

Bir adolesan olguda idiyopatik orbital miyozit

Idiopathic orbital myositis in an adolescent case

Esra DEMİRTAŐ¹, Ali KANIK¹, Kayı ELİAÇIK¹, Selin ÖZTÜRK¹, Dilek ÇAVUŐOĐLU², Berrak SARIOĐLU²

¹ İzmir Tepecik Eđitim ve Arařtırma Hastanesi, Çocuk Sađlıđı ve Hastalıkları Kliniđi, İzmir

² İzmir Tepecik Eđitim ve Arařtırma Hastanesi, Çocuk Nöroloji Kliniđi, İzmir

ÖZET

İdiyopatik orbital miyozit ekstraoküler kasların enflamasyonu olup, çocukluk çağında ender görülmektedir. Tanı klinik ve radyolojik bulgularla konur. Kortikosteroidle dramatik yanıt idiyopatik orbital miyozit için patognomik bir bulgu olarak kabul edilmektedir. Burada göz ağrısı ve çift görme yakınmaları ile başvurup, sađ gözde periorbital ödem, propitoz ve dıŐa bakıŐ kısıtlılıđı saptanan, orbital manyetik rezonans görüntüleme sađ lateral rektus kasında patolojik sinyal tespit edilen, ek sistemik hastalıđı bulunmayan idiyopatik orbital miyozit tanısı almıŐ on dört yaŐında bir kız olgu sunulmuŐtur.

Anahtar kelimeler: İdiyopatik orbital miyozit, adolesan, steroid

ABSTRACT

Idiopathic orbital myositis is the inflammation of the extraocular muscles which is rarely seen in children. The diagnosis is made both clinically and radiologically. Dramatic response to corticosteroids is regarded as a pathognomonic finding for idiopathic orbital myositis. In this case report, we presented a 14-year-old girl who had no additional systemic disease during the admission to our clinic. She had orbital pain and double vision, periorbital edema, restriction of the outward glance of the right eye, proptosis, pathological signal in the right lateral rectus muscle in orbital magnetic resonance imaging were detected and diagnosed as idiopathic orbital myositis.

Key words: Idiopathic orbital myositis, adolescent, steroid

Alındıđı tarih: 29.06.2015

Kabul tarihi: 25.08.2015

YazıŐma adresi: Dr. Esra DemirtaŐ, Tepecik Eđitim ve Arařtırma Hastanesi, 35100-İzmir
e-mail: esradmrts88@hotmail.com

GİRİŐ

İdiyopatik orbital miyozit ilk defa 1903 yılında Gleason tarafından tanımlanmıŐtır. Nedeni tam olarak bilinmeyen, bir veya birkaç ekstraoküler kasın enflamasyonu ile karakterize otoimmün bir hastalıktır ^(1,2). Çocukluk çağında oldukça ender görülmektedir. En sık görülen orbital hastalıklar arasında üçüncü sırada yer almaktadır ⁽³⁾. Hastalıđın en önemli semptomu göz hareketleri ile oluŐan ağrıdır. Diplopi, oftalmopleji, konjonktival hiperemi, pitozis, propitoz, periorbital ödem hastalıđın diđer semptomlarıdır. Tanı klinik ve radyolojik bulgularla konur. Radyolojik tanıda bilgisayarlı tomografi ve/veya manyetik rezonans görüntüleme tetkikleri kullanılmaktadır. Bu olgu sunumunda adolesan yaŐ grubunda idiyopatik orbital miyozit tanısı alan bir olgu ve tedavi yaklaŐımı tartıŐılmıŐtır.

On dört yaŐında kız olgu bir haftadır devam eden sađ gözde ağrı, ŐiŐlik ve çift görme yakınması nedeniyle başvurdu. Hastanın öyküsünde yakın zamanda geçirilmıŐ travma, enfeksiyon ve sistemik hastalık bulunmamaktaydı. Sađ göz çevresi ödemli ve kızarık olan olgunun göz hareketleri ağrılı olup, proptozisi mevcuttu. Üç-dört-altıncı kranial sinirler birlikte

OLGU

On dört yaŐında kız olgu bir haftadır devam eden sađ gözde ağrı, ŐiŐlik ve çift görme yakınması nedeniyle başvurdu. Hastanın öyküsünde yakın zamanda geçirilmıŐ travma, enfeksiyon ve sistemik hastalık bulunmamaktaydı. Sađ göz çevresi ödemli ve kızarık olan olgunun göz hareketleri ağrılı olup, proptozisi mevcuttu. Üç-dört-altıncı kranial sinirler birlikte

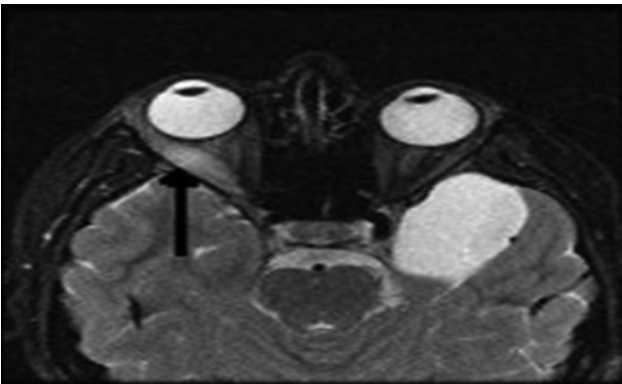
değerlendirildiğinde sağ gözde dışa bakış kısıtlılığı saptandı (Resim 1). Hastanın direkt ve indirekt ışık refleksleri her iki gözde pozitif. Oftalmolojik muayenesinde her iki gözde görme keskinlikleri tam, ön segment ve arka segment muayeneleri doğaldı. Her iki gözde göz içi basınçları 14 mmHg idi.

Hastanın laboratuvar incelemelerinde lökosit sayısı: 5800/mm³, hemoglobin: 14,3 g/dl, trombosit sayısı: 313000/mm³ idi. Periferik yayması normal olarak değerlendirildi. Tiroid oftalmopatolojisini ekarte etmek için bakılan tiroid fonksiyon testleri normal olarak değerlendirildi. Akut faz reaktanları normal sınırlarda saptandı. Kollajen doku hastalıkları ve vaskülitte birlikte seyreden sendromlar açısından bakılan romatoid faktör, antinükleer antikor, çift zincirli DNA antikor, anti nötrofilik sitoplazmik antikorları negatif saptandı. Toxoplasma, herpes simpleks virüs, ebstein-barr virus serolojileri negatif bulundu.

Kranial manyetik rezonans görüntülemesinde sol temporal araknoid kisti dışında intrakranial patoloji izlenmedi. Orbital magnetik rezonans görüntülemesinde



Resim 1.



Resim 2.

sağ lateral rektus kası tüm trasesi boyunca kasta füzi-form kalınlaşma ve patolojik sinyal artımı izlendi (Resim 2).

Tiroid oftalmopatisi, intrakranial patolojiler, romatolojik hastalıklar, herpes virüs enfeksiyonu gibi viral enfeksiyonlar dışlanarak olguya idiopatik orbital miyozit tanısı kondu. Oral 60 mg/gün prednizolon tedavisi başlandı. Tedavinin üçüncü gününde göz ağrısı, ödem ve propitoz geriledi. On altıncı günde göz hareketleri tamamen normaldi. Bir ay süre ile aldığı 60 mg/gün prednizolon tedavisi sonraki dört hafta içinde azaltılarak kesildi. İki ay sonraki kontrol kranial manyetik rezonans görüntülemesinde sağ lateral rektus kasında minimal kalınlaşma izlendi ancak patolojik sinyal artımı yoktu. Hasta rekürrens olasılığı nedeniyle polikliniğimizde izlenmektedir.

TARTIŞMA

İdiopatik orbital miyozit, herhangi bir lokal veya sistemik neden olmaksızın ekstraoküler kasların inflamasyonudur⁽¹⁾. Çocukluk yaş grubunda ender görülen bir hastalık olup, olguların %6-17'sini oluşturmaktadır⁽⁴⁾. Lenfoproliferatif hastalık ve tiroid oftalmopatisinden sonra en sık görülen orbital patolojidir. Her iki tarafı tutabilmekle beraber tek taraflı tutulum daha sıktır. Kızlarda erkeklere oranla iki kat daha sıktır. Tek kas tutulumu olmakla birlikte, tüm orbital yapılar tutulabilir. Olgumuzda tiroid oftalmopatisi tiroid hormonlarının normal olması ile dışlanmıştır. Olgumuzun cinsiyetinin kız olması ve saptanan tek taraflı semptom ve bulgular literatür ile uyumlu bulunmuştur. Orbital miyozit genellikle idiopatiktir. Bilinmeyen bir nedenle başlayan orbital dokuya karşı oluşan otoimmün reaksiyondur. Orbital miyozit çok seyrek olarak bazı sistemik hastalıklarla birliktelik göstermektedir. Bunlar sistemik lupus erimatozus, romatoid artrit, wegenger granulomatozis, sarkoidoz, skleroderma, poliartritis nodosa, Kawasaki hastalığı gibi otoimmün patolojilerdir. Ayrıca bazı viral enfeksiyonların da bu duruma yol açtığı bildirilmiştir⁽⁵⁻⁹⁾. Literatürde Lyme hastalığı, Herpes virüs enfeksiyonu, grip aşısı sonrasında orbital miyozit gelişen

olgular da bildirilmektedir⁽¹⁰⁻¹²⁾. Hastamızda klinik ve laboratuvar bulguları ile bu hastalıklar dışlanmıştır.

Kortikosteroide dramatik cevap idiyopatik orbital miyozit için patognomik bir bulgu olarak kabul edilmektedir⁽¹³⁾. Orbital miyozitte kortikosteroidlere hızlı ve gayet iyi yanıt olmasına rağmen, rekürrens olasılığı nedeniyle steroid tedavisinin 4-6 hafta devam edilmesi ve yavaş yavaş kesilmesi tavsiye edilmektedir. Olgumuzda da bu tedavi protokolü uygulanmış ve tam yanıt alınmıştır. Çinde yapılan 209 olguluk bir çalışmada, %41 gibi yüksek bir rekürrens oranı bildirilmiştir⁽¹⁴⁾. Retrospektif olarak yapılan bir diğer çalışmada ise rekürrens oranı %52'dir⁽¹⁵⁾. Bazı hasta gruplarında steroid bağımlılığı veya direnci görülebilmektedir. Alternatif tedavide düşük doz radyoterapi, immunmodulator ajanlar ve steroidlerin intraorbital enjeksiyonunun yararlı olduğunu bildiren yayınlar mevcuttur⁽¹⁶⁻¹⁸⁾. Ancak steroide dirençli olgularda okuler kaslarda fibrozis ve göz hareketlerinde kalıcı kayıplar bildirilmiştir.

Orbital miyozit çocukluk çağında ender görülen bir hastalık olmasına rağmen, pitozis, propitoz, peri-orbital ödem, diplopi ve göz hareketleri ile oluşan ağrı yakınmaları ile başvuran hastalarda ayırıcı tanıda kesinlikle akılda tutulmalıdır.

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. <http://dx.doi.org/10.1001/archophth.121.4.491>
3. Weber AL, Romo LV, Sabates NR. Pseudotumor of the orbit. Clinical, pathologic, and radiologic evaluation. *Radiol Clin North Am* 1999;37:151-168. [http://dx.doi.org/10.1016/S0033-8389\(05\)70084-1](http://dx.doi.org/10.1016/S0033-8389(05)70084-1)
4. Dylewski JS, Drummond R, Townsend T. Orbital myositis complicating sinusitis: Case report and review. *Can J Infect Dis* 2001;12:51-53.
5. Lacey B, Chang W, Rootman J. Nonthyroid causes of extraocular muscle disease. *Surv Ophthalmol* 1999;44:187-213. [http://dx.doi.org/10.1016/S0039-6257\(99\)00101-0](http://dx.doi.org/10.1016/S0039-6257(99)00101-0)
6. Serop S, Vianna RN, Claeys M, De Laey JJ. Orbital myositis secondary to systemic lupus erythematosus. *Acta Ophthalmol* 1994;72:520-523. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1755-3768.1994.tb02807.x>
7. Nabili S, McCarey DW, Browne B, Capell HA. A case of orbital myositis associated with rheumatoid arthritis. *Ann Rheum Dis* 2002;61:938-939. <http://dx.doi.org/10.1136/ard.61.10.938>
8. 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. <http://dx.doi.org/10.1001/archinte.1973.03650110076016>
9. nLin H, Burton EM, Felz MW. Orbital myositis due to Kawasaki's disease. *Pediatr Radiol* 1999;29:634-636. <http://dx.doi.org/10.1007/s002470050665>
10. Volpe NJ, Shore JW. Orbital myositis associated with herpes zoster. *Arch Ophthalmol* 1991;109:471-472. <http://dx.doi.org/10.1001/archophth.1991.01080040039015>
11. Thuraiujan 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. <http://dx.doi.org/10.1093/rheumatology/36.1.120>
12. Carvounis PE, Mehta AP, Geist CE. Orbital myositis associated with *Borrelia burgdorferi* (Lyme disease) infection. *Ophthalmology* 2004;111:1023-1028. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ophtha.2003.08.032>
13. Rubin PA, Foster CS. Etiology and management of idiopathic orbital inflammation. *Am J Ophthalmol* 2004;138:1041-1043. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ajo.2004.09.032>
14. Yan J, Lu Z, Wu Z, Li Y, Chen Z, Mao Y, et al. Features associated with recurrence of idiopathic orbital inflammatory pseudotumor. *Yan Ke Xue Bao* 2007;23:58-64.
15. Mombaerts I, Schlingemann RO, Goldschmeding R, Koornneef L. Are systemic corticosteroids useful in the management of orbital pseudotumors? *Ophthalmology* 1996;103:521-528. [http://dx.doi.org/10.1016/S0161-6420\(96\)30663-5](http://dx.doi.org/10.1016/S0161-6420(96)30663-5)
16. Shah SS, Lowder CY, Schmitt MA, Wilke WS, Kosmorsky GS, Meisler DM. Low-dose methotrexate therapy for ocular inflammatory disease. *Ophthalmology* 1992;99:1419-1423. [http://dx.doi.org/10.1016/S0161-6420\(92\)31790-7](http://dx.doi.org/10.1016/S0161-6420(92)31790-7)
17. Leibovitch I, Venkatesh C, Prabhakaran MS, Davis G, Selva D. Intraorbital injection of triamcinolone acetonide in patients with idiopathic orbital inflammation. *Arch Ophthalmol* 2007;125:1647-1651. <http://dx.doi.org/10.1001/archophth.125.12.1647>
18. Bullen C L, Young B R. Chronic orbital myositis. *Arch Ophthalmol* 1982;100:1749-1751. <http://dx.doi.org/10.1001/archophth.1982.01030040729002>