

Une cause de dysphagie méconnue : la maladie de Forestier

Katia Dioré¹, David Facon², Kathlyn Marsot-Dupuch², Serge Bobin¹

¹Service ORL et de Chirurgie cervico-faciale - Hôpital Bicêtre - Le Kremlin-Bicêtre

²Service de Neuroradiologie - Hôpital Bicêtre - Le Kremlin-Bicêtre

INTRODUCTION

La maladie de Forestier [1], ou hyperostose vertébrale engainante, a été décrite pour la première fois en 1950 par J. Forestier. Elle est caractérisée par une hyperostose exubérante en flamme de bougie des faces antéro-latérales des corps vertébraux. Le plus souvent asymptomatique, elle est de découverte fortuite sur des radiographies standards du rachis. Plus rarement, elle se manifeste par des douleurs rachidiennes isolées, une raideur rachidienne ou encore une dysphagie. Nous rapportons l'observation d'un patient atteint d'une maladie de Forestier révélée par une dysphagie.

CAS CLINIQUE

M. B., âgé de 79 ans, sans antécédent notable, a été adressé en consultation ORL pour une dysphagie aux solides, progressive, depuis plusieurs mois.

Il ne présentait pas d'intoxication éthylo-tabagique, pas d'altération de l'état général ni de symptomatologie respiratoire. L'examen clinique de la cavité buccale et de l'oropharynx était normal. La fibroscopie pharyngo-laryngée mettait en évidence un bombement de la paroi pharyngée postérieure pouvant orien-

(Fr ORL - 2005 ; 88 : 124 - 127)

Mots clés : Dysphagie, Espace prévertébral, Maladie de Forestier, Tomodensitométrie.

Abréviations : Ligament Longitudinal Antérieur : LLA, Ligament Longitudinal Postérieur : LLP

Date de soumission : novembre 2004

Date d'acceptation : juillet 2005

Auteur correspondant : Kathlyn Marsot-Dupuch
Service de Neuroradiologie - Hôpital Bicêtre
74, rue du Général Leclerc - 94275 Le Kremlin-Bicêtre
e-mail : kathlyn.marsot-dupuch@bct.ap-hop-paris.fr

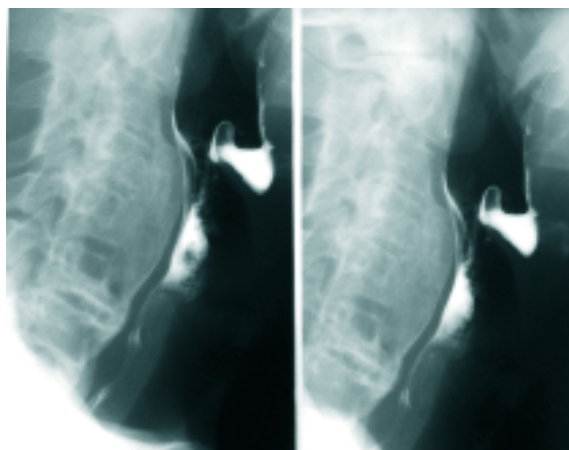
ter vers une compression extrinsèque.

Le transit oesogastroduodéal (TOGD) réalisé en première intention montrait une coulée d'ossification prévertébrale intéressant 5 vertèbres continues (de C3 à C7). Cette formation exerçait un effet de masse à la partie postérieure de l'hypopharynx, sans stagnation ou arrêt du produit de contraste baryté (Figure 1).

L'examen tomodensitométrique (TDM) (Figure 2a-2b) confirmait la prolifération osseuse antérieure s'étendant de C3 à C7, comprimant l'hypopharynx. Il mettait en évidence un clivage entre le corps vertébral et la coulée d'ossification, affirmant l'atteinte ligamentaire (Ligament Longitudinal Antérieur ou LLA), et éliminant donc un ostéophyte. Cet examen montrait des calcifications à la partie postérieure d'un corps vertébral correspondant à une atteinte du ligament longitudinal postérieur (LLP), ainsi qu'une ossification du LLA au niveau du rachis thoracique. Enfin, la TDM mettait en évidence un comblement du sinus piriforme gauche, de densité liquidienne, sans prise de contraste, évoquant une rétention.

Figure 1 : TOGD de profil.

Visualisation d'une coulée d'ossification pré vertébrale refoulant la paroi pharyngée postérieure



La maladie de Forestier

Figure 2a : Coupe axiale (en C4) tomодensitométrique avec injection IV de produit de contraste iodé. Rétention pseudo tumorale au niveau du sinus piri - forme gauche.

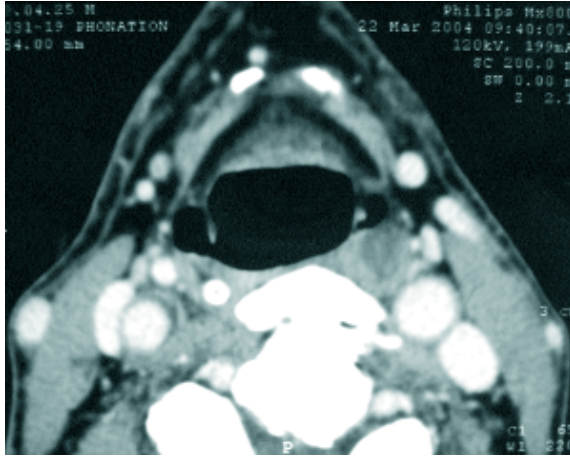
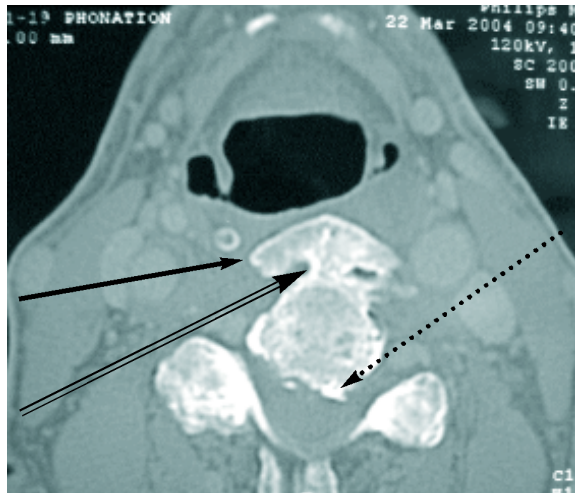


Figure 2b : Coupe axiale (en C4) tomодensitométrique avec injection IV de produit de contraste iodé (fenêtre osseuse).

Volumineuse ossification du ligament longitudinal antérieur (flèche simple) séparé du corps vertébral par une zone de clivage (flèche double) refoulant la paroi pharyngée postérieure. Ossification modérée associée du ligament longitudinal postérieur (flèche « en pointillés »).



L'intégrité des articulations sacro-iliaques sur les radiographies standards et les constatations radiologiques précitées nous ont fait évoquer une maladie de Forestier. Le patient a été adressé au service d'orthopédie pour avis chirurgical.

DISCUSSION

La maladie de Forestier, encore appelée hyperostose vertébrale engainante ou DISH (Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis), est une affection caractérisée par des proliférations osseuses aux zones d'insertion tendineuses et ligamentaires.

D'étiologie inconnue, certains mécanismes ont été évoqués comme un désordre du métabolisme de la vitamine A, ou un rôle de l'insuline par stimulation de l'hormone de croissance [2-3]. Des facteurs de risque comme le diabète de type 2, l'hyperuricémie et la surcharge pondérale ont été décrits [4].

Il s'agit d'une maladie fréquente, présente chez 5 à 15% des sujets âgés de plus de 60 et 70 ans [5], touchant plutôt les hommes avec un sex ratio de 3/1.

Elle atteint le plus souvent le rachis (prédominance thoracique), par ossification du LLA. Cependant, une atteinte du LLP et du ligament jaune est fréquemment associée [6]. Des localisations extra-rachidiennes sont possibles, pouvant intéresser le pelvis, le calcaneum, l'olécrane et la patella [3].

La maladie est le plus souvent asymptomatique. Les symptômes révélateurs les plus fréquents sont la douleur et la raideur rachidienne, mais ces derniers n'amènent pas forcément le patient à consulter. La dysphagie s'avère être le symptôme révélateur dans 0,1 à 28% selon les études [7]. Il s'agit d'une dysphagie marquée en général pour les solides, qui s'améliore par la flexion du rachis cervical, s'aggrave par l'extension, pouvant s'accompagner de sensations de corps étranger, d'odynophagie, d'otalgie réflexe, de stase salivaire, de dysphonie, de dyspnée, d'apnées du sommeil ou de fausses-routes. Elle donne un syndrome de masse de la région rétropharyngée mais dont l'épicentre est l'espace prévertébral [10]. Il ne s'agit donc pas d'un syndrome de masse rétropharyngée comme cela a pu être rapporté. Des phénomènes inflammatoires se surajoutent à cette néo-ossification, responsables d'un épaissement muqueux ou d'une immobilité laryngée et réalisant une forme pseudo-tumorale. De rares complications neurologiques, comme des compressions médullaires ou radiculaires, des compressions nerveuses périphériques, et des paralysies récurrentielles ont été décrites dans la littérature. Les compressions médullaires ou radiculaires sont la conséquence d'une ossification du LLP ou du ligament jaune survenant probablement sur un canal rachidien constitutionnellement étroit.

La maladie de Forestier

Les signes cliniques sont aspécifiques, le diagnostic de la maladie de Forestier étant un diagnostic radiologique. Les critères diagnostiques radiologiques établis par Resnick et al [9], sont toujours utilisés :

- calcifications et ossifications le long de la face antéro-latérale de 4 corps vertébraux contigus,
- préservation de la hauteur des disques intervertébraux dans les zones pathologiques,
- absence d'ankylose des articulations inter-apophysaires postérieures et absence de signes cliniques et radiologiques de sacro-iléites.

La zone de clivage visible sur les radiographies standard, et de manière plus aisée sur les coupes tomodensitométriques, différencie la maladie de Forestier des constructions ostéophytiques (arthrose). Si la radiographie standard demeure l'examen de référence, la TDM permet d'apprécier :

- la zone de clivage,
- l'ossification du Ligament longitudinal postérieur et du Ligament Jaune,
- le diamètre antéropostérieur du canal rachidien.

L'Imagerie par Résonance Magnétique rachidienne est indiquée dans les cas de complications neurologiques, à la recherche d'une compression médullaire et d'une myélopathie associée. Le TOGD peut être le mode de découverte de la maladie quand cette dernière est révélée par une dysphagie.

Les principaux diagnostics différentiels sont liés à une confusion possible avec des ostéophytes ou des syndesmophytes, les diagnostics alors évoqués étant l'arthrose et les spondylarthropathies. C'est là que les critères de Resnick prennent toute leur importance, permettant d'aller à l'encontre de ces deux diagnostics différentiels principaux. Si la tendinite calcifiante rétropharyngée, la spondylodiscite et l'abcès rétropharyngé peuvent donner une masse rétropharyngée similaire, leur tableau radiologique est très différent, ne réalisant jamais de telles coulées osseuses. Enfin, devant une ossification paravertébrale continue, on peut exceptionnellement évoquer une fluorose, une hypo-parathyroïdie ou un rachitisme vitamino-résistant hypophosphatémique familial.

Il n'existe pas, à ce jour, de traitement préventif au développement ou à la progression de l'hyperostose vertébrale engainante. Le traitement comporte néanmoins trois axes :

- la physiothérapie peut améliorer la mobilité du patient en cas de raideur rachidienne,
- le traitement médical repose sur la prescription

d'anti-inflammatoires non stéroïdiens ou de bolus de corticoïdes, associé à un myorelaxant et à un régime anti-reflux en cas de dysphagie récente ; et sur la prescription d'antalgiques en cas de douleurs rachidiennes,

- le traitement chirurgical est indiqué dans les cas de dysphagie sévère associée à une hyperostose cervicale très proéminente, compte tenu du risque de fausses-routes et donc de pneumopathies d'inhalation [10]. Une décompression antérieure et une stabilisation rachidienne sur cage intersomatique peuvent être réalisées.

Dans tous les cas, la prise en charge de la maladie de Forestier ne sera entreprise qu'après avoir exclu une pathologie expansive pharyngée associée

CONCLUSION

La maladie de Forestier est une maladie fréquente chez le sujet après 60 ans, la dysphagie étant un symptôme révélateur dans un nombre non négligeable de cas. Ainsi, devant une dysphagie du sujet âgé sans lésion tumorale ORL, le TOGD est indiqué. Les examens de radiologies standard permettent le diagnostic, la TDM précisant l'atteinte. Ainsi devant toute TDM pharyngée, il faut penser à analyser les structures osseuses et savoir identifier les signes radiologiques de cette maladie. En effet, la morbidité de la maladie de Forestier n'est pas à négliger devant les troubles de la déglutition et les fausses routes qu'elle peut entraîner. Du fait de sa fréquence, ce diagnostic n'est à retenir comme cause de dysphagie qu'après avoir éliminé les autres étiologies de dysphagies, en particulier tumorales, par un examen clinique ORL attentif et par une imagerie si nécessaire.

RÉFÉRENCES

1. Forestier J, Rotes-Querol J. Senile ankylosing hyperostosis of the spine. *Ann Rheum*. 1950; 9: 321-330.
2. Arlet J, Abiteboul M, Mazieres B, Laffont F, Dedieu-Snapp G, Fauvel JM. Vitamine A et hyperostose vertébrale ankylosante. *Rev Rhum Mal Osteoartic*. 1983; 50 : 63-65.
3. Littlejohn GO, Hall S, Brand CA, Davidson A. New bone formation in acromegaly: pathogenic implications for diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Clin Exp Rheumatol*. 1986; 4: 99-104.

La maladie de Forestier

4. Kiss C, Szilagyi M, Pasky A, Poor G. Risk factors for diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: a case-control study. *Rheumatology* 2002; 41: 27-30.
5. Resnick D, Shapiro RF, Wiesner KB, Niwayama G, Utsinger PD, Shaul SR. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Semin Arthritis Rheum.* 1978; 7: 153-187.
6. Ehara S, Shimamura T, Nakamura R, Yamazaki K. Paravertebral ligamentous ossification: DISH, OPLL and OLF. *Eur J Radiol.* 1998; 27: 196-205.
7. Matan AJ, Hsu J, Fredrickson BA. Management of respiratory compromise caused by cervical osteophytes: a case report and review of the literature. *Spine J.* 2002; 2: 456-459.
8. Kmucha SI, Cravens RB. DISH syndrome and its role in dysphagia. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 1994; 110: 431-436.
9. Resnick D, Niwayama G. Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Radiology* 1976; 119: 559-568.
10. Akhtar S, O'Flynn PE, Kelly A, Valentine PM. The management of dysphagia in skeletal hyperostosis. *J Laryngol Otol.* 2000 ; 114: 154-157