

## ΣΥΝΔΡΟΜΟ ΑΝΗΣΥΧΩΝ ΑΚΡΩΝ ΣΕ ΑΣΘΕΝΗ ΜΕ ΕΝΔΟΕΓΚΕΦΑΛΙΚΗ ΑΙΜΟΡΡΑΓΙΑ: ΠΑΡΟΥΣΙΑΣΗ ΠΕΡΙΣΤΑΤΙΚΟΥ

Γεώργιος Ευσταθίου, Κωνσταντίνος Νταςόπουλος, Αιμίλιος Γκαντζιός, Θεόδωρος Αβραμίδης

Νευρολογική Κλινική, ΓΝΑ «Κοργιαλένιο - Μπενάκειο», Ελληνικός Ερυθρός Σταυρός

### Περίληψη

Το σύνδρομο ανήσυχων άκρων αποτελεί μία αισθητικοκινητική διαταραχή της οποίας η αιτιολογία δεν έχει διευκρινιστεί πλήρως. Μία σχετικά σπάνια αιτία αυτού του συνδρόμου είναι το εγκεφαλικό επεισόδιο που προσβάλλει κυρίως υποφλοιώδεις δομές. Εδώ παρουσιάζεται η περίπτωση ενός ασθενούς, που εμφάνισε το σύνδρομο μετά από αμφοτερόπλευρη ενδοεγκεφαλική αιμορραγία.

**Λέξεις ευρετηρίου:** αιμορραγικό ΑΕΕ, θάλαμος, σύνδρομο ανήσυχων άκρων

## RESTLESS LEGS SYNDROME IN A PATIENT WITH INTRACEREBRAL HEMORRHAGE: A CASE REPORT

Georgios Efstathiou, Konstantinos Ntasopoulos, Aimilios Gkantziotis, Theodoros Avramidis

Neurology Department, Red Cross Hospital "Korgialeneio - Benakeio", Athens

### Summary

Restless legs syndrome is a sensorimotor disorder with unclear etiology. Rarely the syndrome may be caused by a stroke affecting subcortical structures. Here we present the case of a patient who developed the syndrome after bilateral thalamic hemorrhage.

**Keywords:** intracerebral hemorrhage, thalamus, restless legs syndrome

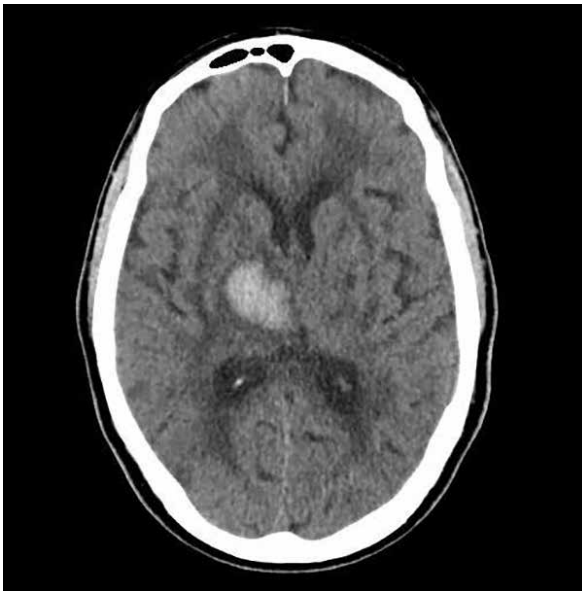
### Παρουσίαση περιστατικού

Το σύνδρομο ανήσυχων άκρων είναι μία όχι και τόσο συχνή επιπλοκή του αγγειακού εγκεφαλικού επεισοδίου. Στην παθογένεση του συνδρόμου φαίνεται ότι ο θάλαμος παίζει κεντρικό ρόλο χωρίς όμως μέχρι στιγμής να έχουν διευκρινιστεί πλήρως οι εμπλεκόμενες δομές και νευρωνικά κυκλώματα. Εδώ παρουσιάζεται μία περίπτωση ασθενούς που εμφάνισε σύνδρομο ανήσυχων άκρων μετά από ενδοεγκεφαλική αιμορραγία αριστερού θαλάμου και με ιστορικό αιμορραγίας του δεξιού θαλάμου προ έτους.

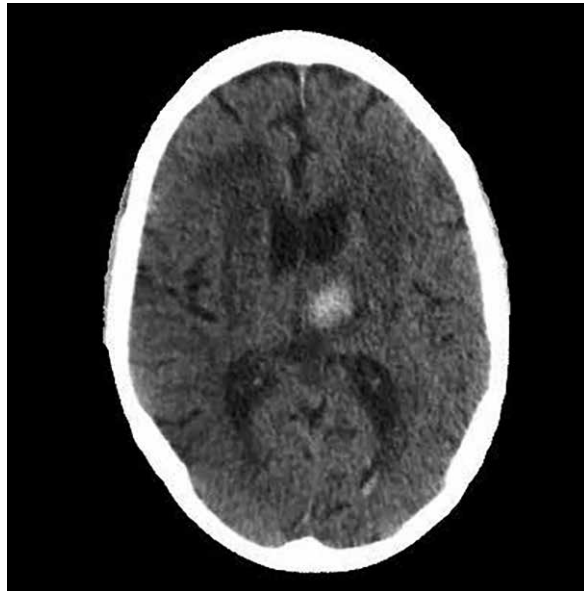
Άνδρας 63 ετών διεκομίσθη στο ΤΕΠ λόγω αιφνίδιας εμφάνισης έντονων κεφαλαλγίας. Από το ατομικό του αναμνηστικό αναφέρονται αρτηριακή υπέρταση πλημμυρώδως ρυθμιζόμενη και νοσηλεία στην κλινική μας προ έτους λόγω ενδοεγκεφαλικής αιμορραγίας δεξιού θαλάμου με υπολειμματική αριστερή ημιπά-

ρση (ο ασθενής ήταν περιπατητικός με τη χρήση βακτηρίας). Από την κλινική εξέταση προέκυψε αυχενική δυσκαμψία με σημείο Barre δεξιού άνω άκρου και αδιάφορο πελματιαίο αντακλιαστικό δεξιά καθώς και σπαστική αριστερή ημιπάρεση 4/5 (υπολειμματική). Η αξονική εγκεφάλου των επειγόντων ανέδειξε ενδοεγκεφαλική αιμορραγία αριστερού θαλάμου με επέκταση στην τρίτη κοιλία. Η CTA δεν ανέδειξε κάποιο ανεύρυσμα. Από τον εργαστηριακό έλεγχο (γενική αίματος, πλήρης βιοχημικός έλεγχος, θυρεοειδικός και ανοσολογικός έλεγχος) δεν διαπιστώθηκε κάποιο παθολογικό εύρημα πλην ήπιας δυσλιπιδαιμίας. Η αιμορραγία αποδόθηκε στην αρρύθμιστη αρτηριακή πίεση. Τις επόμενες ημέρες της νοσηλείας του ο ασθενής εμφάνιζε κατά περιόδους κινήσεις των κάτω άκρων με εμφανές το αίσθημα της δυσφορίας. Ανέφερε ότι ένιωθε την ανάγκη να κινεί τα πόδια του για

**Εικόνα 1.** Ενδοεγκεφαλική αιμορραγία δεξιού θαλάμου (η πρώτη αιμορραγία)



**Εικόνα 2.** Ενδοεγκεφαλική αιμορραγία αριστερού θαλάμου (μετά από αυτή τη βλάβη ο ασθενής εμφάνισε τη συμπτωματολογία του συνδρόμου ανήσυχων άκρων)



να ανακουφίσει ένα δυσάρεστο αίσθημα τάσεως που ένιωθε στα περιφερικά τους τμήματα και το οποίο υποχωρούσε μερικώς με την κίνηση των άκρων. Οι κινήσεις αυτές εμφανίζονταν κυρίως στην ύπτια θέση και ήταν πιο συχνές τις απογευματινές-νυχτερινές ώρες και προκαλούσαν στον ασθενή αύπνια καθώς δυσκόλευαν την έναρξη του ύπνου. Ο ασθενής δεν εμφάνιζε κλινική εικόνα πολυνευροπάθειας και επίσης δεν παρατηρήθηκαν ακούσιες κινήσεις των άκρων κατά τον νυκτερινό ύπνο. Με βάση την κλινική εικόνα και το φυσιολογικό εργαστηριακό έλεγχο τέθηκε η διάγνωση του συνδρόμου ανήσυχων άκρων συνεπεία εγκεφαλικού επεισοδίου. Ο ασθενής τέθηκε σε αγωγή με κλοναζεπάμη (0,5mg το μεσημέρι και 0,5mg πριν το νυκτερινό ύπνο) με σημαντική βελτίωση της συχνότητας και της έντασης των συμπτωμάτων.

### Συζήτηση

Το σύνδρομο ανήσυχων άκρων είναι μία κινητική διαταραχή κατά την οποία οι ασθενείς νιώθουν την έντονη ανάγκη να κινούν συνεχώς τα άκρα τους για να ανακουφίσουν τις δυσαισθησίες που εμφανίζουν σε αυτά. Αυτό το δυσάρεστο αίσθημα αφορά κυρίως τα κάτω άκρα και υποχωρεί μερικώς ή πλήρως με την κίνηση των άκρων. Οι κινήσεις αυτές τείνουν να εμφανίζονται όταν το άτομο βρίσκεται κατακεκλιμένο και εμφανίζουν μία κικκάδια διακύμανση καθώς είναι πιο έντονες τις νυχτερινές ώρες πριν την κατάκλιση εμποδίζοντας πολλή φορές την έναρξη του ύπνου. Σε ποσοστό 80% μάλιστα συνδυάζονται και με ακούσιες περιοδικές κινήσεις των άκρων κατά τον ύπνο (periodic limb movement disorder). Η συχνότητα

του συνδρόμου υπολογίζεται στο 3,9-15% του γενικού πληθυσμού, εμφανίζεται με διπλάσια συχνότητα στις γυναίκες και η επίπτωσή του αυξάνεται με την αύξηση της ηλικίας. Το σύνδρομο μπορεί να είναι είτε ιδιοπαθές είτε δευτεροπαθές συνεπεία χαμηλών τιμών σιδήρου, στα πλαίσια εγκυμοσύνης, νεφρικής ανεπάρκειας και μετά από ΑΕΕ. Για την παθογένεση του συνδρόμου έχουν ενοχοποιηθεί διαταραχές στις ντοπαμινεργικές οδούς του εγκεφάλου. Στη θεραπεία του συνδρόμου χρησιμοποιούνται οι αγωνιστές ντοπαμίνης, η ληβοντόπα και οι βενζοδιαζεπίνες<sup>1</sup>.

Η εμφάνιση συνδρόμου ανήσυχων άκρων μετά από ΑΕΕ είναι μία σχετικά ασυνήθης επιπλοκή<sup>2</sup> με τη συχνότητα της να αναφέρεται στο 3,3-12,4% των ασθενών με ΑΕΕ<sup>3,4</sup> τόσο στην οξεία φάση του ΑΕΕ όσο και αρκετούς μήνες μετά. Συνήθως οι βλάβες που προκαλούν το σύνδρομο εντοπίζονται υποφλοιωδώς και αφορούν τα βασικά γάγγλια, τη γέφυρα, τον προμήκη και τον ακτινωτό στέφανο<sup>1,3</sup> με τα συμπτώματα να εμφανίζονται είτε ετερόπλευρα είτε αμφοτερόπλευρα αναλόγως της εντόπισης της βλάβης<sup>2</sup>. Η εμφάνιση του συνδρόμου μετά από θαλαμικό έμφρακτο είναι αρκετά σπάνια με ελάχιστες περιπτώσεις να έχουν περιγραφεί<sup>5, 6</sup>.

Παρά το ότι δεν έχουν διευκρινιστεί πλήρως τα νευρωνικά κυκλώματα που εμπλέκονται στην παθογένεση του συνδρόμου, ο θάλαμος φαίνεται ότι διαδραματίζει σημαντικό ρόλο. Η κρατούσα αντίληψη είναι ότι το σύνδρομο ανήσυχων άκρων είναι μία πρωτοπαθώς αισθητική διαταραχή με δευτερεύον κινητικό στοιχείο. Έχει διαπιστωθεί ότι ο θάλαμος ασθενών με RLS παρουσιάζει μειωμένο μεταβολισμό στο έσω τμήμα του,

η λειτουργία του οποίου διαμεσολαβείται από ντοπαμινεργικές προσαγωγές ίνες καθώς και ότι υπάρχει διαταραχή των νευροδιαβιβαστών που εμπλέκονται στο ενδογενές σύστημα οπιοειδών<sup>7</sup>. Αυτό εικάζεται ότι οδηγεί σε μία παθολογική αντίληψη της αίσθησης του πόνου<sup>7,8</sup> και κατά συνέπεια στις συνεχείς κινήσεις των άκρων. Ακόμη έχει διαπιστωθεί μειωμένη συνδεσιμότητα του θαλάμου αυτών των ασθενών με τη δεξιά παραϊπποκάμπεια έλικα, το δεξιό προσηνοειδές λόβιο, τη δεξιά προκεντρική έλικα και τις γλωσσοειδείς έλικες αμφοτερόπλευρα<sup>9</sup>. Το ενδιαφέρον στη δική μας περίπτωση είναι ότι το σύνδρομο εμφανίστηκε στην οξεία φάση του ΑΕΕ ενώ όμως είχε προηγηθεί βλάβη και του έτερου θαλάμου.

### Βιβλιογραφία

- [1] Guo S, Huang J, Jiang H, et al. Restless Legs Syndrome: From Pathophysiology to Clinical Diagnosis and Management. *Front Aging Neurosci.* 2017;9:171.
- [2] Woo HG, Lee D, Hwang KJ, Ahn TB. Post-stroke restless leg syndrome and periodic limb movements in sleep. *Acta Neurol Scand.* 2017 Feb;135(2):204-210.
- [3] Tomohiko S, Keisuke S, Madoka O, Takeo M, Koichi H. Restless legs syndrome and its variants in acute ischemic stroke. *Acta Neurol Scand.* 2019 Mar;139(3):260-268.
- [4] Lee SJ, Kim JS, Song IU, An JY, Kim YI, Lee KS. Poststroke restless legs syndrome and lesion location: anatomical considerations. *Mov Disord.* 2009 Jan 15;24(1):77-84.
- [5] Gupta N, Pandey S: Post-Thalamic Stroke Movement Disorders: A Systematic Review. *Eur Neurol* 2018;79:303-314.
- [6] David D. Restless Limbs Syndrome (RLS) Presenting as Hemisindrome: A Case of Dejerine-Roussy Syndrome Responsive to Dopamine Agonists. *Neurology* Apr 2014, 82 (10 Supplement)
- [7] Giovanni Rizzo, Caterina Tonon, Claudia Testa, David Manners, Roberto Vetrugno, Fabio Pizza. Abnormal medial thalamic metabolism in patients with idiopathic restless legs syndrome, *Brain*, Volume 135, Issue 12, December 2012, Pages 3712-3720.
- [8] Kocar TD, Müller H-P, Kassubek J. Differential functional connectivity in thalamic and dopaminergic pathways in restless legs syndrome: a meta-analysis. *Therapeutic Advances in Neurological Disorders.* January 2020.
- [9] Ku J, Cho YW, Lee YS, Moon HJ, Chang H, Earley CJ, Allen RP. Functional connectivity alteration of the thalamus in restless legs syndrome patients during the asymptomatic period: a resting-state connectivity study using functional magnetic resonance imaging. *Sleep Med.* 2014 Mar;15(3):289-94.