

## Balneoterapinin Neden Olduğu Hemifasiyal Flushing ve Hiperhidrosiz: Harlequin Sendromu

### Balneotherapy-induced Hemifacial Flushing and Hyperhidrosis: Harlequin Syndrome

Erkan KAYA, Selçuk ÖZDOĞAN\*, Ali Hikmet KAYAR, Mehmet Zeki KIRALP\*\*

Bursa Asker Hastanesi, Fizik Tedavi ve Rehabilitasyon Servisi, Bursa

\*Bursa Asker Hastanesi, Dermatoloji Servisi, Bursa

\*\*Gülhane Askeri Tıp Akademisi, Haydarpaşa Eğitim Hastanesi, Fizik Tedavi Kliniği, İstanbul, Türkiye

#### Özet

Harlequin sendromu hemifasiyal terleme ve kızarıklık ile karakterize nadir görülen bir durumdur. Özellikle egzersiz ve sıcaklık sırasında görülür. Servikal sempatik zincirde sudomotor ve vazomotor bozukluk vardır. Genellikle sempatik defisit yüz bölgesiyle sınırlıdır. Nadir olarak kollarda ve siliyer gangliyondaki parasempatik nöronlarda otonomik defisit vardır. Biz burada balneoterapinin indüklediği yüzün sağ yarısında flushing ve terleme artışı olan 47 yaşında kadın hastayı sunduk. Sol hemifasiyal anhidrosiz ve sempatik deri yanıtını göstermek için iyot-nişasta testini kullandık. *Türk Fiz Tıp Rehab Derg 2009;55:179-81.*

**Anahtar Kelimeler:** Balneoterapi, flushing, harlequin sendromu, hemifasiyal, hiperhidroz

#### Summary

Harlequin syndrome is a rare condition characterized by hemifacial flushing and sweating, particularly during exercise and heat. There are sudomotor and vasomotor deficits in the cervical sympathetic chain. The sympathetic deficits are usually restricted to the face. Rarely, autonomic deficits affect the arm or the parasympathetic neurons of the ciliary ganglia. We report a 47-year-old woman who presented with facial flushing and sweating in the right side, which were mainly induced by balneotherapy. We used the starch-iodine test to show left hemifacial anhidrosis and the sympathetic skin response. *Turk J Phys Med Rehab 2009;55:179-81.*

**Key Words:** Balneotherapy, flushing, harlequin syndrome, hemifacial, hyperhidrosis

#### Giriş

Harlequin Sendromu (HS) genellikle sıcakla ve egzersizle ortaya çıkan yüzün sadece bir yarısında görülen terleme ve flushing ile karakterizedir. Vazomotor ve sudomotor nöronlarda etkilenme nedeniyle termoregulasyonda bozulma söz konusudur (1,2). Bu durum İtalyan palyaço veya İngiliz pandomim sanatçılarının yüz makyajlarını anımsatması nedeniyle Harlequin sendromu olarak adlandırılmıştır (2,3).

Çoğunlukla idiyopatik olarak değerlendirilmekte birlikte superior mediastinal nörinom (4), boyun cerrahisi (5) ile ilişkili vaka sunumları da bildirilmiştir. Benzer özellikler gösteren Horner sendromundan farkı hastada pitozis ve myozis yoksuludur. Ross sen-

dromundan ise segmental anhidrozis, tonik pupil ve derin tendonlarda hiporefleksi olmayışı ile ayrılır (2,6-7).

HS tedavi gerektirmeyen benign bir durum olup bu yazıda, balneoterapi sırasında HS gelişen bir olgu ilgili literatür eşliğinde sunulmuştur.

#### Olgu

Kırk yedi yaşında kadın hasta, servikal disk hernisi tanısı ile kaplıca tedavisi görmek için hastanemizin Fizik Tedavi ve Hidroklimatoloji servisine kabul edildi. Kürün ilk tedavi gününde, 15 dakika banyo tedavisi sonrasında 45 dakika süren hemifasiyal flushing ve kontrolateral anhidrozis görüldü. Hastaya 1 yıl önce tiroid bezinde nodül olduğu söylenmiş ancak herhangi bir tedavi verilmemiş. Yak-

**Yazışma Adresi/Address for Correspondence:** Dr. Erkan Kaya, Bursa Asker Hastanesi, Fizik Tedavi ve Rehabilitasyon Servisi, Bursa, Türkiye

Tel: +90 224 239 38 41 E-posta: doktorerkankaya@yahoo.com **Geliş Tarihi/Received:** Eylül/September 2008 **Kabul Tarihi/Accepted:** Şubat/February 2009

© Türkiye Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Dergisi, Galenos Yayıncılık tarafından basılmıştır. Her hakkı saklıdır. / © Turkish Journal of Physical Medicine and Rehabilitation, Published by Galenos Publishing. All rights reserved.

İlaık 1 yıldır devam eden boyun ağrıları nedeniyle hastaya 3 ay önce servikal disk hernisi tanısı konulmuş. Bunların dışında hastanın özgeçmişinde özellik yoktu. Hastanın normal oda sıcaklığında yapılan muayenesinde her iki yüz arasında herhangi bir renk farkı yoktu. Hastada miyozis ve pitozis yoktu. Üst ekstremitte muayenesi normaldi. Derin tendon refleksleri bilateral normoaktifti. Sol koltuk altı ateş dijital termometre ile 36,6°C iken sağ koltukaltı ateş 36,8°C idi. Boynun ultrasonografik incelenmesinde en büyüğü 11x3 mm olan reaktif lenf nodu dışında diğer yumuşak dokular normaldi. Karotis Doppler incelenmesinde vasküler yapı traseleri, kalibrasyonları doğal olup spektral incelemede anlamlı hemodinamik değişiklik oluşturan veya oluşturmayan herhangi bir plak formasyonu veya stenotik segment saptanmadı. Toraks tomografisi ve kraniyal tomografi normaldi. Servikal ve üst torakal vertebra manyetik rezonans görüntülümde C5-C6 düzeyinde parasantral alanda protrüzyon mevcuttu. Sol anterior subaraknoid aralık oblitere, tekal kese ve korda hafif bası izlenmekteydi. Osteofit disk kompleksi nedeniyle sol nöral foramende daralma ve sinir kökü minimal basısı izlenmekteydi.

Hastanın hemifasiyal terleme azlığını gösterebilmek için iyot-nişasta testi uygulandı. İyot nişasta testinde inceleme yapılacak deri üzerine iyotlu solüsyon (batikon) sürülür. İyotlu solüsyon hafifçe kuruduktan sonra cilde mısır nişastası serpilir (Resim 1). Terlemenin olduğu bölgelerde siyah renk değişikliği gözlenir. Hastanın vücut ısısını arttırabilmek için hasta 15 dakika saunada beklendi. Hastanın sol yüz yarısında herhangi bir renk değişimi olmazken sağ tarafta terlemeyle birlikte siyah renk oluştu (Resim 2). Hastaya HS tanısı konularak hastalık hakkında bilgilendirme yapıldı. Hasta kliniğimizde yattığı süre içinde termal tedavi almaya devam etti. Aynı zamanda hastanın boyun bölgesine servikal diskopati tanısıyla 15 seans fizik tedavi (TENS, sıcak paket, ultrason, izometrik baş boyun egzersizleri) uygulandı. 21 günlük tedavisinin sonunda kür başlarında 45 dakika olan hemifasiyal flushing süresi 15 dakikaya indi.



Resim 1. İyot-nişasta testi.

## Tartışma

Aşırı egzersiz sonrası ve çeşitli nedenlere bağlı HS bildirilmiş olmasına rağmen balneoterapi sırasında bugüne kadar bildirilmiş vaka bulunmamaktadır. İlk kez 1988 yılında Lance ve ark. (1) tarafından 5 olguyla bildirilmiştir. Yüzün sempatik innervasyonunda hipotalamustan orijin alan nöronlar spinal kordun lateral hornunda sekonder nöronlarla sinaps yapar. Yüzün innervasyonundaki sudomotor ve vazomotor liflerin çoğu T2-T3 seviyesinde spinal kordu terk ederek sempatik zincirle beraber seyrederek superior servikal gangliyonda sinaps yapar. Yüzün alın ve burun bölgesini innerve eden lifler internal karotid arter boyunca ilerlerken yüzün diğer kısmını innerve eden lifler ise eksternal karotid arter boyunca ilerler. Okulosempatik lifler spinal kordu T1 seviyesinden terk eder. Üst ekstremitelerin sempatik lifleri ise T4 seviyesinden spinal kordu terk eder (6,8). Bu anatomik bilgiler ışığında etkilenen liflerin muhtemel yerleri vazomotor ve sudomotor belirtilerin görülme yerlerine göre tespit edilebilir.

Wagner ve Swell (9), dokuz aylık bir bebekte konjenital kalp hastalığını düzeltme operasyonunda bir saat süren ve yüzün sağ tarafına lokalize flushingden klinik bir varyasyon olarak bahsetmişler, ancak HS'ye değinmemişlerdir. İki yaşında bebek bir hastada kistik higromanın cerrahi olarak çıkartılmasında genel anestezi altında hemifasiyal eritem bildirilmiş olup bu vakada öksürme



Resim 2. Hemifasiyal renk değişikliği.

ve ağlama ile flushingde artış bildirilmiştir (4). Üç aylık diğer bir çocuk hastada sol sempatik zincirde nöroblastoma nedeniyle Horner sendromu gelişmiş, tümörün çıkartılması sonrasında ağlama ve sıcakla artan hemifasiyal flushing bildirilmiştir (10). Erişkin hastalardan da bir vakada internal juguler ven kataterizasyonuna bağlı perioperatif hemifasiyal flushing bildirilmiştir (11). Yine 55 yaşında sol mastektomi yapılacak hastaya torasik paravertebral anestezi sırasında ortaya çıkan HS'den bahsedilmiştir (12). Sportif aktivitelere bağlı olarak da 18 yaşında ve 51 yaşında iki sporcu da HS bildirilmiştir (7).

T2 veya T3 kökündeki sempatik lezyon Horner sendromu görülmeden terlemenin artışı ve flushingi açıklayabilir. Bizim hastamızda da sağ tarafta görülen flushing ve terlemede artış Lance'in (1) bildirdiği gibi sol taraf sempatik zincirde görülen bozulmaya karşı verilen aşırı aktivite sonucunda olabilir.

Bundan önceki yayınlarda HS için herhangi bir tedavi önerilmemektedir. Kozmetik olarak sosyal açıdan hastada toplum içinde aşırı utanmaya neden oluyorsa kontrolateral sempatektomi önerilebilir (6). Biz de hastamıza HS hakkında bilgi vererek kaplıca kür tedavisi ile birlikte servikal diskopatiye yönelik uyguladığımız 15 seans fizik tedavi programına devam ettik. Tedavi sonrasında belirtilerin şiddetinde azalma gözlenmesi fizik tedavinin sempatik liflerde düzenleme yaratabileceğini düşündürdü.

Sonuç olarak HS nadir görülen klinik bir durum olup, HS görülen hastalar da fizik tedavi ve rehabilitasyon etkin bir tedavi sağlamaktadır.

## Kaynaklar

1. Lance JW, Drummond PD, Gandevia SC, Morris JGL. Harlequin syndrome: the sudden onset of unilateral flushing and sweating. *J Neurosurg Psychiatry* 1988;51:635-42. [Abstract] / [PDF]
2. Corbet M, Abernethy DA. Harlequin syndrome. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1999;66:544. [Abstract] / [PDF]
3. Shin RK, Galeta SL, Ting T, Armstrong K, Bird SJ. Ross syndrome plus: beyond horner, Holmes-Adie, and harlequin. *Neurology* 2000;55:1841-6. [Abstract] / [Full Text]
4. Noda S. Harlequin syndrome due to superior mediastinal neuroinoma. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1991;54:744. [PDF]
5. Turco GR, Faber NE. Postoperative autonomic deficit: a case of harlequin syndrome. *Anesthesiology* 1996;85:1197-9. [Full Text]
6. Wasner G, Magg R, Ludwig J, Binder A, Schattschneider J, Stingele R, et al. Harlequin syndrome-one face of many etiologies. *Nature Clinical Practice Neurology* 2005;1:54-9. [Full Text]
7. Fallon KE, May JJ. Harlequin syndrome in two athletes. *Br J Sports Med* 2005;39:1. [Abstract] / [Full Text] / [PDF]
8. Drummond PD. The effect of sympathetic blockade on facial sweating and cutaneous vascular responses to painful stimulation of the eye. *Brain* 1993;116:233-41. [Abstract] / [Full Text] / [PDF]
9. Wagner DL, Swell AD. Harlequin color changes in an infant during anesthesia. *Anesthesiology* 1985;62:695. [Abstract] / [Full Text]
10. Padda GS, Cruz OA, Silen M, Krock JL. Skin conductance responses in paediatric Harlequin syndrome. *Paediatr Anaesth* 1999;9:159-62. [Abstract] / [PDF]
11. Coleman PJ, Goddard JM. Harlequin syndrome following internal jugular vein catheterization in an adult under general anesthesia. *Anesthesiology* 2002;97:1041. [Full Text] / [PDF]
12. Burlacu CL, Buggy DJ. Coexisting harlequin and horner syndromes after high thoracic paravertebral anaesthesia. *Br J Anaesth* 2005;95:822-4. [Abstract] / [PDF]