

## Diffüz İdyopatik Skeletal Hiperostoz (DISH)'a Bağlı Servikal Omurga Tutulumu ve Disfaji : Olgu Sunumu

Çiğdem MİLLİK\*, Sema FÜZÜN\*, Füsun ARDIÇ\*, Emine OSMA\*\*

\* D.E.Ü. Tıp Fakültesi Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Anabilim Dalı

\*\* D.E.Ü. Tıp Fakültesi Radyodiagnostik Anabilim Dalı

### ÖZET

Diffüz idyopatik skeletal hiperostoz (DISH) ligaman ve tendonların kemiklere yapışma yerlerinde aşırı yeni kemik gelişimi ile karakterize, daha çok spinal kolonu tutarak ağrı ve sertliğe neden olabilen, daha seyrek olarak iskeletin diğer kısımlarını da tutan non-enflamatuvar bir hastalıktır. Servikal omurga tutulumu ile disfaji bildirilmektedir. Disfaji yakınması ile hastanemize başvuran 57 yaşında DISH'li bir olgu klinik, radyolojik ve manyetik rezonans (MR) görüntüleme bulguları ile sunulmuş ve DISH ile ilgili literatür bilgileri gözden geçirilmiştir.

**Anahtar sözcükler :** Diffüz idyopatik skeletal hiperostoz, disfaji.

Diffüz idyopatik skeletal hiperostoz, "Forestier hastalığı", "spondilitis ossifikans ligamentosa", "hiperostotik spondiloz", "omurganın ankilozan hiperostozu" gibi çeşitli isimlerle tanınmış yaygın bir dejeneratif entesopatidir (1). Olay vücudun normal ya da anormal streslere karşı aşırı kemik formasyonuna neden olan bir kemik-

### SUMMARY

*Cervical Spine Involvement due to Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis and Dysphagia : A Case Report.*

Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) is a non-inflammatory disease, characterized by excessive new bone growth at the site of attachment of a ligament or tendon to bone. Although this disease generally affects the spine and cause pain and stiffness, may rarely involve other parts of the skeleton. When the cervical spine is affected, dysphagia may occur. A 57-year-old patient with DISH who has dysphagia is presented with its clinical, radiographical and magnetic resonance (MR) imaging findings.

**Key words :** Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, dysphagia.

leşme diatezi olarak düşünülmektedir (2). Ossifikasyon anterior longitudinal ligaman ve periferik disk kenarları gibi omurgayı çevreleyen konnektif dokuda olmaktadır (3). Hem aksial, hem de apendiküler iskelette radyolojik değişiklikler olmakla birlikte, DISH tanısı karakteristik spinal değişikliklerin varlığına dayanmaktadır (1,2).

DISH'in radyolojik anomalileri en yaygın olarak dorsal omurgada saptanmakta, ancak omurganın diğer segmentleri de etkilenebilmektedir (1,2,3,4). Hastaların %75'inde servikal omurga tutulumunun olduğu gösterilmiştir (4,5,6,7). Başlıca klinik yakınma minimal ağrının eşlik edebildiği spinal katılıktır (2,3,4,6). Ancak servikal tutulum sonucu diğer bir önemli semptom olarak disfaji de görülebilmektedir (2,3,4). Disfaji yakınması olan DISH'li bir olgu sunularak, konvansiyonel radyogram, özefagogram, kompute-rize tomografi (CT) ve MR görüntüleme bulguları tartışılacaktır.

## OLGU

57 yaşında bir erkek hasta yaklaşık iki yıldır devam eden boyun hareketlerinde kısıtlanma ve özellikle katı gıdalara karşı progresif yutma güçlüğü yakınmaları ile polikliniğimize başvurdu. Herhangibir baş-boyun travması, tütün kullanımı, kilo kaybı tanımlamıyordu.

Fizik muayenede servikal omurga hareketlerinde her yönde ileri derecede kısıtlılık ve hafif ağrı, lomber omurga hareketlerinde ise yine her yönde orta derecede kısıtlılık ve hafif ağrı dışında herhangibir patolojik bulgu saptanmadı.

Hematokrit, lökosit sayımı, eritrosit sedimentasyon hızı, serum kalsiyum, fosfor, magnezyum, alkalen fosfataz, ürik asit, açlık kan şekeri, postprandial ikinci saat kan şekeri, glukoz tolerans testi, serum growth hormon değerleri normal sınırlar içindeydi. Romatoid faktör(RF), antinükleer antikor (ANA), sifilis serolojik testleri, human lenfositik antijen -B<sub>27</sub> (HLA-B<sub>27</sub>) olumsuzdu. Protein elektroforezi normaldi.

Konvansiyonel servikal grafide atlantoaksial eklem düzeyinde ve 3. servikal vertebra (C<sub>3</sub>)'dan başlayarak tüm torasik ve lumbal bölgede anterior longitudinal ligamante değişik dereceli kalsifikasyonlar, servikal ve lumbal bölgede daha belirgin olmak üzere bütün vertebralarda anterior horizontal osteofitler görüldü. C<sub>4,5</sub> düzeyinde osteofitler en taşkındı ve posterior farinkse doğru ilerliyordu. Yine intervertebral aralıkların korunmuş olduğu ve diskin anterior ilerlemesi sebebiyle C<sub>3,4</sub> düzeyinde önde üçgen şeklinde tipik bir ossifikasyon alanı dikkat çekmekteydi (Şekil 1).



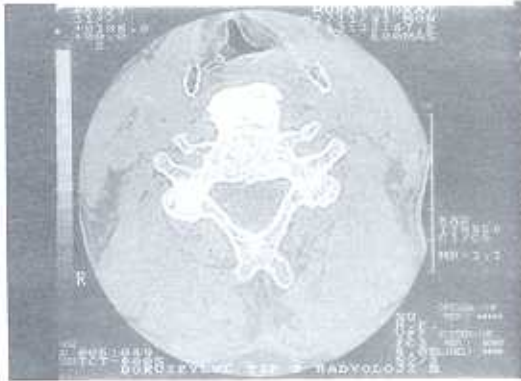
Şekil 1.Olgunun servikal lateral vertebra grafisi.

Baryumlu özefagus grafisinde C<sub>4-5</sub> düzeyinde proksimal özefagus ve hipofarinksin osteofit tarafından öne itildiği saptandı (Şekil 2).



Şekil 2. Olgunun baryumlu özefagus grafisi.

Servikal CT'de atlas arkusu arka kenarında hiperostotik değişiklikler, anterior longitudinal ligamende kalsifikasyon, C<sub>3</sub>, C<sub>4</sub> ve C<sub>5</sub>'te vertebra önünde nonuniform yapıdaki kemik kitlesi görüldü (Şekil 3).



Şekil 3. Olguya ait orta servikal bölgeden CT kesiti.

Servikal MR'da atlas arkusu, özellikle alt ve arka kenarında kortikal kemik artımı, odontoid proste kemik iliğinin intensitesini kaybettiği, ligamentum apicis longis'te kalınlaşma (belirgin-

leşme) dikkat çekti. C<sub>3,4</sub> ve C<sub>4,5</sub> düzeylerinde subaraknoid aralıkta daralma mevcut olup spinal bası saptanmadı. Yine C<sub>3</sub>, C<sub>4</sub> ve C<sub>5</sub> düzeylerindeki aşırı gelişmiş osteofitlerin hipofarinks hava sütunu ve proksimal özefagusa bası yaptığı görüldü (Şekil 4).



Şekil 4. Olgunun T<sub>1</sub> ağırlıklı sagittal servikal MR kesiti.

## TARTIŞMA

Diffüz idyopatik skeletal hiperostoz ilk kez 1950'de Forestier ve Rotes-Querol tarafından omurganın senil ankilozan hiperostozu olarak tanımlanmıştır (5,8,9). DISH'in rutin otopsi örneklerinin %6-12'sinde görüldüğü bildirilmiştir (4,5,6,8). Görülme sıklığı orta yaşlı ve yaşlı erkeklerde en fazladır (2,3,4,5,6,10). Etiyolojisi belirsizdir (2,3,5,8). Diabetes mellitus ve obezite ile ilişkili olabileceği bildirilmiştir (2,3,4,5,6). HLA-B27 antijeni ile ilişki üzerinde de durulmuştur (2,3,10).

Hastalık ligaman ya da tendonların kemiğe tutunma yerlerinde, yani entesislerde aşırı yeni kemik gelişimi ile karakterizedir. Başlıca tutulum yeri alt dorsal ve üst lomber omurga olmakla birlikte,

omurganın herhangi bir segmentini tutabilir ve yaygın olmayarak periferik muskuloskeletal sistemde de değişiklikler görülebilir (4).

Yaygın anatomik anomalilere rağmen ağrı sıklıkla çok azdır veya yoktur ve spinal hareket yalnızca ılımlı olarak sınırlanmaktadır (3). Hastaların başlıca klinik yakınmaları soğuşun arttırdığı spinal sabah sertliği ve hafif sırt-bel ağrılarıdır (2,3,6). Bizim hastamız da servikal ve lomber bölgede soğuk ile agreve olan orta derecede tutukluktan yakınıyordu. Rinofali, seste kabalaşma, öksürük, globus, stridor ve hatta dispne hastalığa eşlik edebilen semptomlar olarak bildirilmiştir (5,6,8,11). DISH'in servikal tutulumu sonucu anamnezlerde %17-28 oranında disfaji de bulunabilmektedir (4,5,6,7,9).

Disfajinin bir nedeni olarak servikal osteofitler 1904'te kabul edilmiştir ve 1926'da Mosher osteofitin disfajiye neden olduğu iki olgu bildirmiştir (9,12,13,14). İlk disfajili kesin DISH olgusu ise 1973'te Meeks ve Renshaw tarafından bildirilmiştir (14). 1981'de Lambert ve arkadaşları mevcut literatürü gözden geçirerek 11 olgu bulmuşlardır (6). Yüzden az sayıda servikal osteofitoza bağlı disfaji olgusu bildirilmektedir (13).

Servikal osteofitlerin neden olduğu disfajiden sorumlu çeşitli mekanizmalar tanımlanmıştır:

1. İri bir osteofitin özefagusta basit mekanik obstrüksiyona neden olmasıyla (4,5,6,10,12).
2. Küçük bir osteofitin krikoid kıkırdak düzeyi gibi özefagusun fikse pozisyonda bulunduğu bir yerde lokalize olmasıyla (2,4,5,6,8,14).
3. Anterior protrüzyondan gelişen rüptüre ve kalsifiye olmuş disk sebebiyle.
4. Protrüzyondan gelişen parafarenjit ve paraözofajitin fibrozis ve adezyonlar oluşturarak farinks veya özefagusun normal kayma hareketlerini önlemesiyle.

5. Özefageal orifisin posterior duvarının keskin retraksiyonu ve faringeal pleksusun etkilenmesinden dolayı kas tonusu bozuklukları sebebiyle (12).

6. Eşlik eden enflamatuvar mukozal değişiklikler ve ödemin neden olduğu lümenal daralma ile (4,5,12).

7. Herhangibir osteofitin neden olduğu ağrı ve kas spazmı ile.

Bu mekanizmaların herhangi bir kombinasyonu disfajiyi oluşturabilir (4,5,15).

Disfaji çoğu olguda yavaş bir progresyona sahiptir ve daima katı besinlere karşı sıvılara olduğundan daha belirgindir (5). Hastamız da son iki yıldır giderek artan, özellikle katı besinlere karşı yutma güçlüğü tanımlıyordu.

DISH'te en sık görülen fizik bulgunun boyun ve belde azalmış hareket açıklıkları olduğu bildirilmiştir (5). Hastamızda da boyun hareketlerinde ileri derecede, bel hareketlerinde ise orta derecede her yönde kısıtlılık mevcuttu.

Forestier ve Lagier DISH'te laboratuvar testlerinde spesifik değişiklikler olmadığını, varolan herhangi bir değişikliğin eşlik eden başka bir hastalık ile ilgili olabileceğini gözlemiştir (2). Bazı araştırmacılar hastaların açlık, postprandial ikinci saat serum glukoz düzeylerinde ya da glukoz tolerans testlerinde diabetes mellitusu düşündürülen değişiklikler saptamıştır (2,3,4,5). Resnick ve arkadaşları da DISH'li olgularda HLA-B<sub>27</sub> antijeninin %34(+)'liğini bildirmiştir (2). Biz hastamızda subklinik veya klinik olarak diabet saptayamadık. HLA-B<sub>27</sub> antijeni olumsuzdu. Diğer laboratuvar tetkikleri de normal bulundu.

Resnick ve Niwayama DISH'in spinal tutulumu için, ayırıcı tamda yardımcı olacak radyolojik tanı kriterleri belirlemişlerdir. Bu kriterler şunlardır:

1. En az dört komşu vertebra korpusunun antero-

lateral yüzleri boyunca akıcı kalsifikasyon ve ossifikasyonların varlığı,

2. Etkilenen vertebral segmentte intervertebral disk yüksekliğinin kısmen korunması ve vertebra korpusunun marginal sklerozu, vakum fenomenini içeren dejeneratif disk hastalığının yaygın radyografik değişikliklerinin yokluğu,

3. Apofizeal eklem kemik ankilozu ve sakroiliak eklem erezyonu, sklerozu veya intra-artiküler ossöz füzyonun yokluğu (1,2). Hastamızın konvansiyonel radyogramları bu kriterler ile uyumludur.

DISH'in en karakteristik radyografik anomalisi omurganın anterior longitudinal ligamanının kalsifikasyon ve ossifikasyonudur (1).

Radyolojik değişiklikler en yaygın torasik omurgada, özellikle 7. ve 11. torasik vertebra korpusları arasında görülmektedir. Lomber bölgede ise tutulum genellikle üst lomber bölgede, 1. ve 3. lomber vertebra korpusları arasında olmaktadır. Servikal omurga değişikliklerine de sık olarak rastlanmaktadır. En yaygın olarak alt servikal bölgede, 4. ve 7. servikal vertebra korpusları arasında, 1-12mm kalınlığa ulaşabilen kemik çıkıntılar görülebilir. İlk bulgular vertebra korpusunun anterior yüz korteksinde hiperostozdur. Yavaş yavaş uzayan bu kemik çıkıntısı vertebra'nın ön kenarında disk boşluğunu geçerek yayılır, sonuçta akıcı ossifikasyon paterni oluşabilir. Sıklıkla bu ossifikasyon intervertebral disk düzeyinde diskin yayılımı ile kesintiye uğrayarak disk aralığının önünde küçük, üçgen şeklinde bir kemik parçası oluşturur (2). Hastamızın vertebra radyogramlarında tüm segmentlerde anterior longitudinal ligaman kalsifikasyonları, özellikle servikal ve lumbal bölgelerde belirgin anterior horizontal osteofitler, C<sub>3-4</sub> düzeyinde disk aralığı önünde disk yayılımı ile oluşan üçgen şekilli küçük kemik parçası görüldü. Sıklıkla torasik omurgada görülebileceği bildirilen vertebra korpusu ile kemik depozisyonu arasındaki radyolüsent alanlar hastamızda çok be-

lirgindi. Apofizeal eklemlerde daralma ve düzensizlikler bazen görülebilir (2). Bu durumu C<sub>2-3</sub> arasında saptadık (Şekil 1). Servikal bölgede, posterior vertebral skleroz, posterior osteofitler, posterior longitudinal ligaman kalsifikasyonu gibi posterior vertebral anomalilerin de seyrek olmayarak görülebileceği bildirilmiştir (2). Konvansiyonel grafiler ile saptayamadığımız yumuşak doku değişikliklerini görmek amacıyla hastamızın servikal BT ve MR tetkikleri de yapıldı. Gerek konvansiyonel radyogramlar, gerekse BT tetkikinde posterior vertebral anomaliye rastlanmadı (Şekil 1 ve 3). Servikal MR'da minimal olarak posterior longitudinal ligaman hipertrofisi, C<sub>3-4</sub> ve C<sub>4-5</sub> düzeyinde subaraknoid aralıkta daralma saptandı, ancak spinal bası gözlenmedi (Şekil 4). DISH'te atlantoaksial eklem ve occiput tabanında da hiperostotik değişiklikler, atlasın ön arkında alt ve üst kenarlarındaki kemik depozisyonu nedeniyle uzama ve odontoid düzensizlikleri de görülebilmektedir (2). Bu değişiklikler hastamızın MRG tetkikinde belirgin olarak saptandı.

Konvansiyonel radyogramlarda posterior farinkse doğru ilerlediği görülen C<sub>4-5</sub> düzeyindeki iri osteofitlerin hastanın disfajisinden sorumlu olabileceği düşünüldü. Baryumlu özefagus grafisi ve servikal MR ile bu osteofitlerin hipofarinks ve proksimal özefagusa bası yaptığının izlenmesi bu düşüncemizi doğruladı (Şekil 2 ve 4).

Disfajinin ayırıcı tanısı larinks, özefagus, mediasten, akciğer ya da omurga tümörleri, özefajit, özefageal darlıklar, nöromuskuler kaynaklı özefageal motilite bozuklukları, aberan damarlar, Zenker divertikülü, Plummer-Vinson Sendromu ve krikofaringeal spazmları içerir. Ayırıcı tanı açısından baryum özefagogramı yaygın olarak önerilmektedir (5,6). Posterior özefageal duvarın eroziv incelmeye bağlı perforasyon gelişebileceği bildirildiğinden endoskopinin tanıdaki rolü tartışmalıdır (8,9). Bazı araştırmacılar eşlik edebilecek bir özefagus karsinomunu tanımak

açısından endoskopiye kuvvetle tavsiye etmektedir (4,12). Hastamızın mevcut klinik ve laboratuvar incelemeleri, baryumlu özefagus grafisi, BT ve MR tetkiklerinde karsinomu düşündürecek bir patolojiye rastlanmadığı için endoskopik incelemeye gerek görülmedi.

Forestier ve Rotes Querol DISH'li hastaların yaşlı olmaları ve semptomlarının az olması nedeniyle tedavinin nadiren gerektiğini vurgulamışlardır (2). DISH'e bağlı disfaji gelişen olguların tedavisi için radyoterapi dahil çeşitli yöntemler uygulanmıştır. Tedavi konservatif veya cerrahi olabilir. Konservatif tedavi hastaların yumuşak bir diyetle beslenmesini, antibiyotiklerle kombine olarak verilebilen steroid veya non-steroid antiinflamatuar ilaç uygulamalarını içerir (4,5,6,8,9,10,12). Bazı araştırmacılar cerrahi girişimin en iyi seçim olacağını savunurken (14), bazıları da medikal tedaviye cevap yetersizliği, persistan ağrı ve kilo kaybının eşlik ettiği durumlarda cerrahi endikasyon bildirmişlerdir (6,8). 1986'ya kadar cerrahi olarak tedavi edilmiş en az yirmidört tane olgu bildirilmiştir (13). 1984'te Sobol ve Rigual osteofitik disfajiye bağlı 19 operasyonu gözden geçirerek 17 başarılı sonuç bildirmişlerdir (9). Füzyon yapılmaksızın osteofitlerin eksizyonunun yüksek rekürrens oranı taşıdığı, bu nedenle osteofitlerin eksizyonu yanısıra füzyonun gerekliliği vurgulanmıştır (12)

Hastamıza konservatif ve cerrahi tedavi seçenekleri açıklandı. Ancak cerrahi tedaviyi kabul etmedi. Konservatif yöntemlerle semptomlarda kısmen hafifleme bildirildi.

Sonuç olarak DISH, özellikle orta yaşta veya yaşlı disfajili olguların ayırıcı tanısında mutlaka akla getirilmeli, konvansiyonel vertebra grafilerinde kaba osteofitik çıkıntılar ile karşılaşıldığında DISH'in radyolojik tanı kriterleri aranarak osteoartroz ile ayırımı yapılmalı ve hastalarda diabet araştırılmalıdır. Konvansiyonel radyogramlarla saptayamadığımız yumuşak doku patolojilerinin tanınmasında da CT ve MRG tetkikleri diagnostik öneme sahiptir.

## KAYNAKLAR

1. Resnick D, Sartoris D, Cone RO. Imaging. In: Kelley, Harris, Ruddy, Sledge, ed. Textbook of Rheumatology. Third Edition Philadelphia: W.B. Saunders Company, 1989; 690-691.
2. Resnick D, Niwayama G. Diagnosis of Bone and Joint Disorders. Second Edition Philadelphia, W.B. Saunders Company, 1988; 3:1563.
3. Moskowitz RW. Clinical and Laboratory Findings in Osteoarthritis. In: Mc Carty DJ, ed. Arthritis And Allied Conditions. Eleventh edition: Lea and Febiger, 1989; 1621-1622.
4. Shergy WJ, Nunley JA, Caldwell DS. Dysphagia Due to Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis. AFP 1989; 39-4: 149-152.
5. Eviatar E, Harell M. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis with dysphagia (A review). The Journal of Laryngology and Otology 1987; 101: 627-632.
6. Kristensen S, Sander KM, Pedersen PR. Cervical involvement of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis with dysphagia and rhinolalia. Arch. Otorhinolaryngol 1988; 245: 330-334.
7. Philipp A, Vollrath M. Die diffuse idiopathische Skelethyperostose als Ursache der Dysphagie. HNO 1989; 37: 179-181.
8. Deutsch EC, Schild JA, Mafee MF. Dysphagia and Forestier's Disease. Arch. Otolaryngol 1985; 111: 400-402.
9. Kritzer RO, Parker WD. DISH: A Cause of Anterior Cervical Osteophyte-Induced Dysphagia. Spine 1988; 13-1: 130-132.
10. Joseph MG, Matheson JM, Blum PW. Hyperostosis of anterior cervical vertebrae: a rare cause of dysphagia. The Medical Journal of Australia 1988; 149: 442-443.
11. Heck CV. Hoarseness and painful deglutition due to massive cervical exostoses. Surgery, Gynecology and Obstetrics 1956; 657-660.
12. Stuart D. Dysphagia due to cervical osteophytes. International Orthopaedics (SICOT) 1989; 13: 95-99.
13. Davies RP, Sage MR, Brohpy BP. Cervical Osteophyte Induced Dysphagia. Australasian Radiology 1989; 33: 223-225.
14. Meeks LW, Renshaw TS. Vertebral Osteophytosis and Dysphagia. The Journal of Bone and Joint Surgery 1973; 55-A, 1: 197-206.
15. Crowther JA, Ardran GM. Dysphagia due to cervical spondylosis. The Journal of Laryngology and Otology 1985; 99: 1167-1169.