

Zespół dystonii ogniskowych po udarze niedokrwiennym mózgu

Focal dystonia after ischemic stroke

Sławomir Budrewicz¹, Małgorzata Góral¹, Tomasz Turek²

¹Katedra i Klinika Neurologii Akademii Medycznej im. Piastów Śląskich we Wrocławiu

²Ośrodek Tomografii Komputerowej Dolnośląskiego Szpitala Specjalistycznego im. T. Marciniaka

Streszczenie

W pracy przedstawiono przypadek młodego mężczyzny z niedokrwiennym uszkodzeniem torebki wewnętrznej i jąder podkorowych, u którego kilka lat po udarze rozwinął się zespół dystonii ogniskowych o zróżnicowanym i zmiennym w czasie obrazie klinicznym.

Słowa kluczowe: niedokrwienny udar mózgu, poudarowa dystonia ogniskowa

Summary

The authors present a case of the young man with internal capsula and basal ganglia ischaemic lesion. In a few last years the focal dystonia with variable and changeable clinical picture has developed in our patient.

Key words: ischemic stroke, poststroke dystonia

Wstęp

Dystonia jest uogólnionym lub ograniczonym do niektórych grup mięśniowych albo pojedynczych mięśni okresowym zaburzeniem napięcia mięśni, powodującym zaburzenia postawy lub ruchu [1]. Częstym objawem towarzyszącym jest ból. Toniczny skurcz mięśni występuje podczas wykonywania dowolnego ruchu; może być także wywołany przez sam zamiar wykonania ruchu lub przez utrzymywanie określonej postawy.

Do najczęściej spotykanych postaci dystonii należy dystonia ogniskowa. Polega ona na mimowolnych ruchach, ograniczonych do jednego mięśnia lub związanej ze sobą czynnościowo grupy mięśni, odpowiedzialnych za określone zaburzenie ruchowe (np. kurcz powiek, dystonia krtaniowa) [1]. Dystonia segmentarna dotyczy co najmniej dwóch obszarów czynnościowych. Rzadziej występuje dystonia uogólniona i połowicza.

Wyróżnia się dystonie samoistne oraz objawowe. Do dystonii samoistnych należą między innymi kurcz powiek i zespół Meige'a [1]. Dystonia objawowa jest najczęściej następstwem urazów

okołoporodowych, a także naczyniopochodnego lub pozapalnego uszkodzenia mózgu [2–5]. Dystonie pozapalne i po urazie okołoporodowym występują zazwyczaj u ludzi młodych, natomiast objawowe dystonie naczyniopochodne dotyczą przede wszystkim ludzi starszych [4]. Dystonie, które pojawiają się w ostrym okresie udaru mózgu, często ustępują w ciągu kilku dni wraz z regresją innych objawów naczyniopochodnego deficytu neurologicznego. W badaniach obrazowych u chorych z dystonią poudarową stwierdza się najczęściej zmiany niedokrwienne w obrębie prążkowania, gałki błędnej, wzgórze oraz przedniej części pnia mózgu [2, 3, 5].

Autorzy, biorąc pod uwagę niezbyt częste występowanie dystonii jako późnego powikłania niedokrwiennego uszkodzenia mózgu oraz brak w piśmiennictwie polskim kazuistycznych doniesień na ten temat, zdecydowali się przedstawić poniższy przypadek.

Opis przypadku

Do Kliniki Neurologicznej AM we Wrocławiu w lutym 1994 roku przyjęto 42-letniego mężczyznę z powodu niedowładu połowiczego prawostronnego i zaburzeń mowy; objawy te wystąpiły nagle. W wywiadzie rodzinnym odnotowano następujące dane: ojciec chorego zmarł w 62 roku życia z powodu udaru mózgu, matka cierpi na chorobę niedokrwienną serca.

Adres do korespondencji:

Dr med. Sławomir Budrewicz

Katedra i Klinika Neurologii AM

ul. Traugutta 118, 50–420 Wrocław

tel./faks: +48 (0 71) 342 49 19

Praca wpłynęła do Redakcji: 03 stycznia 2002 r.

Zaakceptowano do druku: 12 lutego 2002 r.

W badaniu przedmiotowym stwierdzono ośrodkowy niedowład nerwu twarzowego po prawej stronie, niewielki niedowład prawych kończyn z przewagą w kończynie górnej, wygórowanymi odruchami głębokimi i dodatnim objawem Babińskiego po tej stronie. Za pomocą tomografii komputerowej (CT, *computed tomography*) głowy ujawniono ognisko niedokrwienne z towarzyszącym obrzękiem, zajmujące głowę jądra ogoniastego, przednią odnogę torebki wewnętrznej i przednie 2/3 jądra soczewkowatego. W badaniu dopplerowskim tętnic dogłowych nie stwierdzono patologii przepływu ani cech zwężenia naczyń. W badaniach biochemicznych odnotowano podwyższone stężenie triglicerydów i cholesterolu całkowitego przy prawidłowym stężeniu cholesterolu frakcji LDL i HDL. W badaniu EEG, w lewej okolicy skroniowo-ciemieniowej, wykryto ognisko fal delta. Badaniem USG serca stwierdzono wypadanie płata zastawki mitralnej oraz rzekomą strunę w koniuszku serca.

Pod koniec 1997 roku, a więc ponad 3 lata po przebytych udarze, u chorego wystąpiły subiektywne objawy podrażnienia spojówek; zgłaszał uczucie obecności piasku pod powiekami, do którego następnie dołączyło częste mruganie. U pacjenta, który leczył się w poradni okulistycznej rozpoznano zapalenie spojówek. Pomimo zastosowanej terapii nie uzyskano poprawy. Chory zgłosił się do poradni neurologicznej, gdzie rozpoznano dystonię ogniskową pod postacią kurczu powiek. W leczeniu stosowano: haloperydol, klonazepam, biperyden oraz propranolol, uzyskując jedynie niewielkie złagodzenie dolegliwości. W sierpniu 1998 roku podano choremu po raz pierwszy toksynę botulinową, uzyskując ustąpienie kurczu powiek. W listopadzie 1998 roku nastąpił nawrót dolegliwości, dołączyły się ruchy dystoniczne w obrębie mięśnia okrężnego ust (szczyrzenie zębów) i mięśnia szerokiego szyi, którym towarzyszyła dysartria i zaburzenia połykania. Na przełomie roku 1998/1999 pojawiły się ruchy dystoniczne w obrębie dłoni i prawego przedramienia (ryc. 1).

U chorego wielokrotnie stosowano toksynę botulinową typu A w kilkumiesięcznych odstępach z dobrym efektem. Po jednym z zabiegów wystąpiły przemijające zaburzenia połykania, poza tym nie obserwowano innych objawów ubocznych.

W ostatnim badaniu przedmiotowym stwierdzono ośrodkowe porażenie prawego nerwu twarzowego, oczopląs poziomy przy skrajnym spożeraniu na boki, zbaczanie języka w prawo, mowę dysartryczną, skrzywienie lewostronne odcinka szyjnego oraz skrzywienie prawostronne odcinka



Rycina 1. Dłoń prawa z dystonicznym ustawieniem palców

Figure 1. Right hand with dystonic position of the fingers

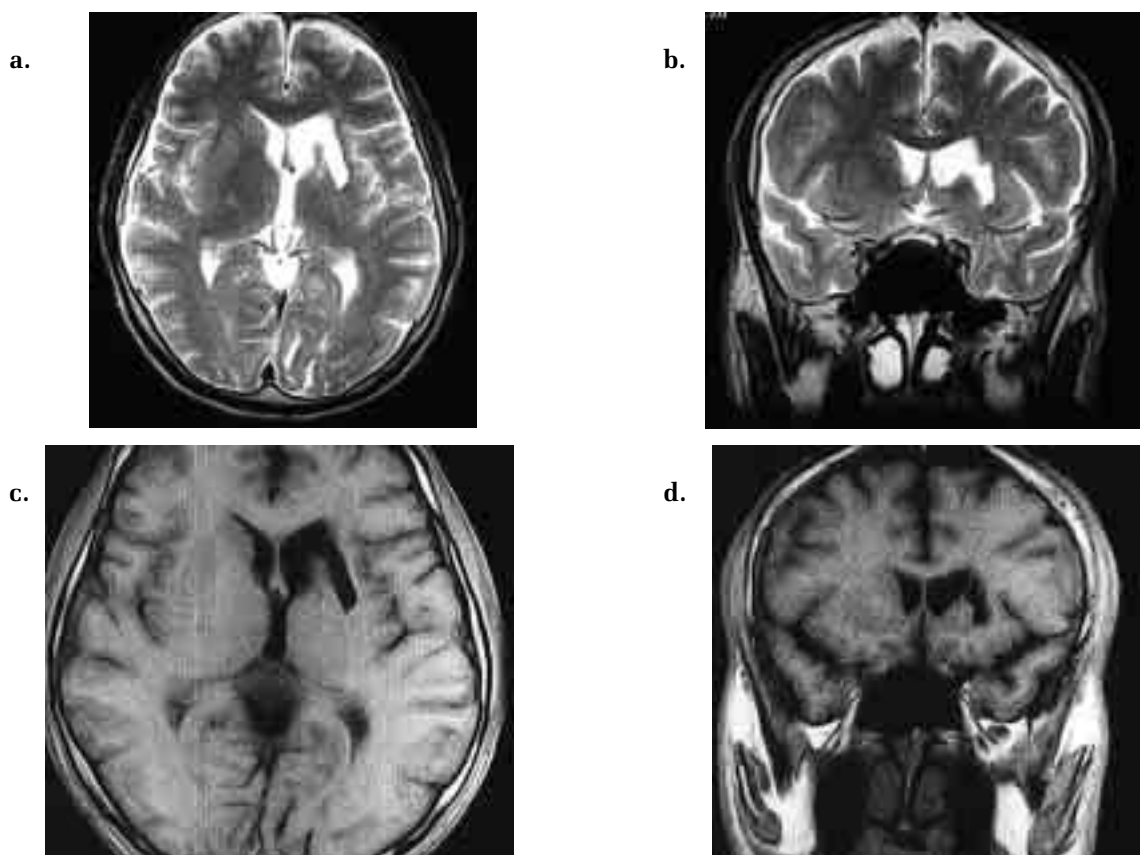
piersiowego kręgosłupa, zanik mięśni podgrzebiennowych po stronie prawej, dystoniczne skurcze mięśnia szerokiego szyi oraz mięśni okolicy podżuchwowej, dodatnie objawy deliberacyjne, ruchy dystoniczne dłoni prawej, a także wygórowane odruchy głębokie po stronie prawej.

W badaniu rezonansu magnetycznego (MRI, *magnetic resonance imaging*), wykonanym w maju 1998 roku stwierdzono ognisko pozawałowe, zajmujące górno-przednią część jądra ogoniastego, przecinające część środkową przedniej odnogi torebki wewnętrznej i obejmujące przednie 2/3 skorupy. Kolejne badanie MRI, wykonane w czerwcu 2001 roku, nie wykazało ewolucji zmian (ryc. 2).

Omówienie

Dystonia jako powikłanie udaru niedokrwiennego jest zjawiskiem rzadkim. Niekiedy może wystąpić w wyniku uszkodzenia struktur podkorowych w przebiegu krwotoku mózgowego. Opisano między innymi dystonię połowiczą oraz zespół połowiczej płasawicy i hemibalizmu w wyniku krwawienia z malformacji tętniczo-żylnych do wzgórza lub jąder podkorowych [6–8].

Objawy dystonii pojawiają się najczęściej od 1 miesiąca do 2 lat od wystąpienia udaru, rzadziej w późniejszym okresie [9]. U pacjentów z takimi zaburzeniami obserwuje się dystonię ogniskową, segmentarną lub dystonię uogólnioną. Często jest to dystonia połowicza (ogniska naczyniowe w prążkowiu i wzgórzu) [2, 5]. Opisano także przypadki izolowanej dystonii kończyny górnej [9]. U chorych z ruchami dystonicznymi dłoni uszkodzenie lokalizowano w obszarze tylnobocznej części wzgórza, rzadziej w jego części przyśrodkowej [9]. Ghika i wsp. zbadali 2500 chorych z niedokrwiennym udarem mózgu w jego ostrej fazie oraz w póź-



Rycina 2. Wynik badania rezonansu magnetycznego głowy z dnia 3.06.2001 roku. Ognisko pozawałowe, zajmujące górno-przednią część jądra ogoniastego, przecinające część środkową przedniej odnogi torebki wewnętrznej i obejmujące przednie 2/3 skorupy (obrazy T2 zależne: **a, b**; obrazy T1 zależne: **c, d**)

Figure 2. The result of cerebral MRI (30.06.2001): ischaemic lesion of the fronto-superior part of the caudate nucleus, crossing through the central part of the anterior limb of the internal capsule and including the 2/3 of the anterior putamen (T2-weighted images: **a, b**; T1-weighted images: **c, d**)

niejszym okresie, u których obserwowali objawy zespołu dystonii połowicznej [6]. W badaniach obrazowych w tych przypadkach zmiany niedokrwienne stwierdzano przeważnie w obszarze unaczynienia tętnicy środkowej mózgu. Krystkowiak i wsp. w wybranej grupie chorych z dystonią określoną przez autorów jako prążkowiowo-gałkowa i ogniskiem naczyniowym zlokalizowanym w czuciowo-ruchowej części układu prążkowiowo-gałkowego, stwierdzili, że jest ona wynikiem przerwania pętli korowo-prążkowiowo-gałkowo-wzgórzowo-korowej. Inny rodzaj zaburzenia, określane jako dystonia wzgórzowa, wiązano natomiast z uszkodzeniem środkowo-pośrodkowych lub brzuszno-przyśrodkowych jąder wzgórza, co także prowadzi do zaburzenia czynności wymienionej pętli [10].

Leczenie dystonii ogniskowych jest objawowe. Najczęściej stosuje się leki, takie jak benzodiazepiny, cholinolityki oraz leki przeciwpadaczkowe. Skuteczność preparatów podawanych doustnie, podobnie jak w przypadku innych dystonii, jest

jednak niewielka [1]. Dobry, chociaż krótkotrwały efekt można uzyskać po miejscowym podaniu toksyny botulinowej typu A.

W przypadku przedstawionym przez autorów niniejszej pracy zwraca uwagę zróżnicowany obraz kliniczny dystonii: kurcz powiek, dystonia ustno-żuchwowa, dystoniczny skurcz mięśnia szerokiego szyi oraz dystonia kończyny górnej. Obserwowano trwającą w czasie ewolucję objawów z pojawianiem się coraz to nowych ruchów dystonicznych. Zmianie obrazu klinicznego dystonii nie towarzyszyła ewolucja zmian poudarowych w badaniach obrazowych. Uszkodzenie naczyniowe w opisywanym przypadku, podobnie jak w pracy Krystkowiaka, zlokalizowane było w obrębie pętli korowo-prążkowiowo-gałkowo-wzgórzowo-korowej. Znamiennej cechą przedstawianego przypadku jest fakt, że 7 lat po przebytych udarach nie zaobserwowano prawie żadnych cech piramidowego niedowładu prawostronnego, który był dominującym objawem w początkowym okresie choroby,

natomiast sprawność ruchowa chorego była upośledzona z powodu uszkodzenia mechanizmów pozapiramidowych, co przejawiało się w złożonym obrazie klinicznym dystonii. Wystąpienie zaburzeń ruchowych poprzedzone było kilkuletnim okresem latencji, a ich dynamika, modyfikowana stosowanym leczeniem, wiązała się zapewne z nieprawidłową przebudową mechanizmów czynnościowych w obrębie pętli korowo-prążkowiowo-gałkowo-wzgorzowo-korowej.

Piśmiennictwo

1. Csala B., Deuschl G.: Kraniozervikale Dystonien. *Nervenarzt*, 1994, 65, 75–94.
2. Apaydin H., Ozekmekci S., Yeni N.: Posthemiplegic focal limb dystonia: a report of two cases. *Clin. Neurol. Neurosurg.* 1998, 100, 46–50.

3. Choi Y.C., Lee M.S., Choi I.S.: Delayed — onset focal dystonia after stroke. *Yonsei Medical Journal* 1993, 34, 391–396.
4. Ferraz H.B., Andrade L.A.: Symptomatic dystonia: clinical profile of 46 Brazilian patients. *Canad. J. Neurol. Sci.* 1992, 19, 504–507.
5. Takahashi S., Oki J., Miyamoto A. i wsp.: Hemidystonia, hemichorea, and motor aphasia associated with bilateral ischemic lesions in the striatum: regional cerebral blood flow studies to clarify the pathophysiology. *J. Child. Neurol.* 1998, 13, 408, 11.
6. Ghika-Schmid F., Ghika J., Regli F. i wsp.: Hyperkinetic movement disorders during and after acute stroke: the Lausanne Stroke Registry. *J. Neurol. Sci.* 1997, 146, 109–116.
7. Krauss J.K., Kiriyanthan G.D., Borremans J.J.: Cerebral arteriovenous malformations and movement disorders. *Clin. Neurol. Neurosurg.* 1999, 101, 92–99.
8. Pettigrew L.C., Jankovic J.: Hemidystonia: a report of 22 patients and review of the literature. *J. Neurol. Neurosurg. Psychiatry* 1985, 48, 650–657.
9. Karsidag S., Ozer F., Sen A. i wsp.: Lesion localization in developing poststroke hand dystonia. *Eur. Neurol.* 1998, 40, 99–104.
10. Krystkowiak P., Martinat P., Defebvere L. i wsp.: Dystonia after striatopallidal and thalamic stroke: clinicoradiological correlations and pathophysiological mechanisms. *J. Neurol. Neurosurg. Psychiatry.* 1998, 65, 703–708.