



Servikal Vertebra Tutulumlu Diffüz İdiyopatik İskelet Hiperosteozisi: Olgu Sunumu

Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis with Cervical Vertebra Involvement: A Case Report

© Mehmet Arslan, © Halil Ögüt, © Hayal Güler, © Ayşe Dicle Turhanoglu

Hatay Mustafa Kemal Üniversitesi Tayfur Ata Sökmen Tıp Fakültesi, Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Anabilim Dalı, Hatay, Türkiye

Öz

Diffüz idiyopatik iskelet hiperosteozisi entezis ve eklem kapsülü gibi yumuşak dokularda ossifikasyon ve kalsifikasyon ile karakterize, enflamatuvar olmayan bir hastalıktır. Sıklıkla torakal vertebrae etkilenebilir ve servikal vertebra tutulumu da görülebilmektedir. Birbirini takip eden dört vertebraın ön yüzünde birleşme eğilimindeki ossifikasyonların gözlenmesiyle ve omurganın dejeneratif ve enflamatuvar hastalıklarının dışlanmasıyla tanı konmaktadır. Servikal vertebra tutulumunda ağrı, hareket kısıtlılığı sık gözlenirken, disfaji, ses kısıklığı, horlama gibi semptomlar da oluşturabilmektedir. Bu yazıda boyun ve sırtta ağrı, hareketlerde kısıtlılık ve katı gıdalarda daha çok olmak üzere yutma güçlüğü olan 69 yaşında erkek hastanın sunulması amaçlanmıştır. Hastanın servikal görüntülemesinde özofagusu bası yapan anterior ossifikasyonları ve miyelomalazi oluşturmayan posterior ossifikasyonları mevcuttu. Hastaya ilerleyici disfajisi açısından cerrahi önerildi, ancak hasta kabul etmedi. Hastaya ağrı, hareket kısıtlılığı ve yutma güçlüğü açısından uygulanan egzersiz ve yutma eğitimi ile şikayetlerinde kısmi iyileşme elde edildi.

Anahtar kelimeler: Boyun ağrısı, disfaji, Forestier hastalığı

Abstract

Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis is a non-inflammatory disease characterized by ossification and calcification in soft tissues, such as entheses and joint capsules. The thoracic vertebra is often affected; however, cervical vertebra involvement can also be seen. Diagnosis is made by observing ossifications in the anterior surface of the four vertebrae and excluding spinal degenerative and inflammatory diseases. Pain and movement limitation is frequently observed in cervical vertebra involvement, but symptoms, such as dysphagia, hoarseness, and snoring, may also occur. This study aimed to present a 69-year-old male patient with pain in the neck and back, movement limitations, and swallowing difficulties, mostly with solid foods. The cervical imaging of the patient revealed anterior ossifications that compress the esophagus and posterior ossifications without myelomalacia. Surgery was recommended to the patient for his progressive dysphagia but was refused. Partial improvement was achieved in the patient's complaints with exercise and swallowing training in pain, movement limitation, and swallowing difficulties.

Keywords: Neck pain, dysphagia, Forestier disease

Giriş

Diffüz idiyopatik iskelet hiperosteozisi (diffuse idiopathic skeletal hyperostosis - DISH) omurgada dört veya fazla sayıda vertebraı etkileyen non-enflamatuvar ossifikasyonla seyreden bir hastalıktır. Sıklıkla 50 yaş üzeri erkekleri etkiler ve omurgada ligament, tendon ve fasyada anormal kalsifikasyonla seyreder (1). Omurgada daha çok torakolomber bölgeyi etkilemekte ve genellikle asemptomatik seyretmektedir. Semptomatik kişilerde hareket kısıtlılığı, ağrı, radikülopati ve miyelopati görülebilmektedir. DISH servikal bölgede az görülmekle birlikte

hastalarda disfaji ve ses kısıklığı semptomlarına eşlik edebilmektedir (2). Bu yazıda boyunda ağrı, hareket kısıtlılığı ve yutma güçlüğü yakınmasıyla polikliniğimize gelen görüntüleme ile DISH tanısı konulan 69 yaşında bir hastanın literatür eşliğinde sunulması amaçlanmıştır.

Olgu Sunumu

Altmış dokuz yaşında erkek hasta yaklaşık yedi yıldır olan boyun ağrısı ve hareket kısıtlılığı şikayeti ile başvurdu. Hasta ağrısının

Yazışma Adresi/Address for Correspondence: Dr. Öğr. Üyesi Halil Ögüt, Hatay Mustafa Kemal Üniversitesi Tayfur Ata Sökmen Tıp Fakültesi, Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Anabilim Dalı, Hatay, Türkiye

Tel.: +90 326 245 51 14 **E-posta:** oguthalil@gmail.com **ORCID ID:** orcid.org/0000-0002-0910-5728

Geliş Tarihi/Received: 08.07.2020 **Kabul Tarihi/Accepted:** 25.02.2021

©Telif Hakkı 2021 Türkiye Osteoporoz Derneği /Türk Osteoporoz Dergisi, Galenos Yayınevi tarafından yayınlanmıştır.

daha çok boynunda olduğunu, ağır işler esnasında ve soğuk havalarda artarak sırtına yayıldığını ifade etti. Ayrıca ağrısına sabahları 20-30 dakika tutukluk şikayetinin eşlik ettiğini ve sıcak ile rahatlama olduğunu söyledi. Boyundaki hareket kısıtlılığı yıllar içinde artarak ilerlemişti. Hastada ayrıca son bir yılda kötüleşen katı gıdalarla daha çok olmak üzere yutma güçlüğü ve son iki yılda belirginleşen ses kısıklığı vardı. Bu iki şikayet için çeşitli muayene ve değerlendirmeler yapıldığını ve sonuç alınmadığını ifade etti. Hastanın kronik obstrüktif akciğer hastalığı vardı, diabetes mellitus veya romatolojik hastalığı yoktu. Hastanın sigara alışkanlığı mevcut olup 50 paket/yıl sigara içiyordu. Hasta uzun yıllar kaynakçılık yapmıştı. Hastanın vücut kitle indeksi 21,2 kg/m² idi. Hasta son üç ayda 4 kilo kaybettiğini ifade etti. Hastanın yapılan laboratuvar testlerinde açlık kan şekeri, kolesterol, ürik asit, insülin, büyüme hormonu, C-reaktif protein, eritrosit sedimentasyon hızı değerleri normal sınırlardaydı. Hastanın servikal hareket açıklıkları aktif ve pasif olarak fleksiyon 30°, ekstansiyon 20°, sağ ve sol lateral fleksiyon 20°, sağ ve sol rotasyon 40° olup kısıtlıydı. Hastanın nörolojik muayenesinde kol ve bacaklarında duyu kaybı saptanmadı. Üst ve alt ekstremitesinde kas gücü 5/5 ve derin tendon refleksleri normoaktifti. Ayrıca ekstremitelerde patolojik refleks saptanmadı. Hastanın boyun ağrısı vizüel analog skala (VAS) ile değerlendirildiğinde 8 olarak tespit edildi. Öksürük ve pnömoni öyküsü yoktu. Hastanın ön arka ve lateral boyun grafisinde servikal vertebral kolonun önünde anterior longitudinal ligaman (ALL) ossifikasyonu gözlemlendi. C3-5 düzeylerindeki osteofitlerin önündeki hava sütununda belirgin oranda bası vardı (Şekil 1). Lateral torakal grafisinde vertebraların ön yüzünde kaba osteofitler mevcuttu (Şekil 2). Hastanın çekilen sakroiliak eklem grafisinde patolojik görüntü yoktu (Şekil 2). Servikal sagittal bilgisayarlı tomografide (BT) C3-T1 vertebra seviyesinde ALL'de en kalın yeri 15,1 mm olan ossifikasyon mevcut olup larinksı sıkıştırmakta, üst özofagusu bası yapmakta ve özofagus girişini daraltmaktaydı (Şekil 3). Ayrıca hastanın servikal BT'sinde C4-7 vertebra seviyesinde posterior longitudinal ligaman (PLL) ossifikasyonu da mevcuttu (Şekil 3). Hastanın disfaji açısından değerlendirmesinde Türkçe geçerlilik ve güvenilirliği gösterilmiş olan Yeme Değerlendirme Aracı (Eating Assessment Tool-10 - EAT-10) ölçeği kullanıldı ve hastanın değeri 11 olarak kaydedildi. Hastaya ilerleyici disfajik şikayetleri ve eşlik eden ses kısıklığı açısından cerrahi önerildi, hasta operasyonu kabul etmedi. Hastaya boyun ağrısı için analjezik ve miyorelaksan tedavisi verildi. Hastanın servikal eklem hareket açıklığını artırmak için yüzeysel ve derin ısıtıcı ile kontrollü germe ve güçlendirme egzersizleri uygulaması planlandı. Hasta hastaneye gelemeyeceğini belirtmesi üzerine yüzeysel ısıtıcı, kontrollü germe ve güçlendirme egzersizlerinden oluşan ev programı verildi. Boyun çevresi kasları ve üst ekstremitte kaslarını güçlendirmek için daha çok izometrik kuvvetlendirme olmak üzere aktif güçlendirme egzersizleri başlandı. Hastaya diyet modifikasyonları yapılarak yutma rehabilitasyonu başlandı. Diyet modifikasyonu açısından yarı katı gıdalardan oluşan diyetle geçildi. Hastaya yemek sırasında dik oturma ve yemek esnasında baş postürü öğretildi. Hastaya çene, dudak, dil ve farengial

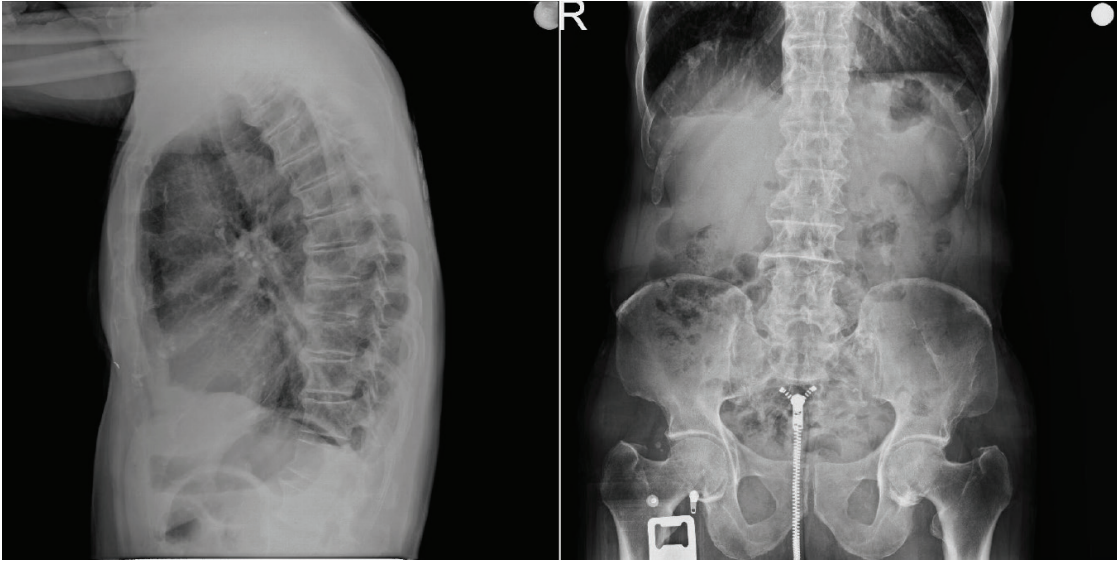
güçlendirme egzersizlerini içeren ağız ve boğaz kaslarına yönelik rehabilitasyona başlandı. Ses kısıklığı açısından sigarayı bırakması, akciğer kapasitesini artırıcı ve solunum kaslarını güçlendirici egzersizler önerildi. Hastanın birinci ay kontrolünde VAS değeri 2'ye gerilemiş, EAT-10 değerlendirmesi 8 olarak ölçülmüştür. Aktif ve pasif boyun hareket açıklıklarında net bir düzelme gözlenmemiştir.

Tartışma

DISH erkeklerde ve yaşlı popülasyonda daha sık görülen, entezis ve eklem kapsülü gibi yumuşak dokularda ossifikasyon ve kalsifikasyon ile karakterize, enflamatuvar olmayan bir hastalıktır (3). DISH bazı hastalarda asemptomatik olabilirken, sırt ve boyun ağrısı, omurga hareketlerinde azalma, özofagus basınına bağlı disfaji, ses kısıklığı ve PLL ossifikasyonuna bağlı miyelopati tabloları da klinikte gözlenenmektedir (4). DISH omurgada sıklıkla torakal vertebraları etkilemekte, servikal tutulum daha nadir gözlenmektedir. Bu hastanın servikal tutulumu daha belirgin olmakla birlikte torakal vertebralarında da DISH bulgularından abartılı osteofitler görüldü. Omurgada DISH ilişkili en yaygın semptomlar sertlik, harekette azalma, omurga ağrısı ve özofagus sıkışmasından kaynaklanan disfajidir (5). Servikal tutulumda disfaji prevalansı %6-28 olarak bildirilmiştir (6). Sunduğumuz bu hastada olduğu gibi disfaji katı gıdalarda daha belirgindir



Şekil 1. Hastada lateral servikal grafide ALL'de akar tarzda ossifikasyonlar görünmektedir
ALL: Anterior longitudinal ligaman



Şekil 2. Lateral torakal grafide vertebralarnın ön yüzünde kaba ossifikasyonlar gözlenmektedir. Anteroposterior pelvis grafisinde sakroiliak eklemdede patoloji gözlenmemektedir



Şekil 3. Hastada servikal sagittal bilgisayarlı tomografide üst özofagusu sıkıştıran ALL'de geniş osteofitler ve PLL'de ossifikasyon görülmektedir

ALL: Anterior longitudinal ligaman, PLL: Posterior longitudinal ligaman

ve genellikle yabancı cisim hissi veya odinofaji eşlik etmektedir. Hatta ağır durumlarda özofagusun komplet obstrüksiyonuna neden olabilir. Olgumuzda olduğu gibi sıklıkla C2, C3, C4 ve C5 seviyesindeki büyük ossifikasyonlar disfaji geliştirmektedir. Semptom şiddeti ile osteofit büyüklüğü arasında ilişki olmakla birlikte direkt korelasyon gösterilememiştir (7).

DISH tanısı için kriterler Resnick ve Niwayama (8) tarafından tanımlanmıştır. Bu kriterler; (a) birbirini takip eden en az dört vertebra korpusunun anterolateral yüzeyi boyunca devam eden ossifikasyon veya kalsifikasyonun olması; (b) intervertebral

disk yüksekliklerinin göreceli olarak korunması ve dejeneratif değişikliklerin olmaması; (c) apofizyal eklem ankilozunun, sakroiliak eklem erozyonu, sklerozu veya füzyonunun, vertebral cisim marjinal sklerozunun olmamasıdır. Tanıda genellikle direkt radyografiler yeterli iken, çevre yumuşak dokuları ve diğer önemli yapıları değerlendirmek için BT ve manyetik rezonans görüntüleme de yapılabilir. Resnick ve Niwayama (8) tarafından tanımlanan kriterler uzun yıllarda gelişecek ossifikasyonlara ihtiyaç duyması, özellikle DISH yaşlı popülasyonda gözlemlendiğinden eşlik edebilecek vertebral osteoartritlik değişiklikleri kapsamaması ve DISH'nin başlangıç aşamasında olan yaygın ossifikasyon gözlenmeyen hastaları kapsamaması açısından tanıda sorunlar oluşturabilmektedir (9). Bu açıdan çeşitli klasifikasyon kriterleri (periferik entezofitler veya erken DISH vb.) geliştirilmeye çalışılsa da net bir fikir birliği yoktur ve Resnick ve Niwayama'nın (8) tanımladığı kriterler en yaygın kullanılan kriterlerdir (10).

DISH gelişiminde kesin mekanizma tam olarak bilinmemekle birlikte mekanik faktörler, diyet, metabolik durumlar ve çevresel maruziyet suçlanmaktadır. Literatürde DISH gelişiminde obezite, yüksek bel-kalça çevresi oranı, dislipidemi, hipertansiyon, glikoz intoleransı, tip 2 diabetes mellitus, hiperürisemi, hiperinsülinemi, muhtemelen yüksek büyüme hormonu ve insülin benzeri büyüme faktörü 1 seviyelerinin etkili olduğunu gösteren çalışmalar mevcuttur (11). Hastamızda diabetes mellitus, obezite, dislipidemi gibi hastalıkların mevcut olmayışı kaynaklı olması dolayısıyla servikal vertebrada travmatik yüklenmeye maruz kalması DISH gelişimi nedeni olabilir. Zira mekanik ve çevresel faktörlerin de DISH'ye neden olduğu ileri sürülmektedir. Dünyada bütün kıtalarda bildirilmesine rağmen Kafkasyalılarda daha sık görülmektedir. Hastalığın etiyojisi kesin olarak bilinmemektedir. Günümüze kadar insan lökosit antijeni (human leucocyte antigen) proteinlerinde spesifik bir marker bulunamamıştır (12). DISH genellikle nörolojik kayba pek yol açmaz. Bizim hastamızda da nörolojik muayene tamamen normaldi. Hastanın en

belirgin yakınması yutma güçlüğü idi. DISH'de yutma güçlüğü nedenleri büyük anterior osteofitin direkt mekanik basısı, krikoid kıkırdak seviyesinde küçük osteofitlerin özofagusun dar yerine basısı, osteofit irritasyonuna bağlı gelişen periözofageal enflamasyon, krikofarengel spazm ve ağırlı osteofite bağlı gelişen özofageal spazm olarak bildirilmektedir (13). Hastamızın hem C3-5 düzeyindeki osteofitlerin larinkse basısı hem de daha alt seviyelerdeki osteofitlerin özofagusu basısı mevcuttu. DISH servikal omurga tutulumunda yutma güçlüğü dışında ses kısıklığı, stridor, PLL ossifikasyonu, miyelopati, aspirasyon pnömonisi, uyku apnesi, atlantoaksiyel komplikasyonlar ve torasik çıkış sendromu gibi semptomlar nadiren de olsa görülebilmektedir (14).

Tedavide ağrı şikayeti olan hastalarda yüzeysel ve derin ısıtıcı ajanlar, analjezik akım modaliteleri, steroid olmayan anti-enflamatuvar ve miyorelaksan ilaç tedavileri önerilebilir. Tutukluk ve hareket kısıtlılığı durumunda germe, esneklik, postür ve solunum egzersizleri tedaviye eklenmelidir. Ciddi disfaji ve ilerleyici miyelopati gibi durumlarda kalsifikasyon bölgesinin cerrahi rezeksiyonu düşünülmelidir. Disfaji tablosunda cerrahi kararının verilmesinde net bir fikir birliği yoktur. İlerleyici disfaji, sıvı gıdaların alımında zorluk ve ses kısıklığı tablolarında cerrahi tedavi akılda tutulmalıdır (15). Cerrahi tedavi sonrası sonuçlarda hastaların genellikle yarısında disfaji tablosunda ve eşlik eden diğer semptomlarda tam düzelme olduğu, diğer hastalarda kısmi düzelmelerin olduğu bildirilmektedir (16).

Sonuç olarak boyun ağrısı hareket kısıtlılığı ve yutma güçlüğü yakınmasıyla gelen hastalarda DISH tanısı akılda tutulmalıdır. Tanı konmasından sonra semptomlara yönelik tedaviler hızlıca planlanmalı ve hastalar gelişebilecek komplikasyonlar açısından yakın izleme alınmalıdır.

Etik

Hasta Onayı: Hasta onayı alınmıştır.

Hakem Değerlendirmesi: Editörler kurulu ve editörler kurulu dışında olan kişiler tarafından değerlendirilmiştir.

Yazarlık Katkıları

Cerrahi ve Medikal Uygulama: H.G., A.D.T., Konsept: M.A., H.Ö., Dizayn: H.G., A.D.T., Veri Toplama veya İşleme: H.Ö., M.A., H.G., Literatür Arama: M.A., H.G., Yazan: H.Ö., M.A., A.D.T.

Çıkar Çatışması: Yazarlar tarafından çıkar çatışması bildirilmemiştir.

Finansal Destek: Yazarlar, bu çalışma için herhangi bir finansal destek almadıklarını bildirmişlerdir.

Kaynaklar

1. 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;26:222-5.
2. Kuperus JS, Mohamed Hoessein FAA, de Jong PA, Verlaan JJ. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: Etiology and clinical relevance. *Best Pract Res Clin Rheumatol* 2020;34:101527.
3. Goico-Alburquerque A, Zulfiqar B, Antoine R, Samee M. Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis: Persistent Sore Throat and Dysphagia in an Elderly Smoker Male. *Case Rep Med* 2017;2017:2567672.
4. Ghammam M, Houas J, Bellakhdher M, Abdelkefi M. Dysphagia revealing diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: report of two cases and literature review. *Pan Afr Med J* 2019;32:189.
5. Cammisia M, De Serio A, Guglielmi G. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Eur J Radiol* 1998;27 Suppl 1:57-11.
6. Castellano DM, Sinacori JT, Karakla DW. Stridor and dysphagia in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Laryngoscope* 2006;116:341-4.
7. 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.
8. Resnick D, Niwayama G. Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Radiology* 1976;119:559-68.
9. Holgate RL, Steyn M. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: Diagnostic, clinical, and paleopathological considerations. *Clin Anat* 2016;29:870-7.
10. Kuperus JS, de Gendt EEA, Oner FC, de Jong PA, Buckens SCFM, van der Merwe AE, et al. Classification criteria for diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: a lack of consensus. *Rheumatology (Oxford)* 2017;56:1123-34.
11. Mader R, Verlaan JJ, Buskila D. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: clinical features and pathogenic mechanisms. *Nat Rev Rheumatol* 2013;9:741-50.
12. Smythe H, Littlejohn G. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. In: Klippel JH, PA D, editors. *Rheumatology*. 2nd ed. London: Mosby; 1998. p. 1-6.
13. Pulcherio JO, Velasco CM, Machado RS, Souza WN, Menezes DR. Forestier's disease and its implications in otolaryngology: literature review. *Braz J Otorhinolaryngol* 2014;80:161-6.
14. Verlaan JJ, Boswijk PF, de Ru JA, Dhert WJ, Oner FC. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis of the cervical spine: an underestimated cause of dysphagia and airway obstruction. *Spine J* 2011;11:1058-67.
15. Yoshioka K, Murakami H, Demura S, Kato S, Yonezawa N, Takahashi N, et al. Surgical Treatment for Cervical Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis as a Cause of Dysphagia. *Spine Surg Relat Res* 2018;2:197-201.
16. Fogel GR, McDonnell MF. Surgical treatment of dysphagia after anterior cervical interbody fusion. *Spine J* 2005;5:140-4.