

Iskæmisk tungenekrose ved arteritis temporalis

Jonas Møller Larsen¹ & Kristine Aabenhus²

KASUISTIK

1) Øre-næse-hals- og Kæbekirurgisk Afdeling, Sjællands Universitetshospital, Køge

2) Øre-næse-hals-kirurgisk Klinik, Rigshospitalet

Ugeskr Læger
2017;179:V01170041

Arteritis temporalis (AT) er en systemisk, granulomatøs vaskulitis, der forekommer i store og mellemstore kar. Diagnostik af AT kompliceres af en til tider broget symptomatologi, der hyppigst omfatter feber uden fokus, hovedpine, vægttab, skalpømhed, tyggeclaudicatio og synstab [1]. Incidensen af AT blandt vestlige befolkninger er angivet til at være 20 pr. 100.000 i aldersgruppen over 50 år, og lidelsen ses hyppigst hos patienter af skandinavisk afstamning. Kvinde-mand-ratioen angives til 3:1 [2]. Diagnostiske kriterier for AT er angivet i **Tabel 1**.

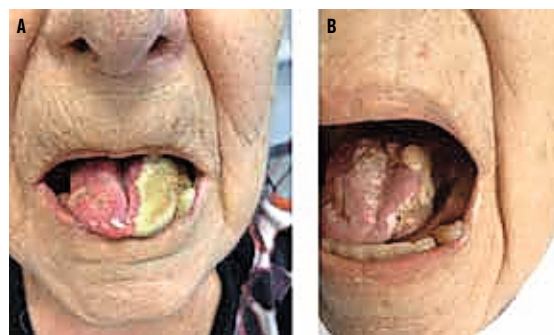
I sygehistorien beretter vi om iskæmisk tungenekrose som en sjælden komplikation ved udiagnosticeret AT.

SYGEHISTORIE

En 85-årig kvinde, der var tidligere rask, fraset mild kronisk obstruktiv lungesygdom og tidligere variceoperation, blev indlagt med nyopdaget atrieflimren og feber uden oplagt fokus. Biokemiske undersøgelser viste et leukocytniveau på 15 mia./l, et niveau af C-reaktivt protein på 137 mg/l og en sænkingsreaktion på 46 mm/time, hvorfor der påbegyndtes empirisk antibiotisk behandling med piperacillin og tazobactam på mistanke om infektion. Måling af niveauerne af antinukleære antistoffer, antineutrofile cytoplasmatiske antistoffer og tuberkulosestoffer var negative, blodtryk-

FIGUR 1

Før (A) og efter (B) debridement.



ning var uden vækst, malariaudstryg var negativ, og hverken CT eller PET gav en forklaring på patientens symptomer. Der var ingen overbevisende bedring igennem en måneds indlæggelse ud over spontan remission af atrieflimren. Patienten bemærkede begyndende smerter i tungen samt let sløret syn venstresidigt. Objektivt sås en skarpt markeret, hvidlig misfarvning af venstre tungerand, området var nekrotisk og debrideredes spontant ved manipulation (**Figur 1**). Grundig øre-næse-hals-undersøgelse inkl. fiberlaryngoskopi og UL-skanning af halsen viste i øvrigt normale forhold.

Histologi af det debriderede tungevæv var uden tegn til malignitet. Ved oftalmologisk tilsyn fandt man nedsat visus venstresidigt og bilateralt papilødem. Patienten påbegyndte behandling med højdosisprednisolon og fik foretaget biopsi af arteria temporalis, hvorunder der ikke kunne findes palpable pulse temporalt bilateralt. En Histologisk undersøgelse af arteria temporalis viste storkarsvaskulitis med nekrose af lamina intima og destruktion af lamina elastica interna, hvilket er foreneligt med AT. Hun blev udskrevet til hjemmet efter få dage til fortsat steroidbehandling. Ved ambulans kontrol angav hun, at hun var i velbefindende med nærmest normal tungefunktion. Desværre var synstabet på venstre øje irreversibelt på trods af langvarig steroidbehandling.

TABEL 1

Opfyldelse af minimum tre ud af fem kriterier er diagnostiske for arteritis temporalis. Adapteret efter American Rheumatology Association [1].

Kriterier	Definition
Alder \geq 50 år	Symptomer opstår efter det fyldte 50. år
Nytilkommet hovedpine	Nytilkommet eller ændring af tidligere beskrevet hovedpine
Abnorm arteria temporalis	Palpationsømhed eller nedsat pulsation ikke relateret til arteriosklerose
Forhøjet SR	SR \geq 50 mm/t.
Positiv arteria temporalis-biopsi	Histologisk verificeret vaskulitis med monocytinfiltration eller granulocytinflammation Ofte forekomst af multinukleære kæmpeceller

SR = erythrocytsedimentationsrate.

DISKUSSION

Tungenekrose er tidligere beskrevet som komplikation i forbindelse med lingval malignitet, herunder karcinom, lymfom og sarkom. Sjældnere beskrevne årsager er tidligere radioterapi mod hoved-hals-gebetet, trombose, infektion (syfilis og tuberkulose) og behandling med vasokonstriktorer [3]. De klassiske symptomer ved AT (Tabel 1) forekommer sjældent konsistent, hvorfor diagnosen kan forsinkes som beskrevet i sygehistorien. Her debuterede patienten med feber, og først senere tilkom der synsforstyrrelse og tungenekrose. Nytilkommet hovedpine er beskrevet hos op til 90% af patienter med AT [3], men ikke hos patienten i sygehistorien. Ydermere forstyrredes det kliniske billede af patientens nyopdagede atrieflimren og mistanke om infektion. Diagnostisk anses biopsi af arteria temporalis som guldstandard [4], og sensitiviteten angives til 70-90% [1]. Det anbefales at udtage minimum 1 cm af arterien, da de histologiske forandringer kan forekomme segmentært [4]. Hjørnesteinen i behandling af AT er højdosissteroid, prednisolon 1 mg/kg/dag, maks. 60 mg/dag [4]. En skærpnde omstændighed er forekomst af synspåvirkning, hvor intravenøs behandling kan være indiceret [1], og påbegyndelse af behandling bør ikke forsinkes af arteria temporalis-biopsi [1, 4, 5]. Ved længerevarende steroidbehandling anbefales det at tillægge osteoporoseprofylakse i form af calcium, D-vitamin og eventuelt bisfosfonater [5]. De fleste patienter bliver asymptomatiske efter 2-4 ugers behandling, men i studier har man påvist recidiv hos op til 50% af patienterne [5].

Denne sygehistorie understreger vigtigheden af at overveje AT ved feber uden oplagt fokus, specielt hos kvinder over 50 år. Tidlig behandling med højdosissteroid er af yderste vigtighed for at undgå mutilerende komplikationer som tungenekrose og synstab.

SUMMARY

Jonas Møller Larsen & Kristine Aabenhus:

Ischaemic necrosis of the tongue due to temporal arteritis
Ugeskr Læger 2017;179:V01170041

An 85-year-old woman was admitted to hospital due to newly onset of atrial flutter and fever. Biochemical workup showed elevated infection parameters. Empirical antibiotic treatment was initiated without convincing effect. The patient complained of tongue pain and decreased unilateral vision. Inspection showed white discolouration and necrosis of the left tongue margin. The patient was treated with high-dose steroid, and a temporal artery biopsy was performed. Histology showed giant cell arteritis. The patient responded to steroid treatment and was in progress at outpatient assessment.

KORRESPONDANCE: Jonas Møller Larsen.

E-mail: jonasmollerlarsen@gmail.com

ANTAGET: 17. marts 2017

PUBLICERET PÅ UGESKRIFTET.DK: 1. maj 2017

INTERESSEKONFLIKTER: Forfatterens ICMJE-formularer er tilgængelige sammen med artiklen på Ugeskriftet.dk

LITTERATUR

1. Ninan J, Lester S, Hill C. Giant cell arteritis. *Best Pract Res Clin Rheumatol* 2016;30:169-88.
2. Salvarani C, Cantini F, Hunder GG. Polymyalgia rheumatica and giant-cell arteritis. *Lancet* 2008;372:234-45.
3. Biehl MO, Hugi B, Posch L et al. Subtotal tongue necrosis in delayed diagnosed giant-cell arteritis: a case report. *Am J Otolaryngol* 2004; 25:438-41.
4. Mukhtyar C, Guillevin L, Cid MC et al. EULAR recommendations for the management of large vessel vasculitis. *Ann Rheum Dis* 2009;68:318-23.
5. Borchers AT, Gershwin ME. Giant cell arteritis: a review of classification, pathophysiology, geoepidemiology and treatment. *Autoimmun Rev* 2012;11:A544-A554.