

Disfaji ve Diffüz İdiopatik İskelet Hiperostozu: Olgu Sunumu

Dysphagia and Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis: Case Report

ÖZ

Disfaji, servikal tutulumu olan diffüz idiyopatik iskelet hiperostozu (DISH) vakalarında karşılaşılan semptomlardan birisidir. Bu yazıda, disfaji ve aspirasyon şikayetleri olan 77 yaşında erkek diffüz idiyopatik iskelet hiperostozu vakası ösefagografi, servikal 3-D BT ve boyun MRG görüntüleri ile takdim edildi. Anterior servikal yaklaşımla hiperostoz olan yapılar temizlendi ve postoperatif dönemde hastanın disfaji ve aspirasyon şikayetleri tamamen düzeldi. Bu vakanın eşliğinde DISH'in klinik özellikleri, radyolojik tanı kriterleri ve cerrahi endikasyonları gözden geçirildi.

ANAHTAR SÖZCÜKLER: Disfaji, diffüz diopatik iskelet hiperostozu, DISH forestier hastalığı.

ABSTRACT

Dysphagia is one of the symptoms that is seen in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) cases. A man who is 77 years old patient with the case of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis was presented with barium swallow, cervical 3-D CT and neck MRI photographs. Hyperostosis bone was resected by the anterior servical approach, then dysphagia and aspiration was eliminated. In this study clinical features, radiologic diagnostic criteries and surgical indication of DISH are discussed.

KEY WORDS: Dysphagia, diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, DISH forestier disease.

Ferda ÇAĞAVI¹
Murat KALAYCI¹
Mehmet Birol UĞUR²
Lokman UZUN²
Kıyasettin ASIL³
Bektaş AÇIKGÖZ¹

- 1 Karaelmas Üniversitesi Tıp Fakültesi Nöroşirürji Anabilim Dalı, Zonguldak
- 2 Karaelmas Üniversitesi Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı, Zonguldak
- 3 Karaelmas Üniversitesi Tıp Fakültesi Radyoloji Anabilim Dalı, Zonguldak

Geliş Tarihi: 03.12.2003

Kabul Tarihi: 03.05.2004

Yazışma adresi:

Ferda ÇAĞAVI

Zonguldak Karaelmas Üniversitesi
Tıp Fakültesi, Nöroşirürji Anabilim Dalı
67600, Zonguldak

Tel : 0 372 2610169 / 1588

Faks : 0 372 2610155

E-posta : cagavif@yahoo.com

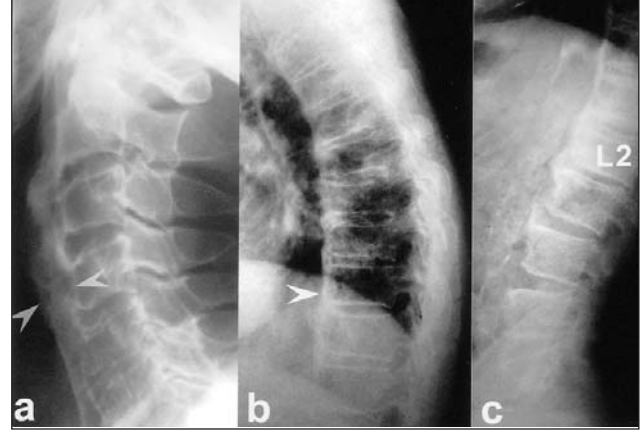
GİRİŞ

Diffüz idiyopatik iskelet hiperostozu (DISH) (diğer adlarıyla ankilozan hiperostozis, Forestier Hastalığı, spondylitis ossificans ligamentosa) dejeneratif, travmatik veya post-enfeksiyöz değişiklikler olmaksızın yeni kemik oluşumu ile karakterize, yaşla ilgili kronik bir durumdur. DISH ile ilgili ilk yazılı bilgi 1824 de Wenzel tarafından yayınlanmıştır (25). Forestier ve Rotés-Querol'ün 1950 de bu hastalığın anatomik, klinik ve radyolojik özelliklerini içeren yayınından (8) sonra hastalık, Forestier Hastalığı olarak da anılmaya başlandı. Resnick tarafından 1975 de bu klinik tablo, diffüz idiyopatik iskelet hiperostozu (DISH) olarak isimlendirildi (18) ve günümüzde bu terminoloji kabul gördü.

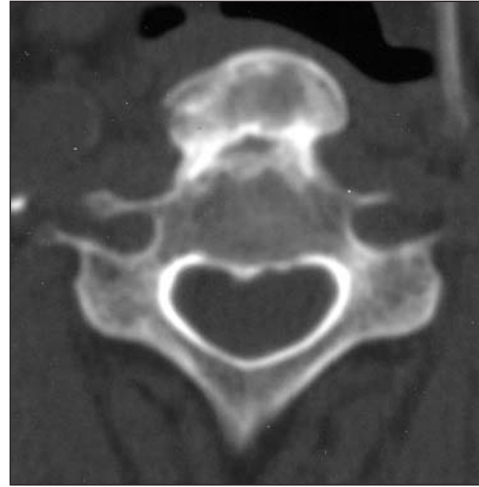
DISH'de en sık omurgada ağrı, sertlik, hareket kısıtlılığı görülmekle birlikte karşılaşılan semptomlardan birisi de disfajidir. Servikal tutulumu olan DISH hastalarında disfaji görülme sıklığı %28 dir (20). Bu yazıda disfaji ve aspirasyon şikayetleri olan 77 yaşında bir DISH vakası takdim edildi ve DISH'in klinik özellikleri, tanı yöntemleri ve cerrahi endikasyonları gözden geçirildi.

OLGU SUNUMU

77 yaşında erkek hasta, bir yıldır olan ve son altı aydır artan yutma güçlüğü şikayeti ile önce KBB sonra Nöroşirürji polikliniğine başvurdu. Özellikle sıvı gıdaları yutarken sık sık akciğerine kaçtığından şikayetçiydi. Solunum sıkıntısı, ses kısıklığı ve ağrılı yutma şikayeti yoktu. Hasta zayıftı ve diyabet öyküsü yoktu. Hastanın nörolojik muayenesi ve laboratuvar tetkikleri (kan biyokimyası, ESR, BK) normaldi. Hastanın yan servikal grafisinde C2 nin anterior inferior kısmından başlayıp tüm servikal vertebraların ön yüzünde uzanan diffüz hiperostoz görüldü. Özellikle C3-C4 seviyesinde belirgin kalınlaşma mevcuttu (Şekil 1A). Vertebra korpuslarının ön kısmı ve anterior longitudinal ligamentin ossifiye olan ön kısmının oluşturduğu "çift anterior sınır işareti" görüldü. İntervertebral disk mesafeleri C5-6 hariç normaldi. Hastanın yan torakal ve lomber grafilerinde de vertebra ön yüzünde uzanan hiperostoz yapıları görüldü (Şekil 1B,1C). Servikal BT de belirgin hiperostoz mevcuttu (Şekil 2,3). Hastada disfajiye neden olabilecek başka bir patolojiyi ekarte etmek için boyun MRG ve endoskopi yapıldı. Boyun MRG de ösefagusa



Şekil 1: A Yan servikal grafide "çift anterior sınır işareti" (ok) B, Yan torakal grafide vertebra korpusu ön yüzlerinde anterior longitudinal ligament ossifikasyonu (ok) C, Yan lomber grafide L1-3 vertebra korpusu ön yüzlerinde anterior longitudinal ligament ossifikasyonu

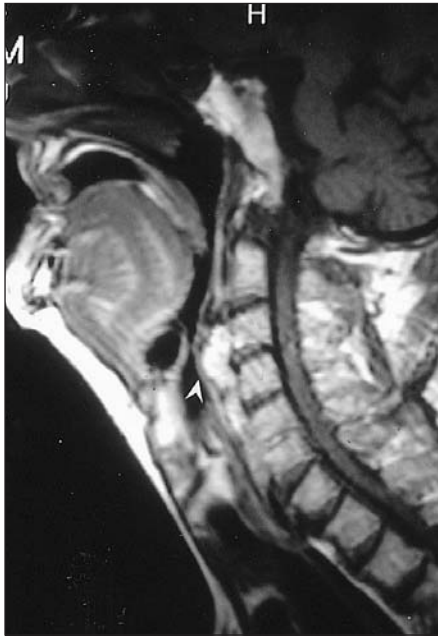


Şekil 2: Servikal BT, C4 seviyesi görünümü

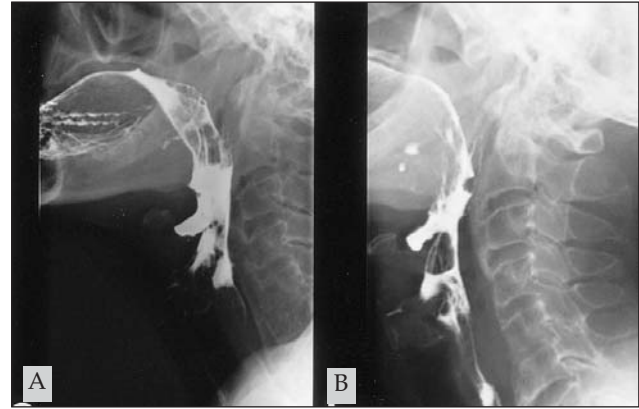


Şekil 3: Servikal omurganın 3-D BT görünümü

osteofit basısı dışında disfajiye neden olabilecek başka bir patoloji saptanmadı (Şekil 4). Endoskopide servikal vertebralardaki hiperostozise bağlı protrüzyonun, ösefagusu posteriordan daralttığı görüldü. Ösefagografi yapılan hastada işlem sırasında aspirasyon olması nedeniyle tetkik sonlandırıldı. Alınabilen görüntülerde C5 seviyesinde ösefagusa belirgin bası olduğu, C4 seviyesinin altına baryum geçişinin iyi olmadığı görüldü (Şekil 5A). Diffüz idiyopatik iskelet hiperostozu (DISH) tanısı koyulan hastaya semptomlarının ağır olması nedeniyle cerrahi girişim planlandı. Anterior servikal yaklaşımla yüksek devirli tur (Midas Rex, Medtronic, Fort Worth, USA) kullanılarak hiperostoz olan yapılar temizlendi. Kanayan kemik yapıda bonewax ile hemostaz yapıldı. Anterior stabilizasyon yapılmadı. Cerrahi sonrası hastanın yutmasında kademeli olarak düzelme görüldü. Kontrol servikal BT de basıya neden olan yapıların temizlenmiş olduğu görüldü. 1. ay kontrolünde yutmasının tamamen düzeldiği, sıvı gıdaları rahatlıkla aspire etmeden içebildiği öğrenildi. Postop 1. ayda yapılan kontrol ösefagografide kontrast maddenin aşağıya rahatlıkla geçişi görüldü (Şekil 5B). 1 ay kontrolünde çekilen fleksiyon, ekstansiyon servikal grafilerinde dislokasyon görülmeydi.



Şekil 4: Boyun MRG T1 ağırlıklı sagittal kesitte ösefagusa bası yapan ossifiye anterior longitudinal ligament (ok)



Şekil 5: Baryumlu ösefagografi; (A) Preop tetkikte C4 seviyesinin altına belirgin geçiş görülmedi. (B) Postop 1. ay kontrolünde baryum geçişi belirgin olarak görüldü

TARTIŞMA

DISH'e erkeklerde kadınlara göre 2 kat daha fazla rastlanmaktadır (14,22). Her iki cinsde de yaş ve kilo ile ilişkili olarak görülme sıklığı artmaktadır (14,22). Görülme sıklığı 65 yaş üzerinde erkeklerde %10, kadınlarda %8 dir. 45 yaş altında nadiren görülür (22). Dünyada bütün kıtalarda bildirilmesine rağmen Kafkasyalılarda daha sık görülmektedir (9,22). Hastalığın etyolojisi kesin olarak bilinmemektedir. Günümüze kadar HLA da spesifik bir marker bulunamamıştır (3,22). Hastalık genellikle Tip II diabet ve obesite ile birlikte bildirilmiştir (1,3). DISH hasta popülasyonunda Tip II diabet % 13-50 oranında görülmektedir (22). Etiyolojide vitamin A toksisitesinden de şüphelenilmektedir (22).

DISH ligament, tendon ve fasiada ossifikasyon ve kalsifikasyon ile karakterize bir hastalıktır. En sık tutulum omurgada olmaktadır. Bunun dışında pelvis, patella, kalkaneus ve olekranon diğer tutulum gösteren yerlerdir (3). Omurgada %97 torakal, %90 lomber, %78 servikal vertebralarda, %70 oranında ise her üç segmentte birden tutulum olmaktadır (9). Torakal ve servikal bölgenin daha çok orta ve alt segmentlerinde de tutulum görülmektedir (3). Hastalığın tipik özelliği ardışık vertebralarda yeni kemik oluşumu ile köprü oluşması ve beraberinde disk dejenerasyonunun olmamasıdır (22). Hastalığın önemli özelliklerinden bir diğeri sakroiliak eklemden tutulum olmamasıdır (3,22). Ayrıca apofizyal eklemler normal veya hafif sklerotiktir (3). DISH de yeni kemik oluşumu genellikle anterior longitudinal ligamentte izlenir.

Torakal vertebralar immobil olduklarından yeni kemik oluşumu bir vertebradan diğerine kesintiye uğramadan akar tarzda devam eder. Torakal bölgede özellikle sağ tarafda yeni kemik oluşumu daha sık görülmektedir, solda az görülmesinin nedeni belki de aortanın basınç etkisine bağlı yeni kemik oluşumunun engellenmiş olmasıdır (22). Mobil olan servikal ve lomber bölgede torakal bölgeye göre daha fazla horizontale uzanım gösteren kemik köprüler görülmektedir (22).

DISH için radyolojik olarak üç tanı kriteri mevcuttur; 1) Ardışık en az iki vertebrada anterolateralde kalsifikasyon ve kemik köprü olması 2) Tutulan segmentlerde intervertebral disk mesafesinin normal veya hafif azalmış olması 3) interapofizyal eklemlerde ankilozun olmamasıdır (3,19,21). DISH de ossifiye ligament altındaki korteks sağlam kalır. Anterior longitudinal ligamentin derin (korpusa yakın) kısımlarında kalsifiye olmayan kısımlar bulunur. Bu yüzden yan düz grafide vertebra korpuslarının ön kısmından geçen hat ile anterior longitudinal ligamentin ossifiye olan ön kısmını oluşturan hat arasında ince transparan bir görünüm olur ve bu durum "çift anterior sınır" işareti olarak isimlendirilir (3).

DISH'de en sık karşılaşılan semptomlar omurgada ağrı ve sertlik, hareket kısıtlılığı, ösefagus kompresyonuna bağlı disfajidir (3). DISH'de nadiren posterior longitudinal ligament veya ligamentum flavum ossifikasyonuna bağlı olarak servikal ve torakal bölgede spinal kord basısı, lomber bölgede spinal stenoza neden olabilir (6,11,13,22). Bazı hastalarda vertebral foramene bası sonucu sinir kökü irritasyonu ile oluşan semptomlarla da karşımıza çıkabilir (3). Trakea ve larynks bası yaparak solunum sıkıntısı ve ses kısıklığı yapması çok nadirdir (12,16). Ayrıca DISH'e bağlı yabancı cisim hissi olabilir (12).

DISH'de kan biyokimya değerleri ve eritrosit sedimentasyon hızı normaldir (22). Direk grafi ve BT patolojiyi göstermede yardımcı olur. Disfaji olgularında basının yerini tesbit etmek için baryumlu ösefagografi oldukça yararlıdır (9). Anatomik olarak ösefagus iki yerde, krikoid kartilaj ve diyafram seviyesinde etraf dokularla sabitlenmiştir. Bu iki yer dışında ösefagus boyundan abdomene kadar mobilidir. Bu nedenle krikoid seviyesinde küçük bir osteofit bile disfajiye neden olabilmektedir (7). Disfaji ve aspirasyon genellikle

C4-C5 seviyesindeki osteofite bağlıdır (1). Bizim takdim ettiğimiz vakada da yapılan baryumlu ösefagografi tetkikinde ösefagusa basının C5 seviyesinde olduğu görülmüştür. İntrensek bir ösefagus hastalığını elimine etmek için bu hastalara endoskopi de yapılmalıdır (9).

Servikal tutulumu olan DISH'de görülen disfaji, iki mekanizmayla açıklanabilir. Birincisi farinks ve ösefagusa hiperostoz yapılarının yaptığı mekanik bası, ikincisi ise, hiperostoz yapıya komşu yumuşak dokuda gelişen inflamasyondur (7,15).

Disfaji şikayeti olan DISH hastalarında, öncelikle diyet değişikliği ve antiinflamatuvar tedavi uygulanabilir (5,17). Diyet değişikliğine olumlu cevap alınamayan hastalarda veya kliniği ağır olan hastalarda cerrahi düşünülmelidir (9,12). Takdim edilen vakada ileri derecede yutma güçlüğü ve sıvı gıdaları aspirasyon öyküsü olduğu, hatta baryumlu ösefagografi tetkiki sırasında aspirasyon gerçekleştiği için hastaya diyet değişikliği önerilmeden cerrahi tedavi uygulandı. DISH cerrahisinde anterior servikal yaklaşımla yüksek devirli tur yardımıyla hiperostoz olan yapıların temizlenmesi önerilmektedir (9). DISH vakalarında diskektomi, spinal stabilizasyon veya interbody füzyon gerekli değildir (2,9). Anterior servikal yaklaşım güvenli bir cerrahi yaklaşımdır, fakat rekürren laryngeal sinirin yaralanması ve fistül gelişmesi gibi riskler vardır (1,12). Posterolateral yaklaşım prevertebral alanda geniş bir alan sağlar, fakat karotid kılıfın daha fazla retraksiyonu gerektiği için karotid arter ve sempatik zincirin zedelenmesi riski yüksektir (4). C2 seviyesinde DISH tutulumu olan vakalarda peroral transfaringeal yaklaşım bildirilmiştir (13,24). Cerrahi sonrası prognoz değişkenlik göstermektedir. Uzun dönem (4.5 yıl) takip olan bir seride % 65 rekürrens bildirilmiştir (10). Suzuki cerrahi sonrası disfajisi düzelen iki hastada yeniden ossifikasyona bağlı nüks ve daha sonrasında kemik grefti ile immobilizasyon bildirmiştir (23). Jonathan'ın sunduğu cerrahi uygulanan üç hastanın birisinde postop kardiak arrest gelişmiş, diğer iki hastanın üç yıllık takibinde hiçbir semptom görülmediği bildirilmiştir (12).

Sonuç olarak disfaji yakınması olan DISH hastalarında konservatif tedavi hastanın kliniğine göre tercih edilir. Ağır semptomatik hastalarda cerrahi gereklidir.

KAYNAKLAR

1. Akhtar S, O'Flynn PE, Kelly A, Valentine PM: The management of dysphasia in skeletal hyperostosis. *J Laryngol Otol* 114:154-157, 2000
2. Burkus JK: Esophageal obstruction secondary to diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Orthopedics* 11:717-720, 1988
3. Cammisa M, De Serio A, Guglielmi G: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Eur J Radiol* 27 Suppl 1:S7-S11, 1998
4. Carrau RL, Cintron FR, Astor F: Transcervical approaches to the prevertebral space. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 116:1070-1073, 1990
5. Deutsch EC, Schild JA, Mafee MF: Dysphagia and Forestier's disease. *Arch Otolaryngol* 111:400-402, 1985
6. Epstein NE: Simultaneous cervical diffuse idiopathic skeletal hyperostosis and ossification of the posterior longitudinal ligament resulting in dysphagia or myelopathy in two geriatric. *North Americans. Surg Neurol* 53:427-431, 2000
7. Eviatar E, Harell M: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis with dysphagia (a review). *J Laryngol Otol* 101:627-632, 1987
8. Forestier J, Rotés-Querol J: Senile ankylosing hyperostosis of the spine. *Ann Rheum Dis* 9:321-330, 1950
9. Greenberg MS: *Handbook of Neurosurgery*, beşinci baskı, New York: Thime, 2001, 336 s
10. Hirano H, Suzuki H, Sakakibara T, Higuchi Y, Inoue K, Suzuki Y: Dysphagia due to hypertrophic cervical osteophytes. *Clin Orthop* 167:168-172, 1982
11. Johnsson KE, Petersson H, Wollheim FA, Saveland H: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) causing spinal stenosis and sudden paraplegia. *J Rheumatol* 10:784-789, 1983
12. Jonathan D, Baer S: Cervical osteophytes: their significance in ENT practice (ankylosing vertebral hyperostosis--Forestier's disease). *J Laryngol Otol* 104:236-238, 1990
13. Jun BY, Yoon KJ, Crockard A: Retro-odontoid pseudotumor in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Spine* 27:E266-270, 2002
14. Kiss C, O'Neill TW, Mituszova M, Szilagyi M, Donath J, Poor G: Prevalence of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in Budapest, Hungary. *Rheumatology* 41:1335-1336, 2002
15. Kmucha ST, Cravens RB Jr: DISH syndrome and its role in dysphagia. *Otolaryngol Head Neck Surg* 110:431-436, 1994
16. Matan AJ, Hsu J, Fredrickson BA: Management of respiratory compromise caused by cervical osteophytes; a case report and review of the literature. *Spine J* 2:456-459, 2002
17. Ozgocmen S, Kiris A, Kocakoc E, Ardicoglu O: Osteophyte-induced dysphagia; report of three cases. *Joint Bone Spine* 69:226-229, 2002
18. Resnick D, Shaul SR, Robins JM: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH): Forestier's disease with extraspinal manifestations. *Radiology* 115:513-524, 1975
19. Resnick D, Niwayama G: Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Radiology* 119:559-568, 1976
20. Resnick D, Shapiro RF, Weisner KB, Niwayama G, Utsinger PD, Shaul SR: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Semin Arthritis Rheum* 7:153-187, 1978
21. Resnick D: Degenerative diseases of the vertebral column. *Radiology* 156:3-14, 1985
22. Smythe H, Littlejohn G: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. Klippel JH, Dieppe PA (ed), *Rheumatology*, ikinci baskı, London: Mosby, 1997:section 8 10.1-10.6 içinde
23. Suzuki K, Ishida Y, Ohmori K: Long term follow-up of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in the cervical spine. Analysis of progression of ossification. *Neuroradiology* 33:427-431, 1991
24. Uppal S, Wheatley AH: Transpharyngeal approach for the treatment of dysphagia due to Forestier's disease. *J Laryngol Otol* 113:366-368, 1999
25. Wenzel G: Ueber die krankheiten an ruckgrathe. *Wesche: Bamber*, 1824