



## Olgu Sunumu / Case Report

# Diffüz idiopatik iskelet hiperostozisli bir olguda tekrar ameliyatlara rağmen tekrarlayan yutma güçlüğü

## Reccurent dysphagia after redo surgery in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis

İlker Fatih Sarı, Sibel Ünsal Delialioğlu, Sumru Özel, Hülya Şirzai

Ankara Fizik Tedavi ve Rehabilitasyon Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Fizik Tedavi ve Rehabilitasyon Kliniği, Ankara, Türkiye

Geliş tarihi / Received: Ağustos 2014 Kabul tarihi / Accepted: Kasım 2014

**ÖZ**  
Diffüz idiopatik iskelet hiperostozis (DISH) yumuşak dokuların özellikle entezit noktaların, ligamentlerin ve eklem kapsülünün kemikleşmesi ya da kalsifikasyonu ile karakterize durumdur. Servikal omurga tutulumu ile seyreden DISH'li olgularda yutma güçlüğü ya da servikal miyelopati görülebilmektedir. Posterior longitudinal ligamentin ossifikasyonuna bağlı olarak miyelopati ile beraber bazen kuadrupleji olabilmektedir. Osteofite bağlı yutma güçlüğü ya da spinal darlık gibi ender komplikasyonlara bağlı ameliyatlara nadiren gerekmektedir. Bu yazıda 1.5 yıldır yutma güçlüğü, boyun tutukluğu ve üst ekstremitelerde güç kaybı olan ve üç kez ameliyat geçirmiş 62 yaşında DISH'li bir erkek hasta sunuldu. Tekrar ameliyatlara rağmen hastanın yakınmaları 2-3 ay sonra tekrarlamıştır.

**Anabtar sözcükler:** Diffüz idiopatik skeletal hiperostozis; yutma güçlüğü; üst ekstremitelerde güçsüzlüğü.

### ABSTRACT

Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) is characterized with calcification and ossification of soft tissues, especially enthesitis points, ligaments and the joint capsule. Dysphagia or cervical myelopathy may be seen in the cases of DISH with cervical spine involvement. In association with ossification of the posterior longitudinal ligament it can result in myelopathy and sometimes quadriplegia. Surgical interventions are rarely necessary for exceptional complications such as osteophytic dysphagia or spinal stenosis. In this article, we report a 62-year-old male patient with DISH with increased dysphagia, stiffness in neck and weakness of upper extremity for 1.5 years, who was operated three times. Despite redo surgeries, the symptoms repeated two to three months after the surgery.

**Keywords:** Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis; dysphagia; upper extremity weakness.

Diffüz idiopatik iskelet hiperostozis (DISH) yumuşak dokuların özellikle entezit noktaların, ligamentlerin ve eklem kapsülünün kemikleşmesi ya da kalsifikasyonu ile karakterize durumdur.<sup>[1]</sup> Mosher,<sup>[2]</sup> 1926'da ilk kez servikal vertebra osteofitine bağlı yutma bozukluğundan bahsetmiştir. 1950 yılında Forestier ve Rotes-Queral<sup>[3]</sup> bu durumu vertebra ön ve yan yüzünde anormal ossifikasyon olarak tanımladıktan ve vertebral ankilozan hiperostoz olarak adlandırdıktan sonra Forestier hastalığı olarak da anılmaya başlanmıştır. Resnick ve ark.<sup>[4]</sup> bu hastalığı 1970'li yıllarda günümüzde de sık kullanılan şekliyle DISH olarak adlandırmıştır.

Erkeklerde daha sık olmakla birlikte, daha çok 6. ve 7. dekatta görülmektedir. Scutellari ve ark.nın<sup>[5]</sup> incelediği 915 DISH'li hastada en sık tutulum vertebralarda olmakla birlikte (torakal %93, lomber %81, servikal %69), pelvis, topuk, dirsek ve dizde de tutulum olabilmektedir. Diffüz idiopatik iskelet hiperostozisde hastaların büyük bölümü asemptomatik olmakla birlikte, hastalarda tutulan omurga bölgesine göre boyun tutukluluğu, servikal instabilite, yutma güçlüğü (disfaji), solunum sıkıntısı, öksürük ve ses kısılması gibi semptomlar da ortaya çıkabilir.<sup>[6,7]</sup>

Bu yazıda servikal vertebrada DISH nedeniyle hipofarenkse bası sonucu yutma güçlüğü gelişen ve

**İletişim adresi / Corresponding author:** Dr. İlker Fatih Sarı, Ankara Fizik Tedavi ve Rehabilitasyon Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Fizik Tedavi ve Rehabilitasyon Kliniği, 06230 Samanpazarı, Ankara, Türkiye. e-posta / e-mail: ilker\_fatih\_sari@hotmail.com

Cite this article as:

Sarı İF, Ünsal Delialioğlu S, Özel S, Şirzai H. Reccurent dysphagia after redo surgery in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. Turk J Phys Med Rehab 2016;62(4):373-7.

tekrar ameliyatlara rağmen yutma güçlüğünün tekrarladığı bir hasta ele alınmaktadır.

### OLGU SUNUMU

Atmış iki yaşında erkek hasta boyunda ağrı, tutukluluk, kollarda güçsüzlük ve yutma güçlüğü yakınmaları ile kliniğimize başvurdu. Hasta yakınmalarının 1.5 yıl önce başladığını ve bu süreç içinde katı gıda tüketimin aşırı derecede azaldığını ve bundan dolayı 10-15 kg civarında kilo kaybettiğini belirtti. Hastanın öyküsünde herhangi bir sistemik hastalığı ve düzenli ilaç kullanımı yoktu. Fizik muayenesinde boyun pasif ve aktif eklem hareket açıklıkları (EHA) sırasıyla, fleksiyon 0°-20°, ekstansiyon 0°-10°, sağa ve sola lateral fleksiyon 0°-10°, rotasyonlar ise 0°-25°'de kısıtlı idi. Hastanın omuz EHA'ları pasif olarak açıldı. Hastanın nörolojik muayenesinde omuz fleksiyonu sağda 2/5, abduksiyonu 1/5; solda omuz fleksiyonu 3-/5, omuz abduksiyonu 2-/5 idi. Dirsek fleksiyonu sağda 3/5, ekstansiyonu 3+/5; solda dirsek fleksiyonu 3+/5, dirsek ekstansiyonu 5/5 olarak tespit edildi. Hastanın el bileği, parmaklar ve alt ekstremitesinde motor defisit saptanmadı. Hastanın iki taraflı brakial ve brakioradial refleksleri hipoaktif, triseps refleksi normoaktif saptandı. Patolojik refleks saptanmadı. Özellikle katı gıdaları yutmakta zorlanan hastanın yatak başında

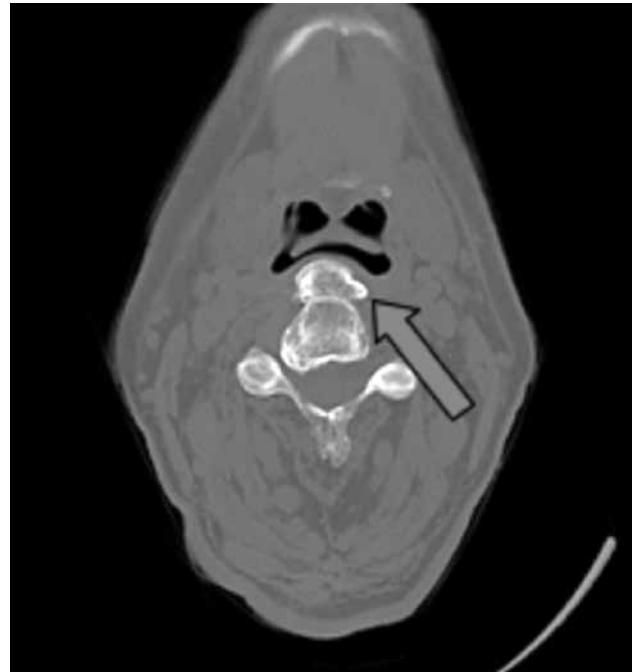
yapılan yatak başı yutma testinde sıvı gıda alımı sırasında katı gıdaya göre daha hafif olan yutma güçlüğü saptanırken, aspirasyon lehine olabilecek öksürük ya da seste çatallanma gibi semptomlar yoktu. Hastanın bu 1.5 yıllık süreçte aspirasyona bağlı pnömoni öyküsü de yoktu. Hasta yapılacak işlem hakkında bilgilendirildi ve bilgilendirilmiş hasta onamı alındı.

Hastanın kan biyokimyası, sedimantasyon ve tam kan sonuçları normaldi. Servikal grafisinde C4-5 seviyesinde vertebra korpus ön kesiminden uzanım gösteren osteofitik oluşumların birleşim gösterdiği ve bu düzeyde hava sütununun baskılandığı tespit edildi (Şekil 1). Servikal bilgisayarlı tomografide C4-5 seviyesinde larenks ve hipofarenks düzleminde hava sütununun arkadan basılandığı vertebra korpus köşelerinde yoğun dejeneratif sivrileşmeler ve köprüleşmeye neden olan osteofit formasyonu tespit edildi (Şekil 2). Yutma güçlüğünün bu seviyedeki basıdan kaynaklandığı düşünüldü. Hastanın servikal EHA'sının kısıtlanması nedeniyle inceleme uyumu sağlanamadığından videoflorskopik inceleme yapılmadı.

Hastanın yutma güçlüğü ve kas gücü kaybının olması nedeniyle hastaya ALS ön tanısı da düşünülerek yapılan elektronöromiyografi (ENMG)'de, C5-6-7-8 radikülopati, C5-8 servikal miyelopati ile uyumlu olabilecek bulgular saptandı.



**Şekil 1.** Yan servikal grafide korpus önünden yaygın osteofitik sivrileşmeler ve köprüleşmeler, C4-5 seviyesinde hava sütununun baskılanması (ok).



**Şekil 2.** Aksiyal planda bilgisayarlı tomografi kesitinde C4-5 seviyesinde yaygın osteofitik dejenerasyon ve bu düzeyde hipofarenkse bası (ok).

Hasta üst ekstremitede güçsüzlük ve yutma güçlüğü nedeni ile beyin cerrahisi bölümü tarafından üç kez ameliyat edilmişti. İlk ameliyatta özofagusa basıya neden olan küçük osteofitler temizlenmişti, ancak üst ekstremitedeki güçsüzlük ve yutma güçlüğüünün devam etmesi üzerine ameliyattan yaklaşık 1.5 ay sonra ikinci kez ameliyat olmuştu. İkinci ameliyattan sonra yutma fonksiyonları ve motor muayenesinde iyileşme olan hastanın yakınmalarının üç ay sonra tekrarlamaya başlaması üzerine üçüncü kez ameliyat olmuştu. Ancak hastanın yutma güçlüğü yakınması azalmakla birlikte halen devam etmekteydi. Hastaya dördüncü kez ameliyat düşünülmüdü.

Hastanın EHA'sını artırmak için yüzeyel ısıtıcı ve hafif germe egzersizleri verildi. Boyun çevresi kasları ve üst ekstremitte kaslarını güçlendirmek için kas kuvvetlerine göre aktif ya da aktif-asistif güçlendirme egzersizleri uygulandı. Hastaya uygun yutma güçlüğü rehabilitasyon programı oluşturuldu. Programda öncelikle diyet modifikasyonu yapıldı. Bu amaçla özellikle katı gıdaları yutarken yutma güçlüğü olması nedeniyle yarı katı gıdalardan zengin diyet oluşturuldu. Hastanın kilo kaybı nedeniyle diyet enerji miktarı yüksek enteral beslenme solüsyonları eklendi. Aspirasyon riskini azaltmak amacıyla komparsatuar stratejiler uygulandı. Bunun için postural tekniklerden faydalanıldı. Dik açı ile oturma ve yemek esnasında başın postürleri hastaya öğretildi. Oral motor eklem hareket açıklığı, güç ve koordinasyonu artırmaya yönelik egzersiz programı oluşturuldu. Bu programın içeriğinde çene, dudak, dil eklem hareket açıklığı egzersizleri, farengeal egzersizler ve güçlendirme egzersizleri yer almaktadır. Program sonunda hastanın kendini değerlendirmesine göre yutma güçlüğüünde kısmen azalma olmakla birlikte hastada bir ay içinde 1.5 kg kilo artışı oldu. Yatak başı yutma testi tekrarlandığında ilk testte sıvı gıdaları alırken katı gıdalara göre daha az yutma güçlüğü olan hastanın yutma sırasında hem katı hem de sıvı gıdalardaki yutma güçlüğü azalmakla birlikte aspirasyon lehine olabilecek semptomlar saptanmadı.

## TARTIŞMA

Diffüz idiopatik iskelet hiperostozis yumuşak dokuların özellikle entezit noktaların, ligamentlerin ve eklem kapsülünün kemikleşmesi ya da kalsifikasyonu ile karakterize durumdur.<sup>[1]</sup> Diffüz idiopatik iskelet hiperostozisin etyolojisi ve patogenezi tam olarak bilinmemektedir. Hastalığın etyolojisinde genetik faktörler, çevresel faktörler, endokrin ve metabolik patolojiler (diyabetes mellitus, obezite,

hiperkolesterolemi, akromegali, hipoparatiroidizm, hipervitaminoz A) ön plana çıkan nedenlerdir.<sup>[3,8,9]</sup> Diffüz idiopatik iskelet hiperostozisin yaygınlığı yaşla birlikte artar ve özellikle ileri yaşlılarda görülür. Erkeklerde görülme sıklığı kadınlara kıyasla daha fazladır.<sup>[10]</sup> Yaygınlığına bakıldığında 50 yaş ve üstü erkeklerde %25, kadınlarda %15 oranında görülmektedir. Yetmiş beş yaş ve üstüne bakıldığında erkeklerde %35, kadınlarda %26 oranında görülmektedir.<sup>[11]</sup>

Diffüz idiopatik iskelet hiperostoz tanısı için Resnick ve Niwayama'nın<sup>[12]</sup> oluşturduğu üç radyolojik tanı kriteri kullanılmaktadır. (i) Peş peşe en az dört vertebranın anterolateralinde köprü oluşumu, (ii) vertebral disk mesafesinin korunması ya da minimal azalması, (iii) apofizyal eklemlerde ankiloz ya da sakroiliyak eklemlerde skleroz olmamasıdır.

Diffüz idiopatik iskelet hiperostozla bağlı servikal vertebra tutulumunda hastalar genellikle asemptomatik olmakla birlikte, literatürde boyun hareketlerinde sınırlılık, yutma güçlüğü, dispne, stridor, ses kısıklığı, quadriparezi ve miyelopati gelişen olgular da bildirilmiştir.<sup>[13]</sup> Mosher<sup>[2]</sup> 1926'da ilk kez servikal vertebra osteofitine bağlı yutma bozukluğundan söz etmiştir. Diffüz idiopatik iskelet hiperostoz birçok faktörden dolayı yutma güçlüğüne neden olabilir. Bunlar; büyük anterior osteofitin direkt mekanik basısı, krikoid kıkırdak seviyesinde küçük osteofitlerin özofagusun dar yerine basısı, osteofit irritasyonuna bağlı gelişen periözofageal enflamasyon, krikofarengel spazm ve ağrılı osteofite bağlı gelişen özofageal spazmdir.<sup>[14]</sup> Resnick ve Niwayama<sup>[12]</sup> DISH hastalarında servikal hiperostozla bağlı yutma güçlüğüünün görülme sıklığını %17-28 olarak belirtmiş ve konservatif tedaviden fayda görmediğinden cerrahiye giden hasta oranının %8 olduğunu bildirmişlerdir. Diffüz idiopatik iskelet hiperostoz tanısı ve buna bağlı yutma güçlüğü direkt lateral servikal grafi, boyun bilgisayarlı tomografi, manyetik rezonans görüntüleme, baryumlu özofageal grafi ve rijit ya da fleksibl endoskopik muayene ile değerlendirilir. Yutma güçlüğüne neden olan en sık seviye C5-6'dır ve bunu C4-5 takip etmektedir.<sup>[15]</sup> Hastamızda da servikal bilgisayarlı tomografide C4-5 seviyesinde larenks ve hipofarenks düzleminde hava sütununu arkadan basılandırıan vertebra korpus köşelerinde yoğun dejeneratif sivrileşmeler tespit edildi ve yutma güçlüğüünün bu seviyeden kaynaklandığı düşünüldü.

Vertebralarda gelişen büyük anterior osteofitin özofagus veya trakeaya basısı ya da bu yapıların basıya

bağlı yer değiştirmesi hastada yutma güçlüğü, odinofaji, disfoni, boğazda yabancı cisim hissi ya da boğazı sürekli temizleme isteği gibi şikayetlere neden olmaktadır. Servikal osteofite bağlı sıvı ya da katı gıdaların aspirasyonu, stridor ve obstrüktif uyku apne sendromu da bazı yayınlarda bildirilen diğer semptomlardır. Yutma güçlüğü karakteristik olarak katı gıdalarda sıvı gıdalara kıyasla daha fazla olmakla birlikte aspirasyon sıvı gıdalarda katı gıdalara kıyasla daha fazla olabilir. Yabancı cisim hissi mukozal zedelenmeye bağlı protürde osteofitin üzerinden pasajların geçişinden kaynaklanıyor olabilir. Odinofaji ise arka krikoid kırık ile osteofitin arasında kalan hipofarenkse basının neden olduğu ülserle bağlı olarak gelişebilir.<sup>[15]</sup>

Diffüz idiopatik iskelet hiperostozda nörolojik semptomlar sık görülmez. Nörolojik defisitinin nedeni genellikle spinal darlığa bağlı alt servikal bölgedeki miyelopatidir. Kranioservikal bölgede DISH nadir görülür, bu seviyeden kaynaklı nörolojik defisitinin nedeni ise atlantoaksiyel subluksasyon ya da miyelopatidir.<sup>[16]</sup> Olgumuzun ENMG'sinde de C5-8 servikal miyelopati ile uyumlu olabilecek bulgular vardı. Servikal bilgisayarlı tomografide C4-5 seviyesinde larenks ve hipofarenks düzleminde hava sütununu arkadan basılandırıran vertebra korpus köşelerinde yoğun dejeneratif sivrileşmeler ve köprüleşmeye neden olan osteofit oluşum tespit edildi. Posterior longitudinal ligamanın (PLL) ossifikasyonuna bağlı miyelopatinin cerrahi tedavisinde en çok uygulanan yöntem posterior dekompresyondur. Ancak bazı olgularda PLL'nin aşırı ossifikasyonu ve ileri derecede darlık olması durumunda tek başına posterior dekompresyon yeterli olmayabilir ve anterior dekompresyon da yapmak gerekebilir.<sup>[17]</sup> Olgumuz üç kez ameliyat olmuş ve posterior dekompresyon uygulanmıştı. Ancak tekrar ameliyatlara rağmen yutma fonksiyonları ve motor muayenesinde kısa dönemde hafif düzelmeler sağlanmakla birlikte yakınmalar tekrarlamıştır.

Diffüz idiopatik iskelet hiperostoz tedavisi konservatif ve cerrahi olmak üzere ikiye ayrılır. (i) *Konservatif tedavi*; diyet modifikasyonu, kortikosteroid, non-steroid anti-inflamatuar ilaçlar ve kas gevşeticilerini içermektedir. Bazı olgularda osteofitleri temizleme işlemlerini içeren cerrahi tedavi seçenek olmaktadır. (ii) *Cerrahi tedavi ise*; osteofitin yerleşimine göre anterolateral, posterolateral ya da transfarengal olmaktadır. Cerrahi komplikasyonlar; larengeal sinir yaralanmasını, inme, Horner sendromu ve servikal instabilitayı içermektedir.

Literatürde DISH'e bağlı yutma güçlüğü olan hastalarda yutma güçlüğüne genelde ameliyat sonrası

azaldığı ya da ortadan kalktığı bildirilmiştir. Bu bilgiler daha çok olgu sunumlarına ya da az hasta ile yapılmış çalışmalara ait olmakla birlikte, Flynn<sup>[18]</sup> 30 hasta ile gerçekleştirdiği çalışmasında hastaların 28'inde (%93) anterior servikal osteofitlerin rezeksiyonu sonrası yutma güçlüğü semptomlarının azaldığını bildirmiştir. Yine başka bir çalışmada ameliyatın uzun dönem etkinliğine bakıldığında DISH'e bağlı yutma güçlüğü olan beş hastanın ameliyat sonrasında iki hafta içinde yutma güçlüğüne geçtiği, bir ve dokuz yıllık uzun dönem takiplerinde tekrarlamadığı bildirilmiştir.<sup>[19]</sup> Bizim olgumuzda olduğu gibi yutma güçlüğü ve kas güçsüzlüğü olan olguda cerrahi ile kısa vadede yakınmalar azalmakla birlikte, tekrarlayan cerrahilere rağmen orta vadede yakınmaların tekrarlaması önemli bir sorun haline gelebilmektedir.

Sonuç olarak, yutma güçlüğü ve boyun tutukluluğu olan hastalarda etyolojide DISH akılda tutulmalıdır. Diffüz idiopatik iskelet hiperostoz tedavisinde çoğunlukla konservatif ve medikal tedavi ön planda olmakla birlikte yutma bozukluğu ve üst ekstremitede radikülopati ve miyelopatiye bağlı kas güçsüzlüğü gibi ciddi olgularda cerrahi en önemli seçenek olmaktadır.

#### **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. Mader R, Sarzi-Puttini P, Atzeni F, Olivieri I, Pappone N, Verlaan JJ, et al. Extrapinal manifestations of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Rheumatology (Oxford)* 2009;48:1478-81.
2. Mosher HP. Exostoses of the cervical vertebrae as a cause for difficulty in swallowing. *The Laryngoscope* 1926;36:181-2.
3. Forestier J, Rotes-Querol J. Senile ankylosing hyperostosis of the spine. *Ann Rheum Dis* 1950;9:321-30.
4. Resnick D, Shaul SR, Robins JM. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH): Forestier's disease with extraspinal manifestations. *Radiology* 1975;115:513-24.
5. Scutellari PN, Orzincolo C, Princivalle M, Franceschini F. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. Review of diagnostic criteria and analysis of 915 cases. *Radiol Med* 1992;83:729-36. [Abstract]
6. Johnsson KE, Petersson H, Wollheim FA, Säveland H. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) causing spinal stenosis and sudden paraplegia. *J Rheumatol* 1983;10:784-9.

7. Gençay S, Yavuz H, Yilmazer C. Dysphagia due to a cervical osteophyte: a case report. [Article in Turkish] *Kulak Burun Bogaz Ihtis Derg* 2003;10:240-3.
8. Nascimento FA, Gatto LAM, Lages RO, Neto HM, Demartini Z. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: A review. *Surg Neurol Int* 2014;5:122-5.
9. Mader R, Novofestovski I, Adawi M, Lavi I. Mader R, Novofestovski I, Adawi M, Lavi I. *Semin Arthritis Rheum* 2009;38:361-5.
10. Zincarelli C, Iervolino S, Di Minno MN, Miniero E, Rengo C, Di Gioia L, et al. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis prevalence in subjects with severe atherosclerotic cardiovascular diseases. *Arthritis Care Res (Hoboken)* 2012;64:1765-9.
11. 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.
12. Resnick D, Niwayama G. Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Radiology* 1976;119:559-68.
13. Altuntaş EE, Mısır M, Atalar M, Uysal İÖ, Müderris S. Geriatrik yaş grubunda görülen diffüz idiyopatik iskelet hiperostozisi: Olgu sunumu. *Cumhuriyet Medical Journal (CMJ)* 2010;32:362-7.
14. 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.
15. Constantoyannis C, Papadas T, Konstantinou D. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis as a cause of progressive dysphagia: a case report. *Cases J* 2008;1:416.
16. Ni B, Zhu Z, Zhou F, Guo Q, Yang J, Liu J, et al. Bilateral C1 laminar hooks combined with C2 pedicle screws fixation for treatment of C1-C2 instability not suitable for placement of transarticular screws. *Eur Spine J* 2010;19:1378-82.
17. Koizumi S, Yamaguchi-Okada M, Namba H. Myelopathy due to multilevel cervical canal stenosis with Forestier disease: case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2010;50:942-5.
18. Flynn JM. Anterior cervical osteophytes causing dysphagia. *Bol Asoc Med P R* 1991;83:47-53.
19. Urrutia J, Bono CM. Long-term results of surgical treatment of dysphagia secondary to cervical diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Spine J* 2009;9:13-7.