



Pediatric Olguda İdyopatik Orbital Miyozit

Idiopathic Orbital Myositis in a Child

Aysel Pelit, Burak Ulaş, Özlem Alkan*

Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göz Hastalıkları Anabilim Dalı, Adana, Türkiye

*Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyoloji Anabilim Dalı, Adana, Türkiye

Özet

İdyopatik orbital miyozit çocuklarda oldukça ender görülmektedir. Bu yazıda idyopatik orbital miyozitli pediatrik bir olguda tanı kriterleri ve oral non-steroid antiinflatuar tedavinin yanıtı değerlendirilmiştir. Onüç yaşında kız hasta çift görme ve ağrı şikayetleri ile kliniğimize başvurdu. Oftalmolojik muayenede sağ gözde yukarı bakış kısıtlılığı mevcuttu. Orbital manyetik rezonans görüntülemesinde (MRG), sağ üst rektus kasında genişleme ve kontrast tutulumu izlendi. Olgunun sistemik hastalığının mevcut olmaması ve MRG bulguları ile idyopatik orbital miyozit tanısı kondu. Hastaya oral non-steroid antiinflatuar tedavi uygulandı. Tedaviye başladıktan bir ay sonra yukarı bakış kısıtlılığı ve çift görmesi düzeldi ve 18 aylık kontrollerinde nüks saptanmadı. Akut başlangıçlı periorbital ağrı, diplopi şikayetleri ile gelen çocuklarda idyopatik orbital miyozit ayırıcı tanılar arasında düşünülmelidir. Tedavisinde non-steroid antiinflatuar ilaçlar etkili olabilmektedir. (*Turk J Ophthalmol* 2013; 43: 362-4)

Anahtar Kelimeler: İdyopatik orbital miyozit, idyopatik orbital inflamasyon, non-steroid antiinflatuar ilaçlar

Summary

Idiopathic orbital myositis is seen very rare in children. In this article, the diagnose criteria of a pediatric case with idiopathic orbital myositis and oral non-steroid anti-inflammatory treatment's response have been evaluated. A thirteen-year-old girl was admitted to our clinic with the complaint of diplopia and pain. On ophthalmologic examination, right eye had up-gaze restriction. Right superior rectus muscle's extension and contrast involvement have been observed in orbital magnetic resonance imaging (MRI). Based on the MRI findings and due to absence of systemic disease, our case was diagnosed as idiopathic orbital myositis. Oral non-steroid anti-inflammatory treatment was applied to the patient. After a month from starting the treatment, up-gaze restriction and diplopia have not been observed and no relapse was seen in eighteen-month follow-up visits. Idiopathic orbital myositis should be considered among differential diagnoses in children who have complaint of orbital pain and diplopia. Non-steroid anti-inflammatory drugs can be effective in the treatment of idiopathic orbital myositis. (*Turk J Ophthalmol* 2013; 43: 362-4)

Key Words: Idiopathic orbital myositis, idiopathic orbital inflammation, non-steroid anti-inflammatory drugs

Giriş

İdyopatik orbital miyozit sıklıkla periorbital ağrı, diplopi, oftalmopleji, konjonktival hiperemi ve kemozis ile beraber gidebilen ekstraoküler kasların idyopatik inflamasyonudur. İdyopatik orbital miyozit, idyopatik orbital inflamatuvar sendromun alt grubu olarak değerlendirilmektedir.¹

İdyopatik orbital miyozit ilk olarak 1903'de Gleason tarafından tanımlanmıştır. Birch Hirschfeld tarafından 1930'da göz içi yapıları ilgilendiren benign idyopatik iflamatuvar hastalık olarak adlandırılmıştır. Ağrı genellikle göz hareketleri ile şiddeti artan tiptedir. Diplopi etkilenen göz kaslarının yetersiz

kontraksiyonundan kaynaklanmaktadır ve nörolojik tutulumla ilgili değildir.¹⁻²

BT ve MRG tetkiklerinde tipik olarak ekstraoküler kaslardaki genişlemeyi ve tendon tutulumunu görebiliriz.³ Tedavisinde çeşitli modaliteler kullanılmasına karşın sıklıkla antiinflatuar tedaviye yanıt vermektedir. İdyopatik orbital miyozit genelde izole olarak görülse de bazen sistemik bir hastalığın komponenti olarak da görülebilir.⁴⁻⁶

Bu makalede pediatrik yaş grubunda daha nadir görülmekte olan idyopatik orbital miyozit olgusu ve tedavi yaklaşımı tartışılmıştır.

Yazışma Adresi/Address for Correspondence: Dr. Aysel Pelit, Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göz Hastalıkları Anabilim Dalı, Adana, Türkiye

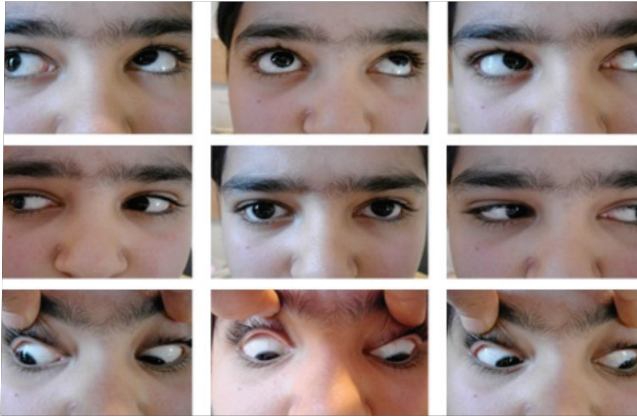
Tel.: +90 322 327 27 27-2104 E-posta: aypelit@yahoo.com **Geliş Tarihi/Received:** 09.08.2012 **Kabul Tarihi/Accepted:** 19.11.2012

Olgu Sunumu

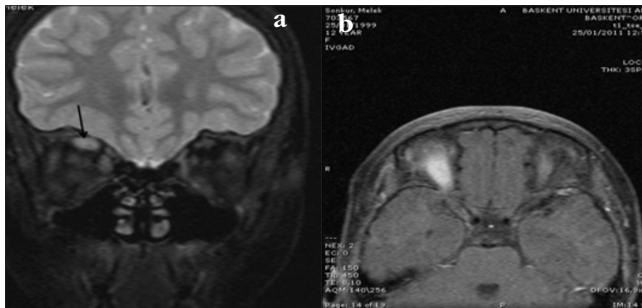
Onüç yaşında kız hasta, bir aydır sağ gözde ağrı ve çift görme şikayeti ile kliniğimize başvurdu. Hastanın öyküsünde yakın zamanda geçirilmiş travma, enfeksiyon ve sistemik hastalık bulunmamaktaydı. Hastanın özgeçmişinde ve soy geçişinde özellik yoktu.

Hastanın oftalmolojik muayenesinde her iki gözde görme keskinlikleri tam, ön segment ve arka segment muayeneleri doğaldı. Her iki gözde göz içi basınçları 14 mmHg idi. Kapak aralığı her iki gözde 11 mm idi ve ptozis yoktu. Göz hareketlerini değerlendirdiğimizde sağ gözde yukarı bakış kısıtlılığı, göz hareketleri ile artan ağrı ve vertikal diplopi izlendi. Sağ gözde primer pozisyonda 10 pd hipotropanya vardı (Resim 1). Hastanın direk ve indirekt ışık refleksleri her iki gözde pozitifti.

Hastanın çekilen orbital MRG'sinde tendon tutulumu ile birlikte sağ üst rektus kasında irregüler görünüm, genişleme, sinyal artışı ve kontrast tutulumu izlendi (Resim 2A-B). Orbital yağ dokusu tutulumu yoktu. Hastanın laboratuvar incelemelerinde tam kan sayımı, biyokimyasal parametreler normal sınırlarda değerlendirildi. Tiroid oftalmopati ayırıcı tanısı açısından bakılan TSH, T3, T4 normal olarak değerlendirildi. Akut faz reaktanları (sedimentasyon ve CRP) normal sınırlarda saptandı. Kollajen doku hastalıkları ve vaskülitlerle birlikte giden hastalıklar açısından bakılan RF, ANA, anti-DNA, c-ANCA



Resim 1. Dokuz kardinal bakış pozisyonu. Sağ gözde yukarı bakış kısıtlılığı ve primer pozisyonda sağ hipotropanya



Resim 2. a) Orbital MRG'de sağ üst rektus kasında yağ baskılamalı T2A seride sinyal artımı, ve genişleme, b) Kontrastlı görüntüde sağ üst rektus kasında kontrast tutulumu izleniyor.

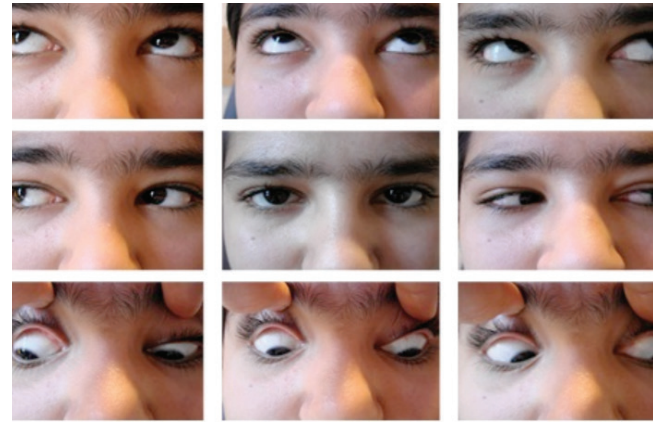
negatif olarak rapor edildi. Bu bulgular ile hastaya idyopatik orbital miyozit tanısı konuldu.

Olguda tek kas tutulumu ve steroid tedavisinden sonra nüks görülmesi nedeni ile oral non-steroid antiinflamatuvar tedaviye başlandı (İbuprofen 200 mg tb 3x1 /1 ay). Tedaviden 10 gün sonra bulgular gerilemeye başladı. Bir ay sonraki kontrolde hastada mevcut olan hipotropanya ve yukarı bakış kısıtlılığının düzelmiş olduğu görüldü (Resim 3). Hastanın çekilen kontrol orbital MRG'sinde sağ üst rektus kasındaki genişleme ve sinyal artımının gerilediği, kontrast tutulumunun izlenmediği görüldü (Resim 4A-B). Bir buçuk yıllık takip süresi içinde nüks gelişmedi.

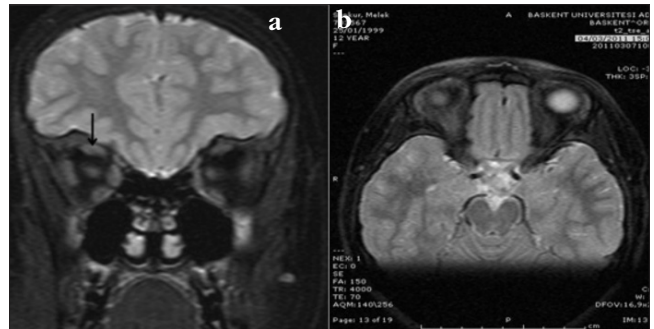
Tartışma

İdyopatik orbital miyozit çocuklarda nadir olup olguların %6-17'sini oluşturmaktadır.^{1,7} İdyopatik orbital miyozit, orbital patolojiler arasında lenfoproliferatif hastalık ve tiroid oftalmopatisinden sonra en sık görülen orbital patolojilerdir. İdyopatik orbital miyozit iki tarafı tutmakla beraber olgularda tek taraflı tutulum siktir. Kızlarda erkeklere oranla iki kat daha siktir. Tek kas tutulumu olmakla birlikte tüm orbital yapılar tutulabilir.^{2,8}

Orbital miyozit genelde idyopattır. Bilinmeyen bir nedenle orbital dokuya karşı oluşan otoimmün bir reaksiyondur. Nadiren



Resim 3. Tedavi sonrasında 9 kardinal bakış pozisyonu. Sağ yukarı bakış kısıtlılığı düzelmiş, primer pozisyonda ortoforik



Resim 4. a) Tedavi sonrası kontrol MRG'de kastaki genişleme ve sinyal artımının gerilediği, b) Kontrast tutulumunun kaybolduğu izleniyor

Tablo 1. Miyozit ve tiroid oftalmopatiye göz bulguları

	Tiroid oftalmopati	İdyopatik orbital miyozit
Unilateral /Bilateral	Genelde bilateral	Genelde unilateral
Ağrı	Göz hareketleri ile ağrı yoktur	Göz hareketleri ile ağrı vardır
Kapak tutulumu	Kapak retraksiyonu eşlik edebilir	Ptozis eşlik edebilir
Orbital yağ doku tutulumu	Genelde tutulum vardır	Tutuluma daha az sıklıkla görülür
Tutulmuş kas	Başlangıçta genelde inferior rektus kası tutulur	Herhangi bir rektus kası tutulabilir
Tutulmuş kas sayısı	Genelde birden fazla kas tutulumu vardır	Genelde bir kas tutulumu vardır
MRG'de kas görüntüsü	Diffüz ve düzenli tutulum	İrregüler tutulum
MRG'de tendon tutulumu	Tendon tutulmaz	Tendon tutulumu görülebilir
Steroid veya nonsteroid tedaviye yanıt	Kas tutulumu düzelmez	Genelde iyidir ve düzelmeye sağlar

bazı sistemik hastalıklar ile birlikte görülebilir. Sistemik lupus eritematozus, romatoid artrit, inflamatuvar bağırsak hastalığı, Wegener granülomatozis, poliarteritis nodoza, sarkoidoz gibi otoimmün patolojilerde de orbital miyozit görülebilmektedir. Olgumuzda klinik ve laboratuvar bulguları ile bu hastalıklar ekarte edildi.

Hastamızda tiroid hormon testlerinin normal olması tiroid oftalmopati tanısını güçsüzeletmiştir. İdyopatik orbital miyozitte tek kas tutulumu tiroid oftalmopatiye göre daha siktir. İki hastalığın ayırıcı tanısında MRG bulgularında yeri vardır. Kural olmamakla birlikte tiroid oftalmopatiye kas diffüz ve düzenli tutulum gösterirken tendon tutulmamaktadır. İdyopatik orbital miyozitte ise kas tutulumu daha düzensizdir ve tendon tutulumu görülebilmektedir.³ Olgumuzda tendon tutulumu ile birlikte üst rektus kasının düzensiz tutulumu, tiroid hormon testlerinin normal olması ve sistemik hastalık bulunmaması ile idyopatik orbital miyozit tanısını koyduk. Tablo 1 de miyozit ve tiroid oftalmopatiye göz bulguları verilmiştir.

Tedavide idyopatik orbital miyozitte kortikosteroidlere hızlı ve iyi cevap alınmasına rağmen, rekürrens olasılığı hatta bazı olgularda steroid bağımlılığı veya direnci görülebilmektedir.⁴ Bu nedenlerden dolayı oral non-steroid antiinflamatuvar ile tedaviye başlandı. Tedaviye çok iyi yanıt alındı bir ay sonraki kontrolde bulguları tamamen düzeldi ve takip süresi içinde nüks görülmedi.

Sonuç olarak etyolojisi tam olarak aydınlatılamayan idyopatik orbital miyozit çocuklarda nadir görülmektedir. Akut diplopi ve periorbital ağrı ile başvuran pediatrik olgularda idyopatik orbital miyozit ayırıcı tanılar arasında düşünülmalıdır. Özellikle tek kas tutulumu olan pediatrik olgularda oral non-steroid antiinflamatuvar tedavi etkili olabilmektedir.

Kaynaklar

1. Dylewski JS, Drummond R, Townsend T. Orbital myositis complicating sinusitis: Case report and review. *Can J Infect Dis.* 2001; 12(1):51-3.
2. 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.
3. Rothfus WE, Curtin HD. Extraocular muscle enlargement: A CT review. *Radiology.* 1984;151:677-81.
4. Sahlin S, Lignell B, Williams M, Dastmalchi M, Orrego A. Treatment of idiopathic sclerosing inflammation of the orbit (myositis) with infliximab. *Acta Ophthalmol.* 2009; 87: 906-8.
5. Garrity J, Coleman A, Matteson E, Eggenberger E, Waitzman D. Treatment of recalcitrant idiopathic orbital inflammation (Chronic orbital myositis) with infliximab. *Am J Ophthalmol.* 2004; 138: 925-30.
6. Ayberkin E, İnce E, Tekin D, Fitoz S, Suskan E. Tekrarlayan orbital miyozitli bir olgu. *Ankara Üniversitesi Tıp Fakültesi Mecmuası.* 2007; 60: 116-19.
7. Turkuoğlu P, Emre S, Fırat A, Bilak S. Bir çocuk olguda idiyopatik orbital miyozit. *İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi Dergisi.* 2008; 15: 135-37.
8. Hanioglu-Kargı S, Tugrul Atasoy H, Sayarlioglu H, Köksal M, Uğurbaş SH, Alpay A. Acquired retraction of the eye as the first sign of myositis. *Strabismus.* 2005; 13:88-8.