

Olgu sunumu-Case report

Geriatric yaş grubunda görülen diffüz idiyopatik iskelet hiperostozisi: Olgu sunumu

Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in a geriatric patient: A case report

Emine Elif Altuntaş, Mustafa Mısır, Mehmet Atalar, İsmail Önder Uysal, Suphi Müderris

Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı (Yrd. Doç. Dr. E. E. Altuntaş, Asist. Dr. M. Mısır, Yrd. Doç. Dr. İ. Ö. Uysal, Prof. Dr. S. Müderris), Radyoloji Anabilim Dalı (Doç. Dr. M. Atalar) Cumhuriyet Üniversitesi Tıp Fakültesi TR-58140 Sivas

Özet

Etyolojisi kesin olarak bilinmeyen diffüz idiyopatik iskelet hiperostozisinde spinal osteofitler dejeneratif, travmatik veya post-enfeksiyöz değişikliklere bağlı olmaksızın paravertebral ligamanların endokral ossifikasyonu sonucunda gelişirler. Pelvis, patella, kalkaneus ve olekranonda da tutulum olmakla birlikte en sık tutulum vertebralarda [Torakal (%97), lomber (%90), servikal (%78) ve her üç segmentin birlikte tutulumu (%70)] olmaktadır. Servikal vertebra tutulumu olan olgularda disfaji, disfoni, solunum ve beslenme problemleri görülür. Bu çalışmada, C3-5 seviyesinde osteofit oluşumuyla farengeal lümeni daraltarak nefes darlığı, ses kısıklığı ve disfaji semptomlarının görüldüğü bir olgu konu ile ilgili literatürler eşliğinde gözden geçirilerek sunulmuştur.

Anahtar sözcükler: Diffüz idiyopatik iskelet hiperostozisi, disfaji, dispne, tedavi

Abstract

The etiology of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis is unknown. Independent from degenerative, traumatic, or post-infectious changes, spinal osteophytes develop because of enchondral ossification of the paravertebral muscles. Although it can be present in pelvis, patella, calcaneus, and olecranon; vertebral involvement is the most common location [Thoracic (97%), lumbar (90%), cervical (78%), all three segments (70%)]. Patients can experience dysphagia, dysphonia, respiratory and nutritional problems in the presence of cervical spine involvement. In this case report, a 78 year old patient who has got osteophyte formation at the C3-5 level that cause narrowing of the pharyngeal lumen and lead to respiratory distress, hoarseness, and dysphagia symptoms is presented in the light of the literature.

Key Words: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, dysphagia, dyspnea, treatment

Geliş tarihi/Received: 25 Ekim 2010; **Kabul tarihi/Accepted:** 25 Kasım 2010

İletişim adresi:

Dr. Emine Elif Altuntaş, Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı, Cumhuriyet Üniversitesi Tıp Fakültesi, TR-58140 Sivas, E-posta: ealtunta@yahoo.com

Giriş

Forestier ve Rotes-Querol [1] tarafından ilk kez 1950'de tanımlanmış olan diffüz idiyopatik iskelet hiperostozisi (DISH) yaygın spinal osteofit oluşumu ile karakterize bir hastalıktır. Literatürde bu hastalık Forestier Hastalığı, ankilozan hiperostozis, spondilitis ossifikans ligamentosa olarak da adlandırılmaktadır. Etyolojisi kesin olarak bilinmeyen bu iskelet hastalığında spinal osteofitler dejeneratif, travmatik veya post-enfeksiyöz

değişikliklere bağlı olmaksızın paravertebral ligamanların enkontral ossifikasyonu sonucunda gelişirler. Bu hastalığın sıklığı 40 yaş üzerinde ve erkeklerde artmaktadır [2, 3]. Anterior servikal osteofitler yaşlı populasyonun %20-30'unda ve genellikle asemptomatik olarak görülür [4, 5]. Servikal vertebraların anterior kısmında yer alan osteofitler sıklıkla asemptomatikken posteriora yer alanlar sinir kökü veya spinal kord basısına bağlı olarak nörolojik semptomlara yol açar. Nörovasküler basıya bağlı ortaya çıkan semptomlardan başka bu olgularda; ses kısıklığı, stridor, boğazda yabancı cisim hissi, boyun ağrısı, öksürük, boyun hareketlerinde azalma, otalji, odinofaji ve disfaji de izlenebilir [6, 7].

Bu yazıda, C3-5 seviyesinde osteofit oluşumuyla farengeal lümeni daraltarak nefes darlığı, ses kısıklığı ve disfaji semptomlarının görüldüğü bir olgu konu ile ilgili literatürler gözden geçirilerek sunulmuştur.

Olgu Sunumu

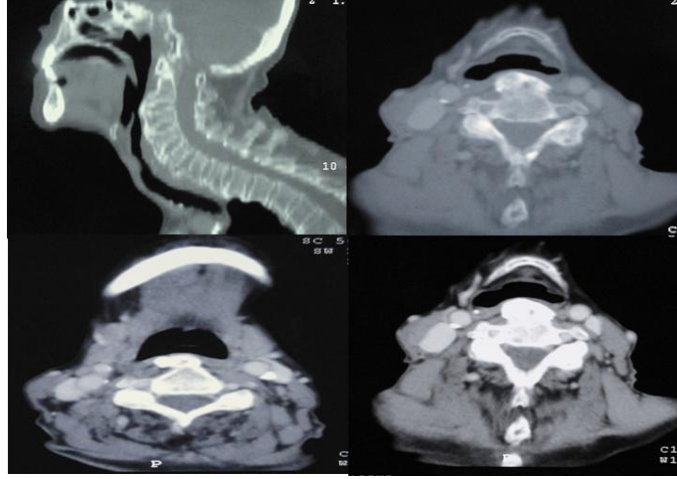
Kliniğimize son 6 aydır giderek artan yutma güçlüğü, boğazda takılma hissi, beslenme sırasında ortaya çıkan öksürük ve 3 aydır belirginleşen solunum sıkıntısı yakınmaları ile başvuran 78 yaşında bayan hastanın yapılan indirekt laringoskopik muayenesinde düzgün yüzeyli hipofarenks posterior duvarından kaynaklanan ve epiglot ile hipofarenks arasındaki mesafeyi daraltan palpasyonda sert ve fiske kitle saptandı. Rima glottis açıklığı yeterliydi (Resim 1). Kulak burun boğaz muayenesinde bunun dışında bir patoloji tespit edilmedi. Boynun fleksiyon ve ekstansiyon hareketleriyle instabilite bulgusu saptanmadı.



Resim 1:Düzgün yüzeyli hipofarenks posterior duvarından kaynaklanan ve epiglot ile hipofarenks arasındaki mesafeyi daraltan kitle.

Özgeçmişinde diabetes mellitus ve hipertansiyon öyküsü mevcuttu. Nöroşirurji kliniği ile olgu konsülte edildi. Nörolojik muayenesinde sol alt ve üst ekstremitesinde daha önceden geçirilmiş strokea bağlı olarak gelişmiş olan hemiprazi tespit edildi. Laboratuvar tetkikleri (kan biyokimyası, sedimantasyon, lökosit) normaldi.

Servikal bilgisayarlı tomografide (BT); C2-3 düzeyinde hipofarenks posteriorunda özellikle sağ tarafta daha belirgin bir şekilde bası oluşturan ve köprüleşmeye neden olan osteofit formasyonu tespit edildi (Resim 2).



Resim 2: Sagittal ve aksiyal planda BT kesitlerinde servikal vertebralarda yaygın osteofitik sivrileşmeler ve dejeneratif değişiklikler dikkati çekmekte olup bu düzeylerde hipofarinks hava yoluna belirgin bası izlenmektedir.

Radyolojik ve klinik olarak DISH tanısı konan olguya semptomlarının ağır olması nedeniyle cerrahi girişim planlandı. Ancak operasyonu kabul etmeyen olguya beslenme önerileri, kas gevşetici ve antiinflamatuvar tedavi başlanarak kendi isteği ile taburcu edildi.

Tartışma

Servikal spondilozis ve disfaji arasındaki ilişki ilk kez Mosher tarafından 1926 da tariflendi [8]. DISH'e bağlı olarak disfaji gelişen ilk olgu ise 1976'da Resnick ve ark.'ı tarafından yayınlanmıştır [19].

Ligament, tendon ve fasiyalarda ossifikasyon ve kalsifikasyon ile karakterize bir hastalık olan DISH'in etyolojisi ve patogenezi kesin olarak bilinmemekle birlikte; obezite, stres, akromegali, hipoparatiroidizm, yüksek somatostatin seviyesi, hiperürisemi, hiperkolesterolemi ve diabetes mellitus gibi metabolik ve endokrin patolojiler, ankirozant spondilit, genetik (HLA-B27, HLA-B5 ve HLA-A11) ve çevresel faktörler, enfeksiyon hastalıkları ve hipervitaminöz A etyolojide en çok öne çıkan nedenlerdir. DISH hastalarında tip II diabetes mellitus %13-50 oranında görülmektedir ve genellikle bu olgular obezdir [7, 8].

Pelvis, patella, kalkaneus ve olekranonda da tutulum olmakla birlikte en sık tutulum vertebralarda [Torakal (%97), lomber (%90), servikal (%78) ve her üç segmentin birlikte tutulumu (%70)] olmaktadır. Hastalığın diğer tipik özellikleri ise; disk dejenerasyonu olmaksızın ardışık vertebralarda yeni kemik oluşumu ile köprü oluşması ve sakroilyak eklem tutulumunun olmamasıdır. Yeni kemik oluşumu genellikle anterior longitudinal ligamentte izlenir [7, 9, 10].

Bu hastalık erkelerde kadınlardan daha sık görülür (Erkek/kadın oranı 2/1). DISH'in görülme sıklığı yaş ve kilo arttıkça artar ve 45 yaş altında nadiren görülür. DISH'in prevalansı 50 yaş üzerindeki erişkin erkeklerde % 25, kadınlar da ise % 15; 65 yaş üzerinde erkeklerde %10, kadınlarda ise %8 olup obezite, gut ve diabetes mellitus hastalarında insidansı artar [11, 12]. Dünyada bütün kıtalarda bildirilmesine rağmen Kafkasyalılarda daha sık görülmektedir prevalansı Kore'de %2,9 ve Finlandiya'da ise %10 olarak bildirilmiştir [3, 10, 14, 15]. Ülkemizdeki DISH hastaları üzerine yapılmış bir prevalans ve etyoloji çalışmasına ise literatür araştırmalarımız sırasında rastlamadık. Bizim olgumuzda literatürdeki pek çok olgu da olduğu gibi 60 yaş üzerinde ve diabetes mellitus öyküsü mevcuttu.

Servikal vertebra tutulumu olan DISH hastalarında karşılaşılan semptomlar omurgada sertlik, ağrı, hareket kısıtlılığı, disfaji, dispne, stridor, uyku apnesi, horlama, boğazda takılma hissi, beslenme problemleri ve aspirasyondur. Servikal tutulum en sık postkrikoid bölge, özefagus üst ucu ve larenksin yer aldığı C5-6 ve C4-5 vertebralar seviyesinde izlenmektedir. Servikal bölgede osteofitlerin bu lokalizasyonu hastalarda görülen semptomları da açıklamaktadır [10]. Osteofitler vertebra korteksine sıkı bir şekilde yapışıktır [6]. DISH hastalarında disfaji görülme sıklığı %0,2-28 arasında değişmektedir [11]. Bu hastalarda özellikle C4-5 seviyesinde yer alan osteofit disfaji ve aspirasyona neden olur. DISH’de osteofitlerin neden olduğu kronik iritasyona sekonder gelişen periözefagial ödem ve krikofarengal spazmın yanı sıra mekanik bası disfajiye neden olur [10, 11]. DISH’li olgularda servikal bölgede yer alan osteofitin postkrikoid alana yaptığı bası ile aritenoidlerde hareketin kısıtlanması veya n. laringeus inferiora direkt bası sonucunda disfoni görülebilir. Disfoni disfaji ile birlikte ya da tek başına olabilir [12, 13]. Dispne bu hastalarda görülen nadir klinik semptomlardan biridir. DISH de trakeotomi gereksinimi olacak boyutta yeni kemik oluşumu nadiren izlenmektedir; bu olguların tedavisi ise disfajili olguların tedavisi ile benzerdir [16, 17]. Literatürde yer alan pek çok DISH olgusunda kulak burun boğaz hekimine ilk başvuru şikayeti disfaji disfaji mi demek istendi) iken bizim olgumuzda ise hekime ilk başvuru şikayeti solunum sıkıntısı idi.

Servikal vertebra tutulumu olan DISH ‘li olguların kliniğinde en çok dikkat çeken semptom olan disfajinin ayırıcı tanısında öncelikle boyun, mediasten ve medulla spinalis tümörleri, özefajitler, özefagial strüktürler ve webler, aberan damarsal oluşumlar, Zenker divertikülü, nöromusküler bozukluklar (stroke, Parkinson hastalığı, amiyotrofik lateral sklerozis), gastroözefagial reflü ve krikofarengal spazm düşünülmelidir [6, 18]

DISH tanısı direkt lateral boyun grafileri, baryumlu farengo-özefagial pasaj grafileri,(BÖPG) BT ve manyetik rezonans görüntüleme (MRG) yöntemleri ile radyolojik olarak konur. Resnick’e [19] göre vertebrada DISH ‘in radyolojik tanı kriterleri: 1) ardı ardına en az dört vertebranın anterolateralinde köprü oluşumu, 2) vertebral disk mesafesi korunmuş ya da minimal azalmıştır, 3) apofizial eklemlerde ankiloz ve sakroilyak eklemlerde sklerozis olmamasıdır. Bu radyolojik yöntemler ile hem vertebradaki osteofitik lezyonun lokalizasyonu hem de komşu yapılarla olan ilişkisi ortaya konur [20]. Değerlendirmede direk radyografi ilk basamaktır ve vertebranın anterolateralinde geniş ossifikasyon alanının görülmesi son derece tipiktir. Torasik bölgenin tutulduğu vakalarda vertebralar arasında bu ossifikasyon alanları köprü yaparken servikal ve lumbal bölgede köprü oluşmaması da DISH için tipik radyolojik bulgulardandır. BÖPG ile özefagustaki obstrüksiyonun seviyesi ve durumunu, servikal BT ile vertebradaki hiperostotik yapıların lokalizasyonunu tanımlamada yararlıdır [6]. MRG ile inflamatuvar patolojiler ayırt edilebilir [10]. Özellikle cerrahi tedavi planlanan hastalarda BT ve MRG ile osteofitik dokunun komşu yumuşak dokular ve sinirsel yapılar ile ilişkisinin ortaya konması önemlidir.

Disfaji yakınması ile kulak burun boğaz kliniğine başvuran hastaların tümüne rijit veya fleksibl endoskopik muayene yapılmalıdır. Endoskopik muayene ile larenks, hipofarenks ve posterior farengal alandaki patolojik yapılar direkt olarak belirlenebilir ve disfajiye neden olabilecek patolojilerin ayırımı için rutin olarak tüm hastalara yapılması gereken bir muayene yöntemidir [6].

DISH tedavisi konservatif ve cerrahi olarak yapılır. Konservatif tedavi diyetin düzenlenmesi, yutma egzersizleri, kortikosteroidler, non-steroidal antiinflamatuvar, ve kas gevşetici ilaçlardan oluşur [21]. Cerrahi tedavi konservatif tedavi ile semptomları düzelmeyen veya şiddetli olgularda tek seçenektir. C2-4 vertebralarda tutulumun olduğu DISH hastalarında osteofitin yerleşim yerine bağlı olarak anterolateral, posterolateral ve transfarengal yaklaşımlardan biri tercih edilir [22]. Cerrahi tedavinin Horner sendromu, felç, servikal insitabilite, rekürren laringeal sinir yaralanması ve fistül gelişimi gibi komplikasyonları söz konusudur [3]. Cerrahi tedavi sonrasında rekürrens nedeniyle

hastaların uzun dönem klinik takiplerinin yapılması gerekir. Cerrahi sonrası prognoz değişken olup uzun dönem takibin yapıldığı bir seride olguların %65'inde rekürens olduğu bildirilmiştir [23]. Karadağ ve ark.'nın[12] sunduğu olguda da olduğu gibi daha genç ve genel sağlık problemleri daha az olan DISH olgularında amaç öncelikle hastayı tedavi etmek, geriatrik hastalarda ise hastanın yaşam kalitesini yükseltmek olmalıdır. Bizim olgumuz gibi ameliyat seçeneğini kabul etmeyen geriatrik olgularda mutlaka konservatif tedavi yaklaşımları uygulanmalı, hastanın kilo kaybı ve solunum sıkıntısı yakından takip edilmelidir.

Sonuç olarak ileri yaş grubundaki pek çok birey için önemli olan uzun bir yaşam değil sağlıklı bir yaşamdır. Ancak; bu yaş grubunda sıklıkla karşılaşılan terk edilmişlik duygusu ve depresyona bağlı olarak yaşamdan vazgeçme sık görülen bir durum olduğundan bu hastaların psikiyatrik değerlendirmeleri yapılmadan cerrahi tedaviden vazgeçilmemelidir.

Kaynaklar

1. Forestier J, Rotes-Querol J. Senile ankylosing hyperostosis of the spine. *Ann Rheum Dis* 1950; 9: 321-30.
2. Kiss C, Szilágyi M, Paksy A, Poór G. Risk factors for diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: a case-control study. *Rheumatology (Oxford)* 2002; 41: 27-30.
3. Çağavi F, Kalaycı M, Uğur MB, Uzun L, Asil K, Açıkgöz B. Disfaji ve Diffüz İdiopatik İskelet Hiperostozu: Olgu Sunumu. *Türk Nöroşirürji Dergisi*, 2004; 14: 146-50
4. Kissel P, Youmans JR: Posttraumatic anterior cervical osteophyte and dysphagia: Surgical report and literature review. *J Spinal Disord* 1992; 5: 104-7
5. Solaroğlu İ, Okutan Ö, Karakuş M, Saygılı B, Beşkonaklı E. Dysphagia Due to Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis of the Cervical Spine. *Turkish Neurosurgery* 2008;18: 409-11
6. Aslan G, Hamzaoğlu A. Forestier Hastalığı ve Disfaji. *KBB-Forum* 2007; 6: 33-6
7. Gencay S, Yavuz H, Yilmazer C. Dysphagia due to a cervical osteophyte: a case report. *Kulak Burun Bogaz İhtis Derg* 2003; 10: 240-3.
8. Akhtar S, O'Flynn PE, Kelly A, Valentine PM. The management of dysphasia in skeletal hyperostosis. *J Laryngol Otol* 2000; 114: 154-7.
9. Cammisa M, De Serio A, Guglielmi G: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Eur J Radiol* 1998; 27: 7-11.
10. Ayçiçek A, Eser O, Haktanır A, Boyacı G, Kırpıko O, Altuntaş A. Servikal Vertebral Osteofit Nedeniyle Oluşan Disfaji: Olgu Sunumu. *Bakırköy Tıp Dergisi*. 2009; 5: 117-9
11. Resnick D, Shapiro RF, Wiesner KB, Niwayama G, Utsinger PD, Shaul SR. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) [anklosing hyperostosis of Forestier and Rotes-Querol]. *Semin Arthritis Rheum* 1978; 7: 153-87.
12. Karadağ B, Cat H, Aksoy S, Ozulu B, Ozturk AO, Oguz S, Altuntas Y. A geriatric patient with diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *World J Gastroenterol* 2010; 16: 1673-5
13. Masiero S, Padoan E, Bazzi M, Ponzoni A. Dysphagia due to diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: an analysis of five cases. *Rheumatol Int* 2010; 30: 681-5
14. Kim SK, Choi BR, Kim CG, Chung SH, Choe JY, Joo KB, Bae SC, Yoo DH, Jun JB. The prevalence of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in Korea. *J Rheumatol*. 2004; 31: 2032-5

15. Julkunen H, Knekt P, Aromaa A. Spondylosis deformans and diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) in Finland. *Scand J Rheumatol* 1981; 10: 193-203.
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*. 2002; 2: 456-9.
17. Lin HW, Quesnel AM, Holman AS, Curry WT Jr, Rho MB. Hypertrophic anterior cervical osteophytes causing dysphagia and airway obstruction. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2009; 118: 703-7.
18. McCafferty RR, Harrison MJ, Tamas LB, Larkins MV: Ossification of the anterior longitudinal ligament and Forestier's disease: an analysis of seven cases. *J Neurosurg* 1995; 83: 13-7
19. Resnick D, Niwayama G. Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Radiology* 1976; 119: 559-68
20. Belen D, Gürses L. Cervical osteophytosis as a rare cause of dysphagia: A case report. *Tiirkish Neiirosiirgeriy*. 2001; 11: 117-20
21. Bartalena T, Buia F, Borgonovi A, Rinaldi MF, Modolon C, Bassi F. DISH of the cervical spine causing epiglottis impingement. *Indian J Radiol Imaging* 2009; 19: 132-4.
22. Srivastava S, Ciapryna N, Bovill I. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis as an overlooked cause of dysphagia: a case report *J Med Case Reports* 2008 27;2:287.
23. Hirano H, Suzuki H, Sakakibara T, Higuchi Y, Inoue K, Suzuki Y. Dysphagia due to hypertrophic cervical osteophytes. *Clin Orthop Relat Res* 1982; 167: 168-72.