



Benigni paroksizmalni tortikolis u detinjstvu

Benign paroxysmal torticollis in infancy

Lidija Dimitrijević, Hristina Čolović, Vesna Živković

Klinički centar Niš, Klinika za fizikalnu medicinu, rehabilitaciju i protetiku, Niš

Apstrakt

Uvod. Benigni paroksizmalni tortikolis (BPT) je funkcionalni poremećaj nepoznate etiologije koji se odlikuje epizodama abnormalne rotacije i inklinacije glave na jednu stranu, a javlja se u ranom detinjstvu kod zdrave dece. **Prikaz bolesnika.** Prikazano je dvoje dece sa BPT. Kod prvog bolesnika prvi napad BPT registrovan je u 20. danu života, a poslednji krajem treće godine. Ukupno je registrovano 10 epizoda BPT, od toga su dve epizode bile praćene povraćanjem, bledilom, uznemirenošću i asimetričnim držanjem trupa. Kod drugog bolesnika prvi napad BPT registrovan je u 15. danu života, a u prvih 12 meseci registrovana su ukupno četiri napada koji su bili praćeni povraćanjem. Deca su imala normalan psihomotorni razvoj. Sve načinjene analize u cilju dijagnostike dale su potpuno normalne rezultate. **Zaključak.** Prepoznavanjem benignog paroksizmalnog tortikolisa i poznavanjem njegovog kliničkog toka izbegavaju se nepotrebne i neprijatne dijagnostičke i terapijske procedure i umiruje se strah roditelja.

Ključne reči:

tortikolis; dijagnoza; deca; lečenje, ishod.

Abstract

Background. Benign paroxysmal torticollis (BPT) is an episodic functional disorder of unknown etiology, characterized by the periods of torticollic posturing of the head, that occurs in the early months of life in healthy children. **Case report.** We reported two patients with BPT. In the first patient the symptoms were observed at the age of day 20, and disappeared at the age of 3 years. There were 10 episodes, of which 2 were followed by vomiting, pallor, irritability and the abnormal trunk posture. In the second patient, a 12-month-old girl, BPT started from day 15. She had 4 episodes followed by vomiting in the first year. Both girls had the normal psychomotor development. All diagnostic tests were normal. **Conclusion.** The recognition of BPT, as well as its clinical course may help to avoid not only unnecessary tests and the treatment, but also the anxiety of the parents.

Key words:

torticollis; diagnosis; child; treatment outcome.

Uvod

Benigni paroksizmalni tortikolis (BPT) karakteriše se rekurentnim epizodama abnormalne rotacije i inklinacije glave na jednu stranu. Veoma često praćen je asimetričnim položajem trupa i karlice čija je osovina flektirana u istu stranu (tortipelvis) ¹. Javlja se u ranom detinjstvu, najčešće u prvom mesecu života i spontano nestaje između druge i pete godine, i to kod dece koja imaju potpuno normalan psihomotorni razvoj. Napadi BPT obično počinju iznenada, bez prodromalnih simptoma ili specifičnih favorizujućih faktora, u jutarnjim satima, neposredno nakon buđenja. Trajanje varira od nekoliko minuta do nekoliko dana, a najduže 30 dana ². U toku napada često se registruje bledilo lica, povraćanje, abnormalan položaj donjeg ekstremiteta i ataksija. Nakon uspavlivanja simptomi nestaju, da bi se ponovo javili sa buđenjem. Napadi se javljaju periodično, jednom u 3–4 nedelje u prvoj godini života, da bi se kasnije

proredili i prestali do pete godine. Neurološki nalaz, rutinske laboratorijske analize krvi i urina, ultrazvučni nalaz, nalazi nuklearne magnetne rezonancije i kompjuterizovane tomografije mozga i elektroencefalogram, potpuno su uredni, kao i elektromiografija *m. sternocleidomastoidea* ³. Benigni paroksizmalni tortikolis javlja se češće kod devojčica nego kod dečaka (3 : 1) ⁴. Etiologija i patogeneza nisu razjašnjene, mada postoje pretpostavke da se radi o vestibularnoj disfunkciji ili genetskoj predispoziciji. Dijagnoza i diferencijalna dijagnoza može biti teška kod prvog napada, posebno kada se tortikolis javi u prvim danima života. U obzir dolaze distonične reakcije na lekove, deformiteti cervikalne kičme, miogeni tortikolis, tumori mozga ⁵, Sandifer sindrom i drugo. Kada se ustanovi ciklična priroda bolesti, kao i normalan neurološki nalaz, dijagnoza postaje relativno laka. Primena lekova i fizikalne terapije kod BPT nema efekta. Najvažnije je objasniti roditeljima dobru prognozu i benignu prirodu bolesti.

Prikaz bolesnika

Prvi bolesnik je devojčica, stara četiri godine, donešena na pregled prvi put u uzrastu od 2,5 meseca zbog asimetričnog položaja glave i trupa. Iz anamneze: rođena je iz prve trudnoće koja je bila redovno kontrolisana i uredna. Majka, stara 26 godina, u trudnoći bila je zdrava i pušila je do pet cigareta dnevno. Porodaj je obavljen u porodilištu, u 39. gestacijskoj nedelji, prirodnim putem i bez komplikacija. Telesna masa deteta na rođenju bila je 3 350 g, dužina 52 cm, obim glave 34 cm, *Apgar score* 8 i 9, u 1. i 5. minutu. Dete vitalno, bez anomalija i deformiteta. Na prirodnoj ishrani. Iz porodične anamneze: baba po majci ima migrenozne glavobolje od 20. godine života.

Prvi put je kod naše bolesnice tortikolis uočen u 20. danu života kada je majka zapazila da je beba iskrivila glavu na levu stranu i ostala u tom položaju narednih 48 sati. Pregledana je od strane pedijatra koji je konstatovao levostrani tortikolis bez tumefakta u *m. sternocleidomastoideusu* i uputio dete na fizikalni tretman. Kako je sutradan došlo do povlačenja simptoma, fizikalni tretman nije sproveden. Nakon sedam nedelja od prve epizode tortikolisa, ujutru nakon buđenja, dete ponovo nagnje glavu u levo, ovoga puta uz devijaciju osovine trupa sa konkavitom u levo, što je praćeno povraćanjem i uznemirenošću deteta. Istoga dana dete je hospitalizovano. Pri pregledu uočen je tortikolis levo bez tumefakta u *m. sternocleidomastoideusu*, devijacija osovine trupa i karlice sa konkavitom u levo, mišićni tonus diskretno povišen levo, posturalne reakcije diskretno asimetrične levo, miotatski refleksi uredni i simetrični, primitivni refleksi uredni i simetrični. Urađene su rutinske laboratorijske analize krvi i urina (nalaz u fiziološkim granicama za uzrast), urađen je ultrazvučni pregled glave (nalaz uredan) i ultrazvučni pregled mekih tkiva vrata (nalaz uredan). Konsultovan je dečji ortoped koji nalaže rendgenografiju cervikalne kičme (nalaz uredan). Nakon uspavljanja deteta svi simptomi su nestali, da bi se ponovo javili sa buđenjem u istom obliku. Ovaj napad trajao je 48 sati. Postavljena je sumnja na benigni paroksizmalni tortikolis, majci su data precizna objašnjenja i zakazan je kontrolni pregled za jedan mesec. Na kontrolnom pregledu u uzrastu od četiri meseca klinički nalaz uredan, motorni razvoj uredan, ultrazvučni nalaz mozga uredan. Na kontrolnom pregledu sa 7,5 meseci majka navodi da je dete imalo dve epizode tortikolisa u trajanju od 12 i od 24 sata u uzrastu od pet meseci i sedam meseci i donosi fotografiju deteta na kojoj se vidi tipičan položaj glave sa nagnjanjem u levo što je praćeno i devijacijom osovine trupa u levo (slika 1). Načinjen je kontrolni ultrazvučni pregled mozga i mekih tkiva vrata (nalaz uredan), elektroencefalogram (nalaz uredan), detaljan neurokineziološki pregled (nalaz uredan).

Dete je praćeno do četvrte godine života. Epizode benignog paroksizmalnog tortikolisa javljale su se ritmično u prvoj godini, svaka dva meseca i trajale od 12 do 48 sati. Dve epizode bile su praćene i povraćanjem. U drugoj godini zabeležene su samo tri epizode, a nakon drugog rođendana samo jedna u uzrastu od dve godine i devet meseci. Ni u jednom napadu nije se žalila na glavobolju. Psihomotorni razvoj odvijao se normalno: prohodala sa 14 meseci, kontrola sfin-

ktera uspostavljena sa 20 meseci, prve rečenice sklapa sa 20 meseci, procenjena od strane dečjeg psihologa i defektologa kao prosečna (mentalni razvojni indeks 102).



Sl. 1 – Levostrani tortikolis sa devijacijom osovine trupa u levo („položaj kifle“)

Drugi bolesnik je devojčica, uzrasta 12 meseci, donešena na prvi pregled u uzrastu od dva meseca zbog desnostranog tortikolisa. Iz anamneze: prvo dete iz prve trudnoće urednog toka i trajanja. Majka, 28 godina, bila je zdrava u toku i pre trudnoće. Porodaj je obavljen u porodilištu, u 38. nedelji gestacije. Telesna masa deteta na rođenju 3 050 g, dužina 51 cm, obim glave 32 cm, *Apgar score* 9. Bez anomalija i deformiteta, vitalno, na prirodnoj ishrani. U porodičnoj anamnezi nema podataka o sličnim bolestima i migrenoznoj glavobolji.

Prva epizoda tortikolisa registrovana je u 15. danu života kada je majka zapazila da je glava deteta nagnuta desno. Nakon pregleda pedijatra konstatovan desnostrani tortikolis bez tumefakta u sternokleidomastoidnom mišiću i dete je upućeno na fizikalni tretman. Nakon petodnevog fizikalnog tretmana dolazi do korekcije položaja glave. U uzrastu od dva meseca dete ponovo nagnje glavu u desno, što ovoga puta biva praćeno povraćanjem. Istog dana je hospitalizovano, urađene su osnovne laboratorijske analize krvi i urina (nalazi uredni), ultrazvučni pregled mekih tkiva vrata (nalaz uredan), ultrazvučni pregled glave kroz veliku fontanelu (nalaz uredan), neurokineziološki pregled (nalaz uredan). Četvrtog dana hospitalizacije dolazi do spontane normalizacije položaja glave. Postavljena je sumnja na benigni paroksizmalni tortikolis, data su detaljna objašnjenja majci i zakazan kontrolni pregled.

Nova epizoda tortikolisa javila se u uzrastu od 6,5 meseci, trajala je četiri dana i bila praćena povraćanjem. I ovoga puta glava je bila bočno flektirana u desno što je prikazano na fotografiji (slika 2). Ponovljen ultrazvučni pregled glave i mekih tkiva vrata, laboratorijske analize krvi i urina, urađena elektroencefalografija i konsultovan otorinolaringolog. Svi dobijeni nalazi bili su u fiziološkim granicama za uzrast. Do

kraja prve godine života dete je imalo još jedan napad BPT i to u devetom mesecu, takođe praćen povraćanjem i bočnom fleksijom glave u desno. Psihomotorni razvoj u prvoj godini života protekao je uredno.



Sl. 2 – Desnostrani tortikolis

Diskusija

Benigni paroksizmalni tortikolis prvi je opisao Snyder 1969. godine¹. Nakon toga opisano je još oko stotinu slučajeva. Etiologija još uvek nije razjašnjena, ali postoje pretpostavke da se radi o vestibularnoj disfunkciji vaskularne geneze⁶.

Nikolić i Banić opisali su 1989. godine ovaj sindrom kao paroksizmalni alternantni tortikolis (PAT) u razvojnom dobu i pretpostavili su da se radi o paroksizmalnoj prevagi tonusa aksijalne muskulature koja nastaje kao verzija sazrevanja motorike i posebno bazičnog tonusa, pod uticajem viših struktura CNS-a, pre svega labirinta, a potom bazalnih ganglija⁷.

Postoje i izvesni dokazi da je reč o genskoj mutaciji na 19. hromozomu². Griffin i sar. 2002. godine opisali su četvero dece sa benignim paroksizmalnim tortikolisom. Kod dvoje dece postojao je podatak o prisutnoj migreni kod starijih rođaka koja je vezana za mutaciju CACNA1A gena na 19. hromozomu. Na osnovu toga zaključili su da BPT može biti ekvivalent migrene u detinjstvu i da predstavlja svojevrsnu auru migrene u kasnijim godinama. U našem prikazanom prvom slučaju postoji podatak da baba deteta ima migrenozne glavobolje, ali nažalost nije bilo moguće uraditi slična genetska ispitivanja. U novijoj literaturi može se naći podatak da BPT predstavlja „pedijatrijsku migrenu“, tj. da 70% dece u napadu tortikolisa ima glavobolju, što je teško dokazati, posebno u prvim mesecima života. Kod starije dece glavobolja se sreće za vreme napada u oko 60% slučajeva, dok oko 20% ima vertiginozne smetnje što se objašnjava vestibularnom disfunkcijom^{8, 9}. Smatra se da postoji velika verovatnoća da ta deca u adultnom dobu pate od migrenoznih glavobolja. Dokaz ove pretpostavke zahteva prospektivna istraživanja.

Na osnovu odluke tima lekara kod naših bolesnika nije rađena magnetna rezonancija i kompjuterizovana tomografija centralnog nervnog sistema. Istraživanja drugih autora pokazala su da kod BPT ne postoje oštećenja mozga koja se mogu dijagnostikovati ovim pregledima¹⁰⁻¹², te da je nepotrebno izlagati decu suvišnim i neprijatnim dijagnostičkim metodama. Većina autora ima stav da su klinička slika i periodično ponavljanje bolesti dovoljni kriterijumi za postavljanje dijagnoze¹⁰⁻¹⁵.

Zaključak

Prepoznavanjem benignog paroksizmalnog tortikolisa i poznavanjem njegovog kliničkog toka izbegavaju se nepotrebne i neprijatne dijagnostičke i terapijske procedure na detetu i umiru se strah roditelja.

L I T E R A T U R A

1. *Fernandez-Alvarez E, Aicardi J.* Movement disorders in children. London: Mac Keith Press; 2001.
2. *Giffin NJ, Benton S, Goadsby PJ.* Benign paroxysmal torticollis of infancy: four new cases and linkage to CACNA1A mutation. *Dev Med Child Neurol* 2002; 44(7): 490–3.
3. *Kimura S, Nezu A.* Electromyographic study in an infant with benign paroxysmal torticollis. *Pediatr Neurol* 1998; 19(3): 236–8.
4. *Ballock RT, Song KM.* The prevalence of nonmuscular causes of torticollis in children. *J Pediatr Orthop* 1996; 16(4): 500–4.
5. *Caress JB, Nobria V, Fuchs H, Boustany RM.* Torticollis acquired in late infancy due to a cerebellar gangliocytoma. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1996; 36(1): 39–44.
6. *Fernandez-Alvarez E.* Transient movement disorders in children. *J Neurol* 1998; 245(1): 1–5.
7. *Nikolić V, Banić M.* Paroxysmal torticollis in the developmental age. *Med Pregl* 1989; 42(3–4): 99–101. (Serbian)
8. *Al-Twaijri WA, Shevell MI.* Pediatric migraine equivalents: occurrence and clinical features in practice. *Pediatr Neurol* 2002; 26(5): 365–8.
9. *Uneri A, Turkedogan D.* Evaluation of vestibular functions in children with vertigo attacks. *Arch Dis Child* 2003; 88(6): 510–1.
10. *Drigo P, Carli G, Laverda AM.* Benign paroxysmal torticollis of infancy. *Brain Dev* 2000; 22(3): 169–72.
11. *Pedersen SJ, Sommerfelt K, Markestad T.* Early motor development of premature infants with birthweight less than 2000 grams. *Acta Paediatr* 2000; 89(12): 1456–61.
12. *Poddar U, Singh S, Kumar L.* Paroxysmal torticollis of infancy. *Indian Pediatr* 1999; 36(1): 86–8.
13. *Bentivoglio AR, Ialongo T, Contarino MF, Valente EM, Albanese A.* Phenotypic characterization of DYT13 primary torsion dystonia. *Mov Disord* 2004; 19(2): 200–6.
14. *Lanzi G, Balottin U, Fazzzi E, Tagliasacchi M, Manfrin M, Mira E.* Benign paroxysmal vertigo of childhood: a long-term follow-up. *Cephalalgia* 1994; 14(6): 458–60.
15. *Cohen HA, Nussinovitch M, Ashkenasi A, Straussberg R, Kauschansky A, Frydman M.* Benign paroxysmal torticollis in infancy. *Pediatr Neurol* 1993; 9(6): 488–90.

Rad je primljen 20. VI 2005.