



Paraplegia Caused by Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis: A Case Report

Diffüz İdiopatik İskelet Hiperostozuna Bağlı Gelişen Parapleji: Olgu Sunumu

DISH'in Yol Açtığı Parapleji / Paraplegia in DISH

Sevgi İkbali Afsar, Şehri Ayaş
Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi, Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Anabilim Dalı, Ankara, Türkiye

Özet

Diffüz İdiopatik İskelet Hiperostozu (DISH); Forestier hastalığı olarak da bilinen, idiyopatik, vertebral kolonun anterior longitudinal ligamenti ve çeşitli ekstraspi-nal ligamentlerin ossifikasyonu ile karakterize kronik bir hastalıktır. Çoğunlukla asemptomatik seyretmekle birlikte, en sık görülen belirtiler omurgada ağrı, hare-ket kısıtlılığı ve disfajidir. Nadiren spinal kanal stenozu ve myelopatiye neden ola-bilmektedir. Bu makalede, DISH zemininde torakal spinal stenozu bağlı paraple-ji tablosu gelişen 64 yaşında erkek hastanın literatür eşliğinde sunulması amaç-lanmıştır.

Anahtar Kelimeler

Diffüz İdiopatik İskelet Hiperostozu; Ligamentum Flavum Ossifikasyonu; Parapleji

Abstract

Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH), also known as Forestier disease, is an idiopathic chronic disorder characterized by the calcification of the anterior longitudinal ligament of the vertebral column and various extraspinal ligaments. It is usually asymptomatic but the most common symptoms are spinal pain, limited range of spinal motion and dysphagia. Spinal canal stenosis and myelopathy may rarely be seen. We present with the relevant literature a 64-year-old male who developed paraplegia due to thoracal spinal stenosis on a background of DISH.

Keywords

Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis; Ossification of the Ligamentum Flavum; Paraplegia

DOI: 10.4328/JCAM.2827

Received: 19.09.2014 Accepted: 30.09.2014 Printed: 01.02.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 1): 97-9

Corresponding Author: Sevgi İkbali Afsar, Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi, Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Anabilim Dalı, 06490 Ankara, Türkiye.

T.: +90 3122126650 F.: +90 3122157840 E-Mail: ikbaliarfsar@hotmail.com

Giriş

Diffüz İdiopatik İskelet Hiperostozu (DISH); etyolojisi bilinmeyen, vertebral kolonun anterior longitudinal ligamenti ve çeşitli ekstraspinal ligamentlerin ossifikasyonu ile karakterize kronik bir hastalıktır. İlk olarak 1950 yılında tanımlanmış olup, Forestier hastalığı olarak da bilinmektedir. Çoğunlukla asemptomatik seyretmekle birlikte, en sık görülen belirtiler omurgada ağrı, hareket kısıtlılığı ve özefagus kompresyonuna bağlı disfajidir [1]. Nadiren vertebral kolon posteriorunda veya posterior longitudinal ligamentte oluşan ossifikasyonların spinal kordda baskı yapması sonucunda travma olmaksızın myelopati gelişebilir [2]. Literatürde DISH'li hastalarda daha çok üst servikal bölgede myelopati gelişimi bildirilmiştir [3]. Ligamentum flavum ossifikasyonu(LFO)'na bağlı torakal myelopati ve nörolojik defisit gelişen vaka sayısı ise daha az sayıdadır [4-6].

Biz bu yazıda yaygın DISH görünümü olan bir hastada T10-11-12 seviyelerinde LFO ve faset eklem hipertrofinine bağlı olarak, travma olmaksızın gelişen myelopati olgusunu literatür eşliğinde sunmayı amaçladık.

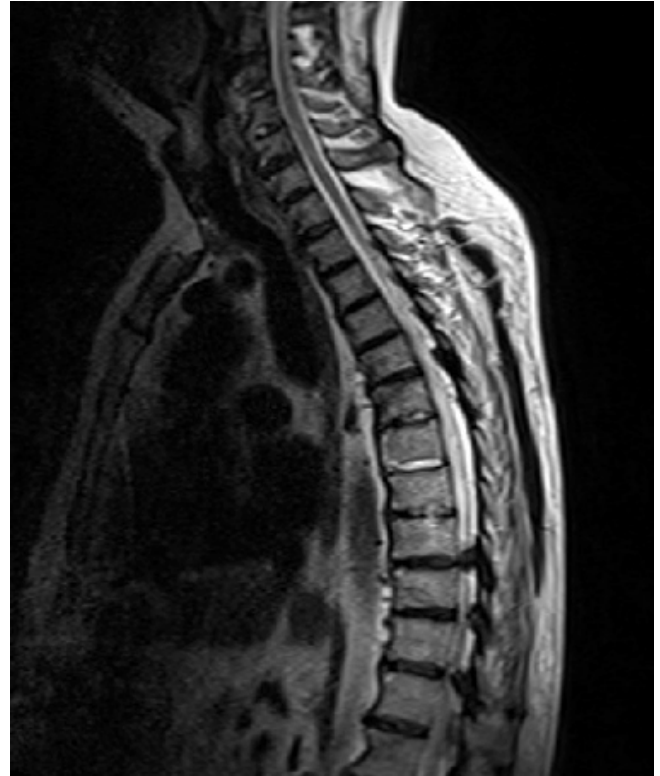
Olgu Sunumu

65 yaşında erkek hasta kliniğimize bacaklarda ağrı, uyuşma, güçsüzlük ve yürüyememe şikayetleri ile başvurdu. Öyküsünde 6 ay önce belinde ve her iki bacağına ayak bileklerine kadar yayılan ağrının başladığı, steroid olmayan anti-inflamatuvar ilaçlar ile bu ağrının azaldığı, son 3 aydır sağ bacağına, 20 gündür de sol bacağına kuvvetsizlik geliştiği öğrenildi. Hasta, ayaklarında uyuşma olduğunu, süngerin üzerinde yürüyormuş gibi hissettiğini, yürürken ayağından terliğinini çıktığını ve bunu fark edemediğini ifade etti. Dengesizlik şikayeti de olan hasta, son 20 gündür bir kişinin yardımı ve duvardan tutunarak yürümeye başladığını belirtti. Kollarında ağrı, uyuşma, kuvvetsizlik ve idrar gayta kaçırma şikayeti olmamış. Dış merkezde çekilen kranial manyetik rezonans görüntüleme (MRG)'de patoloji saptanmadığı öğrenildi. Özgeçmişinde özellik yoktu. Hastanın fizik muayenesinde kooperasyon ve oryantasyonu tam olup, motor muayenesinde üst ekstremitelerde kuvvet kaybı saptanmadı. Alt ekstremitelerde ise kas kuvveti; sağda kalça fleksörleri 3/5, kalça abdükörleri 3+/5, diz ekstansörleri 4+/5, ayak bileği dorsifleksörleri ve uzun parmak ekstansörleri 2/5, ayak bileği plantar fleksörleri ve diz fleksörleri 4/5, solda ise kalça fleksörleri, kalça abdükörleri, diz ekstansörleri, ayak bileği dorsifleksörleri, ayak bileği plantar fleksörleri 5/5 ve uzun parmak ekstansörleri 4/5 olarak saptandı. Sağda kuadriseps kasında atrofi mevcuttu. Derin tendon refleksleri üst ekstremitelerde normoaktif iken alt ekstremitelerde hiperaktif, plantar yanıt ise bilateral ekstansördü. Bilateral 1-2 atımlık klonus mevcuttu. Duyu muayenesinde sağda L3 seviyesi ve distalinde, solda L4 seviyesi ve distalinde hipoestezi saptandı. Bilateral üst ve alt ekstremitelerde eklem hareket açıklıkları normal idi. Hastanın servikal ve lumbal grafilerinde DISH ile uyumlu görünüm izleniyordu (Resim 1). Pelvis grafisinde ise DISH ile uyumlu olarak belirgin bir patoloji saptanmadı. Torakal vertebral MRG'de torakal aks, torakal vertebra korpus yükseklikleri, posterior eleman bütünlükleri ve intervertebral disk yükseklikleri normal izlenirken, vertebra korpus köşelerinde dejeneratif osteofitik değişiklikler, T9-10 düzeyinde sağ faset eklemde ve sağda ligamentum flavumda belirgin dejeneratif hipertrofik değişiklikler ve spinal kanal çapında minimal daralma, T10-11 ve



Resim 1. Lateral lomber direkt grafide T12-L1, L1-2, L3-4 düzeylerinde vertebra korpus anteriorlarında köprüleşen osteofitler

T11-12 düzeylerinde her iki faset eklemde ve ligamentum flavumlarda sağda daha belirgin olmak üzere dejeneratif hipertrofik değişiklikler ve spinal kanal ön-arka çapında daralma izlendi (Resim 2). Lomber vertebral MRG'de ise L4-5 intervertebral dis-



Resim 2. Torakal vertebral manyetik rezonans görüntüleme sagittal T2 ağırlıklı sekansta T9-10, T10-11, T11-12 düzeylerinde ligamentum flavumda hipertrofik değişiklikler

kinde diffüz bulging ve sağ foraminal geniş tabanlı protrüzyon ve bu düzeyde tekal saka ve sağ nöral köke bası bulgusu izlendi. Hasta, klinik ve radyolojik bulguları göz önünde bulundurularak DISH zemininde gelişen spinal kanal stenozuna bağlı parapleji olarak kabul edildi ve cerrahi açıdan değerlendirilmek amacıyla Beyin Cerrahisi Bölümü'ne yönlendirildi.

Tartışma

DISH, yaşlı popülasyonda (48-85 yaş) ve erkeklerde daha sık (%65) görülen, entezis bölgelerinde ossifikasyon ile karakterize, sistemik, inflamatuvar olmayan bir iskelet hastalığıdır [7]. Hastalığın etyopatogenezi tam olarak bilinmemekle birlikte, tip II diabetes mellitus, obesite, safra taşı varlığı, sistemik hipertansiyon, lipid ve pürin metabolizması ile ilgili hastalıklar ve yüksek A vitamini seviyeleri ile DISH arasında ilişki saptanması metabolik durumların rol oynadığını düşündürmüştür [1,7]. Fiziopatolojik olarak, ligamentlerin insersiyosunda ossifikasyon ve hem aksiyel hem de appendiküler iskelette tendon ve ligamentlerde ossifikasyon ve/veya kalsifikasyon ile karakterizedir [7]. DISH'e bağlı osterofitler sıklıkla vertebraların ön yüzlerinde görülmekle birlikte daha nadir olarak vertebra arkasında spinal kanala doğru büyüyen osteofitlere de rastlanmaktadır [6]. En sık torakal omurga tutulur ve omurganın ön ve sağ lateral kesimlerindeki ossifikasyonlar tipiktir. Bizim vakamızda da torakal vertebral MRG'de faset eklemlerde ve ligamentum flavumda görülen dejeneratif hipertrofik değişiklikler sağ tarafta daha belirgin olarak izlenmiştir.

DISH'i olan hastaların çoğu asemptomatik olmakla birlikte semptomatik olanların sadece %4'ünde parestezi ve motor defisit gibi nörolojik belirtiler vardır. DISH, çoğunlukla üst servikal bölgede, tek başına spinal kord kompresyonuna neden olabilir [2,3]. Literatürde bildirilen torakal myelopati olguları ise daha nadirdir [3,6]. Torakal bölgede DISH ile ilişkili nörolojik defisit gelişmesinde LFO'nun önemli rol oynadığı düşünülmektedir. LFO'nun hala mobil olan segmentlerde oluşması nedeniyle, bu segmentlerde meydana gelen kronik stresin hipertrofi veya LFO oluşumuna katkıda bulunduğu öne sürülmüştür [3]. LFO nedeniyle gelişen torakal myelopati olguları daha çok Doğu Asya'dan bildirilmiş olup, diğer ırklarda nadir olarak görülmektedir [6]. Okada ve ark. [8] LFO'nun %64 oranında T10-11 ve %21 oranında ise T11-12 arasında olduğunu bildirmiştir. Reisner ve ark. [4] tarafından yapılan vaka sunumunda, DISH'i olan bir hastada, T8-9 seviyesinde faset eklem hipertrofisi ve LFO'ya bağlı gelişen spinal stenoz ve akut gelişen parapleji tablosundan bahsedilmiş olup, cerrahi olarak dekompresif laminektomi yapılan hastanın kliniğinde düzelme olduğu bildirilmiştir. Wilson ve Jaspan [5] ise DISH'e bağlı ciddi torakal spinal kanal darlığı ve parapleji tablosu sunarak, hastanın bilgisayarlı tomografi myelografisinde T11 seviyesinde LFO, T8-11 ve L2-5 seviyelerinde anterior longitudinal ligament ossifikasyonu izlendiğini ve torasik laminektomi cerrahisi uygulanan hastada postoperatif klinik düzelme olduğunu belirtmişlerdir. Guo ve ark. [3] tarafından sunulan vakada ise Çin'li erkek bir hastada T1-2 seviyesinde torakal seviyede myelopatiye neden olan posterior longitudinal ligament ossifikasyonu ve LFO gelişimi bildirilmiştir. T1-2'de posterior kanal dekompresyonu yapılan hastada, alt ekstremitelerde minimal kas güçsüzlüğünün (4/5 kuvvetinde) ve hiperrefleksinin devam ettiği, ancak hastanın tedavi sonucundan memnun olduğu belirtil-

miştir. Bizim vakamızda da faset eklemlerde ve ligamentum flavumlarda izlenen dejeneratif hipertrofik değişiklikler T10-11 ve T11-12 düzeylerinde daha belirgindi ve spinal kanal çapında daralmaya neden oluyordu. Lezyon seviyesi olarak Reisner ve ark. ile Wilson ve Jaspan'ın vakalarına benzer şekilde alt torakal seviyede spinal kanalda darlık izlenmiştir. Ancak bizim vakamızda literatürde belirtildiği gibi diabetes mellitus, obesite, sistemik hipertansiyon gibi eşlik eden sistemik bir hastalık saptanmadı. DISH, genellikle asemptomatik seyretmekle birlikte, vakamızda olduğu gibi ciddi komplikasyonlara neden olabilen ve sonuç olarak kişinin yaşam kalitesini bozabilen bir durumdur. Bu nedenle, spinal kord lezyonlarında belirgin bir etyoloji saptanmadığında DISH de akılda tutulmalı ve hasta bu açıdan da incelenmelidir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Nascimento FA, Gatto LA, Lages RO, Neto HM, Demartini Z, Koppe GL. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: A review. *Surg Neurol Int* 2014;5(Suppl.3):S122-5.
2. Kurtaran A, Özdemir S, Selçuk B, Yıldırım Ö, Değirmenci İ, Akyüz M. Servikal bölgedeki yaygın idiopatik iskelet hiperostozuna bağlı gelişen santral kord sendromu. *Türk Fiz Tıp Rehab Derg* 2012;58:326-8.
3. Guo Q, Ni B, Yang J, Zhu Z, Yang J. Simultaneous ossification of the posterior longitudinal ligament and ossification of the ligamentum flavum causing upper thoracic myelopathy in DISH: Case report and literature review. *Eur Spine J* 2011;20(Suppl.2):S195-201.
4. Reisner A, Stiles RG, Tindall SC. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis causing acute thoracic myelopathy: A case report and discussion. *Neurosurgery* 1990;26(3):507-11.
5. Wilson FM, Jaspan T. Thoracic spinal cord compression caused by diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Clin Radiol* 1990;42(2):133-5.
6. Sarı H, Sucuoğlu H, Örnek Nİ, Mısırlıoğlu TÖ, Uludağ M. Diffüz idiopatik iskelet hiperostozlu (DISH) hastada posterior vertebral osteofit ve ligamentum flavum ossifikasyonuna bağlı üst torakal miyelopati gelişimi. *Türk Fiz Tıp Rehab Derg* 2012;58:342-3.
7. Cammisia M, De Serio A, Guglielmi G. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Eur J Radiol* 1998;27(Suppl.1):S7-11.
8. Okada K, Oka S, Tohge K, Ono K, Yonenobu K, Hosoya T. Thoracic myelopathy caused by ossification of the ligamentum flavum. *Clinicopathologic study and surgical treatment. Spine (Phila Pa 1976)* 1991;16(3):280-7.

How to cite this article:

Afsar Sİ, Ayaş Ş. Paraplegia Caused by Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 1): 97-9.