



Sjögren Sendromlu Olguda Dura Delinmesi Baş Ağrısı ve Akut Subdural Hematom

Postdural Puncture Headache and Acute Subdural Haematoma in Sjögren's Syndrome

Hüseyin Utku Yıldırım¹ , Mesut Bakır² , Şebnem Rumeli Atıcı² 

¹Sağlık Bilimleri Üniversitesi Antalya Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Algoloji Kliniği, Antalya, Türkiye

²Mersin Üniversitesi Tıp Fakültesi, Algoloji Bilim Dalı, Mersin, Türkiye

Cite this article as: Yıldırım HU, Bakır M, Rumeli Atıcı Ş. Postdural Puncture Headache and Acute Subdural Haematoma in Sjögren's Syndrome. Turk J Anaesthesiol Reanim 2019; DOI: 10.5152/TJAR.2019.73444

Öz

Literatürde konnektif doku hastalıklarına bağlı spontan intrakraniyal hipotansiyon olguları bulunmakla birlikte iyatrojenik intrakraniyal hipotansiyon olgusuna rastlanmamıştır. Bu yazıda Sjögren sendromu tanımlı hastada spinal anestezi sonrası gelişen dura delinmesi baş ağrısının ve olguda saptanan akut subdural hematoma'nun tartışılması planlandı.

Anahtar Kelimeler: Akut subdural hematoma, dura delinmesi baş ağrısı, konnektif doku hastalığı, Sjögren sendromu

Abstract

Although spontaneous intracranial hypotension cases related to connective tissue diseases have been reported in the literature, to the best of our knowledge, no cases of iatrogenic intracranial hypotension have been described. In this paper, we plan to discuss a case of acute subdural haematoma and postdural puncture headache that developed after spinal anaesthesia in a patient with Sjögren's syndrome.

Keywords: Acute subdural haematoma, connective tissue disorder, postdural puncture headache, Sjögren's syndrome

Giriş

Sjögren Sendromu (SS) ekzokrin bezlerin fonksiyon kaybına ek olarak organ spesifik ya da sistemik bulguların saptanabileceği bir konnektif doku hastalığıdır. Periferik veya santral sinir sistemi tutulumu sıklığı %0 ile %68 arasında bildirilmiştir (1). Literatürde vaskülopatiyeye bağlı serebral infarkt (2) ve intrakraniyal kanama olguları bulunmaktadır (3).

Spinal anestezinin en yaygın komplikasyonlarından birisi dural delinme sonrası, beyin omurilik sıvısının (BOS) ektradural alana kaybı ile gelişen baş ağrısıdır. Gelişme riski yüksek durumlar arasında iğne çapı, iğne ucu, cinsiyet, gebelik ve genç yaş gösterilmektedir. Konnektif doku hastalıklarında spontan intrakraniyal hipotansiyon gelişimi literatürde pek çok çalışmaya konu olmasına karşın, dura delinmesi sonrası baş ağrısı (DDBA) gelişim riski açısından bir çalışma yapılmamıştır.

Bu makale ile literatür verileri ışığında, primer sjögren sendromlu olgumuzda gelişen DDBA ve akut subdural hematoma'nın nedenlerinin tartışılması amaçlandı.

Olgu Sunumu

Primer SS ve mesane kanseri tanımlı, sistoskopi operasyonu spinal anestezi ile gerçekleştirilen 61 yaşında kadın olgu. Operasyondan 3 saat sonra başlayan, enseden altına doğru yayılan, tinnitus, fotofobi, fonofobinin eşlik ettiği, yataktan azalan ve kalkarken şiddetlenen zonklayıcı vasıfta baş ağrısı şikayeti nedeniyle konsülte edildi. İlk muayenede Vizüel Analog Skala (VAS) değeri 7 idi. Fizik muayenede ortostatik baş ağrısı dışında, nörolojik patoloji saptanmadı.

Biyokimyasal ölçümleri ve kanama profili değerlendirildi. Değerleri normal sınırlarda idi. Olgunun anestezi kayıt formundan spinal anestezinin 22 G atravmatik spinal iğne ile L3-L4



Resim 1. Subdural hematom



Resim 2. Kontrol bilgisayarlı tomografi

aralığından tek uygulama ile gerçekleştirildiği öğrenildi. Olguya dura delinmesi baş ağrısı (DDBA) tanısı konuldu. VAS değerinin >4 'ten yüksek olması nedeniyle monitörizasyon eşliğinde teofilin 200 mg (Polteofilin-200®, Polifarma İlaç San. ve Tic. A.Ş) 45 dakikada yavaş infüzyon şeklinde intravenöz yol ile uygulandı. Medikal tedavi sonrası VAS değeri 2'ye geriledi. Olgunun ertesi gün yapılan kontrol muayenesinde ortostatik baş ağrısının geçtiğini, ancak pozisyonla ilişkisiz bir baş ağrısı varlığını ifade etti. Olgunun ağrı karakterinin değişmesi üzerine ayırıcı tanı için kraniyal bilgisayarlı tomografi (BT) çekilmesi planlandı. BT'sinde fronto-parieto-temporal bölgesinde sıvama tarzı, beyin ile izodens, subdural subakut dönem olduğu düşünülen kanama saptandı (Resim 1). Beyin Cerrahisi bölümü ile konsülte edildi. Cerrahi müdahale düşünülmüdü. Dural kaçağın yarattığı hipotansiyonun kanama riski olduğu düşünüldüğü için epidural kan yaması planlandı. Uygulama sonrası aralıklı nörolojik muayeneler tekrarlandı anormal bulgu gelişmedi. 4 gün sonra çekilen Kontrol BT'sinde subdural hemorajinin gerilediği raporlandı (Resim 2). Baş ağrısı şikayeti ve tomografi bulgusu gerileyen olgu kontrol önerisi ile taburcu edildi. Beyin cerrahisi tarafından birinci ayda kontrol edilen hastada ek şikayet saptanmadı. Bu yazı için olgudan bilgilendirilmiş onam formu alınmıştır.

Tartışma

İntrakraniyal kanama hem SS'nin (3) hemde DDBA'nın (4) ciddi bir komplikasyonudur. Sjögren Sendromlu olgumuzda erken dönemde gelişen DDBA ve takibinde tanısı konulan intrakraniyel hemoraji, konnektif bağ dokusu hastalığına sahip hastaların bu iki patoloji açısından riskli gruplar içerisinde sayılmaları sorusunu akla getirmektedir. Bu hastalarda dural zayıflığın BOS kaçak miktarını ve süresini arttırabileceği ve hastalıkların seyrin sırasında gelişebilen serebral vaskülitler nedeniyle de BOS kaçağı sonrası gelişen hipotansiyonun hemoraji riskini arttırabileceği kanısındayız.

Uluslararası Baş Ağrısı Bozuklukları Sınıflamasında (ICHD-3 BETA) dura delinmesine bağlı baş ağrısı tanı kriterleri; ortostatik tipte baş ağrısının olması, dura delinme öyküsünün varlığı, baş ağrısının dura delinmesini takiben 5 gün içinde başlamasıdır (5). Olgumuz spinal anestezi uygulaması varlığı, muayenesinde baş ağrısını çok belirgin biçimde yatar ve ayakta değiştiğini ifade etmesi üzerine DDBA tanısı konularak tedavi edilmiştir. DDBA tedavisinde öncelikli olarak oral ya da intravenöz yol ile hidrasyon, kafein ve mutlak yatak istirahati (konservatif tedavi) önerilir. Konservatif tedaviden fayda görmeyen hastalara sumatriptan, adrenokortikotrop hormon, desmopressin asetat, teofilin gibi medikal tedavi ya da epidural kan yaması, epidural fibrin yapıştırıcı, epidural salin uygulaması yapılabilir. Tedaviye dirençli hastalarda son seçenek cerrahidir (6). Bizim olgumuza VAS değerinin 7 olması nedeniyle konservatif tedaviye ek olarak intravenöz teofilin uy-

gulanmıştır. Teofilin uygulanması sonrası ciddi şekilde ağrıda azalma ifade etmesi intrakraniyal hipotansiyonun gerilemesi olarak yorumlanmıştır.

Literatürde DDBA'ya bağlı subdural hematoma olguları mevcuttur (4). Yamashima ve ark. (7) köprü venlerinin duvar yapısının subdural alanda daha ince olduğunu göstermişlerdir. Bu durum DDBA'da azalan BOS volümüne bağlı beynin aşağıya yer değiştirmesinin köprü venlerinin gerilerek yırtılmasına neden olabileceğini ve subdural hemotoma yol açabileceğini açıklar görünmektedir.

Ehler-Danlos sendromu, Marfan sendromu ve izole eklem laksabilesi gibi konnektif bağ doku hastalıklarında spontan intrakraniyal hipotansiyon riski arttığı literatürde yer almaktadır. Mokri ve ark. (8) spontan intrakraniyal hipotansiyon tanılı 58 hastanın 9'unda konnektif doku hastalığı saptamışlardır (8). Bir başka çalışmada spontan intrakraniyal hipotansiyon tanılı 18 hastanın 12'sinde (%67) konnektif doku hastalığı ya da izole eklem laksabilesi olduğunu göstermişlerdir (9). Spontan intrakraniyal hipotansiyon tanılı 50 hasta üzerinde yapılan bir çalışmada 9 hastada (%18) konnektif doku hastalığı, 8 hastada (%16) izole eklem laksabilesi saptamışlardır (10). Bu bulgular konnektif bağ dokusu hastalıklarında dura mater zayıflığının göstergesi olarak ele alınabilir.

Hipertrofik Pakimenejit, intrakraniyal hipotansiyon (spontan ya da dural ponksiyona sekonder), enfeksiyon, sjögren gibi otoimmün/vaskülitik hastalıklar ve malignitede de görülebilir ya da idiyopatik olarak da saptanabilir (11). İntrakraniyal-spinal dura mater'de inflamatuvar hücre infiltrasyonu ve interstisyel fibrozise bağlı diffüz ya da lokal kalınlaşmadır. Godalinyumlu MR bulgusu dura materde kalınlaşma ve kontrast tutulumunda artıştır. Japonya'da 2005-2009 yılları arasında 159 idiyopatik hipertrofik pakimenejit (İHP) hastasının tarandığı çalışmada 2 hastada etiyolojik faktör olarak Sjögren Sendromu saptamıştır. Aynı çalışmada 4 yıllık süreçte hastalarda en sık görülen semptom olarak baş ağrısı (%71,7) saptanmış ancak baş ağrısı karakteri hakkında bilgi verilmemiştir (12). Rossi ve ark. (13) İHP tanılı 3 hastanın dura biopsisinde dural fibrozis ve CD4 T hücre aracılı inflamatuvar infiltrasyon saptamışlardır. Nakano ve ark. (14) sjögren tanılı HP hastasının dura biopsisinde plazma hücreleri ve küçük lenfositlerin inflamatuvar infiltrasyonunu saptamışlardır. Ancak Sjögren Sendromunda HP insidansı bilinmemektedir. Dural delinmeye bağlı oluşan deliğin kapanması oluşan hasara ve dural zardaki fibroelastik proliferasyona bağlıdır (6). Duranın inflamasyonlu durumunun ve bunun sonucunda gelişen kalınlaşmanın dural delinme sonrası iyileşmeyi/kapanmayı geciktiren bir durum olabileceği görüşündeyiz. Olgumuzda intrakraniyal hemorajinin dura delinme sonrası BOS kaçığına bağlı olabileceği düşünülerek teofilin tedavisi ile semptomların azalmasına rağmen epidural kan yaması yapıma kararı alınmıştır.

Literatürde pozisyonel baş ağrısı, bulantı, horizontal diplopi, fotofobi ve hipertrofik pakimenejit gibi spontan intrakraniyal hipotansiyon bulguları ile başvurup Wegener granülomatosis tanısı alan bir olgu mevcuttur (15). Bu olguda pozisyonel baş ağrısı travmatik olmayan subdural hematoma nedeniyle gelişen higromaya bağlanmıştır. Bizim olgumuzun ilk muayenesi sırasında, bulgulara şiddetli ortostatik baş ağrısının saptanması, ayırıcı tanıda akut subdural hematoma varlığını düşünmemizi geciktirmiştir. Bağ dokusu hastalığına sahip hastalarda bu durumun göz ardı edilmemesi gerektiği düşüncesindeyiz.

Sonuç

Sjögren gibi konnektif bağ dokusu hastalığı tanısı olan hastalarda santral sinir sistemi tutulumu sorgulanmalı, dura ponksiyonu sonrası erken DDBA saptanması durumunda intrakraniyal hemorajiler açısından erken dönemde ayırıcı tanı için görüntüleme planlanmasının önemli olacağı kanısındayız.

Konnektif bağ dokusu hastalıklarına sahip hastalara yapılan spinal anestezi uygulamalarının ve gelişen komplikasyonların dökümanite edilmesinin özellikle santral sinir sistemi tutulumu olan hastaların takibi açısından önemli olacağı düşüncesindeyiz.

Hasta Onamı: Yazılı hasta onamı bu çalışmaya katılan hastadan alınmıştır.

Hakem Değerlendirmesi: Dış bağımsız.

Yazar Katkıları: Fikir – Ş.R.A.; Tasarım – Ş.R.A., H.U.Y.; Denetleme – Ş.R.A., H.U.Y.; Kaynaklar – H.U.Y., M.B.; Malzemeler – M.B., H.U.Y.; Veri Toplanması ve/veya İşlemesi – M.B., H.U.Y.; Analiz ve/veya Yorum – Ş.R.A., H.U.Y.; Literatür Taraması – M.B., H.U.Y.; Yazıyı Yazan – H.U.Y.; Eleştirel İnceleme – Ş.R.A.; Diğer – Ş.R.A., H.U.Y., M.B.

Çıkar Çatışması: Yazarlar çıkar çatışması bildirmemişlerdir.

Finansal Destek: Yazarlar bu çalışma için finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

Informed Consent: Written informed consent was obtained from patient who participated in this case.

Peer-review: Externally peer-reviewed.

Author Contributions: Concept – Ş.R.A.; Design – Ş.R.A., H.U.Y.; Supervision – Ş.R.A., H.U.Y.; Resources – H.U.Y., M.B.; Materials – M.B., H.U.Y.; Data Collection and/or Processing – M.B., H.U.Y.; Analysis and/or Interpretation – Ş.R.A., H.U.Y.; Literature Search – M.B., H.U.Y.; Writing Manuscript – H.U.Y.; Critical Review – Ş.R.A.; Other – Ş.R.A., H.U.Y., M.B.

Conflict of Interest: The authors have no conflicts of interest to declare.

Financial Disclosure: The authors declared that this study has received no financial support.

Kaynaklar

1. Delalande S, de Seze J, Fauchais AL, Hachulla E, Stojkovic T, Ferriby D, et al. Neurologic manifestations in primary Sjogren syndrome: a study of 82 patients. *Medicine (Baltimore)* 2004; 83: 280-91. [\[CrossRef\]](#)
2. Li JA, Meng HM, Cui ZT, Wang X, Miao J. Recurrent cerebral infarctions in primary Sjogren Syndrome: a case report and literature review. *Front Neurol* 2018; 9: 865. [\[CrossRef\]](#)
3. Wang GQ, Zhang WW. Spontaneous intracranial hemorrhage as an initial manifestation of primary Sjogren's syndrome: a case report. *BMC Neurol* 2013; 13: 100. [\[CrossRef\]](#)
4. Issi Z, Ozturk V, Iyilikci L, Erkin Y. Spinal epidural and intracranial subdural haemorrhage that is a complication of spinal anaesthesia. *Turk J Anaesthesiol Reanim* 2018; 46: 319-22. [\[CrossRef\]](#)
5. eadache Classification Committee of the International Headache Society (IHS). The International Classification of Headache Disorders, 3rd edition (beta version). *Cephalalgia* 2013; 33: 629-808. [\[CrossRef\]](#)
6. Turnbull DK, Shepherd DB. Post-dural puncture headache: pathogenesis, prevention and treatment. *Br J Anaesth* 2003; 91: 718-29. [\[CrossRef\]](#)
7. Yamashima T, Friede RL. Why do bridging veins rupture into the virtual subdural space? *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1984; 47: 121-7. [\[CrossRef\]](#)
8. Mokri B, Maher CO, Sencakova D. Spontaneous CSF leaks: underlying disorder of connective tissue. *Neurology* 2002; 58: 814-6. [\[CrossRef\]](#)
9. Schievink WI, Gordon OK, Tourje J. Connective tissue disorders with spontaneous spinal cerebrospinal fluid leaks and intracranial hypotension: a prospective study. *Neurosurgery* 2004; 54: 65-71. [\[CrossRef\]](#)
10. Reinstein E, Pariani M, Bannykh S, Rimoin DL, Schievink WI. Connective tissue spectrum abnormalities associated with spontaneous cerebrospinal fluid leaks: a prospective study. *Eur J Hum Genet* 2013; 21: 386-90. [\[CrossRef\]](#)
11. Kupersmith MJ, Martin V, Heller G, Shah A, Mitnick HJ. Idiopathic hypertrophic pachymeningitis. *Neurology* 2004; 62: 686-94. [\[CrossRef\]](#)
12. Yonekawa T, Murai H, Utsuki S, Matsushita T, Masaki K, Isobe N, et al. A nationwide survey of hypertrophic pachymeningitis in Japan. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2014; 85: 732-9. [\[CrossRef\]](#)
13. Rossi S, Giannini F, Cerase A, Bartalini S, Tripodi S, Volpi N, et al. Uncommon findings in idiopathic hypertrophic cranial pachymeningitis. *J Neurol* 2004; 251: 548-55. [\[CrossRef\]](#)
14. Nakano Y, Yamamoto M, Komatsu K, Yagita M, Fujita M. Hypertrophic pachymeningitis in Sjogren's Syndrome. *Intern Med* 2018; 57: 413-5. [\[CrossRef\]](#)
15. Jung YH, Lee MJ, Lee C, Cha J, Chung CS. Granulomatosis with polyangiitis-associated hypertrophic pachymeningitis mimicking spontaneous intracranial hypotension: a case report. *Headache* 2017; 57: 488-93. [\[CrossRef\]](#)