

(31) Idiopatyczne zapalenie mięśnia zewnątrzgałkowego – opis przypadku

Idiopathic myositis – a case report

Maciej Gawęcki, Beata Bałasz-Duda

Z Oddziału Okulistycznego Wojewódzkiego Szpitala Zespołowego w Elblągu
Ordynator: lek. med. Janusz Adamski

Summary: We present a case of idiopathic myositis of medial rectus muscle in 13-year old boy. Patient was admitted to pediatric ward due to severe headache and periorbital edema. In ophthalmological examination serious limitation of adduction together with pain on the eye movements, was found. MRI of the orbit revealed significant enlargement of medial rectus muscle of the RE. Laboratory tests excluded thyroid dysfunction. Systemic steroid therapy was induced. Symptoms regressed 10 days after beginning of treatment.

Słowa kluczowe: zapalenie mięśnia, mięsień prosty przyśrodkowy, oczodoł.
Key words: myositis, medial rectus muscle, orbit.

Stan zapalny dotyczący jednego lub kilku mięśni zewnątrzgałkowych jest rzadką chorobą o różnej etiologii. Może on towarzyszyć chorobom układowym, takim jak: wrzodziejące zapalenie jelita grubego (1), choroba Kawasaki (2), uogólnione *myositis* (3), *polyarteritis nodosa* (4), młodzieńcze zapalenie stawów (5), wielokomórkowe zapalenie mięśnia sercowego (6), *lupus erythomatosus* (7). Niekiedy przyczyną są czynniki zewnętrzne: borelioza (8), wągrzyca (9), półpasiec (10), streptokokowe zapalenie gardła (11). Możemy mieć też do czynienia z naciekami nowotworowymi (chłoniaki) (12) i guzami przerzutowymi (rak piersi) (13). Zdarza się również rozprzestrzenienie procesu zapalnego przez ciągłość z sąsiednich struktur (zapalenie zatok, *scleritis*) (14).

W niektórych sytuacjach nie udaje się znaleźć czynnika etiologicznego, określamy wówczas proces zapalny jako idiopatyczny. Większość autorów traktuje izolowane idiopatyczne zapalenie mięśni zewnątrzgałkowych jako formę zapalenia tkanek oczodołu o nieznaną etiologię, określaną mianem „pseudotumor” (14,15,16,17). Niektórzy jednak, ze względu na charakterystyczny obraz kliniczny tego zapalenia, dotyczącego wyłącznie mięśni zewnątrzgałkowych z pominięciem innych tkanek oczodołu, sugerują traktowanie go jako oddzielnej jednostki chorobowej (18). Rozpoznanie tego schorzenia we wczesnej fazie może nastrożać trudności i prowadzić do wybrania przez leczonego błędnej ścieżki diagnostycznej.

Typowe cechy idiopatycznego *myositis* to:

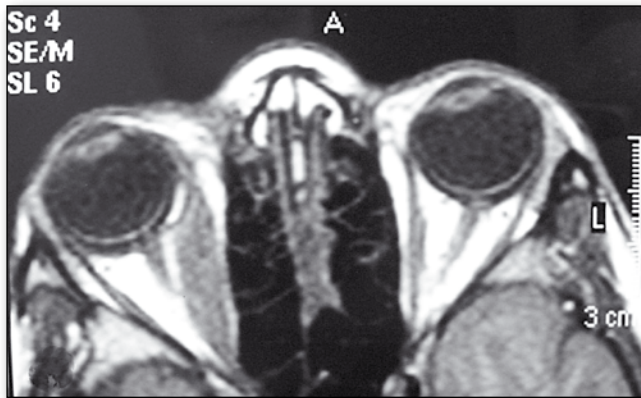
1. ból gałki ocznej nasilający się przy jej ruchach,
2. obrzęk okolicy oczodołowej i spojówki,
3. upośledzenie ruchomości w kierunku działania zajętego mięśnia/ mięśni,
4. miernie nasilony wytrzeszcz gałki ocznej,
5. pogrubienie mięśnia lub mięśni w badaniu tomograficznym lub MRI oczodołu z jednoczesnym brakiem zmian w pozostałych tkankach,

6. brak zaburzeń funkcji tarczycy,
7. brak zajęcia procesem zapalnym zatok obocznych nosa,
8. ogólnie rzecz biorąc, dobra reakcja na leczenie lekami sterydowymi podawanymi ogólnie.

Zapalenie może dotyczyć jednego mięśnia (19,17) lub kilku mięśni (20,21,22). Nasilenie dolegliwości subiektywnych zależy od rozległości procesu zapalnego. Badanie tomograficzne lub MRI oczodołów wykazuje znaczne powiększenie jednego lub kilku mięśni zewnątrzgałkowych (często dotyczy to zarówno brzuśców, jak i ścięgien) oraz wzmocnienie ich sygnału po podaniu kontrastu i jest decydujące w postawieniu rozpoznania (23,15,16,18). Etiologia zapalenia nie jest poznana, ale większość autorów podkreśla jego immunologiczne tło (24,16,21). Biopsja mięśni zewnątrzgałkowych wykonana w niektórych przypadkach (21,24) wykazuje cechy niespecyficznego procesu zapalnego (głównie nacieki z limfocytów B i T, plazmocytów) bez cech *vasculitis*. Większość przypadków wymaga zastosowania sterydoterapii, przy czym odpowiedź na leczenie jest z reguły bardzo dobra, a powikłania rzadkie (22,23). Rzadko występują przypadki odporne na leczenie sterydami (25).

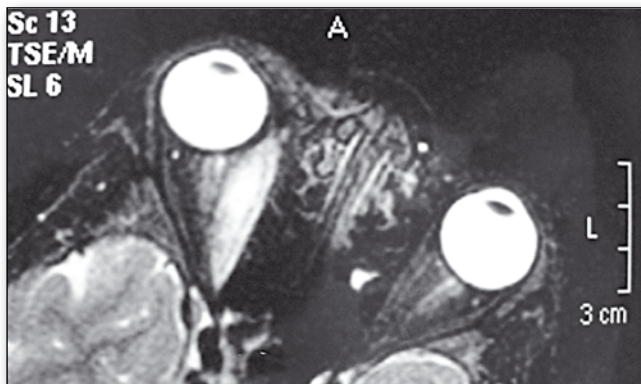
Opis przypadku

Trzynastoletni chłopiec został przyjęty na oddział pediatryczny WSZ w Elblągu z powodu utrzymujących się od tygodnia bardzo silnych bólów głowy, którym towarzyszyły nudności i uczucie senności. W badaniu fizykalnym przeprowadzonym przez lekarza pediatrę stwierdzono znacznego stopnia obrzęk powiek po stronie prawej i wytrzeszcz gałki ocznej prawej. Oprócz tego w badaniu tym nie znaleziono innych odchyleń od normy (brak było cech ogólnej infekcji). Pacjenta skierowano następnie na konsultacje laryngologiczną i okulistyczną. W badaniu laryngologicznym nie stwierdzono zmian chorobowych w obrębie uszu, nosa, gardła i krtani. RTG zatok obocznych nosa był bez zmian.



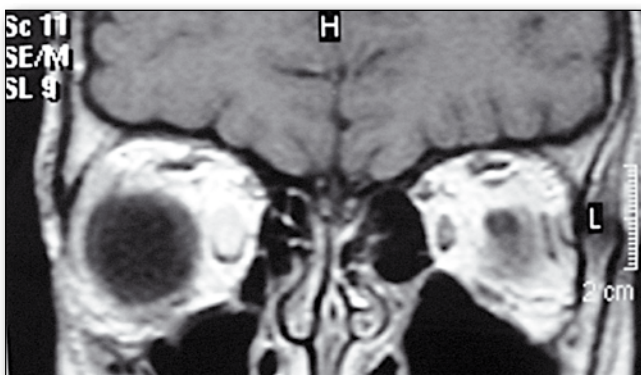
Ryc. 1. MRI oczodołów przed leczeniem, przekrój horyzontalny. Widoczne znacznego stopnia pogrubienie mięśnia prostego przyśrodkowego po stronie prawej. Brak zajęcia innych tkanek oczodołu.

Fig. 1. MRI of the orbits before treatment, horizontal plane. Distinctive left medial rectus enlargement without involvement of other orbital tissues.



Ryc. 2. MRI oczodołów przed leczeniem po podaniu kontrastu, przekrój horyzontalny. Widoczne wzmocnienie powiększonego mięśnia.

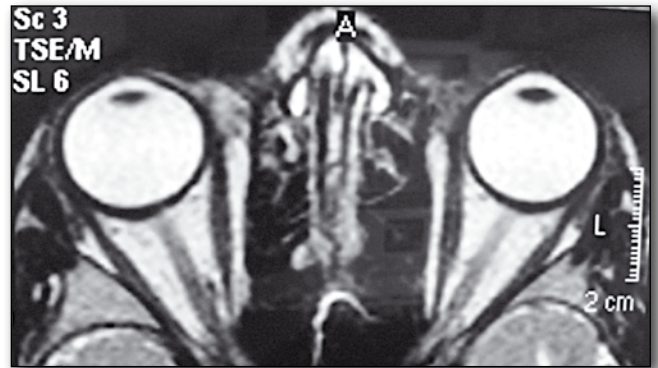
Fig. 2. MRI of the orbits before treatment after injection of contrast, horizontal plane. Enhancement of the enlarged muscle.



Ryc. 3. MRI oczodołów przed leczeniem, przekrój czołowy. Widoczne znaczne pogrubienie lewego mięśnia prostego przyśrodkowego w porównaniu z analogicznym mięśniem po stronie prawej.

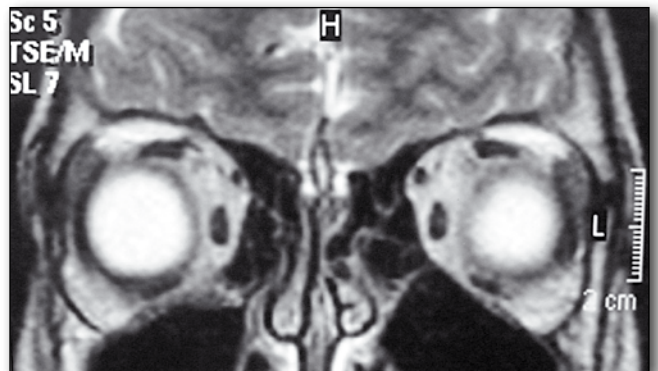
Fig. 3. MRI of the orbits before treatment, vertical plane. Significant thickening of the left medial rectus in comparison with the same muscle on the right side.

W badaniu okulistycznym stwierdzono znacznego stopnia obrzęk powiek i spojówki oka prawego. V. oc. dex. = 0,4



Ryc. 4. MRI oczodołów po leczeniu, przekrój horyzontalny. Obraz prawidłowy, brak różnic w wyglądzie mięśnia prostego przyśrodkowego po stronie lewej i prawej.

Fig. 4. MRI of the orbits after treatment, horizontal plane. Normal picture. There are no differences between left and right medial rectus muscles.



Ryc. 5. MRI oczodołów po leczeniu, przekrój czołowy. Brak różnicy w średnicy brzuszka mięśnia prostego przyśrodkowego po stronie prawej i lewej.

Fig. 5. MRI of the orbits after treatment, vertical plane. There is no difference in diameter between left and right medial rectus belly.

cc +4,0 Dsph, V. oc. sin. = 1,0 cc +3,50 Dsph., P. oc. dex. = 26 mmHg, P. o. sin. = 17 mmHg. Pomiar stopnia wytrzeszczu: OP 19 mm, OL 18 mm przy rozstawie 105 mm. Badanie ruchomości gałki ocznej prawej wykazało znaczące upośledzenie przywodzenia gałki ocznej prawej (gałka oczna nieznacznie tylko przekraczała linię środkową). Ruchom gałki ocznej prawej towarzyszyły dolegliwości bólowe. Odcinek przedni obojga oczu nie wykazywał zmian zapalnych. Badanie oftalmoskopowe wykazało nieznaczne poszerzenie naczyń żylnych siatkówki po stronie prawej.

Wynik przeprowadzonej konsultacji okulistyckiej porównano z badaniem okulistycznym przeprowadzonym przed miesiącem w poradni okulistyckiej. Ostrość wzroku OP (0,4) była w obu przypadkach identyczna – chłopiec był leczony w poradni okulistyckiej z powodu niedowidzenia. We wniosku z konsultacji okulistyckiej zalecono badanie obrazowe oczodołu (MRI) w trybie pilnym, podejrzewając proces wewnątrzoczdolowy. Zalecono również Oftensin 0,5% 2x do OP z powodu wysokiego ciśnienia wewnątrzgałkowego.

Badanie MRI wykazało znacznie pogrubiałą mięsień prosty przyśrodkowy gałki ocznej prawej. Sygnał mięśnia ulegał wzmocnieniu po podaniu kontrastu. W opisie mózgowia zwrócono uwagę na brak uchwytnych zmian patologicznych (ryc. 1,2,3).

Jednocześnie na oddziale prowadzono diagnostykę laboratoryjną, uzyskując prawidłowe wartości we wszystkich badaniach, takich jak: TSH, T4, przeciwciała A-TPO, odczyn łąkowy i Waalera-Rosego, test na mononukleozę, CRP, morfologia krwi. Badanie ultrasonograficzne tarczycy nie wykazało również zmian patologicznych.

Biorąc pod uwagę całość obrazu klinicznego, postawiono rozpoznanie: *myositis idiopathica musculi recti medialis oc. dex.* i zalecono ogólną sterydoterapię (Fenicort) w dawce 1 mg/kg. Włączono również doustny lek niesterydowy przeciwzapalny (Metindol Prolongatum 1x) z osłoną gastroenterologiczną.

Okulistyczne badanie kontrolne przeprowadzono po 4 dniach. Stwierdzono znaczne zmniejszenie obrzęku tkanek miękkich. Ograniczenie przywodzenia gałki ocznej prawej było mniejsze, ale nadal wyraźne. Uzyskano normalizację ciśnienia wewnątrzgałkowego (P. oc. dex. = 15 mmHg, P. oc. sin. = 14 mmHg). W badaniu dna ocznego utrzymywało się nadal nieznaczne poszerzenie naczyń żylnych w OP. Wartości uzyskane w badaniu egzofthalmometrem oraz ostrość wzroku obojga oczu się nie zmieniły.

Kolejne badania okulistyczne wykonywano w odstępach 3-dniowych. Całkowite ustąpienie objawów (pełną ruchomość gałki ocznej prawej i prawidłowy obraz dna oka) uzyskano po 10 dniach od zastosowania sterydoterapii. Zalecono wówczas stopniowe zmniejszenie dawki leków sterydowych, odstawienie kropli obniżających ciśnienie wewnątrzgałkowe i prowadzenie dalszego leczenia w trybie ambulatoryjnym. Sterydoterapię doustną (Encorton) utrzymano jeszcze przez 2 tygodnie. Kolejne kontrole okulistyczne przeprowadzane w poradni nie wykazywały objawów aktywnego procesu zapalnego. Po 2 miesiącach od rozpoczęcia leczenia wykonano kontrolne badanie MRI oczodołów, które wykazało prawidłową morfologię oraz prawidłową grubość mięśnia prostego przyśrodkowego OP (ryc. 4,5).

Chłopiec obecnie jest dalej leczony z powodu niedowidzenia OP w przyszpitalnej poradni okulistycznej.

Omówienie

Objawy podmiotowe i przedmiotowe, z którymi styka się okulista, badając pacjenta z podejrzeniem *myositis*, są niespecyficzne (ból, ograniczenie ruchomości gałki ocznej, zaczerwienienie spojówek, niekiedy wytrzeszcz) i wymagają przeprowadzenia diagnostyki różnicowej. Należy przeprowadzić dokładny wywiad w kierunku chorób układowych i wziąć pod uwagę towarzyszące objawy ogólne (zapalenia stawów, ogólne objawy infekcji, dolegliwości gastryczne etc.). W różnicowaniu należy uwzględnić przede wszystkim guz oczodołu, oftalmopatię tarczycową, przetokę tętniczo-żylną, inne malformacje naczyniowe oczodołu (np. żyłaki, naczyniak limfatyczny), nacieki białaczkowe, ziarniniak Wegenera, zespół Tolosa-Hunta. W pierwszej kolejności należy wykluczyć obecność guza oczodołu, stąd z reguły diagnostykę rozpoczyna się od badań obrazowych, których wynik z reguły ogranicza znacznie dalsze poszukiwania. W TK lub MRI stwierdzamy powiększenie rozmiaru jednego lub kilku mięśni. Jednocześnie brak jest zmian charakterystycznych dla oftalmopatii tarczycowej – nacieków innych tkanek oczodołowych (tłuszcz). Często w idiopatycznym zapaleniu mięśnia zewnątrzgałkowego spotykamy się z powiększeniem zarówno przyczepów, jak i brzośców mięśni, podczas gdy dla oftalmo-

patii tarczycowej charakterystyczne jest powiększenie najczęściej tylko brzośców. Nie stwierdzamy również zmian zapalnych w otaczających zatokach (wykluczamy *cellulitis*). Dalsza diagnostyka zmierza do wykluczenia choroby tarczycy w badaniach laboratoryjnych. Nacieki nowotworowe mięśni (np. w chłoniakach) można jednoznacznie wykluczyć praktycznie tylko przez biopsję. Badanie to jest zarezerwowane dla trudnych przypadków, niereagujących na leczenie kortykosterydami. Reakcja na ogólną terapię lekami sterydowymi sama w sobie uznawana jest przez autorów jako różnicujący test diagnostyczny (26,21) – idiopatyczne zapalenie mięśni zewnątrzgałkowych dobrze na nie reaguje. Pacjent po przebytych idiopatycznym zapaleniu mięśnia/ mięśni zewnątrzgałkowych powinien pozostawać pod kontrolą lekarską. Stwierdzono przypadki rozwoju chłoniaków u osób, u których wyleczono pseudotumor (27).

W opisywanym przez nas przypadku zwracając uwagę bardzo silne bóle głowy towarzyszące zapaleniu mięśnia zewnątrzgałkowego. W literaturze znaleźliśmy opis przypadku nawracającego *myositis*, któremu towarzyszyły bóle głowy o charakterze migrenowym (28). W trakcie napadów pacjent oprócz bólu głowy demonstrował łzawienie, wytrzeszcz, ból przy ruchach gałki ocznej. Ból, o zróżnicowanym nasileniu, ustępował po miesiącu, gdy stosowano terapię prednizonem. Ataki występowały cyklicznie co kilka miesięcy, a pacjent przez 6 lat leczony był tylko z powodu migreny. Prawidłowe rozpoznanie postawiono po wykonaniu badań obrazowych oczodołu w czasie trwania ataku.

PIŚMIENNICTWO:

1. Macarez R., Bazin S., Weber F., Giordano P., Bernard P., Grubain S., De La Marnierre E., Guigon B.: *Orbital myositis associated with ulcerative colitis*. J. Fr. Ophthalmol., 2005, 28, 610-613.
2. Lin H., Burton E.M., Felz M.W.: *Orbital myositis due to Kawasaki's disease*. Pediatr Radiol., 1999, 29(8), 634-636.
3. Omori H., Mitsui T., Kunishige M., Endo I., Takahashi K., Matsu-moto T.: *Systemic muscular inflammation in a patient with recurrent orbital myositis*. Clin. Neuropathol., 2005, 24, 191-193.
4. Mahdavian S., Higgins G.C., Kerr N.C.: *Orbital pseudotumor in a child with juvenile rheumatoid arthritis*. J. Pediatr. Ophthalmol. Strabismus, 2005, 42, 185-188.
5. Kollmeier M., Brodhum M., Sliwka U., Sigusch H.: *Witte O.W., Heide G., Diplopia and cardiogenic shock. A case of orbital myositis associated with giant cell myocarditis*. Nervenarzt, 2005, 20.
6. Culligan B.: *Orbital myositis following streptococcal pharyngitis in a pediatric patient*. Optometry, 2005, 76, 250-258.
7. Krasnianski M., Sievert M, Bau V., Zierz S.: *External ophthalmoplegia due to ocular myositis in a patient with ophthalmic herpes zoster*. Neuromuscul. Disord., 2004, 14, 438-441.
8. Beck R., Gobel K., Stropal G., Wigger M., Gthoff R.F.: *Orbital manifestation of microscopic polyangitis (mPA) – presentation of clinical cases*. Klin. Monatsbl. Augenheilkd., 2004, 221, 964-969.
9. Carvonius P.E., Mehta A.P., Geist C.E.: *Orbital myositis associated with Borrelia burgdorferi infection*. Ophthalmology, 2004, 111, 1023-1028.
10. Manuchehri K., Lagnado R., Butler L.: *A case of orbital myositis secondary to orbital cellulitis in a child*. Eye, 2003, 17, 434-436.
11. Sekhar G.C., Lemke B.N.: *Orbital cysticercosis*. Ophthalmology, 104, 1599-1604.

12. Hu Y., Wang J., Xiao S.: *Clinical and CT histological diagnosis of orbital tumors*. J. Tongji. Med. Univ., 2000, 20, 82-85.
13. Hornblass A., Jakbiec F.A., Reifler D.M., Mines J.: *Orbital lymphoid tumors located predominantly within extraocular muscles*. Ophthalmology, 1987, 94, 688-697.
14. Volle E., Levy R., Milea D., Tourbah A., Lubetzki C.: *Idiopathic orbital myositis*. Rev. Neurol., 2001, 157, 430-432.
15. Le Gal G., Ansart S., Boumediene A., Tonnelier J.M., Tilly-Genetric A., Pennec Y.L.: *Idiopathic orbital myositis*. Rev. Med. Interne., 2001, 22, 189-193.
16. Scott I.U., Siatkowski R.M.: *Idiopathic orbital myositis*. Curr. Opin. Rheumatol., 1997, 9, 504-512.
17. Rohr J., Gauthier G.: *Acute idiopathic orbital myositis*. Rev. Neurol., 1988, 144, 47-48.
18. Attarian S., Fernandez C., Azulay J.P., Serratrice J., Pellissier J.F., Pouget J.: *Clinical and radiological features and clinical course of orbital myositis*. Rev. Neurol., 2003, 159, 307-312.
19. Stidham D.B., Sondhi N., Plager D., Helveston E.: *Presumed isolated inflammation of the superior oblique muscle in idiopathic orbital myositis*. Ophthalmology, 1998, 105, 2216-2219.
20. Slavin M.L., Glaser J.S.: *Idiopathic orbital myositis: report of six cases*. Arch. Ophthalmol., 1982, 100, 1261-1265.
21. Hankey G.J., Silbert P.L., Edis R.H., Nicoll A.M.: *Orbital myositis: a study of six cases*. Aust. N.Z.J. Med., 1987, 17, 585-591.
22. Siatkowski R.M., Capo H., Byrne S.F., Gendron E.K., Flynn J.T., Munoz M., Feuer W.J.: *Clinical and echographic findings in idiopathic orbital myositis*. Am. J. Ophthalmol., 1994, 118, 343-350.
23. Siqueira G.B., Jain A., Chahud F., Cruz A.A.: *Bilateral infraorbital nerve involvement in idiopathic orbital myositis*. Ophthal. Plast. Reconstr. Surg., 2002, 18, 474-478.
24. Hattori H., Ohnishi S., Nakagawa Y., Ikemiya M., Yamato K., Matsuoka O., Yokoyama T., Yamano T.: *An infant with idiopathic orbital myositis poorly responsive to steroid therapy: a case report*. Brain Dev., 2005, 27, 160-162.
25. Toller K.K., Gigantelli J.W., Spalding M.J.: *Bilateral orbital metastases from breast carcinoma. A case of false pseudotumor*. Ophthalmology, 1998, 105, 1897-1901.
26. Matsuo T., Sato Y., Kuroda R., Matsuo N., Yoshino T.: *Systemic malignant lymphoma 17 years after bilateral orbital pseudotumor*. Jpn. J. Ophthalmol., 2004, 48, 503-506.
27. Grouteau E., Chaix Y., Armbruster V., Lesueur L., Sevely A., Rubie H., Carriere J.P.: *Acute orbital myositis and idiopathic inflammatory pseudotumor in children: three cases*. Arch. Pediatr., 1998, 5, 153-158.
28. Lee M.S., Lessell S.: *Orbital myositis posing as cluster headache*. Arch. Neurol., 2002, 59, 635-636.

Praca wpłynęła do Redakcji 2.11.2004 r. (654).
Zakwalifikowano do druku 18.01.2006 r.

Adres do korespondencji (Reprint requests to):
dr n. med. Maciej Gawęcki
ul. Szymanowskiego 49/1
80-280 Gdańsk