

Oftalmopleji ile Başvuran Pediatrik Olguda Nadir Bir Neden: İdiyopatik Orbital Miyozit

A Rare Cause Of Ophthalmoplegia in A Pediatric Case: Idiopathic Orbital Myositis

Emek Uyur YALÇIN ¹, Nilüfer Eldeş HACİFAZLIOĞLU ¹, Hatice AKAY ², Hacer AKTÜRK ³,
Gökhan ÇELİK ⁴, Feyza Mediha YILDIZ ¹

1. Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Nöroloji Bölümü, İstanbul, Türkiye
2. Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Radyoloji Bölümü, İstanbul, Türkiye
3. Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Enfeksiyon Hast. Böl., İstanbul, Türkiye
4. Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Göz Hastalıkları Bölümü, İstanbul, Türkiye
5. Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Kliniği, İstanbul, Türkiye

ÖZET

İdiyopatik orbital miyozit; çocuklarda oldukça seyrek görülen, nedeni tam olarak bilinmeyen, otoimmün olduğu düşünülen bir hastalıktır. Olguların çoğunda kortikosteroidler hızlı ve dramatik düzelme sağlamaktadır. Bu vaka takdiminde; baş ağrısı ve orbital ağrı yakınması ile başvuran, nörolojik incelemesinde sağ gözde dışa bakışta, sol gözde ise aşağı bakışta kısıtlılık saptanan, klinik izlemde nonsteroid antiinflamatuar tedavi ile düzelme gözlenen, idiyopatik orbital miyozit tanısı alan on bir yaşında bir çocuk olgu sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler: idiyopatik orbital miyozit, orbital ağrı, oftalmopleji, baş ağrısı

ABSTRACT

Idiopathic orbital myositis is a disease with unknown etiology, but it is thought to be an autoimmune disease, which is rarely seen among children. In most cases, corticosteroids provide a rapid and dramatic improvement. In this case report, we present an 11-year-old girl who admitted to our clinic with headache and orbital pain. Her neurologic examination revealed restriction of the outside glance on the right eye and restriction of the down glance on the left eye. Finally, she was diagnosed as idiopathic orbital myositis and improved with nonsteroidal anti-inflammatory treatment.

Keywords: idiopathic orbital miyozit, orbital pain, ophthalmoplegia, headache

GİRİŞ

İdiyopatik orbital miyozit; ilk kez 1903 yılında Gleason tarafından tanımlanmış olan, bir veya birkaç ekstra okuler kasın inflamasyonu ile karakterize otoimmün bir hastalıktır (1). İdiyopatik orbital miyozit, nonspesifik orbital inflamatuvar (NSOI) sendromun bir alt grubu olarak değerlendirilmekte ve çocuklarda seyrek olarak görülmektedir (2-4). Bu vaka takdiminde; baş ağrısı, orbital ağrı ve oftalmopleji nedeni ile başvuran, klinik ve radyolojik olarak idiyopatik orbital miyozit tanısı alan bir olgu sunulmaktadır.

İletişim:

Sorumlu Yazar: Emek Uyur YALÇIN

Adres: Zeynep Kamil Kadın ve Çocuk Hastalıkları Eğitim ve Arşt. Hastanesi, Çocuk Nöroloji Bölümü, 34668, Üsküdar İstanbul
Tel: +90 (216) 391 06 80

E-Posta: emekuyur@gmail.com

Makale Geliş: 26.01.2018

Makale Kabul: 30.07.2018

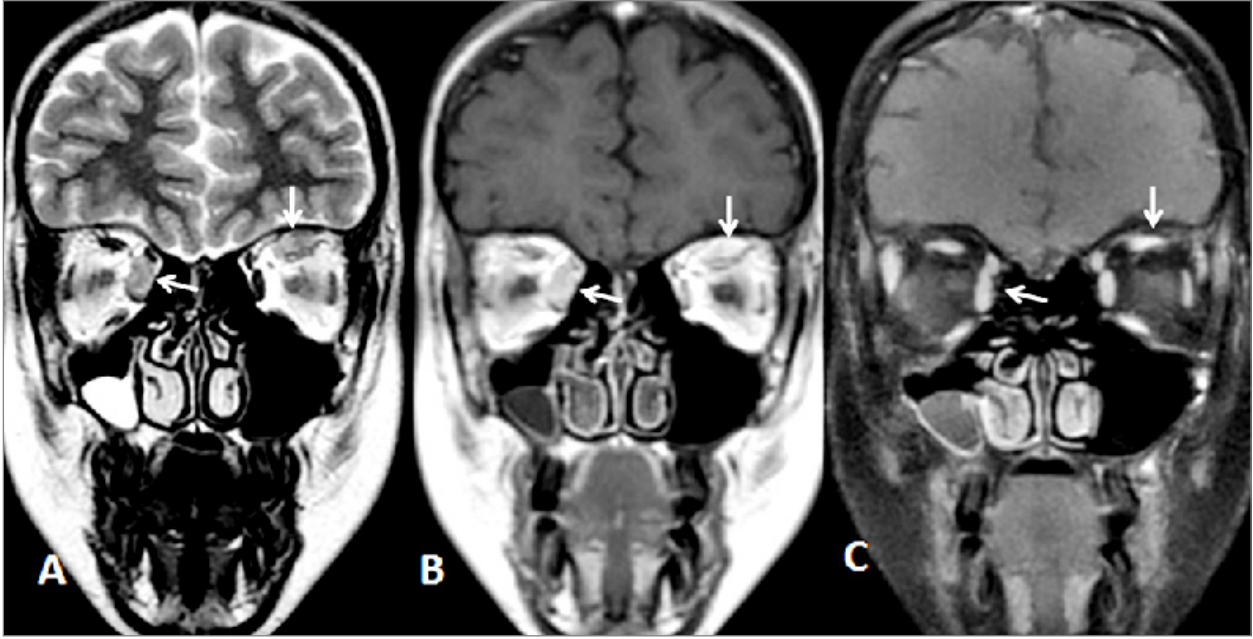
DOI: <http://dx.doi.org/10.16948/zktpb.384700>

OLGU

On bir yaşında kız hasta; bir hafta önce başlayan baş ağrısı ve gözlerde ağrı yakınmaları ile Zeynep Kamil Kadın Doğum ve Çocuk hastanesi acil polikliniğine başvurdu. Başvurudan üç gün önce sağ gözde kızarıklık olduğu öğrenilen hastanın yapılan fizik incelemesinde, sağ gözde dışa bakışta, sol gözde ise aşağı bakışta kısıtlılık saptandı. Hastanın diplopi, görmede azalma gibi bir yakınması bulunmamaktaydı. Hastanın direkt ve indirekt ışık refleksi her iki gözde pozitif, anizokorisi yoktu. Oftalmolojik muayenesinde her iki gözde görme keskinlikleri tam, ön segment ve arka segment muayeneleri doğaldı. Diğer sistem incelemeleri normaldi. Öyküsünde yakın zamanda geçirilmiş travma, enfeksiyon, ilaç alımı ve sistemik hastalık öyküsü yoktu. Özgeçmişinde bir özellik bulunmayan hastanın, babasının erişkin yaşta başlayan nefrotik sendrom nedeni ile takipli olduğu öğrenildi.

Laboratuvar incelemelerinde; lökosit sayısı 8050/mm³, hemoglobin 14.9 gr/dl, trombosit sayısı: 412000/mm³ idi. Periferik yayması normal olarak değerlendirildi. Sedimentasyon hızı 52 mm/saat, C-reaktif protein ise 0.8 mg/dl olarak saptandı. Karaciğer ve böbrek fonksiyon testleri, serum elektrolitleri, kreatin kinaz, laktat dehidrogenaz değerleri normal sınırlardaydı.

Akut ve ağrılı oftalmopleji ayırıcı tanısında yer alan intrakraniyal kitle, arteriovenöz fistül, anevrizma, kanama, kavernöz sinüstrombozu gibi nedenleri dışlamak amacı ile kranyal MRG (Magnetik Rezonans Görüntüleme) ve kraniyal MRVenografi yapıldı. İntrakraniyal ya da vasküler patoloji saptanmadı. Ancak kraniyal MRG'de sağ medial rektus ve sol superior oftalmik kas gruplarında kalınlaşma ve intravenöz kontrast madde sonrası boyanma izlendi. (Resim 1A ve B). Tiroid oftalmopatisini dışlamak amacıyla bakılan anti-TPO ve anti-TG antikolları negatif, tiroid fonksiyon testleri ve tiroid ultrasonografisi normal olarak değerlendirildi. Vaskülit ve kollajen doku hastalıklarıyla birlikte gösteren sendromlar açısından bakılan antinükleer antikor, romatoid faktör, çift zincirli DNA antikoru negatif olarak saptandı. Toksoplazma, sitomegalovirüs, herpes virüs ve ebstein-barr virüs serolojileri negatif bulundu.



Tablo 1: A-B. Koronal T2A ve kontrastlı T1A görüntüde, sağ medial rektus ve sol superior oftalmik kas gruplarında (beyaz ok) kalınlaşma ve İVKM sonrası boyanma izlenmektedir. **C.** Antienflamatuar tedavi sonrası 1. ayda koronal yağ baskılı kontrastlı T1 A görüntüde tutulan kas gruplarında (beyaz ok) inflamasyon bulgularında belirgin gerileme izlenmektedir.

Yapılan bu tetkiklerin ışığında hastaya idiyopatik orbital miyozit tanısı konuldu. Hastaya 15 mg/kg/günden oral ibuprofen tedavisi başlandı, izlemin 3. gününde hastanın oftalmoparezisinde azalma olması nedeni ile steroid tedavisine başlanmadı ve non-steroid antiinflamatuar tedaviye devam edildi. Tedavinin ikinci haftasının sonunda göz hareketleri tamamen normale döndü. Antienflamatuar tedavi sonrası 1. ayda çekilen orbital MRG'de inflamasyon bulgularında belirgin gerileme gözlemlendi (Resim-1C). Hasta rekürrens olasılığı nedeniyle kliniğimizde izlenmeye devam edilmektedir.

TARTIŞMA

İdiyopatik orbital miyozit, herhangi bir lokal veya sistemik neden olmaksızın ekstraoküler kasların inflamasyonudur (1). Çocukluk yaş grubunda seyrek görülen bir hastalık olup, 18 yaş altı olgular tüm vakaların %6-17'sini oluşturmaktadır (4). Kızlarda erkeklere oranla iki kat daha siktir (6-10). Orbital patolojiler arasında, lenfoproliferatif hastalık ve tiroid oftalmopatisinden sonra en sık görülen orbital patolojidir (5).

İdiyopatik orbital miyozit tanısı klinik ve radyolojik bulgular eşliğinde diğer nedenlerin dışlanması ile konulur. Hastalığın en önemli semptomu bu olguda da olduğu gibi göz hareketleri ile oluşan ağrıdır. Bunun dışında ptozis, diplopi, propitozis, oftalmopleji, konjunktival kızarıklık ve periorbital ödem saptanan diğer bulgulardır ®.

İdyopatik orbital miyozit bir veya birkaç ekstraoküler kası tutabilmektedir. Genel olarak tek taraflı tutulum daha sık olarak bildirilmekle birlikte, pediatrik idiyopatik orbital miyozit olgularında bilateral tutulum daha sık olarak gözlenmektedir (6-10). Bizim olgumuzda da literatürle uyumlu olarak bilateral ve asimetrik tutulum saptanmıştır.

Orbital miyozit sıklıkla idiyopatik olup, bilinmeyen bir nedenle ortaya çıkan orbital dokuya karşı gelişen otoimmün bir reaksiyondur (11). Seyrek olarak sistemik lupus eritemozus, romatoid artrit, sarkoidozis, Kawasaki Hastalığı, Wegener granulomatozis, skleroderma, poliarteritis nodosa gibi bazı otoimmün hastalıklarla birliktelik gösterebilmektedir (12-16). Ek olarak, herpes gibi bazı viral enfeksiyonların ve grip aşısının da orbital miyozite neden olabileceği bildirilmektedir (17, 18). Hastamızda yakın zamanda yapılmış bir aşı öyküsü bulunmamaktaydı ve adı geçen hastalıklar klinik ve laboratuvar bulguları ile dışlanmıştır.

Hastamızda tiroid hormon testlerinin normal olması, tiroid otoantikörlerinin negatif olması ve MRG bulgularının da eşliğinde tiroid oftalmopatisi tanısından uzaklaşıldı. Tiroid oftalmopatide, genellikle tiroid hormon testlerinde anormallikler tespit edilmesine rağmen, hastaların küçük bir kısmında laboratuvar bulguları normal olabilmektedir. Ayrıca bilateral kas tutulumu, idiyopatik orbital miyozite göre daha sık olarak gözlenmektedir. İki hastalığın ayırıcı tanısında, görüntüleme bulguları yol gösterici olabilmektedir. Kural olmamakla birlikte; tiroid oftalmopatide kas difüz ve düzenli tutulurken, tendon tutulmamaktadır. İdiyopatik orbital miyozitte ise kas tutulumu daha düzensizdir ve ek olarak tendon tutulumu da görülür (19). Ayrıca; tiroid oftalmopatisi olgularında alt rektus, orbital miyozit olgularında ise medial rektus kaslarında tutulum daha sık olarak bildirilmektedir. Olgumuzda ise literatürle uyumlu olarak, sağ gözde medial, sol gözde ise üst rektus kasında tutulum mevcuttu.

Kortikosteroid tedavisine dramatik cevap, idiyopatik orbital miyozit tanısı için patognomonik bir bulgu olarak kabul edilmektedir (11). Tedavide kortikosteroidlere hızlı ve iyi cevap alınmasına rağmen, rekürrens olasılığı hatta bazı olgularda steroid

bağımlılığı veya direnci görülebilmektedir. Ek olarak; hafif vakaların tedavisiz izlenebileceği veya nonsteroid antiinflamatuvar tedavinin de etkili olabileceği bildirilmektedir (20, 21). Steroid tedavisine yanıt alınamayan veya yan etkiler nedeniyle tolere edemeyen hastalarda, alternatif olarak radyoterapi kullanabilmektedir (2).

Bu bilgilerin ışığında, olgumuzda oral non-steroid antiinflamatuvar tedaviye başlandı. İzlemin 3. gününde hastanın oftalmoparezisinde azalma olması nedeni ile hasta steroid tedavisi başlanmadı ve izlemin ikinci haftasının sonunda ise oftalmoparezisin kaybolduğu gözlemlendi. Olgunun altı aylık takip sonrasında nüks görülmemiştir.

Orbital miyozit çocukluk çağında seyrek görülen bir hastalık olmakla birlikte; akut başlangıçlı ağrı, oftalmopleji ve konjunktival kızarıklık yakınmaları ile başvuran hastalarda ayırıcı tanıda düşünülmelidir. Kortikosteroidler dışında, özellikle pediatrik olgularda oral nonsteroid antiinflamatuvar ilaçlar etkili bir tedavi seçeneği olabilmektedir.

KAYNAKLAR

1. Gleason JE. Idiopathic myositis involving the intraocular muscles. *Ophthalmol Rec*1903;12:471-478)
2. Yuen SJ, Rubin PA. Idiopathic orbital inflammation: distribution, clinical features, and treatment outcome. *Arch Ophthalmol* 2003; 121: 491-499.3.
3. Scott IU, Siatkowski RM. Idiopathic orbital myositis. *Curr Opin Rheumatol* 1997; 9: 504-512.
4. Dylewski JS, Drummond R, Townsend T. Orbital myositis complicating sinusitis: Case report and review. *Can J Infect Dis.* 2001; 12(1):51-3.
5. Weber AL, Romo LV, Sabates NR. Pseudotumor of the orbit. Clinical, pathologic, and radiologic evaluation. *Radiol Clin North Am* 1999; 37: 151-168.
6. Demirtaş E, Kanık A, Eliaçık K, Öztrük S, Çavuşoğlu D, Sarıoğlu B. Bir adolesan olguda idiyopatik orbital miyozit. *Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi dergisi*; 25(3):203-205.
7. Schoser B. Ocular myositis: diagnostic assessment, differential diagnoses, and therapy of a rare muscle disease- five new cases and review. *Clinical Ophthalmology.* 2007; 1: 37-42
8. Turkuoğlu P, Emre S, Fırat A, Bilak S. Bir çocuk olguda idiyopatik orbital miyozit. *İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi Dergisi* . 2008; 15: 135-37.
9. Yazıcıoğlu T, Kutlutürk I. Idiopathic orbital myositis in a 9-year-old girl: a case report. *Iran J Pediatr.*2015; 25(3):375
10. Ülger Z, Tosun A, Rala S, Serdaroğlu G, Üretmen Ö, Darcana A, Tekgül H, Gökben S. Çocuklarda idiyopatik orbital miyozit: Bir vaka takdimi. *Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Dergisi* 2006;49:117-120
11. Rubin PA, Foster CS. Etiology and management of idiopathic orbital inflammation. *Am J Ophthalmol* 2004; 138: 1041-1043.
12. Lacey B, Chang W, Rootman J. Nonthyroid causes of extraocular muscle disease. *Surv Ophthalmol* 1999; 44: 187-213.10.
13. Serop S, Vianna RN, Claeys M, De Laey JJ. Orbital myositis secondary to systemic lupus erythematosus. *Acta Ophthalmol* 1994; 72: 520-523.
14. Nabili S, McCarey DW, Browne B, Capell HA. A case of orbital myositis associated with rheumatoid arthritis. *Ann Rheum Dis* 2002; 61: 938-939.
15. Arnett FC, Michels RG. Inflammatory ocular myopathy in systemic sclerosis (scleroderma): a case report and review of the literature. *Arch Intern Med* 1973; 132: 740-743.
16. Lin H, Burton EM, Felz MW. Orbital myositis due to Kawasaki's disease. *Pediatr Radiol* 1999; 29: 634-636.
17. Volpe NJ, Shore JW. Orbital myositis associated with herpes zoster. *Arch Ophthalmol* 1991; 109: 471-472.15.
18. Thurairajan G, Hope-Ross MW, Situnayake RD, Murray PI. Polyarthropathy, orbital myositis and posterior scleritis: an unusual adverse reaction to influenza vaccine. *Br J Rheumatol* 1997; 36: 120-123.
19. Rothfus WE, Curtin HD. Extraocular muscle enlargement: A CT review. *Radiology.* 1984;151:677-81
20. Pelit A, Ulaş B, Alkan Ö. Pediatrik olguda idiyopatik orbital miyozit. *Turk J Ophthalmol* .2013; 43(5):362-364
21. Bowling B. *Kanski's Clinical Ophthalmology.* Elsevier; 2016. Syf 77-117.