

Gebelikte Ayak-Ayak Bileğinde Oluşan Kompleks Bölgesel Ağrı Sendromu: Bir Olgu Sunumu

Complex Regional Pain Syndrome of the Foot-Ankle in Pregnancy: A Case Report

Hakan TUNÇ, Deniz DÜLGEROĞLU*, Canan ÇULHA, Sumru ÖZEL
Ankara Fizik Tedavi Rehabilitasyon Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Ankara, Türkiye
*Yıldırım Beyazıt Dışkapı Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Ankara, Türkiye

Özet

Kompleks bölgesel ağrı sendromu (KBAS), otonomik disfonksiyonun ve trofik değişikliklerin eşlik ettiği bir ağrı sendromudur. KBAS yaygın görülmesine rağmen, gebelikte olduğu zaman gözden kaçabilir. Hastalığın patogenetik mekanizması halen tam anlaşılamamıştır. Gebelikte en sık tutulum yeri kalça eklemidir. Burada, gebeliğinin 3. trimesterinde ayak ve ayak bileğinde ağrı ve şişlik yakınması olan ve postpartum dönemde görüp, KBAS tanısı koyduğumuz 34 yaşındaki bayan hasta sunuldu. *Türk Fiz Tıp Rehab Derg 2011;57:51-3.*

Anahtar Kelimeler: Kompleks Bölgesel Ağrı Sendromu (KBAS), Gebelik

Summary

Complex regional pain syndrome (CRPS) is a pain disorder accompanied by autonomic dysfunction and trophic changes. Although CRPS is a common condition, it can be unrecognized if it occurs during pregnancy. The pathogenetic mechanism of the disease is still unclear. The hip is the most common site of involvement in pregnancy. In this report, we present a 34-year-old female who suffered from pain and swelling in her foot and ankle at the third trimester of pregnancy. We examined the patient at the postpartum period and established the diagnosis of CRPS. *Turk J Phys Med Rehab 2011;57:51-3.*

Key Words: Complex regional pain syndrome (CRPS), Pregnancy

Giriş

Kompleks Bölgesel Ağrı Sendromu (KBAS), kemik ve deride distrofik değişiklikler ve nörovasküler bozukluklarla giden ağrılı bir sendromdur. Genellikle bir veya daha fazla ekstremitayı etkileyen, bir çok semptomla seyreden, patogenezi tam anlaşılamamış bir durumdur (1). KBAS tip 1 ve tip 2 olarak ayrımı yapılan bu klinik tabloda, KBAS tip 1'de spesifik bir patoloji yoktur. KBAS tip 2 ise kozalji olarak bilinip, genellikle bir travma sonrası görülen periferik sinir hasarına bağlı yanıcı ağrıyı tanımlamaktadır. KBAS semptom ve bulguları; tutulan ekstremitede alodini veya hiperaljezi ile birlikte olan spontan ağrı, ödem, vazomotor ve sudomotor anormallikler ile trofik değişiklikleri içermektedir (2). Gebeliğin neden olduğu

KBAS nadirdir. Tanısı zordur ve tanı nadiren konulabilir. Gebelik sırasında ortaya çıkan pelvis ve alt ekstremitte ağrılarında tanı koymak zordur (3). Çünkü, gebelikte spesifik olmayan kas iskelet sistemi problemlerine ve ligaman laksitesine bağlı ağrılara sık rastlanır, bunlarla KBAS karışabilir (4). Gebelikte KBAS'ye benzer klinik bulgular görüldüğünde, ayırıcı tanı yapılmalı ve KBAS düşünülüyse, bir an önce tedaviye başlanmalıdır. Tedavide fonksiyonel iyileştirme amaçlanmalıdır. Bu durum fraktür gibi komplikasyonların önlenmesi açısından önemlidir (5,6). Gebelikte ortaya çıkan KBAS gebeliğin seyrini etkilemez. Genellikle ilk gebelik sırasında, üçüncü trimesterinde ve postpartum dönemde görülür. En sık kalça eklemi, ikinci sıklıkta diz eklemi ve daha nadir de ayak bileği eklemi tutulabilir (3,7,8).

Yazışma Adresi/Address for Correspondence: Dr. Hakan Tunç, Türkoçağı Sok. No: 3 Sıhhiye, Ankara, Türkiye
Tel: +90 312 310 32 30/166 E-posta: drhtunc@yahoo.com

Geliş Tarihi/Received: Aralık/December 2009 **Kabul Tarihi/Accepted:** Şubat/January 2010

Burada, gebeliğinin 3. trimesterinde ayak-ayak bileğinde ağrı, şişlik, üzerine basamama yakınmaları olan, ancak o dönem tanı alamayan, postpartum dönemde bize başvurduğunda KBAS tanısı koyup tedavi ettiğimiz olguyu, literatür eşliğinde sunmayı amaçladık.

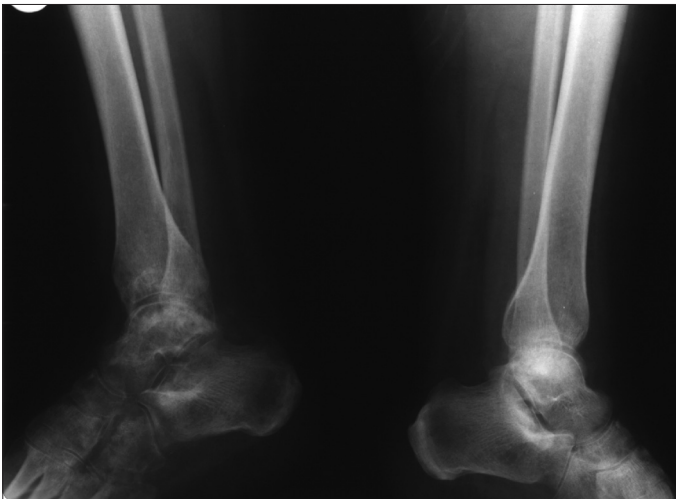
Olgu

Otuz dört yaşında kadın hasta, doğumdan 10 gün sonra sağ ayak ve ayak bileğindeki ağrı, şişlik, üzerine basamama yakınmaları ile polikliniğimize başvurdu. Hasta öyküsünde; gebeliğinin 29. haftasında sağ ayağında ve ayak bileğinde ağrı, sonrasında tüm ayağında yaygın şişlik geliştiğini, 32. haftasında ayağının üzerine basamaz hale gelmesi üzerine kadın doğum uzmanına başvurduğunu ifade etti. Hastanın doktorunun önerisi ile üç hafta boyunca istirahat ettiği ve parasetamol 2x500 mg/gün kullandığı öğrenildi. Bu tedavilerle kısmen rahatlayan hastanın, gebeliğinin 38. haftasında normal vajinal yolla 3000 gr ağırlığında sağlıklı bir bebek dünyaya getirdiği ama yakınmalarının doğum sonrasında da devam ettiği öğrenildi.

Yakınmaları öncesinde travma öyküsü olmayan hasta, alkol ve sigara kullanmıyordu. Aile öyküsünde metabolik bir kemik hastalığı yoktu. İlk iki gebeliği de normal süreç göstermişti.

Fizik muayenesinde; sağ ayakta diffüz şişlik, minimal kızarıklık ve ısı artışı mevcuttu. Ayak bileği palpasyonla hassas, aktif ve pasif ROM'ları ağrı nedeniyle kısıtlıydı. Ağrısı ayağının üzerine basmakla artıyor, istirahat ile azalıyor. Her iki alt ekstremitesinde periferik nabızlar açık ve nörolojik kayıp yoktu. Laboratuvar incelemesinde; Hemoglobin 13,0 g/dl (12-18), lökosit 6420 mm³ (4,60-10,2), alkalen fosfataz 122 U/L (50-136), kolesterol 416 mg/dl (0-200), trigliserit 156 (0-150), CRP 1,27 mg/dl (0,0-0,8), sedimantasyon hızı 53 mm/saat (0-15 mm/saat), total kalsiyum 9,4 mg/dl (8,5-10,5), parathormon 36 pg/ml (15-65), vitamin D₃ 24 ng/ml (11-43) olarak bulundu. Sağ ayak-ayak bileği direkt grafisinde X-ray incelemesinde; sağ tibia ve fibulanın distalinde, kalkaneus ve tarsal kemiklerde benekli osteoporoz mevcuttu (Şekil 1).

Bu bulgularla KBAS düşünülen hastada tanıyı doğrulamak amacı ile istenen 3 fazlı kemik sintigrafisinde; sağ ayak ve ayak bileği eklemlerinde simetriğine oranla kanlanmada artış ve hiperemi izlendi. Sintigrafide; uygulanan enjeksiyondan 3 saat sonra, anterior ve posterior pozisyonda tüm vücut iskelet sisteminin görüntüleri alındı. Bu incelemede; sağ ayak-ayak bileği ekleminde yoğun aktivite tutulumu izlendi. Ayrıca sağ diz ve kalça eklemlerinde de



Şekil 1. Bilateral ayak-ayak bileği, distal tibia ve fibula grafisi; Sağ tibia ve fibulanın distalinde, kalkaneus ve tarsal kemiklerde benekli osteoporoz.

simetriğine oranla hafif artmış aktivite tutulumu saptandı. Sintigrafik olarak bu görünüm KBAS ile uyumlu olarak değerlendirildi (Şekil 2). Kemik mineral yoğunluğu ölçümünde, femur boynu T skoru: -1,81, BMD femur: 0,714 g/cm²; lomber (L1-L4) T skoru : -1,83, BMD lomber: 0,846 g/cm² olarak saptandı.

Tedavide; hastanın istirahat etmesi, ayağı üzerine yük vermesi önerildi. Bebeğini emziren ve buna devam etmek isteyen hasta için oral kortikosteroid tedavisine karar verildi. Hastaya oral prednizolon 20 mg/gün başlandı. Aynı zamanda, sağ ayak-ayak bileğine uygulanmak üzere fizik tedavi modalitelerinden sıcak paket, su içi ultrason, TENS başlandı. On gün sonra hasta tek kanedyen yardımıyla ambule oldu. Üç hafta süresince prednizolon tedavisi tedricen azaltılarak sonlandırıldığında, hastanın yakınmaları tama yakın geriledi. Desteksiz yürümeye başladı. Uygulanan tedavilerden 6 hafta sonrasında çekilen sağ ayak-ayak bileği grafisinde de benekli osteoporozun önemli oranda düzeldiği gözlemlendi (Şekil 3).

Tartışma

Gebelikte görülen KBAS'nin prevalansı tam olarak bilinmemekle birlikte, literatürde KBAS rapor edilen kadınların %0,5-33'ünün gebe olduğu bildirilmiştir. Bu KBAS olgularının bir kısmının, hiç tanı konulmadan, kendiliğinden düzeldiğinden söz edilmiştir (3,13). Literatüre uygun olarak Poncelet ve ark. (3) sundukları 9 vakalık serilerinde, tutulumun %88 oranında kalçada, %25 oranında



Şekil 2. Üç fazlı kemik sintigrafisi; Sağ ayak-ayak bileği ekleminde yoğun aktivite tutulumu, sağ diz ve kalça eklemlerinde de simetriğine oranla hafif artmış aktivite tutulumu.



Şekil 3. Sağ ayak lateral grafi; Tedavi sonrası benekli osteoporozun önemli oranda düzelmesi.

dizde, %21 oranında ayak-ayak bileğinde olduğunu bildirmişlerdir. Bizim olgumuzda da KBAS, nadir tutulum bölgesi olan ayak-ayak bileğinde gözlemlendi. KBAS için spesifik bir neden bulunamayan hastamızdaki bu tablo KBAS tip 1 olarak adlandırıldı.

Gebelikte gözlenen KBAS olgularında tutulum bilateral olabilir, belirgin predominant taraf yoktur. Semptomlar genellikle 3. trimesterde ortaya çıkar. Gebelikte görülen KBAS'nin seyri genellikle iyidir, ağrı birkaç hafta ya da ay içinde geriler. Tedavi, iyileşme zamanını kısaltır. En ciddi ve sık gözlenen komplikasyon fraktür olup, %19 oranında bildirilmiştir (3,7,9). Bizim olgumuzda yakınmalar gebeliğin 3. trimesterinde başlamış ve doğum sonrasında da devam etmişti.

Gebelikte görülen KBAS'daki patofizyolojik mekanizmalar, multifaktöriyal ve karmaşıktır (9). Gebede obturator sinirin yayıldığı alanda kompresyona bağlı refleks değişikliklerden söz edilmiştir. Ancak bu durum, ilk trimesterde ortaya çıkan KBAS için geçerli olmaz. Özellikle gebeliğin ilerleyen dönemlerinde, obturator sinir üzerine fetus başının intermittan kompresyonunun, otonomik disfonksiyonu indükleyebileceğinden bahsedilmiştir (3,7). Gebelik sırasında annede belirgin kilo artışı, lordozun artması, bebeğin hızla kilo alması mekanik durumları değiştirir, bu durum femur başı ve boynunda sıklıkla mikrot travmaya neden olur. Bu duyuşal stimulus, otonomik sistemi uyarabilir. KBAS için çok iyi bilinen bu mekanizma, arteriol ve prekapiller sfinkterlerde spazmı indükler. Bu değişiklikler kapillerlerin geriye dolmasına neden olur, bu da venlerde pasif dilatasyona yol açar (3,4,10). Bizim olgumuzda KBAS, klinik olarak ayak-ayak bileğinde gözlenmekle birlikte sintigrafide aynı taraf kalça ve diz eklemine de simetrisine oranla hafif tutulum mevcuttu. Nükleer tıp bölümü ile birlikte, olgumuzdaki bu durumu, aynı taraf kalça ve diz ekleminin KBAS'tan hafif etkilenimi şeklinde yorumladık.

Perka ve ark. (4)'na göre etiyopatogeneizde, hormonal değişikliğin esas olduğu düşünülmektedir. Çünkü, gebelikten sonra KBAS'da genellikle spontan iyileşme olmaktadır. KBAS'ye yol açan risk faktörleri arasında kalsiyum düzeyi, parathormon, 1-25 dihidroksikolekalsiferol arasındaki dengenin bozulması sonucunda oluşan, mikrofraktürlere yol açan osteomalazi de bulunmaktadır (4,10). Bizim olgumuzda kan kalsiyum, parathormon ve 1-25 dihidroksikolekalsiferol değerleri normaldi.

Hipertrigliseridemi, gebelikte olası olan ve gebeliğin sonuna doğru daha çok artan bir bulgudur. Bu yüzden hipertrigliseridemi genel risk faktörü olarak görülmektedir. Acquavivva ve ark. (11) 765 KBAS'li olgu arasında, hipertrigliseridemiye özellikle kalça tutulumu olanlarda saptamışlardır. Bizim olgumuzda da hiperkolesterolemi vardı. Ancak KBAS tutulum yeri ayak-ayak bileğiydi.

Veldman' a (12) göre KBAS'nin tanı kriterleri 3 alt grupta toplanmaktadır. Kriter 1; Ağrı, diğer ekstremiteler ile karşılaştırıldığında ısı farkı, hacimde asimetri, renkte asimetri olması, aktif eklem hareket açıklığında kısıtlılık olması ki bu beş semptomdan en az dördünün pozitif olması. Kriter 2; Egzersiz sırasında veya sonrasında bu semptomların görülmesi veya artması. Kriter 3; Bu semptomların başlatıcı primer travma bölgesinden yayılarak daha geniş bir alanda olması şeklindedir. Ayırıcı tanıda, inflamatuvar artritler, sellülit, osteomyelit, derin venöz trombozu, malignensi, kronik vasküler bozukluklar gibi ekstremitelerde ağrı, şişlik ve ödem ile karakterize durumlar irdelenmelidir (2). Bizim olgumuz, sağ ayak-ayak bileğindeki şişlik, kızarıklık, ısı artışı, eklem hareket açıklığındaki ağırlı kısıtlılık, yük vermeye artan ağrısı ile klinik olarak Veldman'ın 1. ve 2. kriterini sağlıyordu. Ayrıca sözü edilen hastalıklarla ayırıcı tanısını yaparak, olgumuzda mevcut klinik tablonun yanında, radyografik incelemede görülen benekli osteoporoz nedeni ile KBAS düşündük.

Standart radyografi çoğu olguda tanıyı destekler, ancak klinik semptomların başlangıcından 3-6 hafta sonra bulgu verebilir. Gebelik esnasında en güvenilir tetkik manyetik rezonans

görüntüleme olup, erken tanıda yardımcı bir tetkiktir ve tanıyı doğrulayabilir (13). Kemik sintigrafisi gebelikte kontrendike olup ancak postpartum dönemde yapılabilir. Kemik biyopsisi, kesin tanı için düşünülse de, invaziv olup, çok gerekli değildir (7). Biz, hastamızın postpartum dönemde olması nedeniyle, rahatlıkla üç fazlı kemik sintigrafisi yaptırarak KBAS tanımızı doğruladık.

Gebelikte KBAS'nin tedavisi, doğuma kadar semptomatiktir. Etkilenen ekstremitelere yük vermeme, non-narkotik analjezikler, fizik tedavi uygulamaları (soğuk uygulama ve aktif asistif mobilizasyon vb.) sıklıkla kombine edilebilir. Medikal tedavi olarak, kalsitonin, beta-blokerler, kortikosteroidler, griseofulvin, nifedipin kullanımı ve gerekirse sempatik blokaj önerilmiştir (8,10,14,15). Kalsitonin ise gebelikte ve laktasyon döneminde kontrendikedir (3,10). Emziren annelerde, intravenöz pamidronatın anne sütüne geçmediği için, güvenle KBAS tedavisinde kullanılabilir (16). Biz postpartum dönemde olup emziren ve emzirmeye devam etmek isteyen hastamızda medikasyon olarak, oral kortikosteroid tedavisini seçtik. Bunun yanında istirahat, destek kullanımı ve fizik tedavi modalitelerinden de faydalandık. Yaklaşık 3 haftada yüz güldürücü sonuç elde ettik.

Gebelikte ve postpartum dönemde alt ekstremitelerde kas iskelet sistemi bulguları olan hastalarda, KBAS akla gelmeli, aynı bulgularla giden daha agresif hastalıklarla ayırıcı tanısı yapılmalıdır. Böylece anne ve fetus için daha zararlı olabilecek tedavilerden kaçınılabılır.

Kaynaklar

1. Herrick AL. Reflex sympathetic dystrophy (complex regional pain syndrome type I). In: Rheumatology. Hochberg, Silman, Smolen, Weinblatt, Weisman (eds). 3rd Edition, Mosby; 2003:725-32.
2. Ofluoğlu D, Akyüz G. Kompleks bölgesel ağrı sendromu tip I: Genel klinik yaklaşım. Türk Fiz Tıp Rehab Derg 2008;54:112-5. [Abstract] / [Full Text] / [PDF]
3. Poncelet C, Perdu M, Levy-Weil F, Philippe HJ, Nisand I. Reflex sympathetic dystrophy in pregnancy: nine cases and a review of the literature. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol 1999;86:55-63. [Abstract] / [Full Text] / [PDF]
4. Perka C, Buttgerit F, Backhaus M. Pregnancy-induced algodystrophy. Z Rheumatol 1988;57:399-408. [Abstract]
5. Brocq O, Simon E, Bongain A, Gillet JY, Euler-Ziegler L. Femoral neck fracture complicating algodystrophy in pregnancy. Presse Med 1999;28:1165-6. [Abstract]
6. Billey T, Dromer C, Pagas M, Caulier M, Lassoued S, Fournia B. Spontaneous fracture of the femoral neck in hip algodystrophy in pregnancy. Rev Rheum Mal Osteoartic 1992;59:494-6. [Abstract]
7. Wurning C, Kotz R. Algodystrophy during pregnancy. Z Orthop Ihre Grenzgeb 1991;129:146-50.
8. Ammann M, Hanggi W, Schneider H, Hafelin F. Sudeck's syndrome of the hip in pregnancy. A case report and review of the literature. Zentralbl Gynakol 1991;113:895-8. [Abstract]
9. Sergent F, Mouroko D, Sellam R, Marpeau L. Reflex sympathetic dystrophy involving the ankle in pregnancy: characteristics and therapeutic management. Gynecol Obstet Fertil 2003;31:543-5. [Abstract] / [PDF]
10. Zrigui J, Etaouil N, Mkinsi O. Reflex sympathetic dystrophy and pregnancy: a case report. Joint Bone Spine 2002;69:342-4. [Abstract]
11. Acquaviva P, Schiano A, Hamden P, Cros D, Serratrice G. Algodystrophy: predisposition and pathogenic factors. Results of a multicentric survey concerning 765 cases. Rev Rhum Mal Osteoartic 1982;49:761-6.
12. Veldman PHJM, Reynen JAM, Arntz JE, Goris RJA. Signs and symptoms of reflex sympathetic dystrophy: prospective study of 829 patients. Lancet 1993;34:1012-6. [Abstract] / [PDF]
13. Sellami M, Frikha F, Fourati H, Ezzedine M, Hdiji N, Elleuch MH, et al. Algodystrophy of the lower limbs during pregnancy. Ann Readapt Med Phys 2006;49:178-86. [Abstract] / [PDF]
14. Karakoç M, Altındağ Ö, Soran N. Reflex sympathetic dystrophy syndrome of the ankle in pregnancy. Rheumatism 2007;22:76-9. [Abstract] / [PDF]
15. Simon JN, Mokriski BK, Malinow AM, Martz DG. Reflex sympathetic dystrophy syndrome in Pregnancy. Anesthesiology 1998;69:100-2. [Abstract] / [PDF]
16. Siminoski K, Fitzgerald AA, Flesch G, Gross MS. Intravenous pamidronate for treatment of reflex sympathetic dystrophy during breast feeding. J Bone Miner Res 2000;15:2052-5. [Abstract] / [PDF]