

# Forestier sendromu: Nadir bir disfaji nedeni

## *Forestier's syndrome: a rare cause of dysphagia*

Dr. Mahmut Özkırış,<sup>1</sup> Dr. Aylin Okur,<sup>2</sup> Dr. Zeliha Kapusuz,<sup>1</sup> Dr. Levent Saydam<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Bozok Üniversitesi Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Anabilim Dalı, Yozgat, Türkiye

<sup>2</sup>Bozok Üniversitesi Tıp Fakültesi Radyoloji Anabilim Dalı, Yozgat, Türkiye

Forestier sendromu (yaygın idiyopatik iskelet hiperostozu) en az dört omur boyunca devam eden omurların ön-yan kesimlerinin ossifikasyonu ile karakterize bir klinik tablodur. Etyolojisi tam olarak bilinmemektedir. Tanı radyolojik incelemelerle konur. Bu çalışmada yutma güçlüğü, boyun ağrısı ve nefes darlığı yakınmaları ile kliniğimize başvuran Forestier sendromlu bir olgu sunuldu. Tanı radyolojik incelemelerle kondu. Olgunun klinik ve radyolojik özellikleri literatür verileri eşliğinde tartışıldı.

**Anahtar Sözcükler:** Yutma güçlüğü; Forestier sendromu; radyolojik inceleme.

Forestier's syndrome (diffuse idiopathic skeletal hyperostosis) is characterized by ossification of the anterolateral aspect of at least four contiguous vertebral bodies. The exact etiology is unclear. Diagnosis is made by radiologic examinations. In this report, we present a case of Forestier's syndrome who admitted with complaints of dysphagia, cervical pain and dyspnea. The diagnosis was based on radiological examinations. Clinic and radiological characteristics of our case were discussed in the light of literature data.

**Key Words:** Dysphagia; Forestier's syndrome; radiologic examination.

Forestier sendromu (Yaygın idiyopatik iskelet hiperostozu) yaşla birlikte görülme sıklığı artan, paravertebral bağ ve kasların enkontral ossifikasyonu sonucu gelişen, omurgada yaygın osteofit oluşumları ile karakterize kronik bir hastalıktır. Kesin etyolojisi tam olarak bilinmemektedir. Spondilozis hiperostotika, spondilitis ossifikans ligamentoza, senil ankilozan hiperostozis ve Forestier hastalığı gibi değişik terimlerle adlandırılır.<sup>[1-3]</sup> İlk kez 1950 yılında Forestier ve Rotes Querol, omurgada ön ve özellikle sağ yan bağları tutan ossifikasyonlarla karakterize ankilozan hiperostoz tipinde bir lezyon tanımlamışlar ve bu lezyonun ankilozan

spondilit ve osteoartritten farklı bir antite olduğunu belirtmişlerdir.<sup>[1]</sup> Sıklıkla paraspinal bağlar özellikle de ön longitudinal bağlar tutulmaktadır.<sup>[4]</sup> Altmış beş yaş üstündeki nüfusta %5-10 oranında görülmekte olup, erkeklerde üç kat daha sık rastlanmaktadır. Tutulum sıklığına göre sırayla torasik omurlar (%96), lomber omurlar (%90) ve boyun omurları (%78) etkilenir.<sup>[4,5]</sup>

Forestier sendromunda en sık karşılaşılan semptomlar omurgada tutulan bölgede ağrı ve hareket kısıtlılığıdır.<sup>[4]</sup> Boyun omur tutulumu olan Forestier sendromu olgularında disfaji görülme sıklığı %28 olarak bildirilmiştir.<sup>[5]</sup>



## OLGU SUNUMU

Seksen üç yaşında erkek hasta, son üç aydır artan katı gıdalarla yutma güçlüğü, boğazında takılma hissi, boyun hareketlerinde kısıtlılık ve ağrı yakınmalarıyla Kulak Burun Boğaz kliniğine başvurdu.

Videolarenoskopik muayenesinde; arka farengeal duvarda yerleşik postkrikoid alanı daraltan üzeri normal görünümlü mukoza ile örtülü submukozal düzgün yüzeyle kitlesel oluşum gözlemlendi. Hastanın diğer fizik muayene bulguları, kan biyokimyası, tam kan sayımı ve sedimentasyon değerleri normaldi. Çekilen yan boyun grafisinde C2-T<sub>1</sub> düzeyinde omur korpusları ön yüzünde; omurların gövdelerinden çıkan ve öne doğru uzanan kemik yapılar gözlemlendi (Şekil 1). İntervertebral disk mesafeleri nispeten normaldi. Baryumlu farengo-özofageal grafide özofagus ve epiglot düzeyinde farekse dıştan bası ve lümende daralma vardı. Özofagusu bası C7 düzeyinde daha belirgindi ve özofagus trakeaya protrüde görünümde idi. İnceleme sırasında az miktarda opak maddenin trakeaya kaçtığı gözlemlendi. Bilgisayarlı tomografide ise C2 ön yüzünden başlayıp T<sub>1</sub> seviyesine kadar akıcı tarzda uzanan ve önde en kalın yerinde 10 mm olan hiperostoz saptandı. C7 düzeyinde özofagusu



Şekil 1. Yan boyun direkt grafide; özellikle C2-T<sub>1</sub> arasında osseöz hipertrofik değişiklikler.

bası ve özofagusun trakeaya protrüzyonu gösterildi (Şekil 2-4).

Hastaya bu bulgular ışığında Forestier sendromu (Yaygın idiyopatik iskelet hiperostoz) tanısı konuldu. Cerrahi tedavi ya da konservatif tedavi seçenekleri anlatıldı ve konservatif tedavi planlanarak düzenli poliklinik kontrollerine gelmek üzere taburcu edildi.

## TARTIŞMA

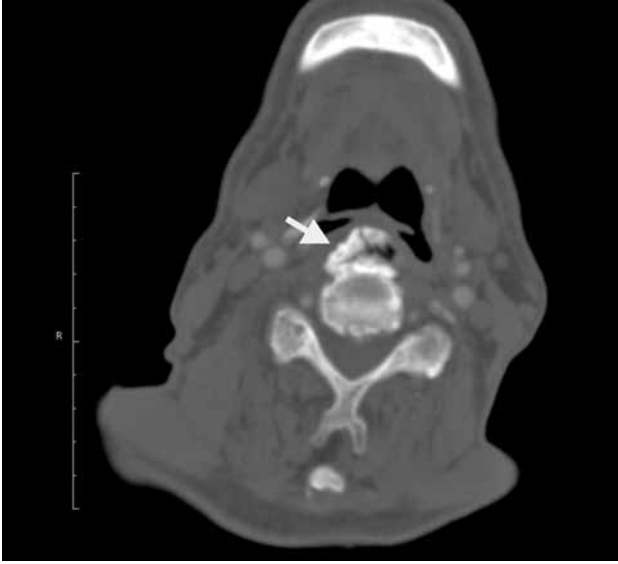
Yaygın idiyopatik iskelet hiperostoz, bağ, tendon ve eklem kapsüllerinin osteofit oluşumuna sekonder kalınlaşması ve kalsifiye olması ile karakterizedir.<sup>[4]</sup> İlk olarak Mosher tarafından 1926 yılında boyun osteofitine sekonder gelişen disfajiden bahsedilmiştir.<sup>[5-7]</sup> 1975'de Resnick ve ark.,<sup>[2,3]</sup> nedeni bilinmediği için bu hastalığı yaygın idiyopatik skeletal hiperostozis olarak adlandırmışlar ve 1976'da yaygın idiyopatik skeletal hiperostozise bağlı disfaji olgusunu yayınlamışlardır.

Etyopatogenezi tam olarak bilinmemekle birlikte çeşitli teoriler öne sürülmektedir. Özellikle erkeklerde 60 yaşın üzerinde, omurlarda 5-10 mm kalınlığında bağ kalsifikasyonlarının oluştuğu, omur hareketlerindeki azalmaya bağlı mekanik stres derecesinin düşmesiyle bağların bozularak kalsifiye ve ossifiye olduğu ileri sürülmüştür.<sup>[4]</sup> Obezite, hiperlipidemi, hipertansiyon, diyabet, suda florür fazlalığı, aşırı A vitamini alımı, uzun dönem izotretionin kullanımı ve osteoblast stimüle eden insülin benzeri büyüme faktörü artışı etyopatogeneizde sorumlu tutulan diğer nedenlerdir.<sup>[6-8]</sup> Bizim olgumuzda yukarıda belirtilen faktörler açısından patolojik bulgu saptanamadı.

Boyun bölgesinde en sık C4-C7 tutulumu gösterilmiştir.<sup>[1]</sup> Bizim olgumuzda, C2-T<sub>1</sub> arasında



Şekil 2. Boyun bilgisayarlı tomografi; koronal planda C2-T<sub>1</sub> omurlar arasındaki osseöz hipertrofik değişiklikler, epiglota dayandığı ve farengeal pasajı daralttığı görülmüyor.



Şekil 3. Boyun bilgisayarlı tomografi; aksiyel planda omur korpüsü önünde osseöz hipertrofik değişiklikler.

yaygın tutulum vardı ve özellikle C7 düzeyinde özofagusu arkadan bası saptandı. Bu düzeyde özofagus trakeaya protrüde görünümdeydi.

Boyun tutulumunda disfaji en sık rastlanan yakınma olup, görülme sıklığı %17-28 arasında değişir. Krikoid düzeyinde küçük bir osteofit bile buna neden olabilir. Osteofitlerin özofagusu protrüzyonu, tekrarlayan larengeal sinir yaralanmasına bağlı nöropati veya osteofit iritasyonuna bağlı özofageal fibrozis ve inflamasyon gibi disfajiye neden olan farklı mekanizmalardan bahsedilmiştir.<sup>[9]</sup> Ayrıca olgularda ses kabalaşması, stridor, dispne ve aspirasyon da mevcut olabilir. Bizim olgumuzda yutma güçlüğüne ek olarak baryumlu pasaj grafisinde trakeaya minimal aspirasyon saptandı.

Bilgisayarlı tomografi (BT), tanıda altın standarttır. Çok kesitli BT ile formatlanmış görüntüler oluşturulabilir ve osteofitlerin komşu anatomik yapılarla ilişkisi net olarak gösterilebilir. Böylelikle hastanın semptomlarının nedeni ortaya konabilir. Olgumuza çok kesitli BT ile formatlanmış ve üç boyutlu görüntüler ile ayrıntılı inceleme yapıldı ve özellikle C7 düzeyinde disfaji nedeni olan özofagusu bası tespit edildi. Ayrıca çekilen baryumlu farengoözofagografide, pasajın açık olduğu ancak dıştan bası olduğu gösterildi.

Yaygın idiyopatik skeletal hiperostozis için, Resnick ve Niwayama<sup>[3]</sup> tarafından önerilen tanı kriterleri şunlardır:



Şekil 4. Boyun bilgisayarlı tomografi; aksiyel planda osteofitik oluşumlar ve boyun omurları önünde arka farengeal duvarın öne doğru itilme görüntüsü.

1. En az dört düzey omur korpüsü boyunca devam eden paraspinal longitudinal bağ kalsifikasyonu ve ossifikasyonu,

2. Disk dejenerasyonu olmaması, disk aralıklarının korunması veya hafif azalması,

3. Dejeneratif omurga eklem hastalıklarının diğer bulgularının olmaması.

Omurların özellikle ön alt kesimlerinin tutulumuna bağlı ön hiperostoz genellikle 1 cm'den fazladır. Omur korpüs ön yüzeyi ile osteofit arasında radyolusen çizgi görülebilir.<sup>[1]</sup> Bilgisayarlı tomografide omur kolon tutulumu akıcılığı belirtmesi açısından "mum alevi tarzında" olarak ifade edilir.<sup>[10]</sup> Olgumuzda akıcı tarzda beş omur boyunca devam eden, disk aralıklarının nispeten korunduğu, faset dejenerasyonunun olmadığı ve önünde 10 mm kalınlığa ulaşan, yaygın olmakla birlikte sağda daha belirgin olan hiperostoz saptandı.

Yaygın idiyopatik skeletal hiperostozisde sadece hiperosteotik oluşumların cerrahi yöntemle çıkarılması yeterli iken, osteoartrozda omurların stabilizasyonunu içeren daha karmaşık işlemlerin gerekmesi nedeniyle hiperosteotik oluşumların, osteoartritik osteofitlerden ayrımı cerrahi açımdan önemlidir.<sup>[11]</sup> Yaygın idiyopatik skeletal hiperostozis tedavisi, ileri semptomlar olmadığı sürece, nonsteroid antiinflamatuarlar, steroidler, kas gevşeticiler ve antireflü tedavilerle genellikle konservatif olarak yapılır.<sup>[12]</sup> Yanıt alınamayan olgularda cerrahi planlanabilir. Cerrahi yaklaşım, ön boyun, arka-yan boyun ve ağızdan transfarengeal

yol ile olabilir. Literatürde %65 oranında nüks bildirilmiştir.<sup>[13]</sup> Bizim olgumuza, ameliyat planlandı ancak hasta ameliyat önerisini kabul etmedi; olgu konservatif tedaviye alınarak düzenli poliklinik kontrollerine gelmek üzere taburcu edildi.

### Çıkar çakışması beyanı

Yazarlar bu yazının hazırlanması ve yayınlanması aşamasında herhangi bir çıkar çakışması olmadığını beyan etmişlerdir.

### Finansman

Yazarlar bu yazının araştırma ve yazarlık sürecinde herhangi bir finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

### KAYNAKLAR

1. Yochum TR, Rowe LJ. Arthritic disorders. In: Rowe LJ, Yochum TR, editors. In: Essentials of skeletal radiology. 3rd ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2004. p. 1511-14.
2. Resnick D, Shaul SR, Robins JM. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH): Forestier's disease with extraspinal manifestations. Radiology 1975;115:513-24.
3. Resnick D, Niwayama G. Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). Radiology 1976;119:559-68.
4. Mader R. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: time for a change. J Rheumatol 2008;35:377-9.
5. Akhtar S, O'Flynn PE, Kelly A, Valentine PM. The management of dysphasia in skeletal hyperostosis. J Laryngol Otol 2000;114:154-7.
6. Bafalak M, Değirmenci H, Uysal E. Disfaji ile ortaya çıkan yaygın iskelet hiperosteozu (Forestier Hastalığı). Türk Tanısal ve Girişimsel Radyoloji 2003;9:393-5.
7. Aslan G, Hamzaoğlu A. Forestier hastalığı ve disfaji. KBB-Forum 2007;6:33-6.
8. Utsinger PD, Resnick D, Shapiro R. Diffuse skeletal abnormalities in Forestier disease. Arch Intern Med 1976;136:763-8.
9. 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.
10. Goh PY, Dobson M, Iseli T, Maartens NF. Forestier's disease presenting with dysphagia and dysphonia. J Clin Neurosci 2010;17:1336-8.
11. Kasper D, Hermichen H, Köster R, Schultz-Coulon HJ. Clinical manifestations of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). HNO. 2002;50:978-83. [Abstract]
12. Kara O, Ozmen CA, Yildirim Baylan M, Nazaroğlu H. A rare cause of dysphagia: Forestier's disease. [Article in Turkish] Kulak Burun Bogaz Ihtis Derg 2010;20:150-3.
13. Carlson ML, Archibald DJ, Graner DE, Kasperbauer JL. Surgical management of dysphagia and airway obstruction in patients with prominent ventral cervical osteophytes. Dysphagia 2011;26:34-40.