

Vzácný souběžný výskyt oboustranného zánětu slzných žláz a ulcerózní kolitidy

prof. MUDr. Vladimír Mihál, CSc.¹, MUDr. Kamila Michálková², MUDr. Klára Marešová, Ph.D.³,
MUC. Daniel Murin¹, MUDr. Eva Karásková¹

¹Dětská klinika LF UP a FN v Olomouci

²Radiologická klinika LF UP a FN v Olomouci

³Oční klinika LF UP a FN v Olomouci

Autoři prezentují vzácnou kazuistiku šestnáctileté dívky s oboustranným pseudotumorem slzných žláz jako počátečním příznakem ulcerózní kolitidy. Deset dnů před diagnózou ulcerózní kolitidy byla přijata k hospitalizaci pro oboustranný otok a bolest víček, horečky a bolesti břicha. Když se objevil průjem s příměsí krve a anémie, kolonoskopie a histologické vyšetření potvrdily ulcerózní kolitidu. Zánět slzných žláz se výrazně zlepšil až po zahájení systémové léčby ulcerózní kolitidy kortikoidy.

Klíčová slova: počáteční příznak, zánět slzných žláz, dacryoadenitida, ulcerózní kolitida, nespecifický střevní zánět (NSZ).

Rare concurrent presentation of bilateral lacrimal gland inflammation and ulcerative colitis

The authors present a rare case report of 16-year-old girl with bilateral pseudotumor of lacrimal gland as a initial symptom of ulcerative colitis. Ten days before of diagnosis of ulcerative colitis she was admitted in the hospital because of bilateral eyelid swelling and pain, fever and abdominal discomfort. When diarrhea with enterorrhagy and anemia were occurred, colonoscopy and histological findings confirmed ulcerative colitis. Lacrimal gland inflammation was improved significantly with systemic treatment of ulcerative colitis with steroids.

Key words: initial symptom, lacrimal gland inflammation, dacryoadenitis, ulcerative colitis, inflammatory bowel disease (IBD).

Pediatr. pro Praxi 2010; 11(1): 54–55

Úvod

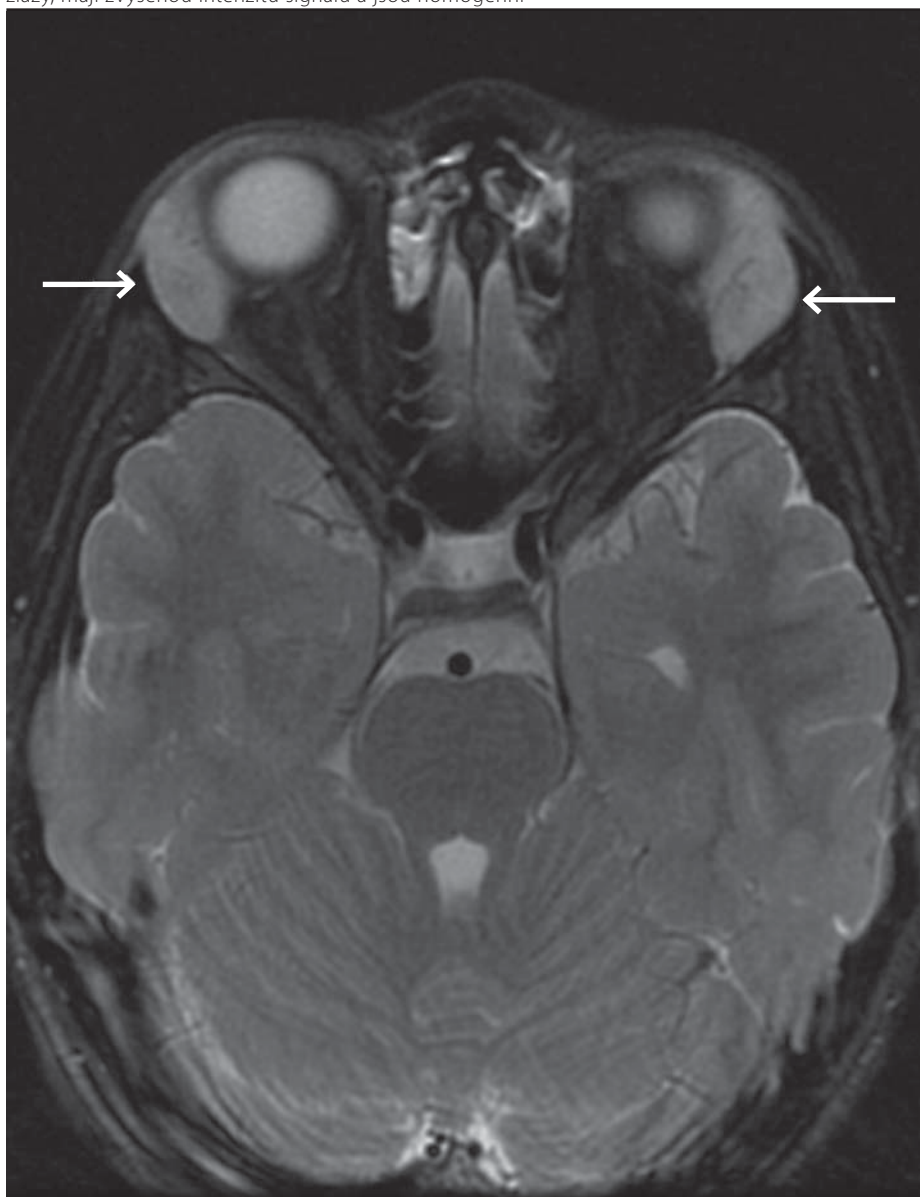
Ulcerózní kolitida (UK) a Crohnova choroba jsou dva obecně uznané typy nespecifických střevních zánětů (NSZ). NSZ jako jiná autoimunitní onemocnění mohou být asociovány s rozvojem rozmanitých mimostřevních manifestací onemocnění (1). Rozpoznání mimostřevních příznaků NSZ je velmi důležité, protože mohou být klíčem k jejich subklinickým chronickým formám (1–7). Mimostřevní manifestace však mohou přispět i k větší morbiditě než základní střevní onemocnění, a mohou být dokonce i počátečními příznaky NSZ (8). I když oční komplikace bývají častou mimostřevní manifestací NSZ (4–12 %), uveitida a iritida jsou daleko nejčastějšími. Akutní přední negranulomatózní iritida a iridocyklitida probíhají akutně a trvají dny až týdny. Dominuje bolest, světloplachost a akomodační bolestivost. Šedesát procent pacientů má pozitivní HLA B27 antigen. Často se objevuje u ankylozující spondylitidy, Reiterova syndromu, ulcerózní kolitidy, Crohnovy choroby a psoriázy. Je zajímavé, že oční komplikace jsou mnohem častěji asociovány s kloubními mimostřevními příznaky NSZ. Zánět slzných žláz u pacientů s NSZ je velmi vzácný (9–13), ale jako počáteční příznak NSZ byl publikován pouze několikrát (9, 10).

Popis případu

Téměř 16letá pacientka s negativní rodinnou anamnézou. Porozena byla v termínu, záhlavím, poporodní adaptace normální, s nízkou nemocností. Pro teploty, výrazný oboustranný otok víček a bolesti břicha byla vyšetřována v okresní nemocnici. V laboratorním vyšetření byly přítomny vysoké parametry zánětu. Magnetická rezonance orbit a mozku (obrázek 1) prokázala výrazné zduření obou slzných žláz, nález byl hodnocen jako **akutní dacryoadenitida**. V dalším průběhu hospitalizace se objevily řídké stolice s příměsí krve a mírná anemizace. Kolonoskopie s histologickým vyšetřením sliznice tlustého střeva potvrdila diagnózu **ulcerózní kolitidy**. Byly přítomny těžké dysplastické změny sliznice tlustého střeva. Pacientka byla poté předána na naše pracoviště k dořešení celkového stavu a k zahájení léčby. V laboratoři byly přítomny vysoké titry protilátek proti *Listeria sp.* (antigeny 0–1,2 a 0–5). Oftalmolog byl oční nález hodnocen jako akutní dacryoadenitida autoimunitní etiologie, diferenciativně diagnosticky zvažována listeriová dacryoadenitida. Proto jsme zahájili terapii Biseptolem. Dále jsme po vyloučení infekční příčiny průjmů přistoupili k podávání prednisonu v dávce 1 mg/kg/den. Ke kortikoidům byla přidána kyselina 5-aminosalicylová. Léčba vedla k vymizení průjmů a krve ve stolici, došlo k poklesu parametrů zánětu. Regredovaly i otoky

horních očních víček. Při snižování dávek kortikoidů (prednison 15 mg denně) se opět objevila enteroragie a bolesti břicha. Přechodně zvýšená dávka kortikoidů vedla k opětovnému ústupu potíží. Kontrolní kolonoskopie však prokázala ulcerózní pankolitidu s těžkými dysplastickými změnami sliznice tlustého střeva. Ke kortikoidům byl přidán azatioprin v dávce 2 mg/kg/den, což umožnilo redukovat dávku kortikoidů. V dalším průběhu se stav komplikoval rozvojem impetiga na kůži obličeje, trupu i končetin. Celková antibiotická léčba vedla ke kompletní regresi kožního nálezu. Dalším patologickým nálezem, který nyní vyšetřujeme, je lehká elevace jaterních testů včetně cholestatických enzymů (ALT 2,39 µkat/l, GGT 1,05 µkat/l). Hodnoty ceruloplazminu a alfa-1 antitrypsinu byly v mezích normy. Diferenciativně diagnosticky pomýšlíme na primární sklerozující cholangitidu nebo autoimunitní hepatitidu. Magnetická rezonanční cholangiopankreatografie neprokázala jednoznačné patologické změny na žlučových cestách. Histologický nález z ne cílené jaterní biopsie prokázal prosáklá portální pole, která jsou do okolí vazivově rozšířená s jen fokálně akcentovaným lymfoplazmocytárním infiltrátem. Hepatocyty byly bez steatózy, bez inkluzí a granulomů. Uzavřeno jako obraz chronické (autoimunitní) hepatitidy, obraz primární sklerotizující cholangitidy nelze vyloučit.

Obrázek 1. MR orbit a mozku, axiální zobrazení v T2 fat sat sekvenci, oboustranně jsou zvětšené slzné žlázy, mají zvýšenou intenzitu signálů a jsou homogenní



Komentář

Podle našich znalostí a provedené literární rešerše pseudotumor slzných žláz jako počáteční příznak ulcerózní kolitidy u dítěte nebyl zatím ve světovém písemnictví publikován. Podobná kazuistika 25leté japonské pacientky s UK byla zveřejněna nedávno (9). Ellis (2) rovněž publikoval pozorování pacientky s otokem víček, které předcházelo diagnózu UK, to ale bylo zapříčiněno myozitidou očních svalů.

Oční komplikace NSZ byly rozpoznány již v roce 1925, kdy B. Crohn popsal dva své pacienty se střevním zánětem a konjunktivitidou a infiltráty rohovky připomínající „xerophthalmii“. Později bylo potvrzeno, že oční mimostřevní komplikace relativně často doprovázejí NSZ a mohou mít pro pacienty i prognostický význam. Měla by jim být věnována stejná pozor-

nost jako pacientům s juvenilní artritidou, kde se pravidelné oftalmologické vyšetření stalo již součástí nezbytné péče. I když nejčastějšími očními manifestacemi jsou uveitidy a iritidy, zvýšená pozornost by se měla věnovat i zánětům (pseudotumorům) a obstrukcím slzných žláz, které jsou v průběhu i jiných autoimunitních chorob popisovány stále častěji (14). Kromě UK byly popsány u Wegenerovy granulomatózy, lymfocytární hypofyzitidy a reaktivní artritidy (15–17).

Oční příznaky (pseudotumor slzných žláz) u naší pacientky „předcházely“ typickým klinickým příznakům ulcerózní kolitidy (bolest břicha, řídké stolice s příměsí krve, anemizace, neprospívání) jen několik dní před definitivní kolonoskopickou a histologickou diagnózou UK. Je téměř jisté, že oboustranné zduření slzných žláz bylo

pozorováno již v průběhu NSZ, i když kromě bolestí břicha nebyly přítomny další typické gastrointestinální příznaky. I z našeho pozorování lze doporučit, aby v diferenciální diagnostice pseudotumoru slzných žláz (akutní dacryoadenitidy) bylo kromě sarkoidózy, Sjögrenova syndromu, Mikuliczova syndromu, leukemie, lymfomu, tuberkulózy a syfilis pomýšleno i na nespecifické střevní záněty.

Literatura

1. Yilmaz S, Aydemir E, Maden A, Unsal B. The prevalence of ocular involvement in patients with inflammatory bowel disease. *Int J Colorectal Dis* 2007; 22: 1027–1030.
2. Ellis PP, Centry JH. Ocular complications of ulcerative colitis. *Am J Ophthalmol* 1964; 58: 779–785.
3. Ghanchi FD, Rembacken BJ. Inflammatory bowel disease and the eye. *Surv Ophthalmol* 2003; 48: 663–676.
4. McKinnon SG, Centry LR. Systemic diseases involving the orbit. *Seminars Ultrasound CT MRI* 1998; 19(3): 292–308.
5. Mendoza JL, Lana R, Taxonera C, et al. Manifestaciones extraintestinales en la enfermedad inflamatoria intestinal: diferencias entre la enfermedad de Crohn y la colitis ulcerosa. *Med Clin (Barc.)* 2005; 128(8): 297–300.
6. Cury DB, Moss AC. Ocular manifestations in a Community-based cohort of patients with inflammatory bowel disease. *Inflamm Bowel Dis* 2010; v tisku.
7. Maalouf T, Angioi K, George JL. Recurrent orbital myositis and Crohn's disease. *Orbit* 2001; 20(1): 75–80.
8. Ardizzone S, Puttini PS, Cassinotti A, Porro GB. Extraintestinal manifestations of inflammatory bowel disease. *Dig Liver Dis* 2008; 40: 253–259.
9. Mochizuki K, Sawada A, Kotsumura N. Case of lacrimal gland inflammation associated with ulcerative colitis. *Int Ophthalmol* 2009; DOI 10.1007/s10792-009-9296-9.
10. Hwang IP, Jordan DR, Acharya V. Lacrimal gland inflammation as the presenting sign of Crohn's disease. *Can J Ophthalmol* 2001; 36(4): 212–213.
11. Dutt S, Cartwright MJ, Nelson CC. Acute Dacryoadenitis and Crohn's Disease: Findings and Management. *Ophtal Plast Reconstr Surg* 1991; 8(4): 295–299.
12. Hyams JS. Extraintestinal manifestations of inflammatory bowel disease in children. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 1994; 19: 7–21.
13. Taylor SR, McCluskey P, Lightman S. The ocular manifestations of inflammatory bowel disease. *Curr Opin Ophthalmol* 2006; 17: 538–544.
14. Satchi K, McNab AL. Lacrimal obstruction in inflammatory bowel disease. *Ophtal Plast Reconstr Surg* 2009; 25(5): 346–349.
15. Pahor D, Gracner B, Gracner T, Pahor A. Ocular symptoms as the initial signs of Wegener's granulomatosis. *Klin Monbl Augenheilkd* 2009; 226(5): 409–413.
16. Baoke H, Shihui W, Maonian Z, et al. Bilateral dacryoadenitis complicated by lymphocytic hypophysitis. *J Neuroophthalmol* 2009; 29(3): 214–218.
17. Madge SN, James C, Selva D. Bilateral dacryoadenitis: a new addition to the spectrum of reactive arthritis? *Ophtal Plast Reconstr Surg* 2009; 25(2): 152–153.

prof. MUDr. Vladimír Mihál, CSc.
Dětská klinika LF UP a FN
Puškinova 5, 775 20 Olomouc
vladimir.mihal@fnol.cz

