sulfasalazine, methotrexate and cyclosporine can be used. In our patient, sulfasalazine was added after a recurrence. The patient has been doing well without any further recurrences. If a recurrence occurs in the future, immunosuppressants may be considered. Early recognition of this condition may allow for efficient treatment and prevent potential complications.

다초점성 기관지 연화증이 병발된 재발성 다발성 연골염 1예

경북대학교 의과대학 내과학교실

\*김나리, 이은송, 권상훈, 은정수, 배기범, 남언정, 강영모

**서론:** 재발성 다발성 연골염은 신체 전반의 연골 조직의 재발성, 진행성 염증을 특징으로 하는 다장기질환이다. 특히 귀와 코의 통증을 동반하는 부종과 포도막염, 말초 관절병증이 주된 임상양상으로 나타난다. 호흡계통에 병발한 증례 중, 후두기관을 침범한 경우는 재발성 다발성 연골염 환자 사망 원인의 절반 정도를 차지할 정도로 치명적이며 비교적 많은 증례가 보고되었으나, 세계적으로 다초점성 기관지 연화증이 병발된 증례는 없었다. 저자들은 주기관지와 엽기관지의 다초점성 연화증이 병발된 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다. **증례:** 61세 남자 환자가 10일 전부터 심화된 호흡 곤란을 주소로 내원하였다. 환자는 5년 전 좌측 깃바퀴 연골염으로 증상의 호전과 악화를 반복하던 중, 우측 깃바퀴 연골염 및 후두 부종이 동반되어 내원하였다. 반복되는 양측 깃바퀴 연골염과 경부 자기공명영상 및 흉부 전산화 단층촬영 시행 후 후두 연골막염의 소견으로 재발성 다발성 연골염으로 진단하였다. 환자는 고용량 스테로이드 및 항종양괴사인자 차단제인 인플릭시맙 치료 후 호전되었으며, 이후 아자티오프린 및 사이클로스포린을 포함한 면역억제제로 유지 치료를 지속하였다. 내원 10일 전부터 기침, 가래 및 호흡 곤란이 심화되어 시행한 흉부 전산화 단층촬영에서 원위부 기관과 좌측주기관지 및 좌측아래엽기관지까지 내강이 좁아져 있고 좌측위엽기관지의 폐쇄와 무기폐를 동반하고 있었다. 또한 우측위엽기관지와 우측중간엽기관지의 원위부에 광범위하게 내벽이 두꺼워져 있었다. 기관지내시경에서 기관부터 양측 주기관지, 우측위엽기관지, 우측중간엽기관지, 좌측위엽기관지가 좁아져 있었다. 삼차원 기관 전산화 단층 촬영에서 호기시 좌측위엽기관지의 조기 허탈이 관찰되었다. 질병 활성도 증가와 함께 폐쇄성 폐렴이 동반되어 항생제 사용하며 고용량 스테로이드 및 항종양괴사인자차단제인 인플릭시맙 치료 후 폐렴은 호전되었으나 다초점성 기관지 연화증은 지속되어 퇴원 후 경과 관찰하였다.