

Kabakulak Meningoensefaliti Sonrasında Gelişen Tourette Sendromu: Bir Olgu Sunumu

Osman Sabuncuoğlu¹, Özalp Ekinci², Sema Ölçer², Naheeda İsmail², Meral Berkem³

¹Uz.Dr., ²Dr., ³Prof.Dr., Marmara Üniversitesi Tıp Fakültesi Çocuk Psikiyatri Anabilim Dalı, İstanbul

ÖZET

Çocukluk çağının önemli bir nöropsikiyatrik bozukluğu olan Tourette sendromu (TS) ritmik özelliği olmayan, ani, hızlı, istemsiz ve yineleyici motor-vokal tiklerle kendini göstermektedir. TS belirtilerinin enfeksiyon, inme, ilaç kullanımı gibi tanımlanabilir nedenler sonrasında da ortaya çıkabildiği bilinmektedir. Bu olgu sunumunda meningoensefalit ile karmaşıklaşmış kabakulak enfeksiyonundan 2 ay sonra motor ve vokal tikler gelişen 9 yaşında bir erkek hastadan söz edilecektir. Anne ve çocuktan alınan öykü ve klinik gözlemler sonucunda hastanın göz kırpma, göz çevirme, ağız oynatma, boyun bükme, omuz kaldırma, parmak-el oynatma, tekrar tekrar dokunma, boğaz temizleme, öksürme, sümürme, derin soluk alma, sözcük yineleme, konuşurken takılma belirtilerini sergilediği anlaşıldı. Yale Genel Tik Ağırliğini Derecelendirme Ölçeği uygulandığında hastanın toplam 30 puan aldığı, yani "belirgin" derecede tikleri olduğu görüldü. Hastamızda eşlik eden dikkat eksikliği/hiperaktivite bozukluğu ve obsesif kompulsif bozukluk yoktu. Ailesel tik öyküsü olmayan hastada streptokok enfeksiyonu ile ilişkili nöropsikiyatrik bozukluk (Pediatric autoimmune neuropsychiatric disorders associated with streptococcal infections) bulgusuna da rastlanmadı. Hastalık döneminde okul başarısında belirgin bozulma olduğu öğrenildi. Bildirilen kabakulak sonrasında tikler gelişen ilk olgu olması ve risperidon tedavisinden yarar görmesi nedeniyle bu olgu önemlidir. İkincil TS belirtileri bu önemli gelişimsel nöropsikiyatrik bozukluğu daha iyi anlamamıza katkı sağlayabilir. Genetik yakınlıkla ikincil etkenlerin etkileşimini anlamak için ileri araştırmalara gereksinim vardır.

Anahtar Sözcükler: Tourette sendromu, tikler, kabakulak, risperidon.

(*Klinik Psikiyatri 2005;8:197-200*)

SUMMARY

Tourette Syndrome after Mumps Meningoencephalitis: A Case Report

Tourette syndrome (TS) is an important childhood-onset neuropsychiatric disorder that is characterized by non-rhythmic, sudden, rapid, involuntary, repetitive motor and vocal tics. It is now known that the symptoms of TS may emerge secondary to identified events such as infection, stroke and medication use. In this case report, we present a 9-year-old boy who developed motor and vocal tics 2 months after a mumps infection complicated by meningoencephalitis. A careful history taken from the mother and the child, and a detailed psychiatric examination revealed that the patient had displayed eye blinking, eye rolling, mouth twisting, head and shoulder jerking, finger-hand flexing, repetitive touching, throat clearing, coughing, sniffing, gasping, echolalia and stammering. He obtained a score of 30 on the Yale Global Tic Severity Scale, which indicated a markedly severe presentation. This patient did not have comorbid Attention-Deficit/Hyperactivity Disorder and Obsessive Compulsive Disorder. A family history of tics and findings of pediatric neuropsychiatric disorder associated with streptococcal infection were absent. There was also a significant deterioration in the patient's academic performance during the course of the disorder. This case report is important because it describes the first patient with mumps-associated TS and significant improvement with risperidone treatment. Secondary TS may contribute to the better understanding of this developmental neuropsychiatric disorder in general. Further studies are required in order to understand the interaction between genetic susceptibility and secondary factors in the development of the symptoms of TS.

Key Words: Tourette syndrome, tics, mumps, risperidone.

GİRİŞ

Çocukluk çağında başlayan önemli bir nöropsikiyatrik bozukluk olan Tourette sendromunda (TS) ana belirtiler süreklilik gösteren ani, hızlı, istemsiz, yineleyici ve ritmik olmayan motor ve vokal tiklerdir (Singer 2000). Belirtilerin gidişi şiddetli olabilir ve işlevsellik ciddi anlamda etkilenebilir. Tourette sendromu olan bireylerde obsesif-kompulsif bozukluk (OKB) ve dikkat eksikliği hiperaktivite bozukluğu (DEHB) gibi eşlik eden bozuklukların bulunması olasıdır. Tik bozukluğu olan hastalarda tikler açısından önemli oranda aile yüklülüğü saptansa da kalıtımın kesin olarak nasıl gerçekleştiği belirsizliğini korumaktadır. Bugüne değin yapılan çok sayıda çalışmada bazal gangliyon tutulumunun tik belirtilerine yol açtığı öne sürülmektedir (Singer 2000).

Tourette Sendromu belirtileri aralarında enfeksiyon, kafa travması, ilaç kullanımı ve nörodejeneratif hastalıkların da bulunduğu pek çok neden sonrasında gelişebilir. Özgün bir model olarak, A grubu B hemolitik streptokoklara (AGBHS) karşı gelişen özgül antikörlerin bazal gangliyonlarla çapraz etkileşimiyle ortaya çıkan TS, OKB ve/veya DEHB belirtileri PANDAS (Pediatric autoimmune neuropsychiatric disorders associated with streptococcal infections - Streptokok Enfeksiyonu ile İlişkili Postenfeksiyöz Otoimmün Nöropsikiyatrik Bozukluklar) olarak adlandırılmaktadır (Singer 2000). AGBHS dışında herpes simpleks ensefaliti (Northam ve Singer 1991), HIV ensefaliti (Mc Daniel ve Summerville 1994) ve varicella zoster ensefaliti (Dale ve ark. 2003) gibi beyin tutulumuyla giden enfeksiyon etkenleri nedeniyle gelişen tik bozukluğu veya Tourette sendromu olguları bildirilmiştir. Yakın zamanda yapılan bir çalışma, viral etkenlerin neden olduğu soğuk algınlıklarının tiklerin seyrini şiddetlendirdiğini ortaya koymaktadır (Hoekstra ve ark. 2005).

Bu olgu bildirisinde kabakulak meningoensefaliti geçirdikten 1-2 ay sonra motor ve vokal tikler gelişen 9 yaşında bir erkek hasta ve tedavisinden söz edilecektir. Olgu, enfeksiyon etkenleri nedeniyle geliştiği düşünülen TS modeliyle uyumludur ve özgün olması nedeniyle bu alandaki bilgi birikiminin artmasına katkıda bulunacaktır.

OLGU SUNUMU

Dokuz yaşında erkek hasta İM, polikliniğe 2.5 yıldır süregelen istemsiz hareketler nedeniyle getirildi. Anneden ve çocuktan alınan öyküye göre göz kırpma, göz çevirme, çene ve ağız oynatma, boyun bükme, omuz kaldırma, parmak-el oynatma, tekrar tekrar dokunma, boğaz temizleme, öksürme, sümürme, soluk alma, sözcük ve heceleri yineleme, konuşurken takılma yakınmaları çocuğun kabakulak meningoensefalitini geçirmesinden 2 ay sonra başlamış. Bu süre içinde okul başarısında da belirgin düşme olmuş.

Hastanın gebelik, doğum ve doğum sonrası döneminde önemli bir olay olmadığı anlatıldı. Sonraki gelişim aşamaları zamanında gerçekleşmiş. Kabakulak meningoensefaliti geçirmeden önce herhangi bir tik bozukluğu, hareket bozukluğu, davranış sorunu ya da başka bir psikiyatrik bozukluk olmadığı öğrenildi. Ayrıca, birinci derece yakınlarında herhangi bir hareket bozukluğu ya da psikiyatrik bozukluk öyküsü yok.

Güncel başvurudan 2.5 yıl önce, kabakulak enfeksiyonunun başlamasından 2 gün sonra ateş ve kusma yakınmalarıyla çocuk kliniğine gelmiş, fizik muayenede submandibuler bölgede iki taraflı şişlik ve meningeal irkilme bulguları saptanmış, destekleyici Beyin omurilik sıvısı (BOS) bulguları nedeniyle yatırılmasına karar verilmiş. Kabakulak meningoensefaliti tanısıyla izlenen hasta BOS bulgularının ve genel klinik tablonun düzelmesi üzerine bir hafta sonra hastaneden çıkarılmış.

Hastanın kapsamlı çocuk psikiyatrisi muayenesinde göz kırpma, göz çevirme ve boyun bükme tikleri görüşme sırasında gözlendi. Yale Genel Tik Ağrılığını Derecelendirme Ölçeği (YGTADÖ) (Yale Global Tic Severity Scale [YGTSS]) (Leckman ve ark. 1989, Zaimoğlu ve ark. 1995) uygulandığında hastanın toplam 30 puan aldığı, yani "belirgin" derecede tikleri olduğu görüldü. Hasta ve velisiyle yapılan görüşmede klinisyen tarafından uygulanan bu ölçekle hem motor, hem de vokal tikler sayı, sıklık, şiddet, karmaşıklık ve yaşama etki açısından derecelendirilip sonuçta 0-50 arasında bir puan elde edilmektedir.

Hastada eşlik eden DEHB ve OKB olmadığı düşünüldü. Nörolojik muayenede tikler dışında ek

bulguya rastlanmasa da hastanın yazısının bozuk olduğu gözlemlendi. Hastanın Wechsler Intelligence Scale for Children-Revised (WISC-R) (Wechsler 1974) testinde toplam zeka bölümü normal düzeyde saptanmasına karşın sözel puanı belirgin olarak düşük bulundu ve bu durum öğrenme bozukluğu yönünde yorumlandı.

Elektroensefalografik inceleme normal olarak değerlendirildi. Manyetik rezonans görüntüleme (MRG) sağ frontal kortikal alanda gliotik sekel olarak değerlendirilen virgül şeklinde aşırı yoğun alan saptandı. Güncel sorunu açıklayıcı olmamakla birlikte geçirilen meningoensefalitin kalıntısı olabileceği düşünüldü. Serolojik değerlendirmede streptokok enfeksiyonunu destekleyen bulgu elde edilemedi.

Hastanın öğrenme sorunları için eğitim sürecini destekleyici önlemler alındı. Tourette sendromu tedavisi için hastaya yaklaşık olarak 1 yıl önce risperidon 0.5 mg/gün başlandı, daha sonra 0.75 mg/gün dozuna çıkıldı ve günümüze değin aynı dozda sürdürüldü. Tedavi sonrasında yakınmalarda belirgin düzelmeye görülen hasta YGTADÖ uygulandığında 4 puan aldı, yani tedaviyle %90 oranında iyileşme olduğu görüldü. Ailenin ilaç alamadığı kısa dönemlerde tiklerin yeniden arttığı bildirildi.

TARTIŞMA

Akut kabakulak enfeksiyonu geçirenlerin önemli bir kısmında menenjit, meningoensefalit gibi beyin tutulumuyla giden komplikasyonlar olabileceği bilinmektedir (Kanra ve ark. 2004). Bunlar dışında, kabakulak akut döneminde ataksi, opsoklonus-miyoklonus gibi hareket bozuklukları gelişen hastalar bildirilmiştir (Ichiba ve ark. 1988, Cohen ve ark. 1992). Aslında kabakulak enfeksiyonu parotis dışında pek çok farklı organı etkileyebilmektedir. Ancak ilgili bilimsel yazını yoğun olarak incelememize karşın kabakulak enfeksiyonu sonrasında gelişen tik bozukluğu bilgisine rastlayamadık. Buna karşılık PANDAS gibi başlı başına bakteriyel etkenlere ikincil klinik görüngüler yanısıra herpes, HIV, varicella gibi viral etkenlerden sonra bildirilmiş olgular vardır (Northam ve Singer 1991, Mc Daniel ve Summerville 1994, Dale ve ark. 2003). Özellikle Dale ve ark. (2003) tarafından bildirilen varisella

zoster ensefaliti sonrasında gelişen touretizm olgusuyla büyük benzerlik sözkonusudur. O olguda akut dönemde saptanan radyolojik bulgular daha sonra tiklerin ortaya çıkıp devam etmesine karşın bütünüyle düzelmiştir. Bu da sunduğumuz olguda destekleyici radyolojik bulgu olmamasını açıklamaktadır.

Tiklerin akut dönemde gelişmemesi, birkaç ay sonra iyileşme döneminde ortaya çıkması gelişen immün yanıtın etkili olabileceğini akla getirmektedir. Ancak ilginç olan, komplike olmayan kabakulak enfeksiyonu yada aşılama ile bağlantılı tik olgularının varlığının bilinmemesidir. İncelediğimiz olguda, akut dönemde beyin tutulumunun izleri daha sonra gelişen bağışıklık yanıtının şiddetini artırabilir. Burada hücrel immün yanıtın devreye girmesi ve tikleri başlatan humoral immün yanıtı yol göstermesi olasıdır. Bir başka açıklama, aşılama sonrasında gelişen denge bozuklukları ve ataksiyle giden kabakulak olguları üzerinden olabilir. Beyincik tutulumu bazal gangliyonlarla varolan dengeyi bozabilir ve tiklerin ortaya çıkışını kolaylaştırabilir. Ancak her durumda, genetik olarak sessiz kalmış olan ve tetikleyici etkenler olmazsa belki de hep sessiz kalacak olan genetik yatkınlık olasılığı göz önünde tutulmalıdır (Luppi ve ark. 1995).

Geçirilen meningoensefalit sonrasında gözlenen okul başarısında düşme ve yukarıda anlatılan zeka bölümü profili de beyin tutulumunun doğrudan sonucu olarak bilişsel işlevlerin gerilemesinin sonucu olabilir.

Hastada kabakulak meningoensefaliti öncesinde tik yada diğer bir psikiyatrik bozukluk öyküsünün olmaması, bunun yanısıra ailesinde ve birinci derece yakınlarında tik yada psikiyatrik bozukluk öyküsünün olmaması Tourette Sendromu'nun kabakulak enfeksiyonuna ikincil olarak geliştiği savımızı desteklemektedir. TS olgularının aile öykülerinde büyük oranda tikler bulunur (Hebebrand ve ark. 1997). Hastada akut dönemde bir streptokok enfeksiyonunun olmaması ve daha sonra araştırdığımızda streptokok serolojisini destekler bulgu olmaması olası PANDAS tanısını dışarıda bırakmaktadır.

İkincil olarak tikler gelişen bir çocuk hastada

risperidon kullanımı ve olumlu yanıt alınması da yeni ve önemli bir deneyimdir. Klinisyenlere karşılaştıkları benzer olgularda bir çıkış noktası olabilir.

Sonuç olarak, sunduğumuz olgu daha önceden bildirilmiş viral etkenlere bağlı ensefalitlere ikincil Tourette sendromu olguları ile benzerlik taşımak-

tadır ve gelecekte bu alanda yapılacak çalışmalara katkı sağlayabilir.

Yazışma adresi: Dr. Osman Sabuncuoğlu, Marmara Üniversitesi Tıp Fakültesi Çocuk Psikiyatrisi Anabilim Dalı, İstanbul, sabuncuoglu2004@yahoo.com

KAYNAKLAR

- Cohen HA, Ashkenazi A, Nussinovitch M ve ark. (1992) Mumps-associated acute cerebellar ataxia. *Am J Dis Child*, 146:930-931.
- Dale RC, Church AJ, Heyman I (2003) Striatal encephalitis after varicella zoster infection complicated by Tourettism. *Mov Disord*, 18:1554-1556.
- Hebebrand J, Klug B, Fimmers R ve ark. (1997) Rates for tic disorders and obsessive compulsive symptomatology in families of children and adolescents with Gilles de la Tourette syndrome. *J Psychiatr Res*, 31:519-530.
- Hoekstra PJ, Manson WL, Steenhuis MP, ve ark. (2005) Association of common cold with exacerbations in pediatric but not adult patients with tic disorder: a prospective longitudinal study. *J Child Adolesc Psychopharmacol*, 15:285-292.
- Ichiba N, Miyake Y, Sato K ve ark. (1988) Mumps-induced opsoclonus-myoclonus and ataxia. *Pediatr Neurol*, 4:224-227.
- Kanra G, Isik P, Kara A ve ark. (2004) Complementary findings in clinical and epidemiologic features of mumps and mumps meningoencephalitis in children without mumps vaccination. *Pediatr Int*, 46:663-668.
- Leckman JF, Riddle MA, Hardin MT ve ark. (1989) The Yale Global Tic Severity Scale: initial testing of a clinician-rated scale of tic severity. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry*, 28:566-573.
- Luppi P, Rossiello MR, Faas S ve ark. (1995) Genetic background and environment contribute synergistically to the onset of autoimmune diseases. *J Mol Med*, 73:381-393.
- Mc Daniel JS, Summerville MB (1994) Tic disorders associated with encephalitis in advanced HIV disease. *Gen Hos Psychiatry*, 16:298-300.
- Northam RS, Singer HS (1991) Postencephalitic acquired Tourette-like syndrome in a child. *Neurology*, 41:592-593.
- Singer HS (2000) Current issues in Tourette Syndrome. *Mov Disord*, 15:1051-1063.
- Wechsler D (1974) Wechsler Çocuklar İçin Zeka Ölçeği. Türk Psikologlar Derneği 1995.
- Zaimoğlu S, Arman A, Sabuncuoğlu O (1995) Yale Genel Tik Ağrılığını Derecelendirme Ölçeği Güvenirlik Çalışması. 5. Ulusal Çocuk ve Ergen Psikiyatrisi Kongresi, Ankara.