

**Olgu Sunumu / Case Report**

doi: 10.5606/phhb.dergisi.2018.03

# Akut Serebral Posthipoksik Distoni ve Kore: Olgu Sunumu

## Acute Cerebral Posthypoxic Dystonia and Chorea: A Case Report

Murat Gültekin<sup>1</sup> , Recep Baydemir<sup>1</sup> , Mehmet Fatih Göl<sup>1</sup> ,  
Saliha Demirel Özsoy<sup>2</sup> , Meral Mirza<sup>1</sup> 

<sup>1</sup>Erciyes Üniversitesi Tıp Fakültesi Nöroloji Anabilim Dalı, Kayseri, Türkiye

<sup>2</sup>Erciyes Üniversitesi Tıp Fakültesi Psikiyatri Anabilim Dalı, Kayseri, Türkiye

### ÖZ

Hipoksik-iskemik durumlardan sonra parkinsonizm, distoni, kore, tikler, tremor, atetoz ve miyoklonik sendromlar dahil birçok hareket bozukluğu tanımlanmıştır. Bu yazıda, Afganistan'daki evinde bir saldırgan tarafından boğulma girişimi sonrası serebral hipoksi gelişen 24 yaşında bir kadın hasta sunuldu. Yatışının üçüncü gününde hastanın kolunda ve servikal bölgede akut distoni ve kore olduğu gözlemlendi. Psikiyatrik muayenede uyum bozukluğu ve depresyon saptandı. Hastanedeki akut dönem sonrasında hasta Türkiye'ye getirildi. Kranial manyetik rezonans görüntüleme iki taraflı bazal ganglionlarda (putamen ve kaudat nukleus) T<sub>2</sub>-hiperintens sinyal artışı gözlemlendi. Antikolinergik ve antidepresan tedavi başlandı.

**Anahtar Sözcükler:** Serebral hipoksi; kore; distoni.

### ABSTRACT

A great number of movement disorders, including parkinsonism, dystonia, chorea, tics, tremor, athetosis, and myoclonic syndromes, have been described after hypoxic-ischemic conditions. In this article, we present a 24-year-old female patient who developed cerebral hypoxia after an attempt of strangulation by an assailant in her house in Afghanistan. On third day of hospitalization, acute dystonia and chorea were observed on patient's arm and cervical area. Adjustment disorder and depression were detected at psychiatric examination. Patient was brought to Turkey after the acute term at hospital. T<sub>2</sub>-hyperintense signal increase was observed in bilateral basal ganglia (putamen and caudate nucleus) on cranial magnetic resonance imaging. Anticholinergic and antidepressant treatment was initiated.

**Keywords:** Cerebral hypoxia; chorea; dystonia.

**İletişim adresi / Correspondence:** Dr. Murat Gültekin, Erciyes Üniversitesi Tıp Fakültesi Nöroloji Anabilim Dalı, 38039 Melikgazi, Kayseri, Türkiye.  
Tel: 0352 - 207 66 66 **e-posta** / **e-mail:** gultekin@erciyes.edu.tr

**Geliş tarihi / Received:** 24 Kasım 2017 **Kabul tarihi / Accepted:** 15 Ocak 2018

### Atıf:

Gültekin M, Baydemir R, Göl MF, Demirel Özsoy S, Mirza M. Akut serebral posthipoksik distoni ve kore: Olgu sunumu. Parkinson Hast Harek Boz Derg 2018;21(1-2):8-11.

Bu yazı 4. Avrupa Nöroloji Akademisi Kongresi'nde E-poster olarak sunulmuştur, 16-19 Haziran 2018, Lizbon, Portekiz.

Serebral korteks hipoksi ve iskemiye çok duyarlıdır. Hipoksi veya iskemi sonucu merkezi sinir sisteminde meydana gelen asidoz, laktat artışı ve serbest radikaller gibi metabolitlerin aşırı birikiminden dolayı nöron hasarı meydana gelmektedir.<sup>[1]</sup> İskemi, geri dönüşümsüz nöronal hasara yol açar iken, hipoksi nöronal fonksiyonda geri dönüşümlü bir hasara neden olmaktadır.<sup>[2]</sup>

Hipoksi sonrası özellikle bazal gangliyonlar başta olmak üzere, talamus, orta beyin ve serebellum da dahil olmak üzere merkezi sinir sisteminin çeşitli bölümlerinde fonksiyon bozukluğu meydana gelmekte ve bu durum farklı klinik tablolara neden olabilmektedir.<sup>[3]</sup> Bunların içinde, miyoklonus, distoni, akinetik-rijid sendrom, tremor ve kore gibi çeşitli hareket bozukluğu tabloları ile birlikte eşlik eden demans veya psikiyatrik semptomlar da ortaya çıkabilmektedir.<sup>[4]</sup>

Bu yazıda öldürme kastı ile kemer ile boğma girişimi sonrası hipoksiye maruz kalan bir kadın hastanın travma sonrası akut nöropsikiyatrik tablosu sunuldu.

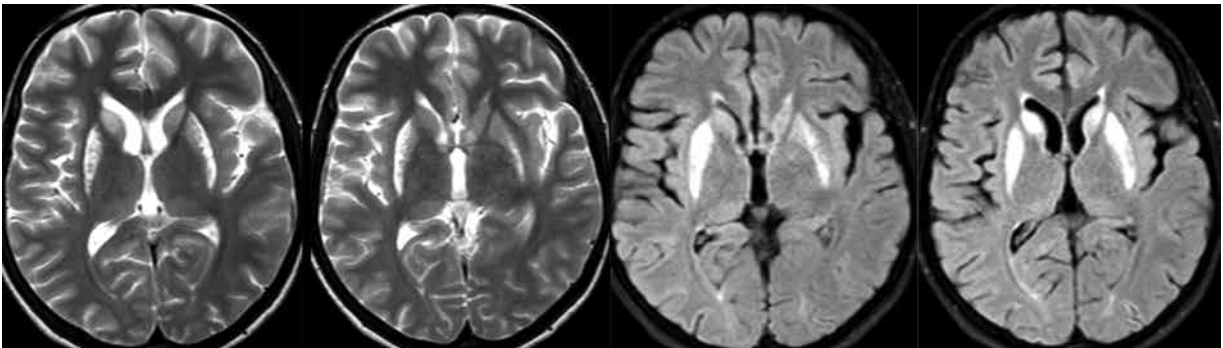
### OLGU SUNUMU

Evinde saldırıya uğrayan ve saldırgan tarafından öldürme kastı ile kemer ile boğma girişimi sonrası yaklaşık 30 dk süre ile hipoksiye maruz kalan ve sonrasında öldü zannedilerek bırakılan 24 yaşındaki Afgan kökenli bir kadın hasta Afganistan'daki bir hastanede yatırılarak tedavi edilmiş. Hastanın öyküsünden bilincinin iki gün sonra açıldığı, takibinin üçüncü gününde istemsiz hareketler yaptığı ve konuşma zorluğu yaşadığı öğrenildi. Yaklaşık iki hafta süresince yattığı hastanede hastanın ne epikriz bilgisine

ne de nasıl bir tedavi uygulandığı konusunda bir bilgiye ulaşıldı.

Hasta olaydan iki ay sonra, depresif belirtileri nedeniyle ülkemizde sağlık hizmeti alması amacıyla tıp fakültemizin psikiyatri servisine yatırıldı. Travma sonrası stres bozukluğu ön tanısı ile psikiyatri servisinde takip edilen hastaya venlafaxine 75 mg/gün, diazepam tb 5 mg/gün, quetiapine 75 mg/gün başlandı. Hastanın nörolojik muayenesinde bilinci açık, koopere ve oryante idi. Derin tendon refleksleri jeneralize canlı, taban cildi refleksi pozitif izlendi. Oromandibüler distoni, solda daha fazla olmak üzere her iki kolda kore ve distoni saptandı. Hastanın kraniyal manyetik rezonans görüntüleme (MRG)'sinde iki taraflı bazal gangliyonlar (kaudat nukleus ve globus pallidus) düzeyinde T<sub>2</sub>-Flair ve T<sub>1</sub>A sekanslarda hiperintens sinyal değişiklikleri izlendi (Şekil 1). Herhangi bir intoksikasyon öyküsü olmayan hastada Wilson hastalığına yönelik ayırıcı tanı testlerinde, idrar bakır, serum bakır ve serum seruloplazmin düzeyi normal saptandı.

Fiziksel şiddet sonrası boğulma olayına maruz kalan hasta, öykü, klinik muayene ve kraniyal MRG bulguları ile birlikte değerlendirildi ve hastaya akut serebral posthipoksik distoni ve kore tanısı kondu. Amitriptyline 50 mg/gün ile birlikte trihexyphenidyl 15 mg/gün tedavisi başlandı. Hastanın Nöroloji ve Psikiyatri polikliniklerinde yapılan takiplerinde iyilik halinin zaman içinde giderek arttığı gözlemlendi. Özellikle her iki kolda olan koreiform hareketler ve oromandibüler distoninin tama yakın düzeldiği izlendi. Sol kolda daha fazla gözlenen her iki



Şekil 1. İki taraflı bazal gangliyonlarda T<sub>2</sub>-Flair hiperintens sinyal artışı izlenmektedir.

koldaki distonik kasılmalarda ise kısmi iyileşme olduğu saptandı.

### TARTIŞMA

Bilinç kaybına neden olmayan hafif hipoksi yalnızca dikkatsizlik, muhakeme yeteneğinde azalma ve motor koordinasyon bozukluğuna yol açmaktadır.<sup>[2]</sup> Yapılan araştırmalar yavaş geliştiği takdirde, belirgin anoksinin iyi tolere edildiğini göstermektedir.<sup>[3]</sup> Bununla birlikte bilinç kaybına yol açmayan hipoksemi, çok seyrek olarak merkezi sinir sisteminde kalıcı hasara neden olmaktadır.<sup>[4]</sup> Yaygın serebral iskemi uzamış bilinç kaybı ile birlikte olduğunda klinik etkilenme değişken olmaktadır.<sup>[5]</sup> Hafif seviyedeki hipoksik-iskemik hasarda, saatler süren veya daha kısa süreli olan koma sonrasında hızla düzelleme gösterebilir. Sonrasında tam iyileşme olabilir veya değişen derecelerde sekel gelişebilir.<sup>[4]</sup> Beyin sapı fonksiyonları korunmuş olan anoksik hastalar, bilinç ve diğer ileri beyin fonksiyonlarının iyileşmesi açısından daha şanslı olmaktadır. Olgumuzda hipoksi akut gelişti ve bilinç kaybı eşlik etti. Bu durum dikkate alındığında hastada sekelle iyileşme veya kalıcı hasar kalması beklenebilir.

Hipoksik iskemik ensefalopati durumunda MRG bulguları ile ilgili yayınlarda özellikle bazal ganglia bölgesinin sıkça etkilendiği gösterilmiştir.<sup>[3]</sup> Uzun süreli hipoksi durumunda, özellikle hipoksiye karşı savunmasız alanlar olan; bazal gangliyonlar (kaudat nukleus, globus pallidus, striatum) radyolojik ve patolojik hasar saptanmaktadır. Bazal gangliyon ve talamusta kronik dönemde bilgisayarlı tomografi (BT) bulguları ile uyumlu olan T<sub>1</sub> ve T<sub>2</sub> ağırlıklı MRG'de hiperintensite saptanır. Bu özgün bulgular, doku dejenerasyonu, mineral maddelerin birikmesi veya lipid depolanmasını yansıtır.<sup>[5]</sup>

Serebral hipoksi sonrası distoni, daha sonra ortaya çıkacak hareket bozukluklarından en sık görülenlerden biridir ve ileride akinetik rijit sendrom ile birlikte görülebilir. Putaminal bölge lezyonları distoni kliniğini yansıtırken, pallidal lezyonlar akinetik-rijit sendroma neden olmaktadır.<sup>[6]</sup> Bizim olgumuzda da putaminal etkilenme kranial MRG'de daha belirgin

olarak izlendi. Bu hareket bozukluklarının patofizyolojisi şu şekilde izah edilebilir. Bazal gangliadaki hasar sonucu talamik projeksiyonların premotor ve motor kortekse uygunsuz disinhibisyonu meydana gelmekte ve sonuç olarak distoni ortaya çıkarmaktadır. Bu tablolar akut oluşabildiği gibi geç başlangıçlı da olabilir. Posthipoksik distoni ekstremiteleri ve yüzü etkileyebilir ve genellikle asimetriktir daha sonra generalize simetrik hale gelebilir. Sunduğumuz bu olguda da benzer şekilde sol kolda daha fazla izlenen iki taraflı kol distonisi ve ağız ve dil bölgesini tutan oromandibüler distoni vardı.

Serebral hasarın olduğu yaş, hareket bozukluğunun tipini de etkiliyor gibi görünmektedir. Bhatt ve ark.nın<sup>[7]</sup> yaptıkları bir çalışmada hipoksi sonrası bir hafta - üç yıl sonrası dönemde distoni gelişen hastaların genellikle 30 yaş öncesi olan hastalar olduğu saptanmıştır. Daha yaşlı hastalarda ise hipoksiden 1 hafta-12 ay sonrasında gelişen progresif olmayan akinetik-rijit sendrom bildirilmiştir.<sup>[7]</sup> Statik beyin hasarı sonrası görece stabilizasyon aşamasını takiben hareket bozukluklarının şiddeti artabilir ve başka anatomik alanlara yayılabilir. Başka bir çalışmada hipoksi sonrası progresif seyirli geç başlangıçlı generalize distoni olguları da bildirilmiştir.<sup>[8]</sup> Diğer bir çalışmada altı hastada pür distoni, iki hastada pür akinetik rijit sendrom ve dört hastada akinetik rijit sendrom sonrası distoni gelişmiştir. Bu çalışmadaki hastalarda tipik olarak akinetik rijit sendrom hipoksik olay sonrası üç ay içinde gelişmiş ve yıllar boyunca stabil seyretmiştir. Ancak distoni durumu ise hipoksik olay sonrası daha geç dönemde (10 ay) gelişmiş ve progresif seyretmiştir. Bu çalışmaya alınan hastaların yapılan kranial MRG'lerinde bazal gangliyonlarda lezyon saptanmıştır. Distoni yüksek doz antikolinergiklerle tedavi edilmeye çalışılmış, ancak bir kısmı tedaviye yanıt vermiştir. Bu çalışmada da genç yaş grubunda distoni, ileri yaş grubunda akinetik rijit sendrom geliştiği bildirilmiştir.<sup>[9]</sup> Bizim olgumuzda yaşı göz önüne alındığında hipoksi sonrası akut dönemde distoni izlendi. Sonuç olarak hipoksinin akut veya kronik gelişmesi, erken veya geç yaşta olması, hipoksik olarak kalınan

süre semptomların kalıcı olup olmamasında önemli rol oynamakla birlikte prognozun ana belirleyicilerinden biridir.

#### **Çıkar çakışması beyanı**

Yazarlar bu yazının hazırlanması ve yayınlanması aşamasında herhangi bir çıkar çakışması olmadığını beyan etmişlerdir.

#### **Finansman**

Yazarlar bu yazının araştırma ve yazarlık sürecinde herhangi bir finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

#### **KAYNAKLAR**

1. Bradley WG, Daroff RB, Fenichel GM, editors. Neurology in Clinical Practice: Principles of Diagnosis and Management. 3rd ed. New York: Butterworth-Heinemann. 1999. p. 1125-66.
2. Oechmichen M, Meissner C. Cerebral hypoxia and ischemia: the forensic point of view: a review. J Forensic Sci 2006;51:880-7.
3. Khot S, Tirschwell DL. Long-term neurological complications after hypoxic-ischemic encephalopathy. Semin Neurol 2006;26:422-31.
4. Ropper AH, Brown RH. The acquired metabolic disorders of the nervous system. In: Ropper AH, Brown RH, editors. Adams and Victor's Principles of Neurology. 8th ed. New York: McGraw-Hill; 2005. p. 959-64.
5. Matsuyama T, Okuchi K, Seki T, Higuchi T, Ito S, Makita D, et al. Magnetic resonance images in hanging. Resuscitation 2006;69:343-5.
6. Snyder BD, Ramirez-Lassepas M, Lippert DM. Neurologic status and prognosis after cardiopulmonary arrest: I. A retrospective study. Neurology 1977;27:807-11.
7. Bhatt MH, Obeso JA, Marsden CD. Time course of postanoxic akinetic-rigid and dystonic syndromes. Neurology 1993;43:314-7.
8. Kuoppamäki M, Bhatia KP, Quinn N. Progressive delayed-onset dystonia after cerebral anoxic insult in adults. Mov Disord 2002;17:1345-9.
9. Boylan KB, Chin JH, DeArmond SJ. Progressive dystonia following resuscitation from cardiac arrest. Neurology 1990;40:1458-61.