

# Enfermedad de Forestier en paciente mayor de 65 años: reporte de caso con seguimiento a 6 años de manejo conservador

CRISTIAN VALDEZ<sup>1</sup>, ADRIANO VALDEZ<sup>2</sup>

## Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). Report of one case

*Forestier Disease, or Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis (DISH), causes a considerable ossification of the anterior longitudinal ligament of the spine. When it involves cervical segments, it can be accompanied by dysphagia, dysphonia and/or dyspnea. This entity usually has a benign course. Surgical treatment is required for progressive cases. We report a 72-year-old male with a history of chronic cervical pain and slight neck stiffness. On the imaging studies, there was an exuberant ossification of the anterior longitudinal ligament, at the cervical spine level, between C2 and C7. He was managed conservatively without clinical deterioration in a six-year follow-up.*

(Rev Med Chile 2018; 146: 1493-1496)

**Key words:** Hyperostosis, Diffuse Idiopathic Skeletal; Neck Pain; Ossification, Heterotopic.

La enfermedad de Forestier, también conocida como hiperostosis esquelética idiopática difusa (DISH), es una entidad de causa desconocida que fue inicialmente descrita por Forestier y Rotes-Querol en el año 1950. Fueron Resnick y Niwayama quienes utilizaron el término DISH por primera vez en 1976, para referirse a la misma enfermedad<sup>1</sup>. Resnick y colaboradores luego le agregaron 3 criterios diagnósticos (Criterios radiográficos de Resnick): 1) Osificación considerable del ligamento longitudinal anterior (LLA) en al menos 4 cuerpos vertebrales contiguos, 2) preservación de la altura de los discos intervertebrales y 3) ausencia de anquilosis ósea de las facetas articulares y erosión, esclerosis, o fusión ósea intraarticular de las articulaciones sacroilíacas<sup>2</sup>.

DISH es una enfermedad más predominante en hombres (3,8%) que en mujeres (2,6%)<sup>1,3</sup>, y se cree que afecta entre 10-30% de la población general, con mayor prevalencia a partir de los 60

años. Las osificaciones en muchos casos pueden pasar desapercibidas y cuando son sintomáticas pueden causar disfagia, disfonía o disnea<sup>4</sup>. Existen algunos factores de riesgo que se han implicado como probable etiología de DISH. Entre ellos están: genéticos (COL6A1, HSP60), enfermedades metabólicas (hiperinsulinemia, obesidad, dislipidemia, hipertensión, hiperuricemia) y el uso prolongado del isotretinol<sup>5</sup>.

Esta entidad tiene pocas complicaciones y generalmente un curso benigno. Su tratamiento consiste en medidas conservadoras (antiinflamatorios, relajantes musculares, esteroides y cambios posturales al deglutir). El manejo quirúrgico se reserva para los casos refractarios al manejo conservador<sup>6</sup>.

A continuación presentamos un reporte de caso sobre la conducta y el manejo en un paciente mayor de 65 años con una importante osificación del ligamento longitudinal anterior a nivel cervical.

<sup>1</sup>Hospital Metropolitano de Santiago (HOMS). Santiago de los Caballeros. República Dominicana.

<sup>2</sup>Servicio de Neurocirugía del Hospital Metropolitano de Santiago (HOMS). Santiago de los Caballeros. República Dominicana.

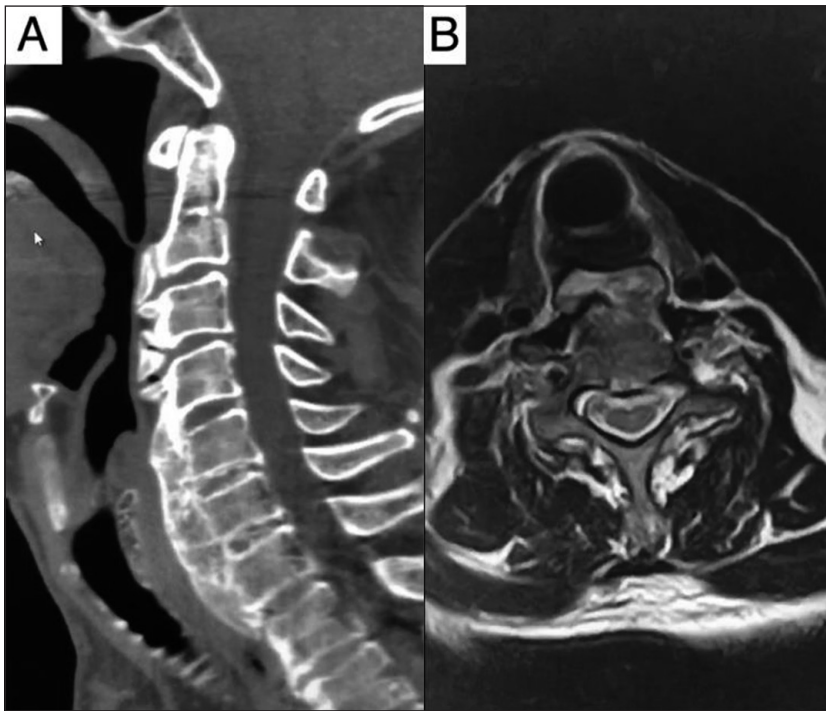
Los autores declaran no tener conflictos de interés.

Los autores no recibieron financiamiento para llevar a cabo este trabajo.

Recibido el 30 de agosto de 2018, aceptado el 4 de diciembre de 2018.

Correspondencia a:

Dr. Adriano Valdez Russo  
Autopista Duarte km 2.8,  
Hospital Metropolitano de Santiago (HOMS) suite 304,  
Santiago de los Caballeros,  
República Dominicana.  
Teléfono: 829-947-2304.  
valdezrusso@gmail.com



**Figura 1. (A)** Primera tomografía computada (TAC) sagital que evidencia crecimiento heterotópico exuberante del ligamento longitudinal anterior (LLA) desde C2 hasta T1; **(B)** Primera resonancia magnética (RMN) T2, vista axial, a nivel C6, que muestra la hiperostosis del LLA.

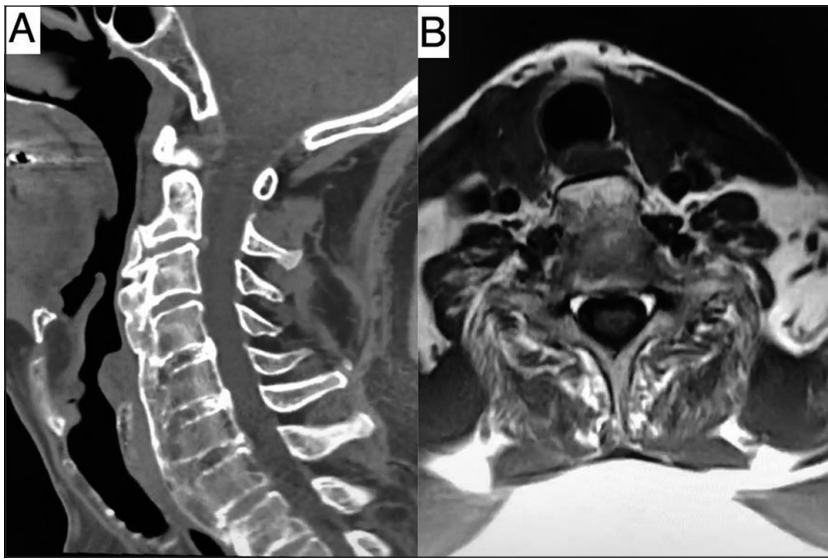
### Caso

Hombre de 72 años, de profesión visitador médico, con antecedentes de dolor cervical crónico tratado como espondilosis cervical de 15 años de evolución, sin otros antecedentes mórbidos relevantes. Consultó por rigidez cervical y dolor cérvico-occipital esporádico. Además, destacaba lumbago y dolor sacroilíaco izquierdo, nunca mayor a 5/10 en la escala del dolor, por lo cual se estudia también a nivel lumbosacro. Se indicaron estudios radiológicos que evidenciaron calcificaciones del ligamento longitudinal anterior en niveles cervicales desde C3-C7 (AP: 13,7 mm en C3, 8,7 mm en C4, 11,2 mm en C5, 12,3 mm en C6 y 10,3 mm en C7) (Figura 1). A nivel lumbar y lumbosacro se pudo observar artrosis facetaria multinivel. Como síntomas acompañantes refirió algunas ocasiones disfagia no progresiva, rigidez del cuello a las lateralizaciones; además de prurito leve en región retroauricular izquierda, fluctuante en el tiempo. También refirió molestias leves en ambas caderas y calcáneo izquierdo al caminar. Al examen físico presentaba limitación leve a los

movimientos cervicales, excepto a la rotación. Se escuchaba chasquido al extender el cuello. No presentaba disfagia a sólidos o líquidos, ni disfonía ni disnea. Tampoco refería dolor en otras articulaciones (hombros, codos, manos, rodillas, tarsos). El paciente se trató con conducta expectante y medidas conservadoras (incluyendo la recomendación de ingesta de alimentos blandos y en pequeñas porciones), con controles periódicos, dada la poca sintomatología presente. A los 6 años, los estudios de imágenes mostraban los osteofitos sin progresión importante, solo se agregó discopatía leve a nivel de C2-C3 (Figura 2). El paciente no presentó progresión de su cuadro ni aparición de nueva sintomatología en su última visita.

### Discusión

Cuando los osteofitos cervicales anteriores son muy prominentes pueden generar compresión del esófago o la tráquea, provocando síntomas como disfonía, disfagia, estridor u obstrucción de vía aérea. Cuando los pacientes llevan un manejo conservador y progresan las manifestaciones



**Figura 2.** (A) TAC sagital 6 años después; (B) RMN T1, vista axial, a nivel C6, 6 años después.

clínicas, el tratamiento quirúrgico (resección de osteofitos cervicales anteriores responsables) se recomienda como el tratamiento definitivo<sup>7</sup>. Los niveles cervicales más afectados en los pacientes sintomáticos por la enfermedad de Forestier son C3-C5. Los 2 síntomas más comunes son rigidez espinal y disfagia. La disfagia se reporta hasta en 28% de los casos, y se debe principalmente a la compresión esofágica, inflamación o alteración del movimiento de la epiglotis<sup>8</sup>. En el estudio radiológico es importante descartar la osificación del LLA en otros niveles vertebrales, por lo cual, en este caso, se estudió con imágenes la columna lumbosacra, para descartar extensión de la enfermedad de Forestier en dicho nivel, dada su sintomatología.

El manejo inicial del DISH debe ser conservador, el cual consiste en cambios en la dieta, antiinflamatorios, relajantes musculares, esteroides y cambios posturales durante el proceso de deglución. La cirugía, para los casos progresivos o muy sintomáticos, suele realizarse por vía anterior con resultados favorables, pero tiene el inconveniente de que pueden recurrir, sobre todo cuando se ejecuta en segmentos de mayor movilidad. Se ha reportado ritmos de recurrencia de 1 mm/año<sup>9</sup>. También se ha visto que los osteofitos > 10 mm se asocian con mayor frecuencia a disfagia asociada a aspiración. Osteofitos en los

segmentos C3-C4 y C4-C5 suelen causar aspiración intradeglutiva; mientras que en los niveles C5-C6 y C6-C7 generan disfunción en el proceso de deglución que lleva a depósito de sólidos en la faringe ipsilateral, con el peligro de provocar aspiración postdeglutiva<sup>2</sup>.

La cirugía, como se ha mencionado previamente, se reserva para cuando fracasa el manejo conservador. El 80% de los pacientes con disfagia mejora con medidas no quirúrgicas. Por otro lado, cuando presentan disnea o pérdida de peso importante asociada se recomienda cirugía. Las indicaciones relativas incluyen: disfagia asociada a alteraciones del sueño y osteofitos > 8 mm<sup>10</sup>. En la mayoría de los casos quirúrgicos se utiliza el abordaje cervical anterior de Smith-Robinson para la resección de los segmentos osificados. Otra técnica menos popular, por ser más compleja y de mayor riesgo, es el abordaje transoral/transfaringeo<sup>11</sup>. Es muy importante considerar esta enfermedad entre los diagnósticos diferenciales de disfagia u obstrucción de la vía aérea alta en pacientes mayores de 65 años.

Al momento del diagnóstico hay que recordar que la clínica es el aspecto más importante a la hora de decidir el manejo. Sugerimos no dejarse impresionar demasiado por el tamaño de los osteofitos, ya que no necesariamente va a requerir intervención quirúrgica en los siguientes años.

## Referencias

1. Martos-Fernández M, Bordonaba-Leiva S, Sahuquillo-Barris J, Malet-Hernández D. Enfermedad de Forestier como causa de compresión cervicomedular. Reporte de un caso y revisión bibliográfica. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac* 2017; 39 (1): 37-9.
2. Miyamoto K, Sugiyama S, Hosoe H, Inuma N, Suzuki Y, Shimizu K. Postsurgical recurrence of osteophytes causing dysphagia in patients with diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Eur Spine J* 2009; 18: 1652-8.
3. Urrutia J, Bono CM. Long-term results of surgical treatment of dysphagia secondary to cervical diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *The Spine Journal* 2009; 9: e13-7.
4. Egerter AC, Kim ES, Lee DJ, Liu JJ, Cadena G, Panchal RR, et al. Dysphagia Secondary to Anterior Osteophytes of the Cervical Spine. *Global Spine J* 2015; 5: e78-e83.
5. Orden AO. La hiperostosis esquelética idiopática difusa (DISH) como expresión de un proceso sistémico. *Rev Arg Reumatol* 2017; 28(2): 29-33.
6. Quillo-Olvera J. Síndrome de Forestier: Reporte de un caso y revisión de la literatura. *Acta Ortopédica Mexicana* 2014; 28 (1): 49-53.
7. Park MK, Kim KT, Cho DC, Sung JK. Myelopathy associated with instability consequent to resection of ossification of anterior longitudinal ligament in DISH. *Eur Spine J* 2017; 1-5.
8. Allensworth JJ, O'Dell KD, Schindler JS. Bilateral vocal fold paralysis and dysphagia secondary to diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Head & Neck* 2017; 39 (1): E1-E3.
9. Murayama K, Inoue S, Tachibana T, Maruo K, Arizumi F, Tsuji S, et al. Ossified Posterior Longitudinal Ligament With Massive Ossification of the Anterior Longitudinal Ligament Causing Dysphagia in a Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis Patient. *Medicine* 2015; 94 (32): 1-6.
10. Sebaaly A, Boubez G, Sunna T, Wang Z, Alam E, Christopoulos A, et al. Diffuse Idiopathic Hyperostosis Manifesting as Dysphagia and Bilateral Cord Paralysis: A Case Report and Literature Review. *World Neurosurg* 2018; 111: 79-85.
11. Urrutia J, Bernardín A, Morales C, Millán R. Disfagia cervical espondilótica por hiperostosis esquelética difusa idiopática en un paciente joven. *Rev Med Chile* 2013; 141: 803-6.