

Е.Н. Скрыбина, Н.А. Магдеева*, Ю.М. Корнева

ФГБОУ ВО Саратовский государственный медицинский университет
им. В.И. Разумовского Минздрава России, Саратов, Россия

АНКИЛОЗИРУЮЩИЙ ГИПЕРОСТОЗ ПОЗВОНОЧНИКА, ИЛИ БОЛЕЗНЬ ФОРЕСТЬЕ: ТРУДНОСТИ ДИАГНОСТИКИ ИЛИ НЕДОСТАТОЧНАЯ ОСВЕДОМЛЕННОСТЬ?

E.N. Skryabina, N.A. Magdeeva*, Y.M. Korneva

Saratov State Medical University named after V.I. Razumovsky,
the Ministry of Healthcare of Russia, Saratov, Russia

ANKYLOSING SPINAL HYPEROSTOSIS OR FORESTIER DISEASE: DIFFICULTY IN DIAGNOSING OR LACK OF KNOWLEDGE?

Резюме

В статье продемонстрирован клинический случай заболевания, встречающегося преимущественно в старших возрастных группах — анкилозирующего гиперостоза позвоночника (АГП), или болезни Форестье. Редкость и малая изученность АГП и связанное с этим отсутствие настороженности в отношении данного заболевания, делает его диагностический поиск сложной задачей. Заболевание чаще встречается у пожилых людей, что требует дифференциальной диагностики с дегенеративными изменениями позвоночника. АГП — малосимптомное заболевание. Клиническая симптоматика определяется не столько гиперостозом самих связок и сухожилий, сколько развитием реактивного воспаления этих структур в процессе оссификации, перегрузкой еще подвижных сегментов позвоночника, смежных с анкилозированными позвонками. Определяющее значение для этого заболевания имеет поражение передней продольной связки позвоночника, непрерывность ее оссификации на протяжении не менее четырех позвонков (в отличие от травмы, опухоли). Важно отсутствие или малая выраженность анкилоза дугоотростчатых суставов, сакроилиита, симметричности паравертебральных оссификаций, свойственных анкилозирующему спондилиту. Имеет значение отсутствие или слабая выраженность дегенеративных изменений межпозвонковых дисков, выявляемых при остеохондрозе. Для этой патологии не характерно наличие лабораторных и клинических признаков воспаления, поражения других органов и систем. В настоящее время не разработаны стандарты лечения АГП, что также усложняет выбор тактики ведения пациентов.

Недостаточный объем информации по данному заболеванию делает необходимым более широкое освещение патологии с целью совершенствования навыков диагностики, назначения своевременного и полноценного лечения.

Ключевые слова: анкилозирующий гиперостоз позвоночника, болезнь Форестье, оссификация передней продольной связки позвоночника

Конфликт интересов

Авторы заявляют, что данная работа, её тема, предмет и содержание не затрагивают конкурирующих интересов

Источники финансирования

Авторы заявляют об отсутствии финансирования при проведении исследования

Статья получена 29.10.2019 г.

Принята к публикации 25.12.2019 г.

Для цитирования: Скрыбина Е.Н., Магдеева Н.А., Корнева Ю.М. АНКИЛОЗИРУЮЩИЙ ГИПЕРОСТОЗ ПОЗВОНОЧНИКА, ИЛИ БОЛЕЗНЬ ФОРЕСТЬЕ: ТРУДНОСТИ ДИАГНОСТИКИ ИЛИ НЕДОСТАТОЧНАЯ ОСВЕДОМЛЕННОСТЬ? Архивъ внутренней медицины. 2020; 10(1): 68-73.

DOI: 10.20514/2226-6704-2020-10-1-68-73

Abstract

The article demonstrates a clinical case of a disease that occurs mainly in older age groups — ankylosing spinal hyperostosis (AHP) or Forestier disease. The rarity and lack of knowledge of AHP and the associated lack of alertness in relation to this disease makes its diagnosis a difficult task. The disease is more common in older people, which requires differential diagnosis with degenerative changes of the vertebrae. AHP is a low-symptom

*Контакты: Надежда Анатольевна Магдеева, e-mail: magnad4@yandex.ru

* Contacts: Nadezhda A. Magdeeva, e-mail: magnad4@yandex.ru

disease. Clinical symptoms are determined not so much by hyperostosis of the ligaments and tendons by themselves, but by the development of reactive inflammation of these structures during the process of ossification, overloading of still moving segments of the spine adjacent to ankylosed vertebrae. Of particular importance for this disease is the defeat of the anterior longitudinal ligament, the continuity of its ossification for at least four vertebrae (in contrast to trauma, tumors). Important is absence or low severity of ankylosis of the arched joints, sacroiliitis, characteristic of ankylosing spondylitis. The absence or weak severity of degenerative changes in the intervertebral discs detected in osteochondrosis matters. The presence of laboratory and clinical signs of inflammation, damage to other organs and systems is not typical to this pathology. At present time we have no treatment standards for AHP, which also makes the choice of patient management tactics complicated.

The insufficient amount of information about this disease makes wider coverage of the pathology necessary in order to improve diagnostic skills, prescribing timely and complete treatment.

Key words: *ankylosing spinal hyperostosis, Forestier disease, ossification of the anterior longitudinal ligament*

Conflict of Interests

The authors declare no conflict of interests

Sources of Funding

The authors declare no funding for this study

Article received on 29.10.2019

Accepted for publication on 25.12.2019

For citation: Skryabina E.N., Magdeeva N.A., Korneva Y.M. ANKYLOSING SPINAL HYPEROSTOSIS OR FORESTIER DISEASE: DIFFICULTY IN DIAGNOSING OR LACK OF KNOWLEDGE? The Russian Archives of Internal Medicine. 2020; 10(1): 68-73. DOI: 10.20514/2226-6704-2020-10-1-68-73

АГП — анкилозирующий гиперостоз позвоночника,

Анкилозирующий гиперостоз позвоночника (АГП), или болезнь Форестье — редкое невоспалительное заболевание, сопровождающееся оссификацией передней продольной связки позвоночника. Оно является частью диффузного идиопатического гиперостоза скелета, для которого характерна множественная оссификация сухожилий, связок, апо-неврозов, капсул суставов. АГП чаще развивается у пожилых (94,5% случаев пациенты старше 60 лет) [1]. Заболевание возникает без каких-либо внешних причин и поэтому называется идиопатическим. Редкая встречаемость затрудняет изучение причинных факторов АГП. Пожилой возраст служит основанием предполагать, что АГП развивается в результате происходящих в соединительной ткани процессов старения. Значительно реже аналогичные изменения встречаются в молодом или среднем возрасте, и в этом случае являются проявлением некоторых эндокринных или метаболических заболеваний.

Соответствующую картину под названием «анкилозирующего старческого гиперостоза» позвоночника впервые описали J. Forestier и J. Rots-Querol в 1950 г. В последующем этот патологический процесс обозначили термином «болезнь Форестье».

В большинстве случаев болезнь манифестирует с поражения грудного отдела позвоночника, чаще захватывая его центральную часть, затем в процесс вовлекаются поясничный и шейный отделы [2-4]. Оссификация начинается в основном с правой стороны, что предположительно связано с отсутствием пульсации аорты, которая препятствует обызвествлению тканей позвоночника слева.

Диагноз АГП основывается главным образом на анализе рентгенологических изменений [5]. Решающее значение имеет боковая проекция, позволяющая получить изображение позвоночника и передней продольной связки. Отличительными особенностями

заболевания являются: оссификация с резким утолщением передней продольной связки вдоль всей передней поверхности позвонков от затылочной кости до крестца, непрерывность и протяженность оссификации на уровне нескольких позвоночных сегментов, отсутствие существенных изменений тел позвонков и межпозвоночных промежутков, симметричности паравертебральных оссификаций. Менее характерно для АГП формирование остеофитов, оссификаций задней продольной связки, капсул дугоотростчатых суставов.

АГП — малосимптомное заболевание. Однако могут встречаться изнуряющие ежедневные боли во многих отделах позвоночника, не поддающиеся традиционной терапии.

Клиническая симптоматика — боли, дискомфорт, скованность в разных отделах позвоночника — определяется не столько гиперостозом самих связок и сухожилий, сколько развитием реактивного воспаления этих структур в процессе оссификации, перегрузкой еще подвижных сегментов позвоночника, смежных с анкилозированными позвонками. При поражении грудного отдела позвоночника могут наблюдаться ограничение дыхательной экскурсии грудной клетки, при вовлечении в процесс шейного отдела — дисфагия, дизартрия в связи со сдавлением пищевода, гортани, трахеи. В случае гипертрофии задней продольной связки возникает угроза сдавления спинного мозга с развитием миелопатии, парезов и параличей [6]. Маркеры воспалительной активности АГП не выходят за пределы нормы.

Поскольку четкие представления о факторах, вызывающих АГП, пока отсутствуют, его специфическое лечение является предметом поисков и исследований. Для облегчения состояния пациентов применяется симптоматическая терапия, включающая назначение противовоспалительных препаратов

(мелоксикама, цефекоксиба, ибупрофена), магнитотерапию, лазеротерапию, водолечение (сероводородные и радоновые общие лечебные ванны), массаж, лечебная физическая культура (ЛФК). Иррадирующие боли купируют локальным введением глюкокортикостероидов и анестетиков, аппликациями противовоспалительных средств, назначением ультрафонофореза гидрокортизоновой мази. При неблагоприятном течении болезни, особенно сопровождающимся сдавлением внутренних органов, возможно проведение оперативного лечения: доступом по Кловарду удаляют увеличенную в объеме оссифицированную переднюю продольную связку и устанавливают фиксирующую пластину по передней поверхности тел позвонков.

Редкость данной патологии делает целесообразным освещение отдельных клинических случаев заболевания с целью улучшения его диагностики и поиска оптимальной тактики лечения.

Приводим клиническое наблюдение, демонстрирующее особенности симптоматики и диагностики АГП.

Больная П., 58 лет, продавец, поступила в ревматологическое отделение ГУЗ «Областная клиническая больница» с жалобами на постоянную боль по передней поверхности шеи, не связанную с движениями и не усиливающуюся в покое, ощущение «обруча» на шее, затруднение глотания, особенно твердой пищи, нарушение фонации голоса, охриплость, затруднение движений в шейном отделе позвоночника при его сгибании вперед и в сторону.

Из анамнеза заболевания известно, что в 2016 году (в возрасте 56 лет) наблюдалась у невролога с жалобами на боли в шее и, связанные с ними, затруднения движений позвоночника. Был установлен диагноз остеохондроза шейного отдела позвоночника, проводилось медикаментозное, физиотерапевтическое лечение с положительным эффектом. Выявленные изменения при магнитно-резонансной томографии (МРТ) в шейном отделе позвоночника — оссификация передней продольной связки протяженностью 35 мм — должным образом оценены не были (Рис. 1). Летом 2018 года (в возрасте 58 лет) перенесла острое респираторное заболевание, осложнившееся гнойным отитом. Больная успешно проходила лечение у ЛОР-врача, однако вскоре стала отмечать вышеуказанные жалобы. Амбулаторно была сделана фиброларингоскопия, выявившая подвижность голосовых и черпаловидных связок, симметричность их при фонации, широкую голосовую щель, свободные синусы, отсутствие изменений надгортанника и подкладочного пространства. По задней стенке ротоглотки (на уровне верхнего края надгортанника) визуализировалось подслизистое образование до 2 см в диаметре с неизменной и смещаемой над ним слизистой.

Для уточнения диагноза была проведена компьютерная томография (КТ) гортани, гортаноглотки и шейного отдела позвоночника в обычном режиме.

Выявлены выраженные структурные изменения в шейном отделе позвоночника с выпрямлением шейного лордоза, фрагментарной оссификацией задней продольной связки, состоящей в позвоночный канал. По вентральной поверхности тел позвонков определялись массивные костные разрастания оссифицированной передней продольной связки толщиной до 9 мм справа и 11 мм слева, размером в аксиальной плоскости до 14×26 мм, сливающиеся между собой в вертикальном направлении, формируя костный массив протяженностью до 77 мм (увеличенный по сравнению с 2016 годом более, чем в 2 раза). Дорзальные отделы стенки ротоглотки и пищевода оттеснены костными разрастаниями вентрально, имели асимметричную локализацию. Левые отделы верхнего и среднего констрикторов глотки, небно-глоточной миндалины, черпалонадгортанниковой складки, преддверной складки и задней стенки глотки утолщены относительно правых отделов на 0,3–2,6 мм. Просвет ротоглотки асимметричен за счет уменьшения размера слева. Надгортанник расположен слегка косо со смещением левых отделов вентрально. Его каудальный отдел слева был в два раза шире правой половины. В заключении исследования было отмечено, что деформация отделов ротоглотки и асимметрия дорзальных структур, формирующих заднюю стенку с утолщением и увеличением объема слева, обусловлены воздействием обезображивающего оссифицирующего лигаментоза передней продольной связки шейного отдела позвоночника. Выявлено неполное смыкание голосовых связок во время фонации с диастазом между ложными связками 0,2 мм, между истинными — 1,3 мм (Рис. 2, 3).

При осмотре в стационаре внешний вид больной без особенностей. Отмечается небольшая сглаженность физиологических изгибов позвоночника. Движения в грудном и поясничном отделах позвоночника без ограничений: симптом Томайера 3 см, симптом Шобера, Отта — 5 см, экскурсия грудной клетки — 5 см. Некоторые отклонения выявлены со стороны шейного отдела: расстояние подбородок — грудина 3 см, угол бокового наклона шейного отдела позвоночника в обе стороны менее 45 градусов. Болезненность остистых отростков на протяжении всего позвоночника отсутствуют. Суставы не изменены, движения в них не ограничены. Патологии со стороны внутренних органов не обнаружено.

С целью исключения заболевания из группы серонегативных спондилоартритов исследовались лабораторные показатели: общий анализ крови (ОАК) и общий анализ мочи (ОАМ) — без патологических изменений; С-реактивный белок, уровень глюкозы, холестерина, щелочная фосфатаза, ревматоидный фактор в пределах нормы, антиген HLA-B27 не выявлен.

При МРТ-исследовании крестцово-подвздошных сочленений патологических отклонений не отмечено. С помощью повторной КТ дополнительно была



Рисунок 1. Магнитно-резонансная томография шейного отдела позвоночника. Оссификация передней продольной связки на протяжении 35 мм
Figure 1. Magnetic resonance imaging of the cervical spine. Ossification of the anterior longitudinal ligament over 35 mm

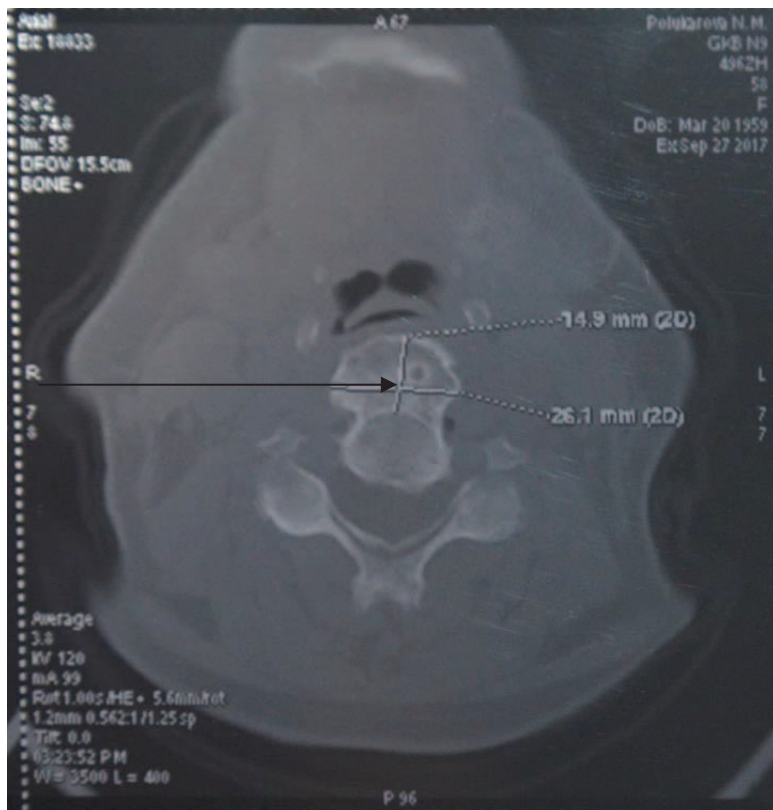


Рисунок 2. Компьютерная томограмма шейного отдела позвоночника в аксиальной плоскости. Стрелкой указана оссификация передней продольной связки по передней поверхности тела позвонка размером 14,9×26,1 мм
Figure 2. Computer tomogram of the cervical spine in the axial plane. The arrow indicates the ossification of the anterior longitudinal ligament along the front surface of the vertebral body with a size of 14.9 × 26.1 mm



Рисунок 3. Компьютерная томограмма шейного отдела позвоночника в боковой проекции. Стрелками указаны костные разрастания передней продольной связки, сливающиеся между собой в вертикальном направлении, образуя массив длиной 77,7 мм, шириной до 16,0 мм
Figure 3. Computer tomogram of the cervical spine in lateral projection. The arrows indicate the bone growths of the anterior longitudinal ligament, merging together in the vertical direction, forming an array of 77.7 mm long, up to 16.0 mm wide

выявлена оссификация передней продольной связки по переднему контуру тел позвонков на всем протяжении грудного и поясничного отделов позвоночника, наиболее выраженная на уровне Th5 — Th10, Th12-L3 позвонков, изменений формы тел позвонков не отмечено.

Проведенное обследование больной позволило выставить диагноз: *Анкилозирующий гиперостоз позвоночника (болезнь Форестье)*.

Больной было проведено лечение эторикоксибом 60-90 мг/сут, магнитотерапией, которое привело к полному исчезновению болей в области шеи и затруднения глотания. В дальнейшем больной показано наблюдение ревматолога и, при необходимости, проведение консервативного, либо оперативного лечения.

Обсуждение

В настоящее время все больше уделяют внимания изменениям, происходящим в организме пожилых людей, в том числе наличию хронического воспаления, болевого синдрома, подбору адекватной, безопасной терапии. Боли в спине возникают практически у каждого человека в течение жизни, но наиболее часто — у людей старшего возраста. Болевой синдром может быть обусловлен совершенно различными патологическими процессами. Однако, врачи, особенно первичного звена, при обращении по поводу болей в спине у пациентов старших возрастных групп не всегда уделяют достаточно внимания диагностике, связывая имеющиеся симптомы с наиболее распространенными дегенеративно-дистрофическими заболеваниями. Информированность и широкий кругозор врачей будут способствовать не только ранней диагностике, но и позволят повысить приверженность пациентов к лечению, уменьшить полипрагмазию, что особенно важно у пожилых пациентов. В нашей работе продемонстрирован клинический случай заболевания, встречающегося преимущественно в старших возрастных категориях.

Редкость и малая изученность АГП, и связанное с этим отсутствие настороженности в отношении данного заболевания, делают диагностический поиск крайне сложным для врача и, порой, тяжелым — для пациента [7]. Усложняет диагностику и во многом схожесть АГП с некоторыми заболеваниями, сопровождающимися поражением позвоночника (опухоли, травмы, остеохондроз, анкилозирующий спондилит и др.) В этой связи необходимо использовать наиболее информативные методы исследования — КТ и МРТ с учетом диагностических признаков (D. Resnica и Y. Niwayama, 1988), помогающих легче ориентироваться в особенностях симптоматики и дифференциальной диагностики АГП [6]. Отмечая преимущественное поражение передней продольной связки при АГП, авторы считают первым признаком заболевания непрерывность ее оссифи-

кации на протяжении не менее четырех позвонков. Данное условие позволяет отличить АГП от таких патологических состояний, как инфекции, опухоли, травмы, характеризующихся локальными процессами в позвоночнике. Вторым признаком, по мнению авторов, является отсутствие анкилоза дугоотростчатых суставов и сакроилиита, свойственных анкилозирующему спондилиту. К этому можно добавить и отсутствие симметричности паравертебральной оссификации, клинических и лабораторных признаков воспаления при АГП. Третьим признаком АГП с точки зрения указанных авторов, является отсутствие (или слабая выраженность) дегенеративных изменений межпозвонковых дисков (снижения их высоты, краевого склероза тел позвонков), выявляемых при остеохондрозе.

Помимо этих признаков можно также отметить и характерное для АГП отсутствие поражения других органов и систем, за исключением эктопической оссификации энтезисов, связок и сухожилий.

Все особенности АГП, включая возрастные, соответствуют признакам, которые были отмечены у нашей пациентки, что позволяет говорить о правомочности диагноза АГП.

Выводы

Редкость и малая изученность АГП делают необходимым более широкое обсуждение данной патологии для формирования навыков диагностики, своевременного и полноценного оказания помощи больным.

Отличительными особенностями АГП являются: пожилой возраст больных, непрерывность оссификации передней продольной связки не менее четырех позвонков, отсутствие или слабая выраженность дегенеративных изменений межпозвонковых дисков, рентгенологических признаков анкилоза дугоотростчатых суставов, симметричности паравертебральных оссификаций поражения других органов и систем.

В нашем случае диагноз был установлен через год после проведенного МРТ-исследования, при котором не была произведена должная оценка оссификации передней продольной связки. По данным литературы путь к постановке диагноза АГП сложный и длительный: выявляются остеохондроз, объемные процессы пищевода и гортани при проведении повторных КТ, в некоторых случаях устанавливается трахеостома и рекомендуется биопсия образования, прежде чем диагноз АГП будет верифицирован [1, 5-6].

Вклад авторов

Е.Н. Скрыбина: концепция статьи, анализ, интерпретация данных, написание рукописи, проверка интеллектуального содержания, утверждение рукописи для публикации

Н.А. Магдеева: анализ, интерпретация данных, написание рукописи, проверка интеллектуального содержания

Ю.М. Корнева: сбор, анализ данных, интерпретация результатов

Contribution of Authors

E.N. Scriabin: article concept, analysis, data interpretation, manuscript writing, intellectual content verification, manuscript approval for publication

N.A. Magdeeva: analysis, data interpretation, manuscript writing, intellectual content verification

Yu.M. Korneva: data collection, analysis, interpretation of results

Список литературы/References:

1. Dutta S., Biswas K.D., Mukherjee A., et al. Dysphagia Due to Forestier Disease: Three Cases and Systematic Literature Review. Indian Journal of Otolaryngology and Head & Neck Surgery. 2014; 66(Suppl. 1):379-84. doi:10.1007/s12070-011-0334-3
2. Holton K.F., Denard P.J., Yoo J.U. et al. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis and its relation to back pain among older men: The MrOS Study. Semin Arthritis Rheum. 2011; 41(2):131-8. doi: 10.1016/j.semarthrit.2011.01.001.
3. Sham S., Rajeswari S., Tamilselvelam T.N. et al. Forestier disease. Indian J Rheumatol. 2014; 9(2):86-7. doi: 10.1007/s12070-011-0334-3.
4. Mazieres B. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (Forestier-Rotes — Querol disease): what's new? Joint Bone Spine. 2013; 80(5):466-70. doi: 10.1016/j.jbspin.2013.02.011.
5. Старкова А.С., Эрдес Ш.Ф. Сложности в диагностике идиопатического гиперостоза скелета (болезни Форестье). Научно-практическая ревматология. 2016; 54 (Прил1):80-2. doi: 10.14412/1995-4484-2016-1S-80-82
Starkova A.S., Erdes S.F. Difficulties in the diagnosis of idiopathic skeletal hyperostosis (Forestier disease). Nauchno-prakticheskaya revmatologiya. 2016; 54(Suppl. 1): 80-2. doi: 10.14412/1995-4484-2016-1S-80-82 [In Russian]
6. Бунчук Н.В. Ревматические заболевания пожилых (Избранные). 2-е изд. М.: МЕДпресс — информ. 2010; 270 с. ISBN: 978-5-98322-996-9
Bunchuk N.V. Rheumatic diseases of the elderly (Selected). 2nd ed. M.: MEDpress — inform. 2010; 270 p. ISBN: 978-5-98322-996-9 [In Russian]
7. Логинов Н.В. Диффузный идиопатический скелетный гиперостоз: сложности диагностики у пациента с дисфагией и диспноэ. Российский медико-биологический вестник имени Академика И.П. Павлова. 2018; 26(4): 528-32. DOI:10.23888/PAVLOVJ2018264528-532.
Loginov N.V. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: diagnostic difficulties in a patient with dysphagia and dyspnea. Rossijskij mediko-biologicheskij vestnik imeni Akademika I.P. Pavlova, 2018; 26(4): 528-32. DOI:10.23888/PAVLOVJ2018264528-532 [In Russian].

**В феврале 2020 года ФГБОУ ВО «Курский
государственный медицинский университет»
Министерства здравоохранения Российской Федерации
отмечает 85-летие со дня основания**

В день юбилея примите самые теплые и сердечные поздравления и пожелания от коллектива редакции журнала «Архивъ внутренней медицины».

КГМУ, имеющий богатейшие традиции в подготовке медицинских кадров, прошел большой и славный путь, задавая и сохраняя высокие стандарты медицинского образования. Высококвалифицированный профессорско-преподавательский состав, широкий спектр направлений подготовки и специальностей создают условия и возможности для обновления и совершенствования процесса обучения студентов и аспирантов, постоянного повышения качества подготовки специалистов медицинского профиля.

В этот юбилейный день хочется выразить искреннюю благодарность ректору университета, профессору *Лазаренко Виктору Анатольевичу*, профессорско-преподавательскому составу и всем сотрудникам университета за нелегкий труд, который так необходим людям.

Желаем всем сотрудникам и студентам университета дальнейших успехов, благополучия, реализации новых проектов в сфере образования, науки и охраны здоровья нашего населения.