

# Boyun ağrısı ve disfaji ile seyreden Forestier hastalığı

## Forestier disease presenting with neck pain and dysphagia

Mehmet Ali Çetin<sup>1</sup>, Sabri Köseoğlu<sup>1</sup>, Doğan Atan<sup>2</sup>, Tuğba Atan<sup>3</sup>, Hacı Hüseyin Dere<sup>4</sup>

### Özet

Diffüz idiyopatik iskelet hiperostozisi (DISH) olarak da adlandırılan Forestier hastalığı (FH) daha çok torasik bölgeden kaynaklanır ve genellikle asemptomatiktir. Servikal bölgede nadiren görülür. Boyun ağrısı, disfaji, odinofaji, otalji, horlama, dispne, stridor ve ses kısıklığı bu hastalığın ana semptomlarıdır. Radyolojik görüntüleme yöntemleri tanıda yardımcıdır. Direkt grafide tendonlarda osteofit oluşumu tipiktir. Bu yazımızda boyun ağrısı ve yutma güçlüğü şikayetleri olan iki olgunun tanı ve tedavisi güncel literatür eşliğinde tartışılmıştır.

**Anahtar sözcükler:** Forestier hastalığı, osteofit, vertebral ankilozan iskelet hiperosteozi.

### Summary

Forestier disease which is also called as "diffuse idiopathic skeletal hyperosteois" is mostly originated from the thoracic region, and is usually asymptomatic. The main symptoms of this disease are; neck pain, dysphagia, odynophagia, otalgia, snoring, dyspnea, stridor and hoarseness. Diagnostic imaging is helpful in diagnosis. Osteophyte formation in tendons is the typical sign in direct radiography. In this writing case report diagnosis and treatment of two patients suffering from neck pain and dysphagia were discussed in the light of current literature.

**Key words:** Forestier's disease, osteophyte, vertebral ankylosing skeletal hyperosteois.

Forestier hastalığı (FH) vertebraların spinal çıkıntıların ön kısım fasyasının, ligamentlerinin ve tendonunun masif, nonenflamatuvar ossifikasyonuna bağlı ağır osteofit oluşumu ve kalsifikasyon ile karakterize bir hastalıktır.<sup>[1,2]</sup> Genellikle asemptomatiktir. Servikal bölgede görülen FH çoğunlukla boyun ağrısı ve disfajiye neden olur.<sup>[3]</sup> Bunun dışında odinofaji, otalji, horlama, dispne, stridor ve ses kısıklığına neden olabilir. Hatta genel anestezi altında cerrahi planlanan hastalarda entübasyon güçlüğü yaratabilir. Forestier hastalığı 40 yaş üzeri erkekleri %3.8, 40 yaş üzeri kadınları ise yaklaşık %2.6 oranında etkilemektedir.<sup>[4,5]</sup> Bu yazıda C4-C6 düzeyinde osteofit oluşumuyla karakterize, boyun ağrısı, disfaji ve ara ara solunum güçlüğü hikayesi olan iki hastanın tanı ve tedavisi güncel literatür eşliğinde tartışılmıştır.

## Olgu Sunumu

### Olgu 1

Yaklaşık altı aydır yutma güçlüğü, boyun ağrısı ve ara sıra solunum sıkıntısı olan 60 yaşında obez erkek hastanın endoskopik orofarenks ve hipofarenks muayenesinde; aritenoid kıkırdaklar seviyesinde, posterior faringeal duvarda üzeri normal mukoza ile örtülü yaklaşık 3x1 cm boyutlarında hipofarengal lümeni daraltan kitle görüldü (Resim 1). Hastanın lateral servikal grafisinde, C3-4-5-6 vertebra anteriorlarında köprüleşme ve vertebralarda dejeneratif değişiklikler görüldü (Resim 2). Servikal spinal manyetik rezonans görüntülemesinde (MRG) C4 üst C7 alt kesim düzeyleri arasında vertebra korpuslarından kaynaklanıp anteriorda füzyon gösteren osteofit formasyonları ve ossifikasyon alanları görüldü, nöral kompresyon

<sup>1)</sup> Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi KBB Kliniği, Op. Dr., Ankara

<sup>2)</sup> Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi KBB Kliniği, Asistan Dr., Ankara

<sup>3)</sup> Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi, Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Anabilim Dalı, Asistan Dr., Ankara

<sup>4)</sup> Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi KBB Kliniği, Prof. Dr., Ankara

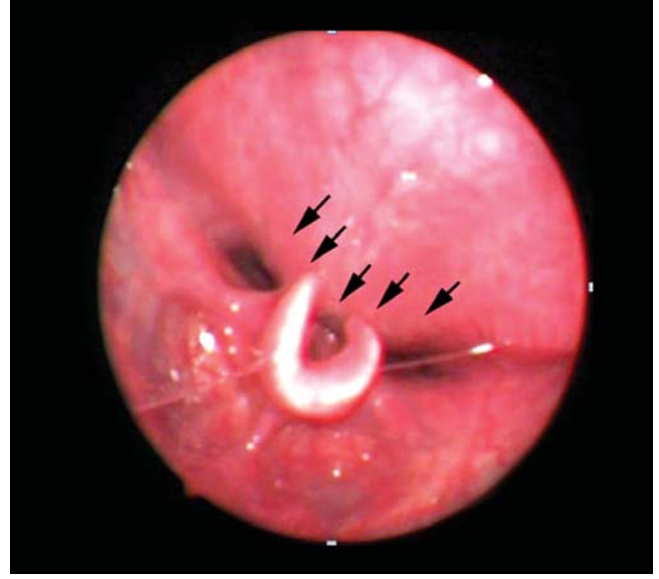
yoktu ve nörolojik muayene normaldi (Resim 3). Yutma güçlüğü olan hastanın baryumlu faringo-özefagografide, hipofarenkse dışarıdan bası bulgusu mevcuttu (Resim 4). Posterior faringeal duvarda kitlesi olan hastanın özellikle radyolojik görüntüleme sonuçlarının değerlendirilmesiyle FH düşünüldü. Hasta diyet programına alınarak fiziksel aktivite önerildi. Bir yıldır takip edilen hastanın şikayetlerinde belirgin azalma oldu.

## Olgu 2

Yaklaşık 2 yıldır yutma güçlüğü, 1 haftadır solunum sıkıntısı ve bilinen kronik obstrüktif akciğer hastalığı (KOAH) olan 61 yaşında erkek hastanın endoskopik orofarenks ve hipofarenks muayenesinde; posterior faringeal duvarda üzeri normal mukoza ile örtülü, epiglot seviyesinden aritenoid kıkırdaklar seviyesine kadar uzanan yaklaşık 4x1.5 cm boyutlarında hipofaringeal lümeni daraltan kitle görüldü. Nörolojik muayene olağandı. Hastanın lateral servikal grafisinde, C3-4-5-6 vertebra anteriorlarında köprüleşme ve vertebralarda dejeneratif değişiklikler görüldü (Resim 5). Servikal bilgisayarlı tomografi (BT) aksiyel kesitte; C5 düzeyinde vertebra korpusundan kaynaklanıp anteriorıda füzyon gösteren osteofit formasyonları ve ossifikasyon alanları gözlemlendi (Resim 6). Hastanın klinik ve radyolojik değerlendirmesi sonucunda FH düşünüldü. Takiplerinde KOAH nedeniyle solunum sıkıntısı artan, O<sub>2</sub> satürasyonu düşen ve genel durumu bozulan hasta entübe edilemeyince trakeotomi açıldı.



**Resim 2.** Lateral servikal grafide, C3-4-5-6 vertebra anteriorlarında (oklar) köprüleşme ve vertebralarda dejeneratif değişiklikler görülmektedir. Osteofitik proliferasyonların hipofarenks hava kolonuna bası oluşturduğu izlenmektedir.



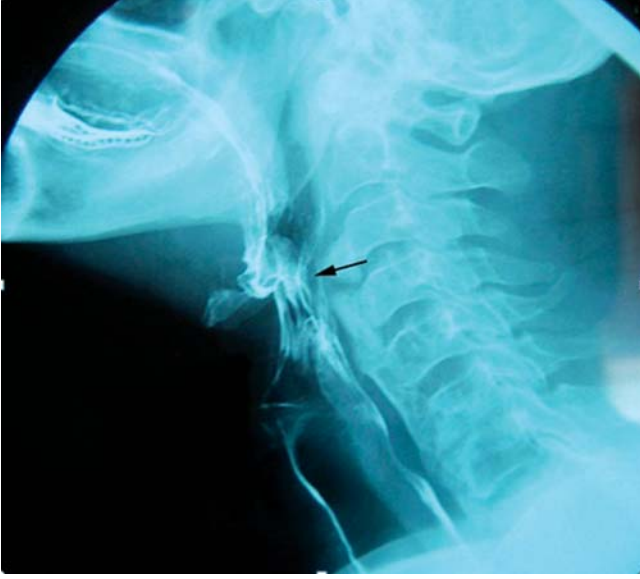
**Resim 1.** Endoskopik muayenede posterior faringeal duvarda üzeri normal mukoza ile örtülü yaklaşık 3x1 cm boyutlarında hipofaringeal lümeni daraltan kitle (oklar) görülmektedir.

## Tartışma

Forestier hastalığı, etyolojisi tam olarak bilinmeyen, ender görülen bir hastalıktır. Hastalar genellikle boyun ağrısı ve disfaji şikayetleri ile hekime başvururlar. Disfaji nedeni olarak; mekanik baskı, periözefagial inflamasyon, krikofaringeal spazma bağlı kronik irritasyon sorumlu



**Resim 3.** Servikal MRG'de C4 üst ile C7 alt kesim düzeyleri arasında (beyaz oklar) vertebra korpuslarından kaynaklanıp anteriorıda füzyon gösteren osteofit formasyonları ve ossifikasyon alanları görülmektedir.



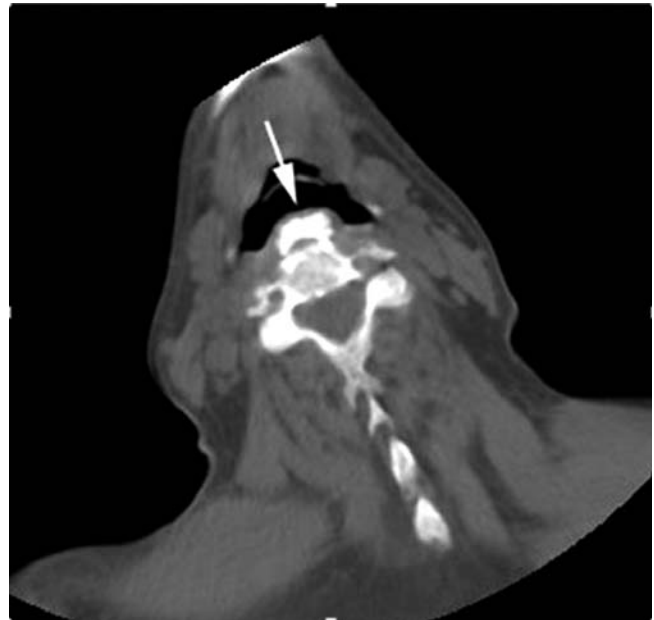
**Resim 4.** Baryumlu faringo-özefagografide, hipofarinkse dışarıdan baskı görülmektedir (ok).

gösterilebilir.<sup>[6,7]</sup> Disfajinin ayırıcı tanısında öncelikli olarak hipofarinks ve özefagus maligniteleri düşünülmelidir; ayrıca boyun, mediasten ve medulla spinalis tümörleri, özefajitler, zenker divertikülleri, nöromusküler bozukluklar ve krikofaringeal spazm tanıya giderken unutulmamalıdır. Epiglot hareketinde ve larenks elevasyonunda kısıtlılık disfajinin yanında aspirasyonlara da neden

olabilir. Hastalarda solunum problemleri görülebilir.<sup>[8,9]</sup> Servikal vertebralarda osteofit ve kalsifikasyon oluşumuna bağlı hipofaringeal bölgede darlık oluşur, hastalarda orotrakeal entübasyon güçlüğü görülebilir ve trakeatomi açılması gerekebilir. İkinci olgumuzda KOAH alevlenmesi nedeniyle yoğun bakıma alınan hastanın O<sub>2</sub> satürasyonlarının düşmesi ve genel durumunun bozulması nedeniyle orotrakeal entübasyon denendi. Entübasyon gerçekleşmediği için trakeatomi açıldı. Hasta halen kanüle olarak takip edilmektedir. Boyun ağrısı FH hastalarında ana şikayetlerden biridir. Forestier hastalığında vertebra fraktürleri görülebilir ve kemik mineral dansinometri fraktür riskini belirlemede önemlidir.<sup>[10]</sup> Hastalara düşmeye bağlı oluşabilecek vertebral fraktürler ve aspirasyon hakkında bilgi verilmelidir. Özellikle aspirasyon riskini azaltmak için gastroözefageal reflünün önlenmesi gerekir. FH tanısını koymada radyolojik görüntülemenin önemi büyüktür. Tanıda lateral servikal grafi, bilgisayarlı tomografi, MRG ve baryumlu faringo-özefagografi önemlidir. Laboratuvar incelemelerinde HLA-B27 (+) olabilir.<sup>[11]</sup> Semptomatik hastalarda ilk tercih konservatif tedavidir. Kilo problemi olan hastalar için diyet ve fiziksel aktivite önerilmelidir. Birinci olgumuzun kilo vererek disfaji ve boyun ağrısı şikayetlerinde belirgin gerileme oldu. Anti-enflamatuvar ilaçlar, kas gevşeticiler ve anti-reflü tedavileri kullanılabilir.<sup>[12]</sup> Medikal tedaviye rağmen semptomları gerilemeyen, aşırı kilo kaybı veya basıya bağlı nörolojik defisitleri olan hastalarda cerrahi tedavi



**Resim 5.** Lateral servikal grafide, C3-4-5-6 vertebra anteriorlarında köprüleşme ve vertebralarda dejeneratif değişiklikler görülmekte ve hava kolonuna dıştan baskı görülmektedir (oklar).



**Resim 6.** Servikal BT'de; C3 üst C7 alt kesim düzeyleri arasında da vertebra korpuslarından kaynaklanıp anteriorda füzyon gösteren osteofit formasyonları ve ossifikasyon alanları görülmektedir (ok).

endikedir. Hava yolu obstrüksiyonu acil cerrahi tedavi gerektirir. Cerrahi tedavide anterior yaklaşım ve posterior yaklaşım mevcuttur. Cerrahinin komplikasyonları arasında; kanama, hematoma, enfeksiyon, Horner sendromu, süperior laringeal sinir felci ve özefagus yaralanmaları görülebilir.<sup>[13,14]</sup> Komplikasyonları azaltmak için cerrahi yöntem dikkatli seçilmelidir. Morbiditeyi azaltmak amacıyla komplikasyonların erken dönemde farkına varmak önemlidir. Cerrahi tedavi sonrası rekürren ossifikasyonlar görülebilir bundan dolayı hastaların uzun dönem takip edilmeleri önemlidir.<sup>[15]</sup>

Boyun ağrısı, disfaji, odinofaji, dispne, stridor ve ses kısıklığı şikayetleri ile hekime başvuran, endoskopik muayenede hipofarenks düzeyinde kitle görünümü olan hastalarda forestier FH unutulmamalıdır. Radyolojik bulguların da yardımıyla kesin tanı konulabilir. Hastalara tanı konulurken fizik tedavi ve kulak burun boğaz hekimlerinin işbirliği içinde çalışması önemlidir.

## Kaynaklar

- Mader R, Sarzi-Puttini P, Atzeni F, et al. Extraspinal manifestations of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Rheumatology (Oxford)* 2009;48:1478-81.
- Holton KF, Denard PJ, Yoo JU, Kado DM, Barrett-Connor E, Marshall LM. Osteoporotic Fractures in Men (MrOS) Study Group. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis and its relation to back pain among older men: the MrOS Study. *Semin Arthritis Rheum* 2011;41:131-8.
- Carlson MJ, Stauffer RN, Payne WS. Ankylosing vertebral hyperostosis causing dysphagia. *Arch Surg* 1974;109:567-70.
- Andersen PM, Fagerlund M. Vertebro-genic dysphagia and gait disturbance mimicking motor neuron disease. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2000;69:560-1.
- Mata S, Fortin PR, Fitzcharles MA, et al. A controlled study of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. Clinical features and functional status. *Medicine (Baltimore)* 1997;76:104-17.
- Seidler TO, Pérez Alvarez JC, Wonneberger K, Hacki T. Dysphagia caused by ventral osteophytes of the cervical spine: clinical and radiographic findings. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2009;266:285-91.
- Martino AD, Costa V, Denaro V. Dysphagia and dysphonia due to anterior cervical osteophytes: report of a patient affected by DISH. *Eur J Orthop Surg Traumatol* 2006;16:344-7.
- 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;113:65-7.
- Caminos CB, Cenoz IZ, Louis CJ, Otano TB, Esain BF, Perez de Ciriza MT. Forestier disease: An unusual cause of upper airway obstruction. *Am J Emerg Med* 2008;26:1072.
- Diederichs G, Engelken F, Marshall LM, Peters K, Black DM, Issever AS, et al; Osteoporotic Fractures in Men Research Group. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH): relation to vertebral fractures and bone density. *Osteoporos Int* 2011;22:1789-97.
- 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;19:70-2.
- Akhtar S, O'Flynn PE, Kelly A, Valentine PM. The management of dysphasia in skeletal hyperostosis. *J Laryngol Otol* 2000;114:154-7.
- Aslan G, Hamzaoğlu A. Forestier hastalığı ve disfaji. *KBB-Forum* 2007;6:33-6.
- Çağavi F, Kalaycı M, Uğur MB, Uzun L, Asil K, Açıköz B. Disfaji ve difüz idiopatik iskelet hiperostozu: olgu sunumu. *Türk Nöroşirürji Dergisi* 2004;14:146-50.
- Srivastava S, Ciapryna N, Bovill I. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis as an overlooked cause of dysphagia: a case report. *J Med Case Reports* 2008;2:287.

Geliş tarihi: 30.05.2013

Kabul tarihi: 08.09.2013

Çevrimiçi yayın tarihi: 08.10.2013

### Çıkar çakışması:

Çıkar çakışması bildirilmemiştir.

### İletişim adresi:

Dr. Doğan Atan

Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi

KBB Kliniği, Samanpazarı, Ankara

e-posta: doganatan@gmail.com