



OLGU SUNUSU

FORESTIER HASTALIĞI VE DİSFAJİ

Dr. Gaffar ASLAN¹, Dr. Azmi HAMZAOĞLU²

¹Florence Nightingale Hastanesi, Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı, İstanbul, Türkiye

²Florence Nightingale Hastanesi, Ortopedi, İstanbul, Türkiye

ÖZET

Diffüz idiyopatik iskelet hiperostozisi (Forestier hastalığı) paravertebral ligaman ve kasların encondral ossifikasyonu sonucu gelişen yaygın spinal osteofit oluşumları ile karakterizedir. Forestier hastalığında, mekanik obstrüksiyona bağlı olarak gelişen disfaji, oldukça nadir görülür ve progresyon gösterir. Tedavi erken dönemde konservatiftir, ileri aşamada ise cerrahi olarak osteofitler eksize edilir. Bu makalede, C3-5 seviyesinde osteofitler nedeniyle farengeal pasajı daralan ve disfaji yakınması olan hasta sunulmuştur. Hastanın osteofitleri transservikal yaklaşım ile çıkarılmış ve disfajisi düzelmiştir.

Anahtar Sözcükler: Disfaji, paravertebral osteofit

FORESTIER'S DISEASE AND DYSPHAGIA

SUMMARY

Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis (Forestier's Disease) is characterized by the formation extensive spinal osteophytes due to enchondral ossification of the paravertebral ligaments and muscles. Dysphagia resulting from mechanical obstruction is a symptom in the course of the disease. When dysphagia occurs, it follows a progressive clinical course. The treatment of choice is conservative in the early period and surgical excision of the osteophyte in the late symptomatic period. In this article, we present a case of Forestier's disease who had osteophytes in the C3-5 level narrowing the pharyngeal lumen. The patient's osteophytes were excised surgically by transcervical route and dysphagia has disappeared.

Keywords: Dysphagia, paravertebral osteophyte

GİRİŞ

Diffüz idiyopatik iskelet hiperostozisi (DISH) paravertebral ligaman ve kasların en-kondral ossifikasyonu sonucu gelişen yaygın spinal osteofit oluşumları ile karakterizedir^{1-3,5-8}. İlk olarak 1950'de Forestier ve Rotes-Querol tarafından anterolateral paravertebral ligaman kalsifikasyonu olarak tarif edilmiştir^{1-3,6,9}. Literatürde Forestier hastalığı, senile ankylosing hyperostosis ve spondylitis ossificans ligamentosa olarak da adlandırılmaktadır¹. Servikal spondilozis yaşlılarda rölatif olarak yaygındır. Radyolojik olarak DISH 40 yaş üzeri erkekleri % 38, kadınları ise %2.6 oranında etkilemektedir^{4,9}. Servikal vertebral kemiklerdeki değişiklikler özellikle posterior yüzdendir ve sıklıkla sinir kökü veya spinal kordu komprese ederek nörolojik semptomlara yol açar. Anterior yerleşimli osteofitler ise hastaların çoğunda görülse de genellikle asemptomatiklerdir⁵.

Disfaji kulak burun boğaz hekimlerince sık karşılaşılan bir semptomdur².

DISH asemptomatik veya nörovasküler kompresyon, ses kısıklığı, stridor, boğazda yabancı cisim hissi, boyun ağrısı, öksürük, boyun hareketlerinde azalma, otalji, odinofaji ve disfajiye yol açabilir^{1,3,7,8,10-13}.

DISH'in servikal bölgeyi etkilediği erişkin popülasyonun sadece %0.1-6'sında disfaji görülür^{2,7}. Disfajinin ayırıcı tanısında bu durum göz ardı edilmemelidir.

Bu makalede, C3-5 seviyesinde osteofit oluşumuyla farengeal lümeni daraltarak disfajiye sebep olan hastada anterolateral transservikal yaklaşımla uygulanan cerrahi tedavi sonucu sunulmuş, konu ile ilgili literatür gözden geçirilmiştir.

OLGU SUNUSU

Altı aydır giderek artan yutma güçlüğü şikayetiyle kliniğimize başvuran 62 yaşında kadın hastanın videolaringoskopik muayenesinde posterior farengeal duvarı postkrikoid alana doğru iten submukozal kitlesel oluşum saptadık. Lateral servikal grafide C3 distalinden C4-5 corpus anterioruna uzanan ekzostoz mevcuttu (Resim 1). Baryumlu farenks-özofagus pasaj graflerinde bu ekzostotik yapıların hipofarenksi ileri derecede daralttığı izlendi (Resim 2). Servikal bilgisayarlı tomografide ise osteofitler servikal vertebra önünde posterior

İletişim kurulacak yazar: Dr. Gaffar ASLAN, Florence Nightingale Hastanesi, Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı, İstanbul, Türkiye, Tel: +90 212 2244950 Faks: +90 212 2244982 E-mail: cgaslan@hotmail.com

Gönderilme tarihi: 5 Haziran 2004, üçüncü revizyon isteme tarihi : 5 Nisan 2006, yayın için kabul edilme tarihi: 8 Nisan 2006



farengeal duvarı anteriora doğru itmekteydi (Resim 3). Boynun fleksiyon ve ekstansiyon hareketleriyle instabilite bulgusu saptanmadı. Hastanın sedimantasyon ve HLA-B27 değerleri normaldi ve diğer incelemelerinde de patolojik bulgu saptanmadı.



Resim 1. Lateral servikal radyografik görüntüde C3 distalinden C4-5 corpus anterioruna uzanan ekzostoz.



Resim 2. Baryumlu farenks-özofagus pasaj grafilerinde ekzostotik yapıların hipofarenksi daraltma görüntüsü.

Anterolateral transservikal yaklaşımla vertebra anteriorunda periost elevasyonu ile osteofitik yapılara ulaşıldı. Osteofitik oluşumların vertebra önünde sınırları ayırt edilebiliyordu.



Resim 3. Servikal bilgisayarlı tomografide osteofitik oluşumlar ve servikal vertebra önünde posterior farengeal duvarın anteriora doğru itilme görüntüsü.



Resim 4. Postoperatif direkt servikal grafide C3-C5 vertebra korpusları önünde herhangi bir patolojik oluşum izlenmemekte.

Patolojik oluşumlar, uç kısmı yüzeye 30 derece açılı osteotom ve çekiç yardımıyla sağlam vertebra sınırından öne doğru ayrılarak eksize edildi. Operasyon sırasında osteofitik yapıların tam eksizyonundan emin olmak için skopi yapıldı ve bu şekilde prevertebral alan, normal sınırlara kadar



osteofitik yapılardan temizlendi. İnstabilite bulgusu olmadığından vertebra fiksasyonu yapılmadı.

Hastanın ağrı kontrolü non-steroid antiinflamatuvar ilaçlar ile, beslenmesi ise postoperatif 7.güne kadar sıvı-yumuşak gıdalarla sağlandı. Postoperatif videolarinoskopik kontrol muayenesinde operasyona bağlı gelişen posteriorfarengeal duvardaki şişlik 8. güne kadar giderek azaldı. Postoperatif 1. ayda, yutma güçlüğü'nün tamamen gerilediğini belirten hastanın, videolarinoskopik muayenesinde, posterior farengeal duvarın normal anatomik pozisyonunda olduğu izlendi. Servikal grafilerinde ise C3-C5 vertebra korpusları önündeki lezyonun ortadan kalktığı belirlendi (Resim 4).

TARTIŞMA

Mosher, ilk olarak 1926 yılında servikal osteofite sekonder gelişen disfajiyi rapor etmiştir¹. DISH paravertebral ligaman ve kasların ossifikasyonu ile karakterizedir ve ilk kez 1950 de Forestier ve Rotes-Queral tarafından tanımlanmıştır⁶. 1976' da Resnick ve arkadaşları tarafından DISH 'e bağlı gelişen disfaji olgusu yayınlanmıştır. Yapılan otopsielerde DISH %6-%12 sıklıkta görülür^{6,7}.

DISH'in etyolojisi ve patogenezi tam olarak bilinmemektedir^{1,2,6}. Araştırmalar; 1) stres travması, 2) akromegali, hipoparatiroidizm, diabetes mellitus (yaklaşık % 20) somatostatin seviyesinin yükselmesi gibi endokrin bozukluklar, 3) ankilozan spondilit, 4) genetik faktörler; HLA-B27, HLA-B5 ve HLA-A11, 5) enfeksiyon hastalıkları, 6) nöroartropatiler ve 7) hipervitaminosis A gibi faktörlerle ilgisi olduğunu göstermektedir^{1,14}. HLA-B27 DISH' li hastaların % 27 sinde bulunmuştur. Yapılan kan incelemelerinde sedimentasyon normal sınırlarda bulunur, HLA-B27 ise yüksek çıkabilir⁸.

Disfajinin ayırıcı tanısında boyun, mediasten veya medulla spinalis tümörleri, özefajitler, özefajial strüktürler, aberan damarsal oluşumlar, Zenker divertikülü, nöromusküler bozukluklar ve krikofarengeal spazm düşünülmelidir^{1,3,6}. Disfoni disfajiyle birlikte veya tek başına olabilir. Disfoni postkrikoid alana hiperostotik yapının direkt teması ile aritenoid hareketlerinin kısıtlanması veya n.larengus inferiora direkt bası sonucu oluşabilir¹.

DISH tanısı radyolojik olarak konulur^{1-3,5,7-9}. Lateral grafilerde vertebra anterioru boyunca hiperosteoz izlenir. Lateral grafilerde tipik olarak vertebra komşuluğunda dışarı sarkan ossifikasyonlar vardır. Dejeneratif disk ve sakroiliak veya faset inflamatuvar değişiklikler görülmez. DISH' de başlangıçta lateral grafilerde vertebra korteksi anterior yüzünde hiperosteozis vardır. İlerlemiş

vakalarda vertebra anterior sınırından intervertebral alana uzanan dışı büyümeler izlenir. Bu büyümeler düz, yumru veya irregüler tarzda olabilir. Postkrikoid alana doğru vertebra önünden uzanan osteofitler disfaji ve aspirasyon pnömonilerine yol açabilir. Osteofitler vertebra korteksine sıkı bir şekilde yapışmıştır⁸.

Baryumlu farengo-özefageal pasaj grafileriyle obstrüksiyonun durumu, servikal bilgisayarlı tomografik kesitlerde de vertebra komşuluğunda hiperostotik yapıların lokalizasyonu oldukça iyi bir şekilde tanımlanabilir. Rijit veya fleksibl endoskopik muayenede larenks, hipofarenks ve posterior farengeal alandaki patolojik yapılar direkt olarak belirlenebilir^{1-3,5,6}.

DISH' in semptomatik olduğu fakat çok ileri durumda olmayan vakalarda konservatif yaklaşım olarak non-steroid antiinflamatuvarlar, steroidler, kas gevşeticiler ve antireflü tedavilerle fayda sağlanabilir^{1-4,6,7}.

İlerlemiş disfaji, persistan ağrı ve aşırı kilo kaybı gibi durumlarda cerrahi tedavi yapılır. Anterolateral trans-servikal yaklaşımla osteofitektomi oldukça etkili bir tedavi yöntemidir. Bu yaklaşım larengeal sinir paralizisi, Horner sendromu, felç ve servikal instabilite gibi cerrahi komplikasyonlara yol açabilir¹. Bizim hastamıza uyguladığımız anterolateral yaklaşım karotis, juguler ven, vagus, ve C3-7 vertebraları seviyesinde yeterli görüş alanı sağlamaktadır ancak rekürren larengeal sinir için risk teşkil edebilir¹. Posterolateral yaklaşım geniş prevertebral görüş sağlamasına rağmen karotisin aşırı ekstansiyonuna gerek duyulur, bu yaklaşımda da karotis ve sempatik zincir yaralanması riskleri mevcuttur. Uppal ve Wheatley tarafından tanımlanan peroral transfarengeal yaklaşımda C1-4 seviyesi osteofitlerinde nörolojik komplikasyon oranının düşük olması nedeniyle tercih edilebilir fakat bu yöntemde de orofarengeal floranın potansiyel kontaminasyonu vardır. Bu lokalizasyonda kontaminasyondan kaçınmak için posterolateral yaklaşım da tercih edilebilir^{1-3,6,15}.

DISH' in cerrahi tedavisinden sonra literatürde değişik sonuçlar bildirilmesine rağmen yeniden rekürren ossifikasyonu söz konusudur. Bu hastaların uzun süre takipleri gerekmektedir. Bizim hastamızın 1 yıllık takibinde problemle karşılaşılmamıştır.

KAYNAKLAR

1. Khtar S, O'Flynn PE, Kelly A, Valentine PM. The management of dysphasia in skeletal hyperostosis. J Laryngol Otol. 2000 Feb;114(2):154-7. (PMID: 10748839)



2. Kmucha ST, Cravens RB Jr. DISH syndrome and its role in dysphagia. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 1994 Apr;110(4):431-6. (PMID: 8170689)
3. Jonathan D, Baer S. Cervical osteophytes: their significance in ENT practice (ankylosing vertebral hyperostosis-Forestier's disease). *J Laryngol Otol.* 1990 Mar;104(3):236-8. (PMID: 2341780)
4. Andersen PM, Fagerlund M. Vertebrogenic dysphagia and gait disturbance mimicking motor neuron disease. *J Neurol Neurosurg Psychiatry.* 2000 Oct;69(4):560-1. (PMID: 10990527)
5. Goel R, Sampath P, Mikaelian DO. Dysphagia caused by cervical osteophytes: three cases treated successfully by surgery. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 1999 Jan;120(1):92-6. (PMID: 9914555)
6. Eviatar E, Harell M. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis with dysphagia (a review). *J Laryngol Otol.* 1987 Jun;101(6):627-32. (PMID: 3496409)
7. Deutsch EC, Schild JA, Mafee MF. Dysphagia and Forestier's disease. *Arch Otolaryngol.* 1985 Jun;111(6):400-2. (PMID: 3873932)
8. Ebo D, Goethals L, Bracke P, Mercelis R, De Clerck LS. Dysphagia in a patient with giant osteophytes: case presentation and review of the literature. *Clin Rheumatol.* 2000;19(1):70-2. (PMID: 10752505)
9. Mata S, Fortin PR, Fitzcharles MA, Starr MR, Joseph L, Watts CS, Gore B, Rosenberg E, Chhem RK, Esdaile JM. A controlled study of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. Clinical features and functional status. *Medicine (Baltimore).* 1997 Mar;76(2):104-17. (PMID: 9100738)
10. Papakostas K, Thakar A, Nandapalan V, O'Sullivan G. An unusual case of stridor due to osteophytes of the cervical spine: (Forestier's disease). *J Laryngol Otol.* 1999 Jan;113(1):65-7. (PMID: 10341924)
11. Çağavi F, Kalaycı M, Uğur MB, Uzun L, Asil K, Açıkgöz B. Disfaji ve diffüz idiyopatik iskelet hiperostoza: Olgu sunumu. *Türk Nöroşirürji Dergisi.* 2004; 14(2): 146-150.
12. Katılmış H, Öztürkcan S, Özdemir İ, Hakkı A, Feran HG. Forestier Hastalığı, *Türk Otolarengoloji Arşivi,* 2002; 40(4):292-297.
13. Gencay S, Yavuz H, Yilmazer C. [Dysphagia due to a cervical osteophyte: a case report] *Kulak Burun Bogaz Ihtis Derg.* 2003;10(6):240-3. (PMID: 13679692)
14. Weinfeld RM, Olson PN, Maki DD, Griffiths HJ. The prevalence of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) in two large American Midwest metropolitan hospital populations. *Skeletal Radiol.* 1997 Apr;26(4):222-5. (PMID: 9151370)
15. Uppal S, Wheatley AH. Transpharyngeal approach for the treatment of dysphagia due to Forestier's disease. *J Laryngol Otol.* 1999 Apr;113(4):366-8. (PMID: 10474677)