

Caso inusual de disfagia orofaríngea: enfermedad de Forestier

Mariel Tacchi, Cecilia Curvale, Raúl Matanó, Rosa Ramos

Servicio de Gastroenterología del Hospital de Alta Complejidad en Red El Cruce. Florencio Varela, Provincia de Buenos Aires, Argentina.

Acta Gastroenterol Latinoam 2019;49(2):159-161

Recibido: 31/01/2018 / Aceptado: 12/09/2018 / Publicado online: 17/06/2019

Resumen

La enfermedad de Forestier es una enfermedad reumatológica de etiología desconocida. Habitualmente asintomática que puede cursar con disfagia orofaríngea. Presentamos el caso de una mujer menor de 60 años, caracterizado en los estudios por imágenes.

Palabras claves. Disfagia, forestier, hiperostosis esquelética.

Unusual case of oropharyngeal dysphagia: Forester's disease

Summary

Forestier illness is a rheumatologic disease with an unknown etiology. It is usually asymptomatic, but it can course with oropharyngeal dysphagia. We present the case of a 60-years woman, characterized in the images studies.

Key words. Dysphagia, Forestier, skeletal hyperostosis.

La enfermedad de Forestier, también llamada hiperostosis esquelética idiopática difusa, es una enfermedad reumatológica con afectación sistémica que se caracteriza por la neoformación de hueso en las inserciones de ligamentos, tendones y cápsulas articulares. Su etiología permanece desconocida. Es una entidad no inflamatoria y sin otros cambios degenerativos, por lo que las complicaciones neurológicas, que rara vez presenta, son producidas por compresión. Compromete con mayor frecuencia las vértebras torácicas y lumbares, y la mayoría de los casos son asintomáticos.

Caso clínico

Paciente femenina de 56 años, que comienza con parestesias en los dedos pulgar e índice de ambas manos. Posteriormente refiere disfagia orofaríngea progresiva a predominio de alimentos sólidos de un año de evolución en el momento de la consulta, no asociada a dolor, que se intensifica en los últimos tres meses y cuenta un episodio de ahogo por aspiración de un comprimido que fue expulsado mediante un acceso de tos.

Como antecedentes personales presenta hipotiroidismo tratado y cervicalgias recurrentes producto de osteofitos cervicales. El servicio de neurología solicita una resonancia magnética (RNM) de columna cervical que informa la deshidratación total de los discos cervicales; mínima profusión posterior de los discos C3, C4, C5; protrusión disco-osteofitaria posterior bilateral a nivel C5, C6 y C7 que ocupa espacio epidural anterior; osteofitos marginales que crecen en sentido anterolateral y la médula espinal con morfología y señal normales (Figura 1).

Correspondencia: Cecilia Curvale
Avenida Calchaqui 5401 (1888). Florencio Varela, Provincia de Buenos Aires, Argentina
Tel.: (011)1540878193
Correo electrónico: cecicurvale@hotmail.com

En el contexto del estudio de la disfagia se realiza una video radiología de la deglución, que evidencia: apertura del cricofaríngeo conservada, sin penetración ni aspiración del material de contraste; desplazamiento moderado de la estructura faringolaríngea, con desvío del trayecto deglutorio anterior, secundario a un engrosamiento y calcificación del ligamento anterior con protrusión posterior a nivel cervical (Figura 2A).

Para descartar patología orgánica endoluminal, se realiza una videoendoscopia digestiva alta observando como único dato positivo una imagen compatible con compresión extrínseca inmediatamente por debajo del cricofaríngeo, que no condiciona estenosis de la luz (Figura 2B).

Se decide tomar una conducta conservadora, teniendo en cuenta la indicación quirúrgica en caso de no presentar respuesta favorable. El tratamiento médico implica anal-

Figura 1. Se observa el desplazamiento anterior de la vía aérea y el trayecto esofágico a expensas de la protrusión ejercida por la calcificación del ligamento anterior a nivel cervical.

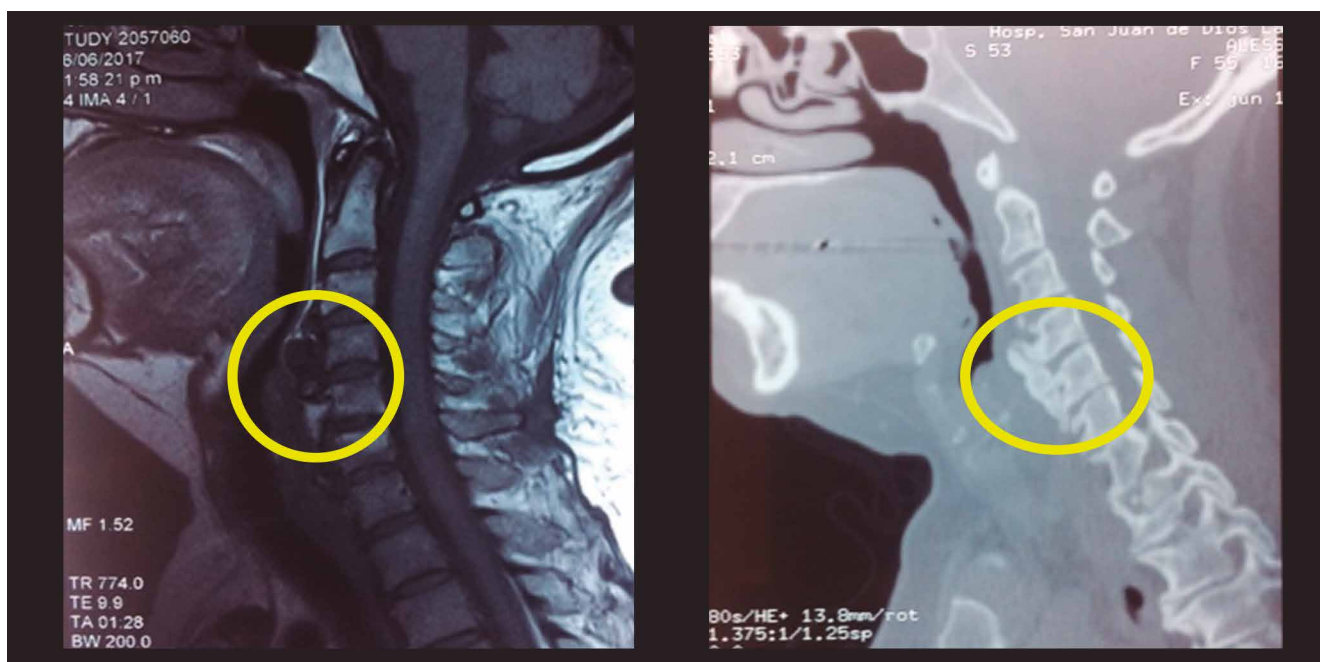
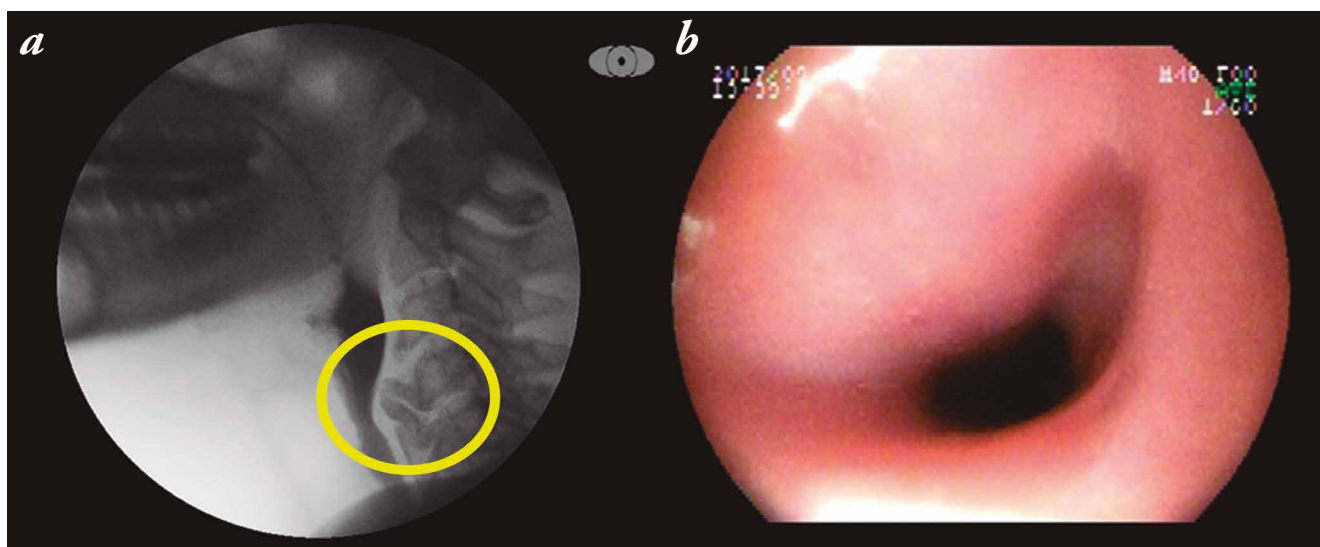


Figura 2. a) Videodeglución: desplazamiento del material de contraste a la altura de la 4ta y 5ta vértebra cervical. b) Videoendoscopia digestiva alta: compresión esofágica extrínseca.



gésicos/antiinflamatorios, modificación en la consistencia de los alimentos y rehabilitación fonoaudiológica de la deglución, con buena evolución de la paciente.

Discusión

La hiperostosis esquelética idiopática difusa (DISH) o enfermedad de Forestier es una patología que presenta como principal manifestación la osificación del ligamento longitudinal anterior y la formación de puentes óseos intervertebrales.^{1,2} Con una prevalencia estimada entre el 3 al 25% los casos, los casos se han incrementado en los últimos años como resultado de su asociación etiológica con diabetes tipo 2 y obesidad, ambos rasgos vinculados al estilo de vida occidental moderno. Algunos autores, sugieren que la conjunción de diferentes factores relacionados con la genética, factores endocrinos, anatómicos, metabólicos y ambientales podrían determinar la proliferación osteoblástica y por lo tanto el depósito óseo en el ligamento anterior.³ Smith y col. sugieren que la inmovilización podría aumentar la probabilidad de que tejido conjuntivo indiferenciado se transforme en hueso.⁴

Las repercusiones otorrinolaringológicas son descriptas con poca frecuencia: la disfagia, la disfonía y la disnea son los síntomas más comunes.^{6,7} Todas estas manifestaciones clínicas se basan en el desplazamiento aerodigestivo provocado por la calcificación ligamentaria. Presenta una relación hombre/mujer 2:1 y se observa en adultos mayores (60 años).⁷⁻¹⁰ Son pocos los reportes en menores de 50 años, lo que demuestra la rareza del presente caso.⁶

El diagnóstico es radiológico, la tomografía y la RNM lo confirman, mostrando la osificación de la porción anterior y lateral derecha del ligamento de los cuerpos vertebrales. Sus criterios diagnósticos son calcificación/osificación del ligamento longitudinal anterior a lo largo de la cara antero-lateral de los cuerpos vertebrales contiguos, conservación de la altura del disco intervertebral en las áreas afectadas, ausencia de anquilosis articular apofisaria y esclerosis de la articulación sacroilíaca.^{8,9}

La afectación cervical es menos común que sus contrapartes torácica y lumbar. Suele ser asintomática, pero cuando se manifiesta lo hace con disfagia o compromiso de la vía aérea. La manifestación digestiva puede explicarse por una inflamación crónica de la pared esofágica producto de la compresión generada por la osificación del ligamento, comprometiendo la peristalsis esofágica lo que lleva a trastornos deglutorios.⁷

Existe controversia en cuanto a la terapéutica ya que algunos autores prefieren un tratamiento conservador, con medidas higiénico-dietéticas, cambio en la consistencia de los alimentos, analgésicos/antiinflamatorios, collares cervicales y rehabilitación fonoaudiológica.⁹ Mientras

que otros autores optan por una actitud más invasiva como la cirugía de descompresión anterior (con mínima morbilidad y mejoría en la calidad de vida) para los casos más graves a pesar de ser una patología recidivante.^{8,9}

Conclusión

Si bien el diagnóstico de enfermedad de Forestier es poco frecuente, debemos mantener una alta sospecha en adultos mayores que consultan por disfagia o disfonía en quienes la endoscopia digestiva alta evidencia una protrusión de la pared posterior de la faringe o la hipofaringe sin características neoplásicas. Esto permitirá la realización adecuada de los estudios imagenológicos y un tratamiento precoz, quirúrgico o no, según corresponda.

Conflictos de interés. Los autores declaran no tener ningún conflicto de interés.

Sostén financiero. El presente manuscrito no ha recibido ayudas específicas provenientes de agencias del sector público, sector comercial o entidades sin ánimo de lucro.

Referencias

1. Forestier J, Rotes-Querol J. Senile ankylosing hyperostosis of the spine. *Ann Rheum Dis* 1950; 9: 321-330.
2. Resnick D, Shaul SR, Robins JM. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH): Forestier's disease with extraspinal manifestations. *Radiology* 1975; 115: 513-524.
3. Sarzi-Puttini P, Atzeni F. New developments in our understanding of DISH (diffuse idiopathic skeletal hyperostosis). *Curr Opin Rheumatol* 2008; 16: 287-292.
4. Iskander HG, Nazir HG, Mounir M. Laryngeal and pharyngeal disorders in vertebral ankylosing hyperostosis. *J Laryngol Otol* 1982; 96: 659-664.
5. Hartmann S, Tschugg A. Analysis of the literature on cervical spine fractures in ankylosing spinal disorders. *Global Spine Journal* 2017; 7: 469-481.
6. Rodrigo Urzúa B, Maritza Rahal E. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, respect of two cases. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello* 2012; 72: 267-272.
7. García García M. Enfermedad de Forestier-Rotés-Querol: progresión radiológica cervical y aparición de disfagia. *Reumatol Clin* 2016; 12: 292-293.
8. Sinha R, Aggarwal N, Dutta S, Choudhury A, Ghosh SK, Guha D. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis involving cervical and lumbar spine presenting with dysphagia: a case report. *Iran J Otorhinolaryngol* 2017; 29: 233-236.
9. Takagi Y, Yamada H, Ebara H, Hayashi H, Iwanaga T, Shimozaki K, Kitano Y, Kagechika K, Tsuchiya H. Thoracic spondylolisthesis and spinal cord compression in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: a case report. *J Med Case Rep* 2017; 11: 90.
10. Candelario N, Lo KB, Naranjo M. Cervical diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) causing oropharyngeal dysphagia. *BMJ Case Rep* 2017; 17: 2017.