

Olgu Sunumu / Case Report

Tek Foton Emisyonlu Bilgisayarlı Beyin Tomografisi ve Elektromiyografi Kaydı ile Doğrulan Post-travmatik Holmes Tremoru

Post-traumatic Holmes Tremor Confirmed by Brain Single Photon Emission Computed Tomography and Electromyography Recording

Ferah KIZILAY,¹ Eylem GÖKSU,¹ Fırat GÜNGÖR,² Hakan ORUÇKAPTAN,³ Sibel ÖZKAYNAK¹

Akdeniz Üniversitesi Tıp Fakültesi, ¹Nöroloji Anabilim Dalı, ²Nükleer Tıp Anabilim Dalı, Antalya, Türkiye;

³Hacettepe Üniversitesi Tıp Fakültesi Nöroşirürji Anabilim Dalı, Ankara, Türkiye

Holmes tremoru, nadir görülen bir hareket bozukluğudur. Kırmızı çekirdek, superior serebellar pedüklü veya posterior talamusu etkileyen lezyonlar bu tremora neden olabilir. Bu makalede, kafa travmasından yaklaşık iki hafta sonra tek taraflı, yüksek amplitüdü tremor gelişen, 19 yaşında bir erkek olgu sunuldu. Tremor postural, kinetik ve istirahat özelliklerine sahipti. Manyetik rezonans görüntüleme (MRG) incelemesinde sağ pariyetal kemikte çizgisel kırık hattı ve sağ superior pariyetal lobda kontüzyon sonrası etkilenen saha görüldü. Servikal MRG normaldi. Elektromiyografi kaydında sol kolda ritmik olmayan, 4 Hz frekansında ve istirahat, postural ve kinetik bileşenleri olan tremor aktivitesi görüldü. Tek foton emisyonlu bilgisayarlı beyin tomografisinde (SPECT) sağ temporal, pariyetal ve oksipital loblarda ve sağ talamus ve serebellumda hipometabolizma görüldü. Sonuç olarak, kafa travmasından sonra klinik ve elektrofizyolojik olarak Holmes tremorundan kuşkulandığı ve MRG'deki lezyonun klinik tabloyu açıklayamadığı durumlarda, Holmes tremoruna neden olan serebellum-talamo-kortikal bağlantılardaki işlev bozukluğu SPECT aracılığıyla gösterilebilir.

Anahtar Sözcükler: Beyin SPECT görüntülemesi; elektromiyografi kaydı; Holmes tremoru.

Holmes tremor is a rare movement disorder. Lesions involving red nucleus and/or affecting the superior cerebellar peduncle or posterior thalamus may cause this tremor. In this article, we report a 19-year-old man who developed a unilateral high-amplitude tremor, approximately two weeks after a head trauma. The tremor showed postural, kinetic and resting properties. Magnetic resonance imaging (MRI) showed a linear fracture line on the right parietal bone and a post-contusional area on the right superior parietal lobe. Cervical MRI was normal. Electromyography recording a 4 Hz tremor activity on the left arm that was arrhythmic with resting, postural and kinetic components. Single photon emission computed tomography of the brain (SPECT) showed hypometabolism on the right temporal, parietal and occipital lobes as well as right thalamus and cerebellum. In conclusion, when Holmes tremor following head trauma is suspected clinically and electrophysiologically and the lesions on the MRI cannot explain the clinical picture, the cerebello-thalamo-cortical loop dysfunction leading to Holmes tremor may be demonstrated with SPECT.

Key Words: Brain SPECT imaging; electromyography recording; Holmes' tremor.

13. Avrupa Klinik Nörofizyoloji Kongresi'nde sözel bildiri olarak sunulmuştur 4-8 Mayıs 2008, İstanbul, Türkiye (Presented at the 13th European Congress of Clinical Neurophysiology, May 4-8, 2008, İstanbul, Turkey).

İletişim adresi: / Correspondence: Dr. Ferah Kızılay, Akdeniz Üniversitesi Tıp Fakültesi Nöroloji Anabilim Dalı, 07059 Antalya, Türkiye.

Tel: +90 242 - 249 22 76 Faks (Fax): +90 242 - 249 22 76 e-posta (e-mail): ferah@akdeniz.edu.tr

Geliş tarihi / Received: 15 Nisan 2011 Kabul tarihi: / Accepted: 25 Nisan 2011

Holmes tremoru ilk kez 1889'da Benedict tarafından bildirilmiştir. Nadir görülen bir hareket bozukluğudur.^[1] Bu güne kadar mezensefalon tremoru, rubral tremor, talamik tremor, pedinküler tremor, Benedict tremoru olarak farklı şekillerde adlandırılmıştır.^[2-6] 1998'de Movement Disorders Society tarafından "Holmes tremoru" tanımı uygun görülmüştür. Holmes bu hastalığı 1904'de serebello-rubral sistemin fonksiyon bozukluğunun neden olduğu kinetik tremor olarak tanımlamıştır.^[1]

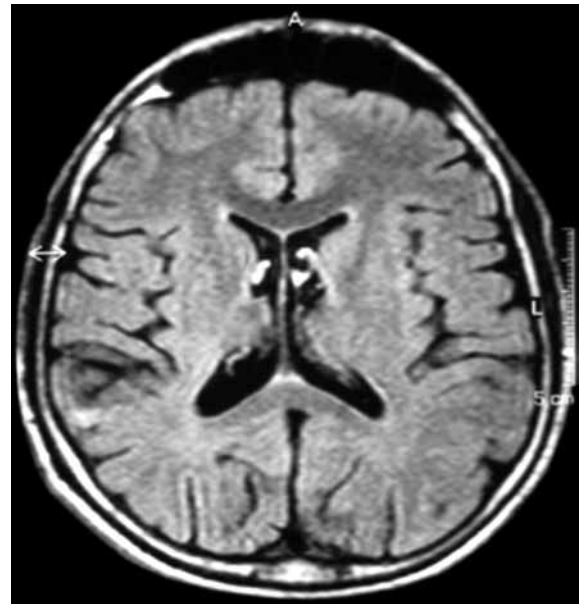
Holmes tremoru, istirahatın yanı sıra belirli bir postürü sürdürürken ya da amaca yönelik hareketler sırasında ortaya çıkar. Postural ve kinetik komponenti olan istirahat tremoru olarak da tanımlanabilir. Frekansı 2.5-4.5 Hz, sıklıkla ritmi düzensiz, elektromiyografi (EMG) kayıtlarında çakma süresi 150-170 ms olan kaba bir tremordur.^[7] Agonist ve antagonist kaslar genellikle birbirini izleyen kasılmalar sergiler.^[7-8] Ağırlık yükleme ile tremorun frekansı değişmez. Mezensefalon (kırmızı çekirdek veya superior serebellar pedinkül) veya posterior talamusu etkileyen lezyonlar bu tremora yol açabilir. Sıklıkla bu lezyonlar vasküler infarkt, tümör, kafa travması, multipl skleroz ve arteriyovenöz malformasyonlardır.^[1] Bu makalede, kafa travmasından yaklaşık iki hafta sonra ortaya çıkan Holmes tremoru olgusunu EMG kaydı, manyetik rezonans görüntüleme (MRG) ve tek foton emisyon bilgisayarlı tomografi (SPECT) bulguları ile sunmak istedik.

OLGU SUNUMU

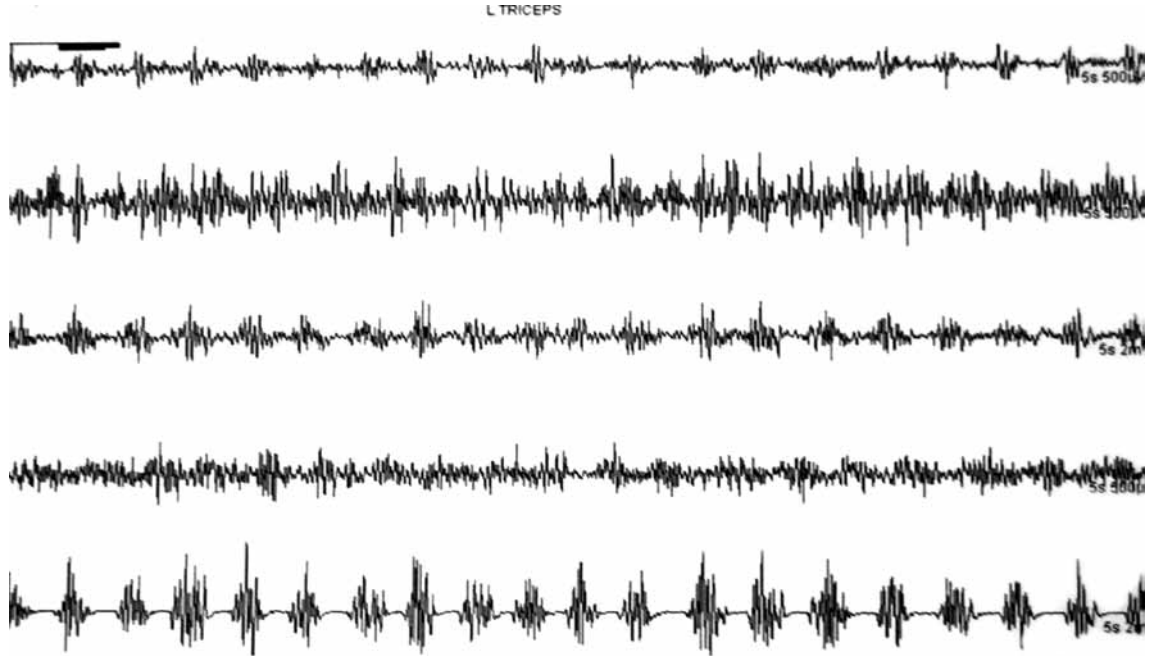
On dokuz yaşında bir erkek, sol kolda oluşan istemsiz hareket nedeni ile Hareket Hastalıkları kliniğimize başvurdu. Hastanın öyküsünden, başvurudan yaklaşık altı ay önce motorsiklet kazası geçirdiği Acil Servis'te entübe edildiği, bir hafta yoğun bakımda kaldığı, birkaç gün de Nöroşirürji Servisi'nde izlendiği ve daha sonra taburcu edildiği ancak taburcu olduktan birkaç gün sonra sol kolunda istemsiz hareket oluştuğunu fark ettiği öğrenildi. İstemsiz hareket, istirahat, postural ve kinetik komponenti olan kaba irregüler bir tremor şeklinde idi. Hasta tremorun uykusu sırasında kaybolduğunu bildirdi. Nörolojik muayenesinde sol koldaki kaba tremoru dışında bir patoloji gözlenmedi. Beyin bilgisayarlı

tomografisi (BT) sağ pariyetal kemikte çizgisel kırık hattı ve sağ pariyetal ensefalomalazik alan ile uyumlu idi. Manyetik rezonans görüntüleme de sağ frontopariyetal çizgisel kırık hattı ve sağ pariyetal lobta internal tabula komşuluğunda post-kontüzyonel alan vardı (Şekil 1). Servikal MRG normaldi. Elektromiyografi kayıtlaması sol kolda yaklaşık 4 Hz frekanslı, aritmik, istirahatte, postural ve kinetik olarak gözlenebilen tremor aktivitesi ile uyumlu idi. Agonist ve antagonist kaslar genellikle alternan aktivite gösterdi, nadiren ko-kontraksiyon gözlendi (Şekil 2). Hastanın EMG kayıtlaması fenomenolojik olarak Holmes tremoru tanımına uyuyordu. Klinik ve EMG kayıtlaması ile Holmes tremoru düşünülen olgunun beyin MRG'sinin tremorun yerini desteklememesi üzerine istenen beyin SPECT'inde sağ temporal ve oksipital loblarda ve sağ talamus ve serebellumdaki hipometabolizma görüldü (Şekil 3).

Kliniğimizde izlemi sırasında propranolol tedavisine yanıt vermeyen olguda klonazepam 2 mg 2x1 kullanımı sırasında belirgin düzelmeye görüldü. Kötüye kullanım riski yüksek olduğu için ilaç azaltılarak kesildi. Primidon ve topiramet tedavisine yanıt alınamadı. Levetirasetam tedavisi başlandı. Aynı zamanda Psikiyatri kliniği tarafından da izlenen hastaya pos-travmatik



Şekil 1. T1 ağırlıklı kesitte sağ frontopariyetal çizgisel kırık hattı ve sağ pariyetal lobta internal tabula komşuluğunda post-kontüzyonel alan görülmektedir.



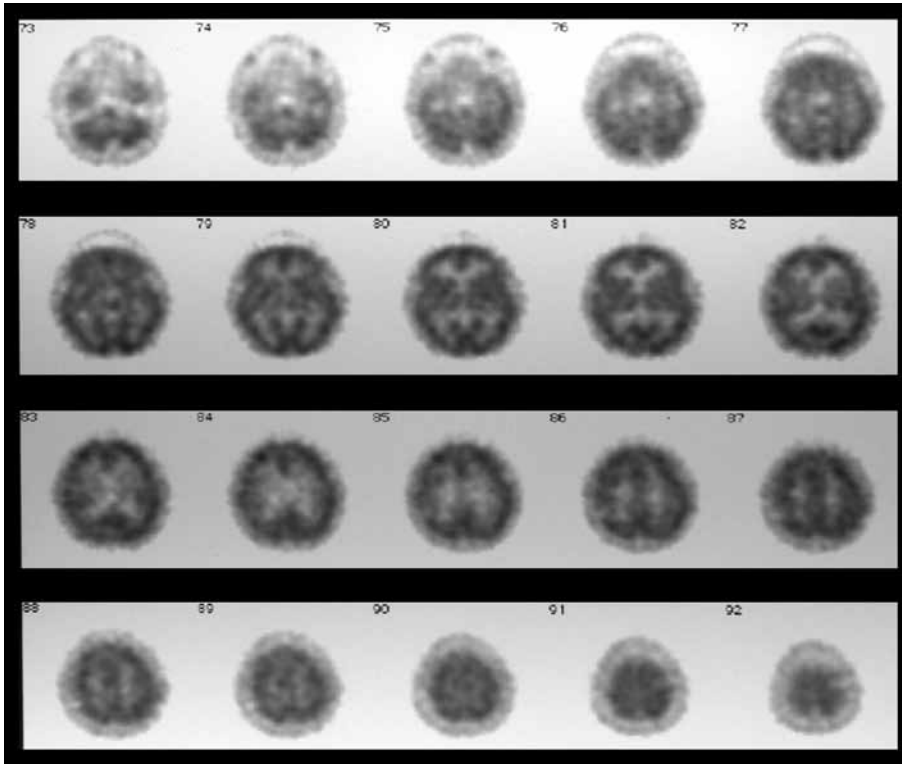
Şekil 2. Olgunun elektromiyografi kaydında 3.5-4 Hz tremor aktivitesi.

kişilik bozukluğu tanısı konuldu ve seçici serotonin geri alım inhibitörü (SSRI) tedavisi başlandı. Daha sonraki izlemlerinde levitirasetam tb 500 2x1 tedavisinden orta derecede yararlandığı gözlemlendi. Ancak, ilaçlarını düzgün kullanmayan olgu steriotaksik cerrahi için Nöroşirürji kliniğine yönlendirildi.

TARTIŞMA

Holmes tremoru, en fazla özür lülük yaratan tremordur. Frekansı diğer tremor tiplerinden daha yavaştır ve 2.5-4.5 Hz arasındadır. Agonist ve antagonist kaslar genellikle alternan aktivite gösterir. Posterior talamus, superior serebellar pedinkül ya da kırmızı çekirdeği etkileyen lezyonlardan sonra gelişir. Lezyonun oluşmasından sonra tremorun ortaya çıkması haftalar, aylar, hatta yıllar alabilir.^[1] Kafa travması da Holmes tremoruna yol açan nedenlerden bir tanesidir.^[2,9-11] Kremer ve ark.^[10] 1947'de kafa travmasını izleyen bir mezensefalon sendromu olgusu, Andrew ve ark.^[11] ise 1982'de kafa travmasında sonra 1-18 ay sonra postural-istirahat ve kinetik komponenti olan, mezensefalon tremoru gelişen üç olgu bildirmişlerdir. Daha sonra Samie ve ark.^[12] 1999'da, post-travmatik mezensefalon tremoru olan üç olgu bildirmişlerdir. Bu olgulardan biri, bilinç bozukluğuna neden olan, kraniyal BT'nin normal olduğu kafa travmasın-

dan altı ay sonra tremor gelişen, 42 yaşında bir erkek olgudur. Diğerleri ise sağ temporal kemik kırığının olduğu kafa travmasından 22 ay sonra mezensefalon tremoru gelişen 21 yaşındaki bir olgu ile intraventricüler hemorajiye neden olan kafa travmasından sekiz ay sonra mezensefalon tremoru gelişen 21 yaşındaki bir olgudur. Bizim olgumuzda kafa travmasından yaklaşık iki hafta sonra ortaya çıkan, tek taraflı, aritmik, yaklaşık 4 Hz frekanslı, istirahat-postural ve kinetik komponenti olan kaba bir tremor vardı. Post-travmatik tremorlar, lezyonun yerleşim yerinin doğru saptanmasının zor olması ve farmakolojik tedaviye yanıtın zayıf olması nedeni ile klinik olarak iyi sınıflanamamıştır.^[2] Post-travmatik mezensefalon tremorunda konvansiyonel görüntüleme yöntemleri lezyon yerini saptamada bazen yetersiz kalabilmektedir.^[9,11,12] Serebral hipoksi, iskemi, metabolik ve toksik faktörler sekonder beyin hasarına yol açabilmektedir. Bunun gibi durumlarda da konvansiyonel görüntüleme yöntemleri ile lezyonun yeri saptanamayabilir.^[13] Olgumuz, klinik ve elektrofizyolojik olarak Holmes tremoruna uyuyordu. Ancak beyin MRG görüntülemesi bu durumu açıklamayınca hastadan beyin SPECT'i istendi. Olgunun beyin SPECT'inde Holmes tremoruna neden olan serebellotalamokortikal bağlantılarda işlev bozukluğunu kanıtlayan, sağ



Şekil 3. Olgunun SPECT'inde sağ temporal ve oksipital loblarda ve sağ talamus ve serebellumdaki hipometabolizma gözlenmektedir.

temporal ve oksipital lobta, talamus ve serebellumda hipoperfüzyon saptandı.

Post-travmatik mezensefalon tremorunda tedaviye yanıt yüz güldürücü değildir. Propranolol, propranolol-valproik asit kombinasyonu, klonazepam, antikolinerjikler, L-Dopa, L-Dopa-karbamazepin kombinasyonundan fayda gören olgular bildirilmiştir.^[2,9,14-16] İlaç tedavisinden başka steriotaksik talamotomiden fayda gören olgular da bildirilmiştir.^[11] Bizim olgumuzda klonazepam kullanımı sırasında belirgin fayda görüldü ancak kötüye kullanım riski nedeni ile devam edilemedi. Levatirasetam tedavisine orta düzeyde yanıt verdi. Post-travmatik kişilik bozukluğu da olan ve ilaçlarını düzenli kullanmayan olgu steriotaksik cerrahi için Nöroşirürji kliniğine yönlendirildi. Steriotaksik talamotomi ile olgunun tremoru düzeldi.

Sonuç olarak, bu post-travmatik Holmes tremoru olgusu, hem nadir görülmesi nedeniyle hem de travma sonrası klinik ve elektrofizyolojik olarak Holmes tremorundan kuşulanılıyorsa ve kranial MRG'deki lezyon da klinik tabloyu açıklayıyorsa, SPECT'in bu tremora neden

olan serebellotalamokortikal bağlantı fonksiyon bozukluğunu gösterebileceğini bildirmek düşüncesi ile sunuldu.

KAYNAKLAR

1. Lucking CH, Hellwig B. Uncommon tremors. In: Hallett M, editor. Movement Disorders Handbook of Clinical Neurophysiology. Vol. 1, 1st ed. Philadelphia: Elsevier; 2003. p. 397-401.
2. Samie MR, Selhorst JB, Koller WC. Post-traumatic midbrain tremors. Neurology 1990;40:62-6.
3. Mossuto-Agatiello L, Puccetti G, Castellano AE. "Rubral" tremor after thalamic haemorrhage. J Neurol 1993;241:27-30.
4. Miwa H, Hatori K, Kondo T, Imai H, Mizuno Y. Thalamic tremor: case reports and implications of the tremor-generating mechanism. Neurology 1996;46:75-9.
5. Remy P, de Recondo A, Defer G, Loc'h C, Amarenco P, Planté-Bordeneuve V, et al. Peduncular 'rubral' tremor and dopaminergic denervation: a PET study. Neurology 1995;45:472-7.
6. Masucci EF, Kurtzke JF, Saini N. Myorhythmia: a widespread movement disorder. Clinicopathological correlations. Brain 1984;107:53-79.

7. Milanov I. Clinical and electromyographic examinations of patients with midbrain and cerebellar tremor. *Electromyogr Clin Neurophysiol* 2002;42:105-12.
8. Ghika J, Bogousslavsky J, Henderson J, Maeder P, Regli F. The "jerky dystonic unsteady hand": a delayed motor syndrome in posterior thalamic infarctions. *J Neurol* 1994;241:537-42.
9. Biary N, Cleaves L, Findley L, Koller W. Post-traumatic tremor. *Neurology* 1989;39:103-6.
10. Kremer M, Russell WR, Smyth GE. A mid-brain syndrome following head injury. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1947;10:49-60.
11. Andrew J, Fowler CJ, Harrison MJ. Tremor after head injury and its treatment by stereotaxic surgery. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1982;45:815-9.
12. Newmark J, Richards TL. Delayed unilateral post-traumatic tremor: localization studies using single-proton computed tomographic and magnetic resonance spectroscopy techniques. *Mil Med* 1999;164:59-64.
13. Krauss JK, Tränkle R, Kopp KH. Post-traumatic movement disorders in survivors of severe head injury. *Neurology* 1996;47:1488-92.
14. Koller WC, Wong GF, Lang A. Posttraumatic movement disorders: a review. *Mov Disord* 1989;4:20-36.
15. Findley LJ, Gresty MA. Suppression of "rubral" tremor with levodopa. *Br Med J* 1980;281:1043.
16. Harmon RL, Long DF, Shirtz J. Treatment of post-traumatic midbrain resting-kinetic tremor with combined levodopa/carbidopa and carbamazepine. *Brain Inj* 1991;5:213-8.