



Kabakulak Meningoensefaliti Sonrası Gelişen Tourette Sendromu: Bir Olgu Sunumu

Özlem Özcan*, Tuğba Yüksel*, Birgül Cumurcu (Elbozan)***, Serdal Güngör***

* İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Psikiyatri Anabilim Dalı, Malatya
** İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi, Psikiyatri Anabilim Dalı, Malatya
*** İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi, Pediatri Anabilim Dalı, Malatya

Tourette sendromu (TS) ani, hızlı, istemsiz ve yineleyici motor-vokal tiklerle karakterize çocukluk çağı başlangıçlı nöropsikiyatrik bir bozukluk olup; etiolojisinde immünolojik, genetik, epigenetik, hormonal ve çevresel faktörlerin rol oynayabileceği bilinmektedir. Son yıllarda A grubu B hemolitik streptokok, herpes simplex virus, varisella zoster virus, HIV, borrelia burddorferi gibi enfeksiyöz ajanlarla geçirilen enfeksiyonlardan sonra SSS tutulumuna bağlı olarak da tiklerin ortaya çıktığı ya da alevlendiği bildirilmektedir.

Olgu: Bu olgu sunumunda kabakulak enfeksiyonundan yaklaşık 40 gün sonra ortaya çıkan, 2 yıldır motor ve vokal tikleri olan 12 yaşında bir erkek hastadan söz edilecektir.

Sonuç: Bildirilen kabakulak sonrasında tikler gelişen ikinci olgu olması ve aripiprazol tedavisinden fayda görmesi nedeniyle bu olgu önemlidir. İkincil TS belirtileri bu önemli gelişimsel nöropsikiyatrik bozukluğa daha iyi anlamamıza katkı sağlayabilir.

Anahtar Kelimeler: Tourette Sendromu; Kabakulak; Tikler.

Tourette Syndrome after Mumps Meningoencephalitis: A Case Report

Tourette syndrome (TS) is a neuropsychiatric disorder with an onset in childhood, characterized by sudden, rapid, repetitive, involuntary motor-vocal tics. Its known that immunologic, genetic, epigenetic, hormonal and environmental factors may play a role in the etiology of Tourette syndrome. In recent years, it has been reported that some infectious agents such as A group B hemolytic streptococcus, herpes simplex virus, varisella zoster virus, HIV, borrelia burgdorferi may also cause tics.

Case: In this case report, we present a twelve year old boy who has motor and vocal tics appeared after forty days following a mump infection.

Results: This case report is important because it describes the second patient with mumps-associated TS and significant improvement with aripiprazol treatment. Secondary TS may contribute to the better understanding of this developmental neuropsychiatric disorder in general.

Key Words: Tourette Syndrome; Mumps; Tics.

Tourette sendromu (TS) ani, hızlı, istemsiz ve yineleyici motor-vokal tiklerle karakterize çocukluk çağı başlangıçlı bir nöropsikiyatrik bozukluktur. Genelde erken çocuklukta geçici basit motor tik nöbetleriyle başlar. Vokal tikler motor tiklerin ortaya çıkmasından 1-2 yıl sonra bu tabloya eklenir.¹

Hücrel ve moleküler düzeyde etiolojisi henüz net olarak bilinmemesine rağmen, beyin görüntüleme çalışmaları bazal ganglionlar ve ilişkili kortiko-striato-talamo-kortikal devredeki yapısal ve işlevsel sorunların TS'ye neden olabileceğini ortaya koymaktadır.² Öte yandan TS'de genetik etkenlerin rolü uzun zamandır dikkat çeken bir konudur ve epigenetik faktörler bu

yolla TS patogenezinde katkıda bulunabilir.³ Genetik, immünolojik, hormonal ve çevresel faktörler etkileşerek TS ve ilişkili diğer bozukluklar için nörobiyolojik bir yatkınlık ortaya çıkmasına neden olabilir.⁴

TS etiolojisi üzerinde son 15 yılda yapılan çalışmalar enfeksiyonlar gibi, immün sistemin aktivasyonu ile sonuçlanan faktörlere yönelmiştir.⁵ Enfeksiyöz ajanlar arasında, özellikle A grubu B hemolitik streptokokların patojenik rolleri üzerinde durulmaktadır.⁶ Bazı TS olgularının beyin antijenleri ile yapısal benzerlik gösteren streptokokal ve benzeri antijenlerin çapraz reaksiyonu sonucu geliştiği düşünülmektedir.⁷

Bu olgu sunumunda kabakulak enfeksiyonundan yaklaşık 40 gün sonra ortaya çıkan motor ve vokal tikleri olan 12 yaşında bir erkek hasta ve tedavisinden söz

Başvuru Tarihi: 03.11.2010, Kabul Tarihi: 23.11.2010

edilecektir. Olgu, enfeksiyon etkenleri sonucu geliştiği düşünülen TS'a özgün olması nedeniyle önemli olup, tedavi konusunda bilgi birikimimizin artmasına katkı sağlayacaktır.

Olgu

12 yaşında erkek hasta AY, 47 yaşında esnaf baba ve 43 yaşında ev hanımı olan anneden doğan 4 kardeşten en küçüğü. İlkokul 5. sınıf öğrencisi olan hastanın ders durumu iyi. Hasta polikliniğimize 2 yıldır süren istemsiz hareketleri nedeniyle getirildi. Anne-baba ve çocuktan alınan öyküye göre kabakulak hastalığı geçirdikten yaklaşık 40 gün sonra kolunu ve bacağına ileriye doğru fırlatma, kafasını yan tarafa doğru atma, omzunu kaldırma gibi hareketleri olmaya başlamış. Bu hareketlerden yaklaşık bir yıl sonra boğaz temizleme şeklinde sesler çıkarması ve bağırması başlamış. Stres yaratan durumlarda, yorulduğunda bu hareketleri artırmış. Bir yıl önce bu şikayetlerle çocuk nörolojisine başvuran hastaya TS tanısı konarak imipramin ve sodyum valproat başlanmış. İlk zamanlar tedaviden fayda gören hasta, şikayetlerinin artması üzerine kliniğimize başvurmuş.

Hasta miyadında, normal spontan vajinal yolla hastanede doğmuştu. Doğum ağırlığı normal idi. Sonraki gelişim aşamaları zamanında gerçekleşmişti. Okuma yazmayı yaşlarıyla benzer zamanda öğrenen hastanın, akademik başarısı normal olarak tarifleniyordu. Premorbid öyküsünde iki yıl öncesine kadar herhangi bir psikopatoloji tanımlanmıyordu. Soygeçmişinde ailede tik bozukluğu ya da psikiyatrik hastalık öyküsü bulunmuyordu. Bize başvurmadan yaklaşık 2 yıl önce yüksek ateş, bulantı, kusma şikayetleri ile pediatri hekimine başvuran hastada fizik muayene sonucunda submandibular bölgede şişlik saptanmış ve BOS bulgularının da uyumlu olması sonucunda kabakulak meningoensefaliti düşünülen hastaya hastaneye yatırılarak tedavi edilmişti.

Ruhsal durum muayenesinde yaşına göre fiziksel gelişimi normal, görüşmecisi ile ilişki kurmakta zorlanan bir çocuktur. Görüşme sırasında kol, bacak ve omuzlarında belirgin motor tikler ve bağırma, kelime ve heceleri tekrar etme, kaprolali şeklinde vokal tikler gözlemlendi. Yönelim, bellek, dikkat muayenesi normaldi. Düşünce içeriği normal olan hastada herhangi bir algı bozukluğu saptanmadı. Nöroloji konsültasyonu istenen hastanın nörolojik muayenesinde tikler dışında ek bir bulguya rastlanmadı. Hastanın Wechsler Intelligence Scale for Children-Rewised (WISC-R) testinde toplam zeka bölümü normal düzeyde saptandı. Elektroensefalik inceleme normal sınırlarda değerlendirildi. Manyetik rezonans görüntüleme (MRG) sol hemisferde daha belirgin olmak üzere bilateral optik radyasyonlarda milimetrik laküner

enfarktlar ile uyumlu sinyal değişiklikleri izlendiği rapor edildi. Tam kan sayımı, kan biyokimyası, ASO, CRP seviyeleri normal sınırlarda saptandı. PANDAS'ı (Pediatric autoimmune neuropsychiatric disorders associated with streptococcal infections) dışlamak amacıyla yapılan boğaz kültürü sonucunda üreme olmadığı tespit edildi.

Hastada TS düşünülerek tedavisi planlandı. Hastamızda eşlik eden dikkat eksikliği ve hiperaktivite bozukluğu (DEHB), Obsesif kompulsif bozukluk (OKB) veya PANDAS bulgusuna rastlanmadı. Risperidon 0,5 mg/gün başlandı, 1. ayın sonunda 1 mg/gün dozuna çıktı. Altı hafta sonunda tedaviden belirgin yarar görmeyen hastaya aripiprazol 5 mg/gün tedavisi başlandı ve hastanın şikayetlerinde ilk 1.ayın sonunda %50'lik bir azalma oldu. Şu an hastanın takip ve tedavisi polikliniğimize sürdürülmektedir.

Tartışma

Kabakulak, parotis bezlerinin şişmesi ile seyreden çocukluk çağı viral hastalıklarından biridir. Kabakulak enfeksiyonu sonrasında olguların %1-10'unda menenjit, %0,1'inde ensefalit gibi santral sinir sistemi (SSS) enfeksiyonu gelişebilir. SSS enfeksiyonlarını takiben iyileşme döneminde ataksi, davranış değişiklikleri, elektroensefalografik anormallikler bildirilmiş, ancak bu tabloların birkaç hafta sonra ortadan kalktığı da gözlemlenmiştir.^{8,9} Kabakulak ve TS ile ilgili literatür tarandığında bizim olgumuzun bu konuda bildirilen ikinci olgu olduğu tespit edilmiştir. Ülkemizden Sabuncuoğlu ve ark. tarafından yayınlanan olgu sunumunda meningoensefalit ile karmaşıklaşmış kabakulak enfeksiyonundan yaklaşık 2 ay sonra motor ve vokal tikler gelişen 9 yaşında bir erkek hastadan bahsedilmektedir.¹⁰ Bu iki olgunun öyküsü ve kliniğinin çok benzer olması dikkat çekici olup, kabakulak enfeksiyonu ve tikler arasındaki bağı güçlendirmektedir.

Postenfeksiyöz mekanizmaların TS etiolojisinde önemli olduğu savı, geçirilmiş ya da geçirilmekte olan A grubu B hemolitik streptokok enfeksiyonu ile tik/veya OKB belirtileri arasındaki zamansal ilişkinin fark edilmesi ile daha sık gündeme gelmeye başlamıştır. PANDAS tanımlanarak, tanı kriterleri belirlenmiştir.¹¹ Olgumuzun öyküsünde sık geçirilen boğaz enfeksiyonu olmayıp, yapılan laboratuvar test sonuçlarında PANDAS'ı dışlamaktadır.

Sadece A grubu B hemolitik streptokok enfeksiyonu ile değil, herpes simpleks virus, varisella zoster virus, HIV, borrelia burgdorferi gibi enfeksiyöz ajanlarla da tiklerin ortaya çıktığı ya da alevlendiği bildirilmektedir.⁴ Benzer şekilde soğuk algınlığı, sinüzit ve mikoplasma pnömonisi sonrasında da tiklerde artma gözlenmektedir. Kabakulak virusü de benzer immünolojik mekanizmalar

Kabakulak Meningoensefaliti Sonrası Gelişen Tourette Sendromu: Bir Olgu Sunumu

üzerinden etkileyerek tik bozukluklarını tetikleyebilir. Bir başka açıklamada kabakulak enfeksiyonu veya aşılama sonrasında gelişen denge bozuklukları ve ataksiyle giden kabakulak olguları üzerinden olabilir. Beyincik tutulumu bazal gangliyonlarla varolan dengeyi bozarak tiklerin ortaya çıkmasını kolaylaştırabilir.¹²⁻¹⁴

Hastamızın aile öyküsü alındığında yakınlarında tik bozukluğu, OKB, DEHB ya da başka bir psikiyatrik hastalık olmadığı öğrenildi. TS genellikle ailesel özellik gösteren nöropsikiyatrik bir bozukluk olup, hastamızın aile öyküsü olmaması patogeneizde başka mekanizmaların etkili olabileceğini düşündürmektedir. TS heterojen bir grup hastalık olup, etiyolojik açıdan alt grupların belirlenmesi tanı ve tedavi sürecini olumlu etkileyecektir. Genetik, epigenetik ve nörobiyolojik etkenlerin birbiriyle etkileşimini ve bu etkileşimin klinik tabloyu nasıl belirlediğini araştırmak açısından TS uygun bir model oluşturmaktadır.

Kaynaklar

1. American Psychiatric Association. Diagnostic and Statistical Manuel of Mental Disorders, 4th edn, Text Revision. Washington: American Psychiatric Association, 2000.
2. Hoekstra PJ, Anderson GM, Limburg PJ, et al. Neurobiology and neuroimmunology of Tourette's syndrome: an update Cell, Mol, Life Sci 2004;61:886-98.
3. Möller JC, Tackenberg M, Heinzl-Gutenbrunner R, et al. Immunophenotyping in Tourette syndrome- a pilot study. Eur J Neurol 2008;15:749-53.
4. Martino D, Dale RC, Gilbert DL, et al. Immunopathogenic mechanism in Tourette syndrome: A critical review. Mov Disord 2009;9:1267-79.

5. Swain JE, Scahill L, Lombroso PJ, et al. Tourette syndrome and tic disorders: a decade of progress. J Am Acad Child Adolesc Psychiat 2007;46:947-68.
6. Martino D, Defazio G, Giovannoni G. The PANDAS subgroup of tic disorders and childhood onset obsessive-compulsive disorders. J Psychosom Res 2009;67:547-57.
7. Swedo S, Leonard HL, Garvey M, et al. Pediatric autoimmune neuropsychiatric disorders associated with streptococcal infections: clinical descriptions of first 50 cases. Am J Psychiat 1998;155:264-71.
8. Hviid A, Rubin S, Mühlemann Mumps. Lancet 2008;371:932-44.
9. Azimi PH, Cramblett HG, Hayness RE. Mumps meningoencefalitis in children. JAMA 1969;207:509-12.
10. Sabuncuoğlu O, Ekinci Ö, Ölçer S, ve ark. Kabakulak meningoensefaliti sonrasında gelişen Tourette Sendromu: Bir olgu sunumu. Klinik Psikiyatri 2005;8:197-200.
11. Arman AR. Tik Bozuklukları. Çocuk ve Ergen Psikiyatri Temel Kitabı. Çetin FÇ, ed. Ankara, Hekimler Yayın Birliği, 2007;513-23.
12. Abrey LE, Waters CH. Basal ganglia calcification after mumps encephalitis. Mov Disord 1996;11:755-6.
13. Leheup BP, Feillet F, Roland J, et al. Lesions of the basal ganglia in mumps. Clinical and neuroradiological development in a case. Rev Neurol 1987;143:301-3.
14. Luppi P, Rossiello MR, Faas S, et al. Genetic background and environment contribute synergistically to the onset of autoimmune diseases. J Mol Med 1995;73:381-93.

İletişim Adresi: Dr. Birgül CUMURCU (ELBOZAN)

İnönü Üniversitesi Tıp Fakültesi,
Psikiyatri Anabilim Dalı, Malatya
Tlf: 04223410660
Fax: 04223410728
e-mail: birgulelbozan19@hotmail.com