

RS3PE SENDROMU: BİR OLGU SUNUMU

A CASE OF RS3PE SYNDROME

Bengi ÖZ¹

Neşe ÖLMEZ¹

Asuman MEMİŞ¹

Nail HIZLI²

İzmir Atatürk Eğitim Hastanesi, İzmir

¹ Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Bölümü

² Dahiliye Bölümü Romatoloji Hastalıkları

Anahtar Sözcükler: RS3PE sendromu

Key Words: RS3PE syndrome

ÖZET

RS3PE (remitting seronegative, symmetric synovitis with pitting edema), romatolojik ve neoplastik hastalık ile beraber görülebilecek benign bir sendromdur. Bu yazıda, RS3PE sendromlu bir olgunun klinik, laboratuvar özellikleri tanımlanmıştır. Polimiyalji romatika (PMR) ile benzer özellikleri, ayırıcı tanı yapılması gereken birliktelik gösterebilecek hastalıklar üzerinde durulmuştur.

SUMMARY

Remitting seronegative, symmetric, synovitis with pitting edema (RS3PE), is a syndrome associated with rheumatologic and neoplastic diseases. The clinical and laboratory features of the case with RS3PE syndrome are described. We reviewed similar features of polymyalgia rheumatica, the differential diagnosis and associated diseases of RS3PE.

GİRİŞ

1985 yılında el tendon kılıflarının tenosinoviti ile karakterize, "simetrik" distal sinovit, el dorsumunda ve ayaklarda pitting ödem ve romatoid faktör seronegatifliği ile karakterize olan bu sendrom, Mc Carty tarafından tarif edilmiştir (1). Mc Carty'nin RS3PE tanımı ve kriterleri: (1) Bilateral her iki elde pitting ödem, 2) Poliartiritin akut başlaması, 3) Yaşın 50 yaşın üstünde olması, 4) Romatoid faktör negatifliğidir.

Hastalık çoğunlukla 60 yaş üstü erkeklerde gözlenmiştir. Benign karakterde bir hastalıktır. Radyografilerde artiküler erozyon gözlenmemesi ve düşük doz steroide (<10 mg Prdnizolon) dramatik yanıtı karakteristiktir (2,3,4). Residüel hafif eklem kısıtlılıkları gözlenebilir

(1,2,3). Sık tutulan eklemler sırasıyla MKF, PIF, el bileği, omuz, diz, ayak bileği ve dirseklerdir (5). Serolojik testler hafif-orta sedimantasyon yüksekliği dışında negatiftir (4). Remisyon 3 ile 36 ay içinde gerçekleşir (3). Rekürrens ise 18 ay ile 12 yıl arası, bazen de hiç görülmeyebilir (6). HLA B7 ile ilişkisi gösterilmiştir (2,4,7).

OLGU SUNUMU

57 yaşında bayan hastanın Ocak 2000'de bir boğaz enfeksiyonundan yaklaşık 2-3 hafta sonra ani başlayan omuz ve kalça kuşağında ağrı, diz, dizaltı ve ellerde simetrik şişlik, ağrı ve tutukluk şikayeti olmuş. Sabah tutukluğu 1 saatten fazla sürüyormuş. Yoğun ağrıları sebebiyle yataktan kalkamadığını, ellerindeki şişlikler sebebiyle parmaklarını yumamadığını

ve kaşık kullanmadığını belirten hastanın, bu şikayetler ile beraber gözlerinde kızarıklık ve başağrısı şikayetleri de mevcutmuş. Afyon Trafik Hastanesine başvuran hastanın bu dönemde ateşi 39° civarına yükselmiş ve 15 gün intaniye bölümüne yatırılmış. Burada yapılan tetkiklerinde sedimentasyon hızı 54/77 (1/2 saat-1 saat) olarak bulunmuş. Lökositoz ve trombositoz mevcutmuş. Brusella ve Salmonella aglütinasyon testleri negatifmiş. ASO titresi yükselmiş 724 IU ve IgM romatoid faktör negatifmiş. Karaciğer ve böbrek fonksiyon testleri ise normalmiş. Genel durumu düzelen hasta şiş eklemlerinde bir değişiklik olmadan taburcu edilmiş.

Nisan 2000'de İzmir Atatürk Devlet Hastanesi Fizik Tedavi ve Rehabilitasyon polikliniğine başvuran hastanın yapılan fizik muayenesinde her iki elinde belirgin derecede pitting ödemi mevcuttu. Beraberinde ısı artışı ve renk değişikliği yoktu. Palpasyonla hassasiyeti minimaldi. Pretibial bölgede ayak dorsumuna ulaşan hafif derecede pitting ödemi (+1) mevcuttu. Gözlerindeki batma, kaşınma kızarıklık konjuktivitle uyumluydu. Boyun hareketleri her yöne kısıtlı ve ağrılıydı. Temporal arter palpasyonunda hassasiyet yoktu ve nabızları açıktı. Omuz kuşağı kaslarında ve omuz eklem hareket açıklığı sınırlarında ağrı vardı. Dirseklerinde sağda 20°, solda 16° fleksiyon kontraktürü mevcuttu. Sağ dirsek 1000, sol 1100 fleksiyon yapabiliyordu. Bel hareketleri her yöne hareket sonunda ağrılıydı ve sakroiliak kompresyon testleri bilateral pozitif. Dizde efüzyonu yoktu. Tüm metatarsofalangeal eklemlerin palpasyonu ağrılıydı. Hastanın el-elbileği, sakroiliak eklem, boyun, dirsek ve diz grafileri normaldi.

Hastanın yatışından sonra başlanan non steroid anti-inflamatuar ilaçlara klinik yanıt alınmadı. Gözlerindeki kızarıklık ve batma, göz hastalıkları hekimi tarafından bilateral konjuktivit olarak değerlendirildi. Göz bulguları başlanan antibiyoterapiye yanıt vermedi ve NSAİİ içeren göz damlası başlanması ile geriledi. Yoğun başağrısı nöroloji hekimi tarafından gerilim tipi başağrısı olarak değerlendirildi.

Sakroiliak eklem kompresyon testinin pozitifliği sebebiyle istenen sakroiliak bilgisayarlı tomografide dejeneratif değişiklikler gözlemlendi.

Hastanın ödemini açıklayacak dahili bir sebep bulunamadı. Tiroid fonksiyon testleri, böbrek fonksiyon testleri normaldi ve kalp yetmezliği bulguları mevcut değildi.

Hastanın tekrarlanan tetkiklerinde IgM romatoid faktör negatifliği ve sedimentasyon hızı normal sınırlarda devam etti. ASO titresi ise azalmakla beraber yüksekliğini sürdürdü. Boğaz kültürü sonucu üreme olmadı. ANA titresi 1/40 düşük titrede pozitif olarak değerlendirildi.

Hastaya RS3PE tanısıyla Prednizolon 10 mg 1x1 başlandı. Hastanın ödemleri 2. gün azaldı ve 3 gün tamamen kayboldu. RS3PE ile birlikte neoplazm görülebilme olasılığı sebebiyle istenen abdominal ultrasonografide, solid kısmı olan adneksiyel kitle (30x25 mm) saptandı. CA (125)'i normal CA 19-9'u yüksek (64) bulunan hasta kadın hastalıkları ve doğum bölümünde opere edildi. Total abdominal histerektomi ve bilateral salpingo-oofektomi, vagen üçgen lamda çıkarımı, Moskowitz operasyonu uygulandı. Patoloji materyali adenomiyom, kronik servisit ve sağ over basit kist olarak değerlendirildi. Hasta şu anda takibimizde izlenmektedir.

TARTIŞMA

RS3PE kriterleri oldukça açık olmasına rağmen ayırıcı tanısı oldukça güç olan bir sendromdur.

RS3PE'nin bir sendrom mu yoksa bir hastalık mı olduğu konusunda da tartışmalar vardır. Bunun sebebi RS3PE tanısı almış kişilerde ileride farklı romatolojik hastalıkların geliştiğinin gözlenmesidir (8). Bunlar arasında romatoid artrit (1,4), sjögren sendromu (9,4), spondiloartropati (4), polimyaljia romatika (PMR) (10) vardır.

Bunun yanında "gerçek" RS3PE olarak tanımlanan bir grup hasta tarif edilmiştir. Bu hastalar klinik, demografik ve el-elbileği manyetik rezonans görüntüleme bulguları açısından PMR hastalarından farklılık göstermezler (2).

PMR tanı kriterleri içinde 1 ay süreli boyun-omuz pelvik kuşak arkında var olan ağrı ve tutukluk, 1 saatten fazla süren sabah tutukluğu, hastanın >50 yaş olması yer almaktadır (11). Fakat PMR; daha uzun süren, daha çok sistemik semptomlar ile ilişkili, daha uzun süre daha yüksek doz steroid gerektiren ve daha fazla relaps ve rekürrens gösteren bir hastalıktır. RS3PE ve PMR -bir hastalığın hafif ve ağır olmak üzere iki farklı kutbu olarak yorumlanmıştır (12). Fakat Contini ve ark., RS3PE'nin PMR'ya benzer özellikleri olmasına rağmen farklı bir antite olduğunu belirtmiştir (2).

Ellerde pitting ödemle seyreden diğer hastalıklardan ayırt edilmelidir. Bunlar; romatoid artrit, geç başlangıçlı periferik spondiloartropati (LOPS), reaktif artrit, miks kollajen doku hastalığı, psoriatik artrit, CPPD kristal artropatisi, amiloid artropatisidir (3).

Romatoid artrit erozyonların varlığı ve RF (+)'liği ile, LOPS'dan asimetric ve daha çok alt ekstremitte tutulumunun olmasıyla (14,15), reaktif artrit asimetric tutulum ve gastrointestinal ve genitoüriner bulgularının olması, deri ve göz bulguları ile, miks kollajen doku hastalığı yüksek ANA titresi ile, psoriatik artrit tipik deri bulgusu ile, CPPD kristal artropatisi radyolojik kondrokalsinozis ile, amiloid artropatisi artiritik ilaçlara cevapsızlık ile ayrılır (3).

Hastamız RS3PE tanı kriterlerini karşılamaktadır. Radyografilerinde erozyon görülmemesi

ve düşük doz steroide hızlı yanıt vermesi tanımızı desteklemiştir. ANA titresinin düşüklüğü miks kollajen doku hastalığı tanısından uzaklaştırmıştır. Bunun yanında RS3PE hastalarında da düşük titre ANA pozitifliği gözlenmiştir (5).

Konjunktivit varlığı ve öncülük eden streptokoksik enfeksiyon öyküsü reaktif bir olayı düşündürmektedir. Literatürde, BCG intra-vezikal uygulanması ve abse sonrası gelişen RS3PE tanımlanmış ve RS3PE'nin reaktif doğada bir artrit olabileceği üzerinde durulmuştur (15,16). Fakat artrit simetrik özelliği, sakroiliak eklem tutuluşunun olmaması ve ellerde ödem varlığı klasik reaktif artrit tanısından uzaklaştırmaktadır.

RS3PE'nin neoplastik hastalıklarla birlikteliği birçok çalışmada bildirilmiştir (17,18,19). Özellikle solid tümörler (adeno karsinom, gastrik, prostatik, kolik karsinom) çalışmalarda tarif edilmiştir. Bu tip hastaların genelde düşük doz steroide yanıtları iyi değildir ve genel durum bozukluğu ve bazen ateş ile beraber klasik RS3PE kliniği sergileyebilirler (5,20). Neoplazminin gelişiminden önce RS3PE tablosu gözlemlenebilir (18). Bu durum malignitenin tanısı ve tedavisinde önemli bir ilerleme sağlar. RS3PE diğer romatolojik ve neoplastik hastalıklara öncülük edebilecek benign seyirli bir sendromdur. Tanı konduğunda hasta izlemi önem taşır.

KAYNAKLAR

1. Mc Carty DJ, O' Duffy JD, Pearson L, et al. Remitting seronegative symmetrical syrovitis with pitting edema RS, PE syndrome JAMA/ 1985; 254: 2763-7.
2. Cantini F, Salvaroni L. Remitting seronegative symmetrical syrovitis with pitting oedema RS,PE syndrome: a prospective follow up and magnetic resonance imaging study. Ann Rheum Dis 1999; 58: 230-6.
3. Daniel J MC. Clinical Picture of Rheumatoid Arthritis: In:Mc Carty DJ,William JK,eds.Arthritis and Allied Conditions. Philadelphia;Lee and Febiger, 1989; 715-742
4. Finnell JA, Cuesta IA. Remitting seronegative symmetrical syrovitis with pitting edema (RS,PE) syndrome: a review of the literature and a report of three cases. J Foot Ankle Surg 2000; 39(3): 189-93.
5. Sibille J, Friess S, Schoeverbeke T, et al. Remitting seronegative symmetrical syrovitis with pitting edema (RS,PE): a form of paraneoplastic polyarthritis? J Rheumatol 1999; 26 (1): 115-20.
6. Schaefferbeke T, Fatout E, Marce S, et al. Remitting Seronegative Symmetrical synovitis with pitting oedema : disease or syndrome. Ann Rheum Dis 1995; 54(8): 68 1-4.
7. Roblot P, Zaim A, Azais I, et al. RS3PE: a clinical diagnosis, a prognosis more simple than its name Rev Med Interne 1998; 19(8): 542-7.
8. Olivieri J, Salvaroni C, Cantini F. RS3PE sendrome: on overview Clin Exp Rheumatol 2000; 18 (4 Suppl 20): 553-5.
9. Cobeta Garcia JC, Martinez Burgul I. RS3PE syndrome or benign edematous polysynovitis in the elderly. Study of 8 cases Rec Clir Esp 1999; 199(12): 785-9.
10. Salvani C; Gabriel S, 1-lundar GG. Distal Extremity swelling with pitting edema in polymyalgia rheumatica. Arthritis Rheum 1996; 39: 73-80.

11. Eker D. Sistemik vaskulitler: etiopatogenez, tanı ve tedavi açısından genel yaklaşım. İçinde: Eker D, Gürbüz G, eds. Klinik Romatoloji. Ege Romatoloji 1999; 388.
12. Climmino MA, Silvestri E, Garlosli G. Remitting Seronegative symmetrical synovitis pitting oedema (RS3PE) as recurrence of aborted PMR. Ann Rheum Dis 2001; 60(3): 303
13. Dubost JJ, Sauvezie B. Late onset peripheral spondyloarthropathy. J Rheumatol 1989; 16: 1214-7.
14. Olivieri I, Oranges GS, Sconosciuto F, et al. Late onset periferal seronegative spondyloarthropathy: report of two additional cases J Rheumatol 1993; 20: 390-3.
15. Mouly S, Berenbaum F, Kaplan G. Remitting seronegative symmetrical synovitis with pitting edema following intravesical bacillus Calmette-Guerin insitillation. J Rheumatol 2001; 28(7): 1699-701.
16. Torres A, Cuende E, De Pabhos M, et al. Remitting seronegative symmetrical synovi subcutaneous Streptobacillus moniliformis abscess. J Rheumatol 2001; 28(7): 1696-8.
17. Cantini F, Salvaroni C, Olivieri I. Paraneoplastic remitting seronegative symmetrical synovitis with pitting oedema Clin Exp Rheumatol 1999; 17(6): 741-4.
18. Vinci M, Maleguarnera L, Pistone G. RS3PE and ovarian cancer Ann Rheum Dis 2001; 60(4): 429-31.
19. Ethiopia A, Bell D Gastric carcinoma in association with remitting seronegative symmetrical synovitis with pitting edema J Rheumatol 1999; 26(1): 67-8.
20. Olivo D, Mattace R. Concurance of benign edematous polysynovitis in the elderly (RS3PE syndrome) and endometrial adenocarcinoma Scand J Rheumatol 1997; 26(1): 67-8.