

CASO CLÍNICO

DISFAGIA POR OSTEOFITO CERVICAL GIGANTE EN LA ENFERMEDAD DE FORESTIER DYSPHAGIA CAUSED BY A GYANT CERVICAL OSTEOPHYTE IN THE FORESTIER DISEASE

Martínez Guisado P*, Balderrama Caballero D H*, Montero García C*, Carreto Sánchez J*, Guerrero Alonso C*,
García Díaz M**, Polo Ostáriz M A***

RESUMEN:

La enfermedad de Forestier se caracteriza por la osificación del ligamento longitudinal anterior a nivel de la cara ventral de los cuerpos vertebrales. Se presenta el caso de un paciente de setenta y tres años con disfagia progresiva a sólidos al que se le descubre un abombamiento óseo de la cara posterior de la hipofaringe durante una endoscopia digestiva. Se realiza una revisión de la literatura al respecto, discutiéndose los aspectos clínicos, diagnósticos y terapéuticos más interesantes de esta enfermedad.

PALABRAS CLAVE: Enfermedad de Forestier. Hiperostosis esquelética difusa idiopática (HEDI). Disfagia. Osteofitos cervicales.

SUMMARY:

Forestier's disease is characterized by the formation of vertebral bridges which joint the ventral aspect of the vertebral bodies by ossification of the anterior vertebral longitudinal ligament.

We report the case of a 73-year-old man who had progressive difficulty in swallowing solids. Gastrointestinal endoscopy revealed a bony mass in the hypopharynx.

The literature is reviewed and the pathogenic criteria, diagnosis, and therapy are discussed.

KEY WORDS: Forestier's disease. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). Dysphagia. Cervical osteophytes.

Pedro Fco. Martínez Guisado

Avda Antonio Masa Campos nº 33, 3, 2º dcha.
06005-Badajoz. España.
Telf.: 924259466-609423973.
Correo electrónico: pmartnez@hotmail.com

INTRODUCCIÓN

La hiperostosis anquilosante espinal senil fue descrita por primera vez como tal en 1950 por JACQUES FORESTIER Y ROTES-QUEROL como una enfermedad que afecta a la columna vertebral mediante la osificación y calcificación del ligamento vertebral longitudinal anterior que forma puentes óseos entre las superficies más anteriores de los cuerpos vertebrales.

En la actualidad, debido a que no se circunscribe únicamente a la columna y puede afectar a otras localizaciones del aparato locomotor, con formación de hueso yuxtacortical en los lugares de inserción de ligamentos, tendones y cápsulas articulares, se la conoce como hiperostosis esquelética difusa idiopática (HEDI), término acuñado por RESNICK y aceptado por la Asociación Americana de Reumatología¹⁻⁵.

* Servicio de Otorrinolaringología y Patología Cérvico-Facial. Complejo Hospitalario Llerena-Zafra. Servicio Extremeño de Salud (SES). Badajoz. España.
** Servicio de Aparato Digestivo. Comp. H. Llerena-Zafra. SES. Badajoz. España.
*** Unidad de Reumatología. Comp. H. Llerena-Zafra. SES. Badajoz. España.

Aunque se trata de una enfermedad relativamente frecuente en personas de mediana edad, su afectación cervical rara vez ocasiona sintomatología que llegue más allá de la propia rigidez vertebral del cuello, a diferencia del caso presentado dónde la disfagia progresiva ocasionada por la compresión extrínseca de un gran osteofito cervical era el síntoma principal^{2,9}.

Esta inusual forma de evolución, unido al gran tamaño alcanzado por el osteofito que requirió ser intervenido quirúrgicamente y la resolución de las imágenes con las que se documentó el proceso nos animó a revisar el tema y a su presentación.

CASO CLÍNICO

Paciente de 73 años de edad, estudiado en consultas, por rigidez vertebral, cervicalgia y desequilibrio crónico de años de evolución, diagnosticado de hiperostosis esquelética difusa idiopática, en tratamiento con analgésicos y rehabilitación, que acude a urgencias por disfagia alta progresiva a sólidos de un mes de evolución, pérdida de peso, astenia y anorexia.

Entre sus antecedentes personales destaca estar en tratamiento antiparkinsoniano con dopaminérgicos y antidiabéticos orales por diabetes mellitus no insulino dependiente.

Remitido para la realización de una endoscopia digestiva con anestesia local, se observa la existencia de un abombamiento en la cara posterior de la hipofaringe que obliga a angular anormalmente el endoscopio para introducirse en la boca de Killian, constatándose el colapso de los primeros cms del esófago.

Ante la sospecha de dicha compresión extrínseca proximal, se realiza la exploración ORL de urgencia, apreciándose en la laringoscopia la protusión submucosa de la pared faríngea posterior, dura a la palpación, sobre el vestíbulo laríngeo.

La radiografía lateral cervical demostró la existencia de un gran osteofito vertebral anterior a nivel de C4-C5 que obliteraba la unión faringoesofágica, fusionando los cuerpos vertebrales mediante la calcificación del ligamento vertebral longitudinal anterior, preservando la altura de los cuerpos vertebrales y los espacios discales, con osificación del ligamento estilohioideo (Figura 1).



FIGURA 1: RADIOGRAFÍA LATERAL CERVICAL. GRAN OSTEOFITO CERVICAL C4-C5.

En la radiografía de tórax posteroanterior y lateral también son visibles osteofitos en ambas articulaciones escapulo-humerales y acromioclaviculares, así como imágenes que sugieren la existencia de calcificaciones en los tejidos periarticulares.

A nivel lumbar, presenta también, en menor medida, hiperostosis cortical a lo largo de la cara anterior de los cuerpos vertebrales y osteofitos vertebral posterior.

La proliferación ósea en inserciones de ligamentos en cresta ilíaca, tuberosidad isquiática, trocánter, acetábulo, margen superior del pubis y calcáneo, unido a la normalidad de las articulaciones sacroilíacas, completaban retrospectivamente el estudio reumatológico realizado.

Ingresado para continuar el estudio, se le realiza un tránsito faringoesofágico baritado,

dónde se demuestra la compresión extrínseca de la unión faringoesofágica por dicho osteofito que dificulta el paso del contraste; así como otra compresión extrínseca, de menor intensidad, en el tercio superior del esófago torácico coincidiendo con los segmentos T2-T3 (Figura 2).

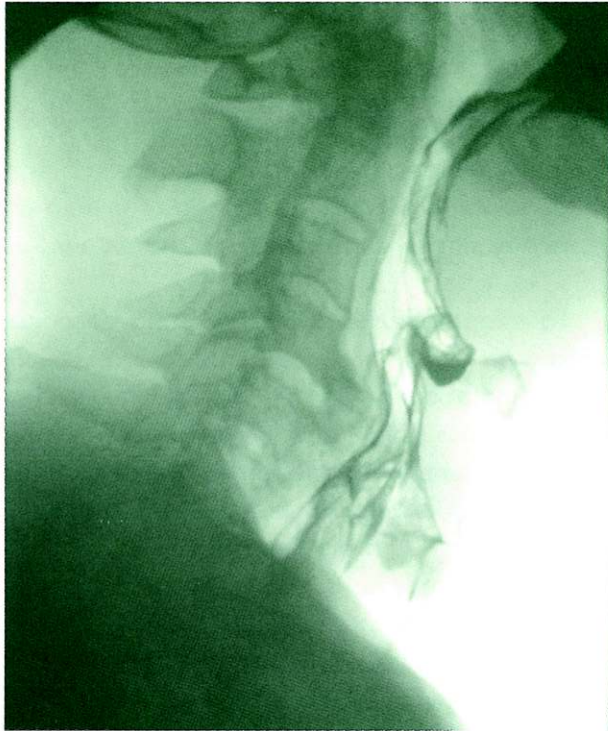


FIGURA 2: TRÁNSITO FARINGESOFÁGICO BARITADO. OBSÉRVESE EL GRADO DE ESTENOSIS AL PASO DEL CONTRASTE Y LA COMPRESIÓN POR EL OSTEÓFITO CERVICAL.

Los cortes axiales de TAC realizados a nivel cervical y torácico confirman la existencia y extensión de los osteofitos, decidiéndose la resección quirúrgica del gran osteofito cervical que impedía la alimentación del paciente (Figuras 3 y 4).

El estudio funcional realizado posteriormente mediante manometría esofágica del esfínter esofágico superior (EES), del cuerpo y del esfínter esofágico inferior (EEI), pone de manifiesto, al valorar la presión en reposo y el comportamiento dinámico, la existencia de incoordinación faringoesofágica con relajación precoz del



FIGURA 3: TAC CERVICAL, CORTE AXIAL A NIVEL DEL OSTEÓFITO, DONDE SE APRECIA SU RELACIÓN ANATÓMICA CON LA LARINGE Y EL BLOQUEO DEL SENO PIRIFORME Y DEL ESPACIO RETROCRICOIDEO.

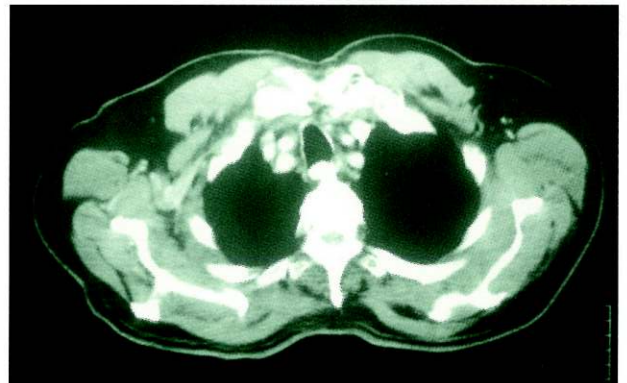


FIGURA 4: TAC TÓRAX, CORTE AXIAL T2. COMPRESIÓN ESOFÁGICA POR OSTEÓFITO DORSAL.

EES respecto a la contracción faríngea, con un EEI hipotenso (6 mmHg en reposo) de escasa capacidad esfinteriana.

La existencia de hernia de hiato complicada con un anillo fibroso incompleto de Schatzky por reflujo gastroesofágico que permite el paso del endoscopio y una gastritis aguda erosiva, secundaria a AINES, completaban el cuadro asociado.

A pesar del éxito de la intervención, en la que se eliminó completamente el obstáculo cervical, el paciente continúa en la actualidad, en menor medida, con algunas alteraciones deglutorias, previsiblemente ocasionadas por dichos trastornos motores esofágicos y por la compresión del osteofito torácico, quizás unidos a la fibrosis periesofágica desarrollada después de la cirugía de resección (Figura 5 y 6).



FIGURA 5: RADIOGRAFÍA LATERAL CERVICAL. RESULTADO DESPUÉS DE LA CIRUGÍA DE RESECCIÓN.



FIGURA 6: TAC CERVICAL, CORTE AXIAL. RESULTADO DESPUÉS DE LA CIRUGÍA DE RESECCIÓN.

DISCUSIÓN

La Hiperostosis Esquelética Difusa Idiopática (HEDI) es una enfermedad relativamente frecuente que afecta a más del 5-6% de la población mayor de cincuenta años, aunque se ha encontrado, en otras series, hasta en el 12% de los casos en que se realizaron autopsias de rutina.

Predomina en el sexo masculino sobre el femenino en una proporción de 2:1 y se incrementa su incidencia de forma importante a partir de la sexta década de la vida, con sólo un caso descrito en un paciente de cuarenta y tres años de edad^{2,7}.

La etiopatogenia continua siendo desconocida y en ella se han implicado factores endocrinos metabólicos por su asociación con diabetes mellitus, intolerancia a la glucosa, obesidad, hipertensión arterial e hipervitaminosis A, relacionándolos con la capacidad osteoformativa del retinol y la insulina.

Sin embargo, las alteraciones del metabolismo glucídico, lipídico o de la vitamina A, todavía no se han podido demostrar en los estudios realizados en estos pacientes^{2,4,6}.

La aparición de osteofitos producidos por microfracturas de la lámina ósea prevertebral a nivel de la articulación, con formación de callos óseos hipertróficos por la ausencia de inmovilización, también se ha postulado como mecanismo fisiopatológico, principalmente, en los grandes osteofitos cervicales⁷.

El proceso patológico consiste en un aumento de la masa ósea por unidad de volumen en diferentes áreas corporales, con osificación del periostio, sobre todo en las inserciones óseas de ligamentos y tendones que ocasiona disminución de movilidad de la zona afectada, llegando en los estadios avanzados a una intensa calcificación del ligamento vertebral común anterior^{3,5,7}.

Aunque afecta difusamente a otras partes del aparato locomotor, como olécranon, rótula, calcáneo y pelvis^{3,5}, su localización espinal

más frecuente es a nivel dorsal y cervical baja, en los puntos de máxima movilidad^{2, 4, 5, 7}.

De este modo, FORESTIER y col. encontraron afectación cervical inferior en un 76% de los pacientes, mientras que en otras series, como la de GAMACHE y col. la afectación C5-C6 se da en un 75%, la de C3 en un 49%, la de C2 en un 39% y la de C1 en sólo un 10% de los casos⁴.

En la mayor parte de las series publicadas casi todos los autores lo describen como un proceso asintomático que constituye muchas veces un hallazgo casual radiográfico; no obstante, los síntomas de presentación más frecuentes varían desde la inicial rigidez matutina cervical (50%) con dorsalgias (70%) y limitación de los movimientos de extensión, hasta otros síntomas menos frecuentes, como disfagia, odinofagia, pérdida de peso, sensación de cuerpo extraño, disfonía, tos crónica, estridor, disnea, aspiración laríngea, algias reflejas en miembros superiores, síndrome de Horner por afectación del simpático cervical, parálisis recurrente, mielopatía cervical y síndrome de apnea obstructiva del sueño, en los casos más evolucionados^{2, 9}.

La disfagia, relacionada por primera vez con la osteofitosis cervical por ZAHN en 1905 y publicado por MOSHER en 1926, es el síntoma relativamente más frecuente ajeno al aparato locomotor, encontrándose según RESNICK entre el 17 y 28% de los pacientes.

El mecanismo de producción, bien sea por compresión mecánica directa del osteofito, por compresión en el espacio retrocricoideo de anclaje del esófago, por alteración en la función deglutoria de la epiglotis, por inflamación y fibrosis periesofágica, por espasmo reflejo cricofaríngeo o bien por la combinación de estos factores, se discute aun en la actualidad^{2, 5, 7, 9}.

La disfonía originada por masas óseas protuyentes ya había sido descrita inicialmente por HECK en casos de discopatía degenerativa y artritis y, posteriormente, relacionada por otros autores con la HEDI, quienes indican como causa de la misma el roce continuo de los

aritenoides con el osteofito cervical y su posterior infección articular³; aunque están descritos casos de parálisis de cuerdas vocales con fijación de la misma en posición paramediana por afectación recurrente, posiblemente por fibrosis reactiva y edema perineural.

Cuando dicha afectación del nervio recurrente es bilateral o el osteofito comprime directamente la vía respiratoria se han comunicado casos más raros de disnea aguda y estridor que precisaron traqueotomía de urgencia^{8, 9}.

El diagnóstico diferencial de la HEDI con otras enfermedades de afectación vertebral como la espondilitis anquilosante y discopatías degenerativas, debe hacerse en base a los tres criterios radiográficos establecidos por RESNICK en 1978:

- 1 Osificación sobre la cara anterolateral de cuatro o más cuerpos vertebrales contiguos.
- 2 Preservación de la altura de los discos intervertebrales sin cambios degenerativos de los mismos.
- 3 Ausencia de anquilosis ósea intraarticular en las articulaciones sacroilíacas y apofisarias^{2, 7}.

El esofagograma con bario nos permite descartar otras causas más frecuentes de disfagia tras el estudio radiológico simple de la columna vertebral, sobre todo alteraciones motoras esofágicas, tumoraciones del seno piriforme o del área postcricoidea^{2, 4, 7}; en ocasiones completado con endoscopias digestivas altas no siempre exentas de riesgo de perforación^{2, 4, 7}.

Aunque no es necesario el uso de la Tomografía Axial Computerizada para el diagnóstico, la mayoría de los autores la emplean como método diagnóstico de confirmación, siendo necesaria además para valorar una posible cirugía de resección^{2, 7, 9}.

La Resonancia Magnética Nuclear apenas añade más información, salvo los casos en que sea necesario valorar el canal medular o exista sospecha de hernias discales asociadas³.

El tratamiento continua siendo controver-

tido, defendiéndose inicialmente medidas conservadoras con dietas blandas, antiinflamatorios, miorelajantes y rehabilitación, reservándose el tratamiento quirúrgico para los casos más evolucionados en los que hayan fallado las terapias anteriores con importante afectación de su calidad de vida, por dolor persistente, disfonía severa, disnea aguda o, como en nuestro caso, por disfagia e incapacidad progresiva para la alimentación.

De las tres vías de abordaje descritas: ante-

rolateral extrafaríngea, posterolateral extrafaríngea y transoral faríngea, la primera es la más utilizada, reservándose las otras para localizaciones más altas.

Los resultados difieren de unos a otros autores, estando descritas complicaciones como lesiones del nervio recurrente, prolapsos del disco intervertebral, perforaciones y fístulas esofágicas, infecciones, aspiraciones y síndrome de CLAUDE-BERNARD-HORNER por afectación del simpático cervical²⁻⁹.

REFERENCIAS

- 1 MALCOLM I. V.; JAYSON M. D.; MENKES C. J. - Historical Perspective Jacques Forestier. *Spine*. 1995; 20(1):111-115.
- 2 ESCOBAR C.; AMORES A.; GONZÁLEZ P.; REDONDO R. - Disfagia como síntoma en la hiperostosis esquelética difusa idiopática (enfermedad de Forestier-Rotes). Presentación de un caso y revisión bibliográfica. *Acta Otorrinolaring. Esp.* 1997; 48(2): 161-163.
- 3 SALAZAR C.; BENÍTEZ F.; DE SAA R.; SÁNCHEZ-JARA J. L.; GARCÍA B. - Enfermedad de Forestier. Manifestaciones ORL. *Acta Otorrinolaring. Esp.* 1999; 50(4): 327-331.
- 4 FOGLIA M.; NOGUÉS J.; GONZÁLEZ X.; ARIAS G.; DICENTA M. - La disfagia en la enfermedad de Forestier o hiperostosis anquilosante vertebral. *Acta Otorrinolaring. Esp.* 1998; 49(1):71-74.
- 5 CAMPOS M. E.; PÉREZ B.; GARABAL J.; LÓPEZ CAMPOS D.; LÓPEZ AGUADO D. - Síndrome de Forestier. A propósito de dos casos. *Acta Otorrinolaring. Esp.* 2001; 52: 247-250.
- 6 RODRÍGUEZ J.; RODRÍGUEZ M. V.; MATO C. - La disfagia en la hiperostosis cervical o enfermedad de Forestier. *Anales ORL Iber.-Amer.* 2002; 29(2): 135-141.
- 7 LEACHE J. J.; CAMPOS M. A.; GIL P.; ORTIZ A. - Enfisema cervical por enfermedad de Forestier. *Anales ORL Iber. - Amer.* 2000; 27(5): 421-426.
- 8 PAPAKOSTAS K.; THAKAR A.; NANDA-PALAN V.; O'SULLIVAN G. - An unusual case of stridor due to osteophytes of the cervical spine: (Forestier's disease). *Journal of Laryngology and Otology.* 1999; 113: 65-66.
- 9 VERSTRAETE W. L.; DE GAUWER H. G.; VERHULST D.; JACOBS F. - Vocal cord immobilisation in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Acta oto-rhino-laryngologica belg.* 1998; 52: 79-84.