

Disfajiye Neden Olan Diffüz İdiyopatik Skeletal Hiperostozis: Olgu Sunumu

Diffuse Idiopathic Hypertrophic Sclerosis Causing Dysphagia: A Case Report

T. ALİ ZIRH, TUNÇ ÖKTENOĞLU, M. NECMETTİN PAMİR, A. FAHİR ÖZER, CANAN ERZEN

Marmara Üniversitesi Tıp Fakültesi Nöroşirürji (TAZ, TÖ, MNP, AFÖ) ve Radyoloji (CE) Anabilim Daları, Altunizade, İstanbul

Özet : Disfajiye neden olan ve değişik uzmanlık dallarını ilgilendiren muhtelif patolojilerden birisi de diffüz idyopatik skeletal hiperostosis (Forestier Hastalığı)'dır. Bu yazıda, tedavisi cerrahi olan bu hastalığın klinik ve radyolojik özellikleri bir olgu sunumu ışığında tartışılmıştır.

Anahtar kelimeler : Servikal omurga, disfaji

Summary : Among the numerous pathologies causing dysphagia seen in various speciality departments, diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (Forestier's Disease) is one of the rare ones. In this paper a case of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis is presented and clinical and neuroradiological features of the disease and its surgical therapy is discussed.

Key words : Cervical spine, Dysphagia.

GİRİŞ

Disfaji kulak burun boğaz, dahiliye ve genel cerrahi kliniklerinde sık görülen bir yakındır. Disfajinin çeşitli uzmanlık dallarını ilgilendiren çok çeşitli etyolojik nedeni vardır. Bunların arasında yanık yapışıklıkları, özefajit, kardiospazm, özefageal motilite bozuklukları (akalazya), özefageal divertiküller (Zenker divertikülü, traksiyon divertikülü, epifrenik divertikül), aberran damarlar (dysphagia lusoria), Plummer-Vinson sendromu, servikal spinal kanal hastalıkları, mediasten, özefagus, larinks ve spinal kanalın benign ve malign tümörleri sayılabilir (1,3,4). Disfajiye neden olan servikal spinal kanal hastalıkları konjenital kemik barlar (22), atlanto-aksial dislokasyonlar (30), kalsifiye servikal diskin anterior protrüzyonu(13), servikal spinal fraktürler ve tümörler (25), vertebranın dejeneratif hastalıklarıdır. Son grup içerisinde servikal spondiloz (3,20,40), diffüz idiyopatik

skeletal hiperostosis (DISH) (12,18-19,24), ve osteofitik çıkıntılar (4-9,11,15-16,21-23,27-29,31,34-35,39) sık rastlanan patolojilerdir. Servikal osteofitlere bağlı disfaji ilk kez 1926'da Mosher (29) tarafından tanımlanmıştır. 1938'de Iglauer (25) ilk kez tedavide osteofitlerin cerrahi eksizyonunu gerçekleştirmiştir.

Bu yazının amacı bir olgu sunumu ve konu ile ilgili literatür taraması ışığında diffüz idiyopatik skeletal hiperostosis (Forestier hastalığı)'nın nadir de olsa disfaji nedeni olabileceğine ve tedavisinin cerrahi olduğuna dikkat çekmektir.

OLGU SUNUMU

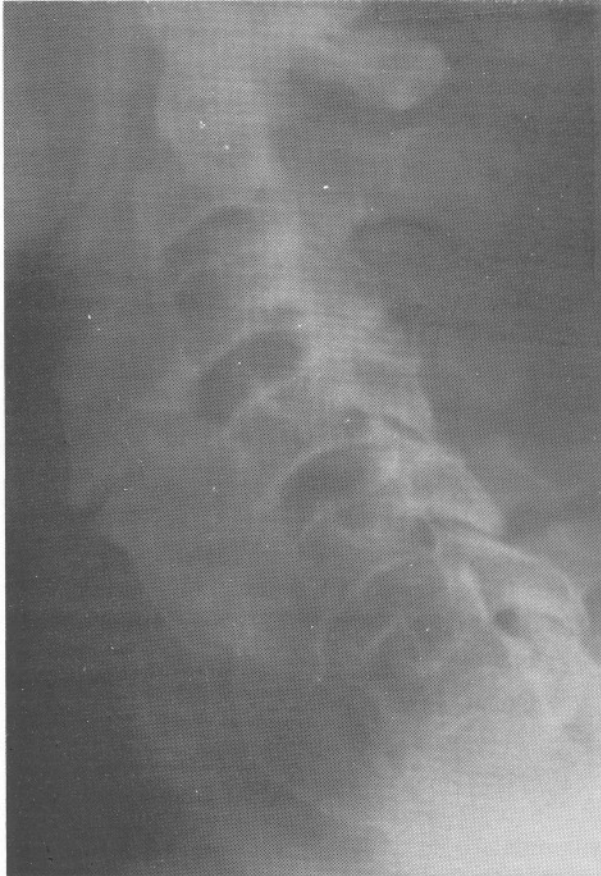
76 yaşında erkek hasta kliniğimize boğazında yanma hissi ve özellikle katı gıdaları yutma güçlüğü yakınmaları ile başvurdu. Hastanın öyküsünden yakınmalarının dört yıl önce başladığı ve giderek şiddetlendiği öğrenildi. Hastanın özgeçmişinden

52 yıl önce tüberküloz, 43 yıl önce akut pankreatit tedavisi gördüğü, 15 yıldır hipertansif olduğu, 8 yıl önce kardiak by-pass operasyonu geçirdiği, son 8 aydır stabil anginası olduğu öğrenildi.

Hastanın fizik ve nörolojik inceleme bulguları, rutin radyolojik ve laboratuvar tetkikleri normal sınırlarda bulundu.

Hastanın nöroradyolojik incelemelerinde servikal yan grafide C2 vertebral korpusu üst kenarından başlayarak C7 orta düzeyine kadar uzanan, vertebra korpusları ön kenarlarını birleştiren, ön-arka boyutu 0.5-3 cm arasında değişen kemik oluşumu tesbit edildi (Resim 1). Bu kemik oluşumu devamlı bir yapı olarak görülmekte ise de C2-3 ve C4-5 intervertebral disk aralıkları düzeyinde kemik yapısının ön kontüründe girinti olduğu, C3-4 intervertebral disk aralığının genişlemiş olduğu ve bu düzeyde anormal kemik yapısı içinde düzensiz ince bir disk aralığı olduğu izlendi.

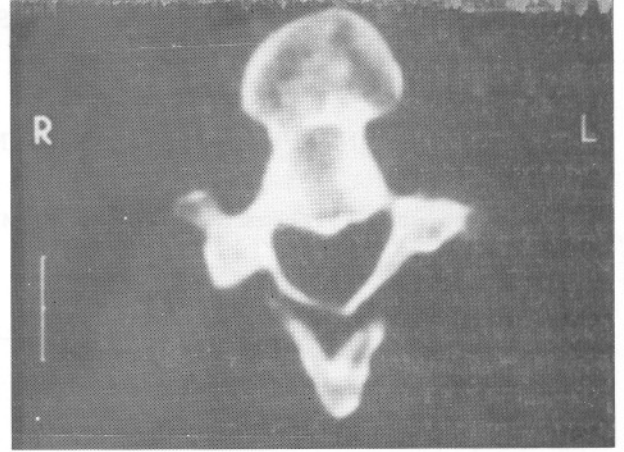
Hastanın baryumlu özefagus yan grafilerinde hi-pofarinks, larinks ve özefagus üst kısmında kemik



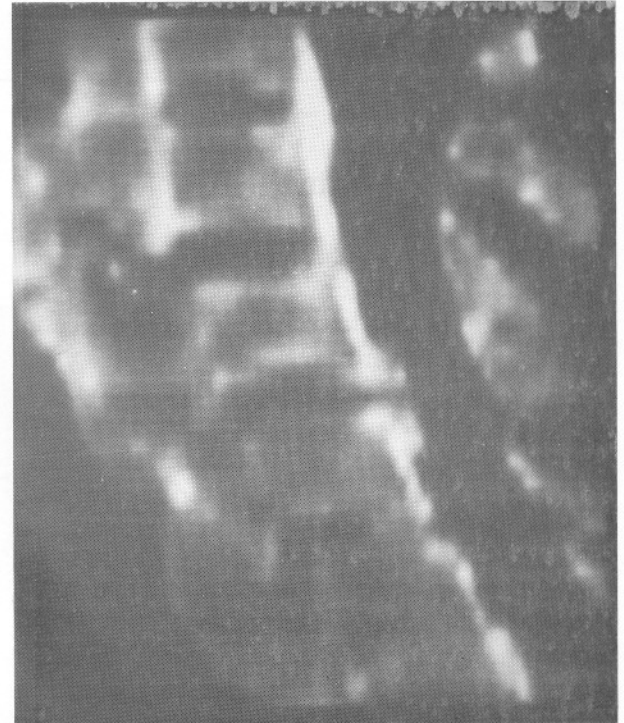
Resim 1 : Yan servikal grafi. C2-C7 servikal vertebralar düzeyinde anormal kemik oluşumu.

oluşumu nedeniyle bası ve özefagusta öne doğru yer değişim tesbit edildi.

Hastanın bilgisayarlı aksiyal servikal tomografisi ve bu kesitlerin rekonstrüksiyonu ile C2-C7 servikal vertebra düzeyleri arasında korpus vertebralının önünde at nalı şeklinde kortikal ve trabeküler kemik yapısında oluşumların varlığı ve bu yapıların özefagusa bası yaptığı tesbit edildi (Resim 2,3).



Resim 2 : Aksiyal bilgisayarlı servikal tomografi. Vertebra ön yüzünde yerleşen anormal kemik oluşumu.



Resim 3 : Aksiyal servikal BT kesitlerinin sagittal rekonstrüksiyonu. Vertebra korpusları anteriorunda anormal kemik yapısı izlenmekte.

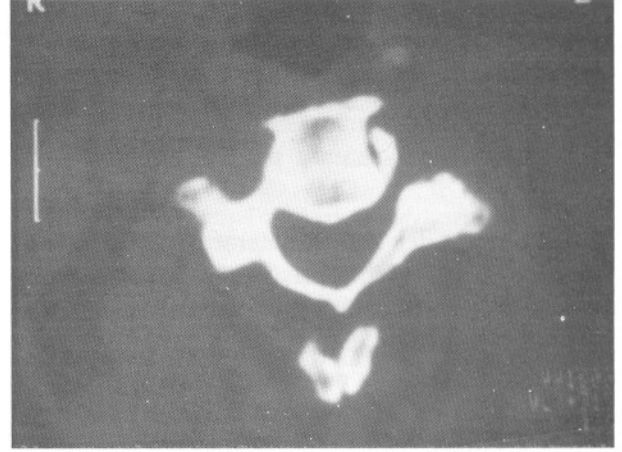
Hastanın manyetik rezonans görüntüleme (MRG) tetkiklerinde T1 ağırlıklı incelemelerinde kemik oluşumunun dansitesinin servikal vertebral kemiklere göre hiperintens olduğu, anterior longitudinal ligamentin bu kemik oluşumunun önüne itildiği, T2 ağırlıklı görüntülerde ise yeni kemik oluşumunun hipointens izlendiği, bu yeni kemik oluşumu içinde normal kemiğe oranla daha fazla yağ olduğu tesbit edildi.

Hasta bu bulgularla ameliyata alındı. Sağda angulus mandibularis ile klavikula orta noktası arasına yapılan vertikal insizyonla, C2-C7 mesafeleri arasında yerleşen sert, kirli-sarı renkli özefagus ve etraf dokulara bası yapan hipertrofik kemik yapı ortaya konuldu ve yüksek hızlı dril kullanılarak tamamen eksize edildi. Ameliyat sonrası 24. saatte ağızdan sıvı, 48. saatte katı gıdalar alan hastanın yutkunma yakınmalarının tamamen geçtiği izlendi. Hastanın kontrol servikal grafisinde ve bilgisayarlı aksiyal tomografisinde anormal kemik yapının ortadan kalktığı tesbit edildi (Resim 4,5)

Hastanın ameliyat sonrası altıncı aya kadar yapılan kontrol muayenelerinde, yakınmalarında tekrarlama veya ek bir sorunu olmadığı görüldü.



Resim 4 : Postoperatif yan servikal grafi. Anormal kemik yapılar tamamen eksize edildikten sonraki görünüm.



Resim 5 : Anormal kemik yapılar eksize edildikten sonraki aksiyal bilgisayarlı tomografi.

TARTIŞMA

Vertebralarda görülen büyük osteofitler genellikle DISH'de ve bazen de travma veya infeksiyöz spondilit sonrasında görülürler (17,18,31,33,42).

DISH genellikle lomber spinal bölgede görülür (37). 1950'de Forestier ve Rotes-Queror (18) ilk kez hastalığı diffüz skeletal, şiddetli senil ankiroz olarak (Forestier Hastalığı) tanımlamışlardır. Daha sonra Forestier ve Lagier(17) hastalığın gençlerde de olabileceğini göstererek tanımlamadan senil ifadesini kaldırmışlardır. 1975'de Resnick ve arkadaşları (33) Forestier hastalığında ekstraspinal kemik büyümelerini göstermiş ve bugün kullanılmakta olan diffüz idiopatik skeletal hiperosteosis (DISH) tanımlamasını sunmuşlardır.

Otopsi çalışmalarında % 6-12 arasında saptanan bu durumun etyolojisi kesinlik kazanmamıştır. Arnold (2) endokrin faktörler üzerinde durmuştur. A hipervitaminozunun deneysel kedi çalışmalarında skeletal hiperosteosis geliştirdiği, fluorozisin ligamentöz ossifikasyon ve kemik ankiroz yapabileceği gösterilmiştir (36,38). Hirano ve arkadaşları (23) ise yaşla birlikte spinal kanal mobilitesinde azalma olacağını ve uzun ligamanların fleksibilitesinin azalacağını bunların sonucunda da lokal venöz staz ve ödem geliştiğini göstermişlerdir. Urist ve arkadaşları (41) ise kemik içinde bulunan "bone morphogenetic protein" in

(BMP) kas tendon ve diğer konnektif dokulara salındığı ve buralarda kemikleşme meydana getirdiğini bildirdiler. Lipon ve Muir (26) deneysel olarak intervertebral disk dejenerasyonu sonucunda iç anuler fibrillerin proliferasyonunun endokondral ossifikasyon yaparak vertebral osteofit meydana getirdiğini bildirdiler.

Günümüze dek İngilizce literatürde DISH'e bağlı disfaji yakınması olan yaklaşık 100 olgu yayınlanmıştır. Servikal osteofitlerin 3 karakteristik özellikleri ile disfajiye neden oldukları gösterilmiştir (10,32). Birinci neden büyük ebatlı osteofitlerin mekanik blokaja neden olarak disfaji yapmalarıdır. İkincisi ösefagusun fikse olduğu bölümlerde (krikoid kırık, C2 düzeyi, ve ösefagusun diafragmayı geçtiği nokta) yer alan küçük osteofitlerin de yine disfaji nedeni oldukları gösterilmiştir. En çok semptom veren osteofitler krikoid kırık seviyesinde bulunan osteofitlerdir. Üçüncü olarak da osteofitler ösefagus çevresinde inflamatuvar reaksiyona neden olarak disfaji yaparlar. Disfoni nadir olarak görülmektedir ve vokal kordların ödemine bağlanmıştır (24). Yine rekürren laringeal sinirin paralizisi de disfoni nedeni olarak bildirilmiştir (35). Bizim olgumuzda da C2-C7 servikal vertebral önünde oluşmuş kemik yapısı boyut ve şekil açısından vertebra korpuslarını andıracak büyüklüğe erişmiş olup doğrudan ösefagusa mekanik basıda bulunarak disfajiye neden olmaktadır.

Servikal osteofitik lezyonların endoskopik olarak sert bir kitle halinde farinks arka duvarında gösterilmeleri, lateral röntgen grafileri, baryumlu inceleme, bilgisayarlı tomografi tetkikleri ve manyetik rezonans incelemeleri ile teşhis edilmeleri mümkündür.

Günümüzde semptomatik servikal osteofitlerin cerrahi olarak eksizyonu ilk tedavi seçeneğidir. İnsizyon geniş bir cerrahi görüş sağlamak için vertikal yapılmalıdır. Major komplikasyonlar vokal kord paralizisi ve ösefagus perforasyonudur. Diğer tedavi yöntemleri olarak kaşektik hastalarda gastrotomi, inflamatuvar reaksiyona bağlı geçici disfajisi olanlarda steroid ve antibiotik tedavileri denenebilir. Cerrahi tedavi sonrasında reossifikasyon görülebilmektedir. Hirano ve arkadaşları (23) iki hastada cerrahi tedaviden 4.5 sene sonra reossifikasyon geliştiğini göstermişlerdir. Bu da hastaların mutlaka uzun süreli takiplerinin gerektiğini göstermektedir. Henüz reossifikasyonu önlemek için geliştirilmiş bir tedavi yöntemi bulunmamakla birlikte radyoterapi

denenebilir ancak yararı tartışmalıdır (14).

Sonuç olarak disfaji nedenleri arasında diffüz idiyopatik skeletal hiperosteozis (Forestier hastalığı)'nın da yer aldığını ve cerrahi tedavi ile iyileştirilmesi mümkün olan bu hastalığın disfaji ayırıcı tanısında hatırlanması gerektiğini vurgulayabiliriz.

KAYNAKLAR

1. Adams HD: Dysphagia: Cause and treatment. Postgrad Med 38:200-209, 1965
2. Arnold H: Zur senilen ankylosierenden Hyperostose der Wirbelsäule (Forestier et Rotes) Z. Orthop 88:337-341, 1957
3. Bauer I: Dysphagia due to cervical spondylosis. J Laryngol Otol 67:615-630, 1953
4. Beahrs OH, Schmidt HW: Dysphagia caused by hypertrophic changes in the cervical spine. Report of two cases. Ann Surg. 149:297-299, 1959
5. Benhabyles M, Brattström H, Sunden G: Dysphagia and dyspnea as complications in spondylarthritis and ankylopoetica with cervical osteophytes. Acta Orthop Scand 41: 396-401, 1970
6. Bettmann EH, Neudorfer RJ: Cervical disc pathology resulting in dysphagia in an adolescent boy. NY State J Med 60:2465-2467, 1960
7. Bick EM: Vertebral osteophytosis. A clinical syndrome. JAMA 160:828-829, 1956
8. Blumberg P, Prapote C, Viscomi G: Cervical osteophytes producing dysphagia. ENT J 56:396-399, 1977
9. Bone RC, Nahum AM, Harris AS: Evaluation and correction of dysphagia-producing cervical osteophytosis. Laryngoscope 84:2045-2050, 1974
10. Brandenburg G, Leibrock LG: Dysphagia and dysphonia secondary to anterior cervical osteophytes. Neurosurgery 18:90-93, 1986
11. Brooks AL, Ochsner SF: Dysphagia caused by cervical osteophytes. Am J Orthop 6: 108-190, 1964
12. Carlson MS, Stauffer RN, Payne WS: Ankylosing vertebral hyperostosis causing dysphagia. Arch Surg 109:567-570, 1974
13. Conventry MB: Calcification in the cervical disc with anterior protrusion and dysphagia. A case report. J Bone Joint Surg (Am) 52 A: 1463-1466, 1970
14. Conventry MB, Scanlon PW: The use of radiation to discourage ectopic bone. A nine years study in surgery about the hip. J Bone Joint Surg (Am) 63 A: 201-208, 1981
15. El-Sallab RA, Lewis JM: Oesophageal and tracheal pseudotumors due to anterior cervical osteophytes. Br J Radiol. 38:682-684, 1965
16. Facer JC: Osteophytes of the cervical spine causing dysphagia. Arch Otolaryngol 86: 341-345, 1967
17. Forestier J, Lagier R: Anklosing hyperostosis of the spine. Clin Orthop 74:65-83, 1971
18. Forestier J, Rotes-Querol J: Senile ankylosing hyperostosis of the spine. Clin Orthop 74:65, 1971

19. Gamache FW Jr, Voorhies RM: Hypertrophic cervical osteophytes causing dysphagia. A review. *J Neurosurg* 53:338-344, 1980
20. Gohel VK, Karasick S, Canino C: Cervical spondylotic dysphagia. *JAMA* 235:935-936, 1976
21. Heck CV: Hoarseness and painful deglutition due to massive cervical exostoses. *Surg Gynecol Obstet* 102:657-660, 1956
22. HHilding DA, Tachdjian MO: Dysphagia and hypertrophic sprurring of the cervical spine. *N Engl J Med* 263:11-14, 1960
23. Hirano H, Suzuki H, Sakakibara T, Hiquchi Y, Inove K, Suzuki Y: Dysphagia due to hypretrophic cervical osteophytes. *Clin Orthop* 167: 168-172, 1982
24. Huang PS, Laha RK: Ankylosing hyperostosis of the cervical spine. *J Bone Joint Surg (Am)* 55A: 197-201, 1973
25. Iglauer S: A case of dysphagia due to an osteochondroma of the cervical spine-osteotomy-recovery. *Ann Otol Rhinol Larynyol* 47: 799-803, 1938
26. Lipson SJ, Muir H: Vertebral osteophyte formation in experimental disc degeneration: Morphological and proteogly can changes over time. *Arthritis Rheum* 23: 319-324, 1980
27. Maran A, Jacobson I: Cervical osteophtes presenting with pharyngeal symptoms. *Laryngoscope* 81: 412-417, 1971
28. Meeks LW, Renshaw TS: Vertebral Osteophytosis and dysphagia. *J Bone Joint Surg (Am)* 55A: 197-201, 1973
29. Mosher HP: Exostoses of the cervical vertebrae as a cause for difficulty in swallowing. *Laryngoscope* 36: 181-182, 1926.
30. Ortan HB: Anterior dislocation of the atlas as a cause for inability to swallow solid food. *Laryngoscope* 36: 188-189, 1926
31. Ratnesar P: Dysphagia due to cervical exostosis *Laryngoscope* 80: 469-471, 1970
32. Resnick D, Niwayama G: Radiographic and pathologic fractures of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Radiology* 119: 559-662, 1976
33. Resnick D, Shaul SR, Robins JM: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH): Forestier's disease with extraspinal manifestations. *Radiology* 115: 513-520, 1975
34. Ruffin J: Dysphagia caused by exostosis of the cervical spine. *Gastroenterology* 16: 589-592, 1950
35. Saunders WH: Cervical osteophytes and dysphagia. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 79: 1091-1097, 1970
36. Seawright AA, English PB, Gartner RJW: Hypervitaminosis A and hyperostosis of the cat. *Nature* 206: 1171-1172, 1965
37. Shergy WS, Nunley JA, Caldwell DS: Dysphagia due to diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Am Fam Physician* 39: 149-152, 1989
38. Singh A, Dass R, Hayreh SS, Joll SS: Skeletal changes in endemic fluorosis. *J Bone Joint Surg (Br)* 44B: 806-815, 1962
39. Stephens H, Janus WL: Dysphagia of transitory type produced by hypertophic spurs on cervical vertebrae. *Ann Intern Med* 41: 823-828, 1954
40. Umerah BC, Mukherjee BK, Ibekuse O: Cervical spondylosis and dysphagia: *J Laryngol Otol* 95: 1179-1183, 1982
41. Urist MR, Mikulski A, Lietze A: Solubilized and insolubilized bone morphogenetic po rtein. *Proc Natl Acad Sci USA* 76: 1828-1832, 1979
42. Utsinger PD, Resnick D, Shapiro R: Diffuse skeletal abnormalities in Forestier's disease. *Arch Intern Med* 136: 763, 1976