

Disfagia secundaria a enfermedad de Forestier-Rotes-Querol: una visión tridimensional

Marta Moret-Rueda¹, Olga Chorniy-Rudko², María Roquet-Jalmar Saus³, Ismael Calero-Paniagua¹

¹Servicio de Medicina Interna, Hospital Virgen de la Luz, Cuenca, España

²Medicina Familiar y Comunitaria, G.A.I Cuenca, España

³Servicio de Radiología, Hospital Virgen de la Luz, Cuenca, España

Recibido: 10/01/2024

Aceptado: 30/06/2024

En línea: 31/08/2024

Citar como: Moret-Rueda M, Chorniy-Rudko O, Roquet-Jalmar Saus M, Calero-Paniagua I. Disfagia secundaria a enfermedad de Forestier-Rotes-Querol: una visión tridimensional. Rev Esp Casos Clin Med Intern (RECCMI). 2024 (agosto); 9(2): 65-67. doi: <https://doi.org/10.32818/reccmi.a9n2a8>.

Cite this as: Moret-Rueda M, Chorniy-Rudko O, Roquet-Jalmar Saus M, Calero-Paniagua I. *Dysphagia secondary to Forestier-Rotes-Querol disease: a three-dimensional view.* Rev Esp Casos Clin Med Intern (RECCMI). 2024 (August); 9(2): 65-67. doi: <https://doi.org/10.32818/reccmi.a9n2a8>.

Autor para correspondencia: Marta Moret-Rueda. marta.moretrueda@gmail.com

Palabras clave

- ▷ Hiperostosis
- ▷ Idiopática
- ▷ Disfagia

Resumen

La enfermedad de Forestier-Rotes-Querol cursa con la calcificación y osificación de ligamentos espinales y entesis periféricas. Presentamos el caso de un paciente que ingresó para estudio de disfagia; en pruebas de imagen se identificó osificación hipertrófica del ligamento vertebral común anterior, característico de enfermedad de Forestier. Tras análisis de bibliografía existente revisamos dicha patología, incidiendo en la disfagia como forma atípica de debut y en los hallazgos radiológicos observados.

Keywords

- ▷ Hyperostosis
- ▷ Idiopathic
- ▷ Dysphagia

Abstract

Forestier-Rotes-Querol disease consists in calcification and ossification of spinal ligaments and peripheral entheses. We showcase a patient who was admitted for a dysphagia study; in imaging tests, hypertrophic ossification of the anterior common vertebral ligament was identified, characteristic of Forestier disease. After analysis of existing literature, we reviewed this topic, focusing on dysphagia as an atypical debut and on the radiological findings observed.

Puntos destacados

- ▷ La enfermedad de Forestier-Rotes-Querol es una complicación infrecuente a tener en cuenta en el diagnóstico diferencial de la disfagia.
- ▷ Mediante una correcta anamnesis y exploración de la movilidad de la columna, así como la realización de pruebas de imagen, se puede alcanzar el diagnóstico.

Introducción

La enfermedad de Forestier-Rotes-Querol o hiperostosis esquelética idiopática difusa es una patología no inflamatoria de etiopatogenia todavía no aclarada¹, caracterizada por la calcificación y osificación de ligamentos espinales y de entesis periférica². Puede ser asintomática en algunos casos, en caso contrario los síntomas más frecuentes son el dolor y la restricción de movilidad a nivel de columna vertebral, o síntomas radiculares³, no obstante, también se ha descrito otra sintomatología menos frecuente como la obstrucción de las vías respiratorias o disfagia por afectación de estructuras adyacentes y la mielopatía secundaria a calcificación del ligamento vertebral común posterior⁴. Es más común en varones y su incidencia aumenta con la edad, siendo del 10,1% en varones mayores de 70 años frente a un 6,8% en mujeres en ese mismo rango de edad, incluyendo casos asintomáticos.

Caso clínico

Antecedentes

Varón de 85 años con antecedentes de EPOC que ingresó por episodio de disnea secundaria a broncoaspiración en el seno de un atragantamiento. En la anamnesis al ingreso el paciente refería disfagia a sólidos de meses de evolución, sin alteraciones en la masticación, que había ido empeorando de forma progresiva, teniendo que adaptar la textura de los alimentos hasta precisar dieta túrmix, inicialmente con buena tolerancia, aunque progresivamente con empeoramiento de la misma y ocasionalmente presentaba alguna regurgitación. Negaba disfonía, astenia, anorexia o pérdida de peso. Refería cervicalgia ocasional y dificultad para la movilización de la columna cervical, aunque no había consultado por la misma. No presentaba otra clínica significativa de interés en la anamnesis por aparatos.

Exploración física

A la exploración general el paciente se encontraba disneico y precisaba oxígeno (O₂) suplementario en gafas nasales a 4 litros por minuto para mantener saturación entre 90-92%. Destacaba abundante sialorrea, sin objetivarse

cuerpos extraños a nivel orofaríngeo. Los reflejos nauseoso y palatino estaban presentes. No presentaba adenopatías ni masas palpables cervicales. En la auscultación pulmonar presentaba abundantes ruidos de secreciones y roncus dispersos. En la exploración del aparato locomotor destacaba una disminución marcada de la movilidad de la columna cervical, sobre todo a la flexo-extensión, que no constaba haber sido valorada previamente.

Pruebas complementarias

Se inició estudio del cuadro con una gastroscopia (**figura 1**) en la que se objetivó importante edema a nivel de la faringe que afectaba también a área epiglótica y un área de mucosa rígida y edematosa que dificultaba la entrada al esófago.

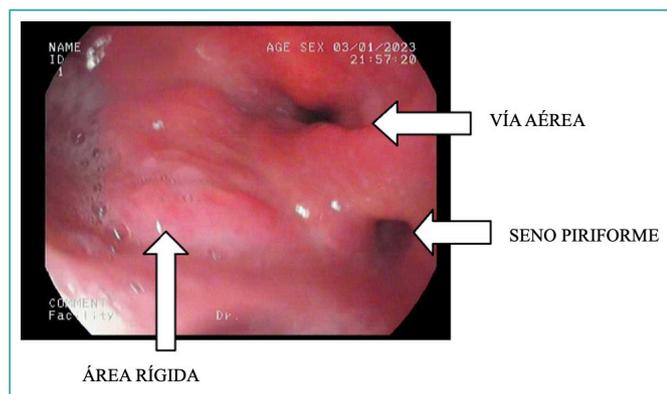


Figura 1. Gastroscopia.

Se continuó con estudios radiológicos, inicialmente con una radiografía de tórax en la que no se objetivaron hallazgos significativos y de columna cervical AP y lateral, objetivándose importantes cambios de degeneración artrósica y osteofitos, que no pudo compararse con otras al no tener el paciente radiografías cervicales previas. Ante los hallazgos observados en dichas pruebas, se solicitó una tomografía computarizada (prueba *gold standard*) de columna cervical, objetivándose una osificación hipertrófica del ligamento vertebral común anterior que protruía la pared posterior de la oro-hipofaringe, responsable de la clínica del paciente (**figura 2A**). En la **figura 2B** se objetiva una reconstrucción tridimensional de dichas alteraciones.

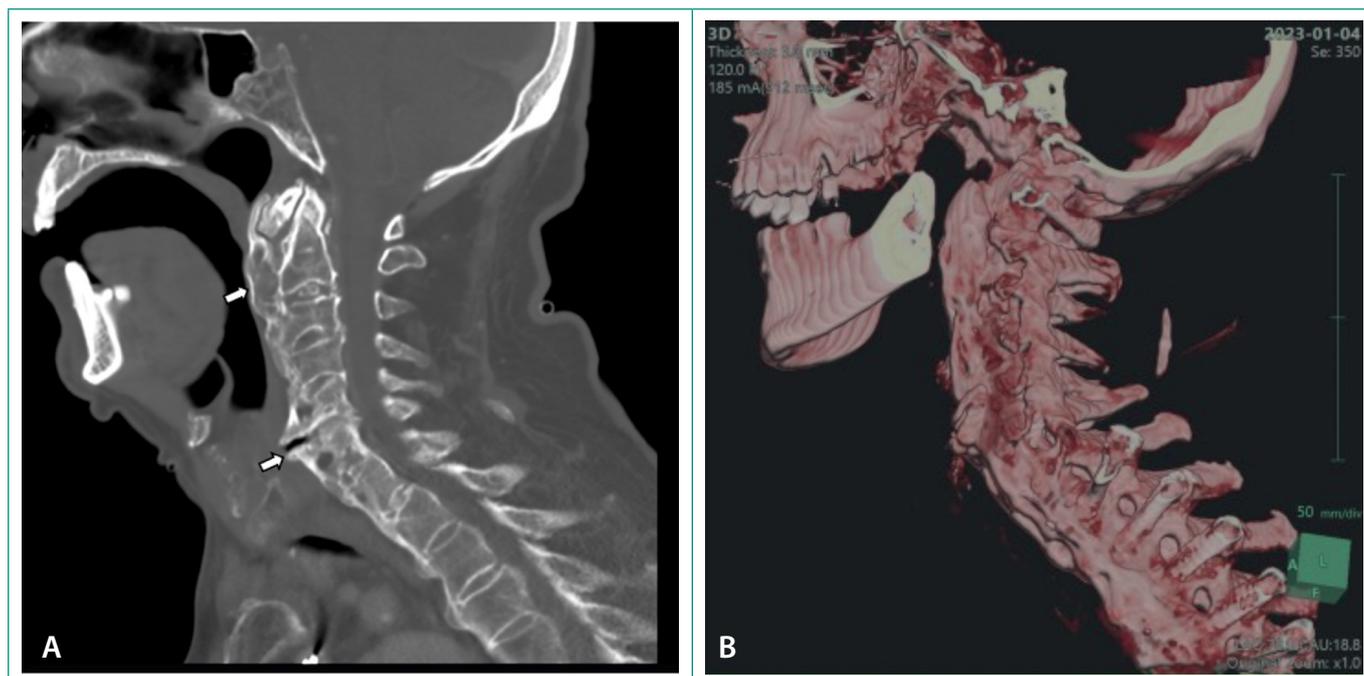


Figura 2. (A) Tomografía computarizada de columna cervical. (B) Reconstrucción tridimensional.

Se realizó estudio anatomopatológico de la zona edematosa de la faringe (tras obtenerse una muestra de dicha zona al realizarse la gastroscopia) objetivándose inflamación crónica no eosinofílica y ausencia de células neoplásicas.

Diagnóstico

Ante estos hallazgos, fue diagnosticado de Enfermedad de Forestier-Rotes-Querol.

Evolución

Ante los hallazgos observados, se instauró tratamiento corticoideo, antibiótico, antirreflujo y postural, y dada la severidad del cuadro se planteó al paciente la posibilidad de tratamiento quirúrgico, que aceptó previa explicación de riesgos y beneficios de la intervención. Fue derivado al Servicio de Neurocirugía de otro centro para intervención quirúrgica. Tras intubación difícil que precisó de fibroscopio se realizó osteofitectomía anterior con escoplo y fresa, comprobándose el resultado mediante radiografía intraoperatoria.

El paciente pudo ser extubado de forma diferida. Fue alimentado mediante sonda naso-gástrica durante los primeros días, pero pudo retirarse posteriormente sin incidencias. Todavía persistía cierta disfagia para sólidos por lo que el paciente se alimentaba exclusivamente de dieta túrmix y se pautó tratamiento con prednisona a dosis descendente y tratamiento con antiinflamatorios.

Discusión

Se han descrito en la literatura diferentes casos o series de casos de enfermedad de Forestier-Rotes-Querol asintomática (descubierta incidentalmente en pruebas de imagen), o que cursan con dolor o rigidez a nivel de la columna vertebral (frecuentemente a nivel dorsal y cervical)⁴; no obstante, son menos los casos descritos con otra clínica como forma de debut como disfagia^{2,5}, o disnea⁶.

En este caso se describe un paciente con disfagia, una forma infrecuente de debut de la Enfermedad de Forestier-Rotes-Querol, aunque descrita.

En el diagnóstico diferencial de esta patología debemos incluir la espondilitis anquilosante, la acromegalia, la osteoartropatía hipertrófica y fluorosis crónica entre otras. Cuando existe disfagia, se debe incluir además un estudio digestivo endoscópico para descartar otras etiologías de la misma como la tumoral, estenosis pépticas, infecciosas o compresión extrínseca por bocio, linfomas u otros tumores⁷.

Su diagnóstico es principalmente radiológico con pruebas de imagen como la radiografía convencional o el TAC (prueba *gold standard*), donde se identifica calcificación de ligamentos paravertebrales y entesis periféricas⁸. Concretamente, la osificación hipertrófica del ligamento vertebral común anterior es responsable de clínica habitual como rigidez o dolor y menos habitual como disfagia o disfonía.

En casos paucisintomáticos sospechosos puede ser útil la búsqueda de calcificaciones anómalas en las entesis de cualquier localización.

En la **tabla 1** se describen los criterios diagnósticos de Resnick, todavía vigentes para el diagnóstico de la enfermedad de Forestier-Rotes-Querol.

- | |
|---|
| 1. Calcificación y osificación a lo largo de la cara anterolateral de al menos cuatro cuerpos vertebrales contiguos con o sin excrecencias asociadas en las uniones entre el cuerpo vertebral y el disco intervertebral. |
| 2. Preservación relativa de la altura del disco intervertebral en el segmento vertebral afectado y la ausencia de cambios radiográficos de enfermedad discal «degenerativa», incluidos fenómenos de vacío y esclerosis marginal del cuerpo vertebral. |
| 3. Ausencia de anquilosis ósea de la articulación apofisaria y erosión, esclerosis o fusión ósea intraarticular de la articulación sacroilíaca. |

Tabla 1. Criterios diagnósticos de Resnick.
Tomado y modificado de Resnick *et al.*⁸

El manejo de esta patología suele ser conservador con dieta túrmix, corticoterapia, antiinflamatorios no esteroideos, y relajantes musculares puesto que, además del obstáculo mecánico *per se*, casi siempre se aprecia un cierto componente inflamatorio del tejido perilesional que puede mejorar con dicho tratamiento⁹. La intervención quirúrgica constituye la alternativa última para casos severos de disfagia severa o refractarios a manejo conservador².

Conclusiones

Aunque esta complicación no sea frecuente, la Enfermedad de Forestier-Rotes Querol es una entidad a tener en cuenta en el diagnóstico diferencial de la disfagia⁴. Mediante una correcta anamnesis y exploración de la movilidad de la columna, así como la realización de pruebas de imagen, se puede alcanzar el diagnóstico.

Financiación, conflicto de intereses y consentimiento informado

El presente trabajo no ha recibido ayudas específicas provenientes de agencias del sector público, sector comercial o entidades sin ánimo de lucro. Los autores declaran carecer de conflicto de intereses y disponen de la autorización o consentimiento informado de los involucrados en este caso.

Bibliografía

- Asensio C. Enfermedad de Forestier-Rotes-Querol: una causa poco frecuente de disfonía. GAES médica. 2018. Accesible en: <https://www.gaesmedica.com/es-es/articulos-cientificos/enfermedad-forestier-rotos-querol-causa-poco-frecuente-disfonia>. (último acceso jul. 2024).
- Giammalva GR, Iacopino DG, Graziano F, Gulì C, Pino MA, Maugeri R. Clinical and radiological features of Forestier's disease presenting with dysphagia. Surg Neurol Int. 2018; 9: 236. doi: https://doi.org/10.4103/sni.sni_223_18 (último acceso jul. 2024).
- Quintero-González DC, Arbeláez-Cortés Á, Rueda JM. Características clínico-radiológicas de la hiperostosis esquelética idiopática difusa en 2 centros médicos de Cali, Colombia: reporte de 24 casos. Rev. Colomb Reumatol. 2020; 27(2): 80-87. Accesible en: <https://pesquisa.bvsalud.org/portal/resource/pt/biblio-1251639>. (último acceso jul. 2024).
- Helfgott SM. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). In Sieper J, Case SM (Ed). UpToDate. Waltham, Mass.: UpToDate 2024. Accesible en: [https://www.uptodate.com/contents/diffuse-idiopathic-skeletal-hyperostosis-dish?search=Diffuse%20idiopathic%20skeletal%20hyperostosis%20\(DISH\)&source=search_result&selectedTitle=1~39&usage_type=default&display_rank=1#H24](https://www.uptodate.com/contents/diffuse-idiopathic-skeletal-hyperostosis-dish?search=Diffuse%20idiopathic%20skeletal%20hyperostosis%20(DISH)&source=search_result&selectedTitle=1~39&usage_type=default&display_rank=1#H24) (último acceso jul. 2024).
- García García M. Enfermedad de Forestier-Rotes Querol: progresión radiológica cervical y aparición de disfagia. Reumatol Clin. 2016; 12(5): 292-293. doi: <https://doi.org/10.1016/j.reuma.2015.10.014> (último acceso jul. 2024).
- Psychogios G, Jering M, Zenk J. Cervical hyperostosis leading to dyspnea, aspiration and dysphagia: strategies to improve patient management. Front Surg. 2018; 5: 33. doi: <https://doi.org/10.3389/fsurg.2018.00033> (último acceso jul. 2024).
- Villa-Albuger T, Sanz-Pozo B, Martínez-Arias P, Folgado-Pérez C. Síndrome de Forestier-Rotes-Querol: una causa inusual de disfagia. Med Gen Fam. 2018; 7(5): 214-216. doi: <http://dx.doi.org/10.24038/mgyf.2018.060> (último acceso jul. 2024).
- Resnick d, Shapiro RF, Wiesner KB, Niwayama G, Utsinger PD, Shaul SR. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). Semin Arthritis Rheum. 1978; 7(3): 153. doi: [https://doi.org/10.1016/0049-0172\(78\)90036-7](https://doi.org/10.1016/0049-0172(78)90036-7) (último acceso jul. 2024).
- Sánchez González F, Benito Arroyo I, Urbano Urbano J, Paulino Herrera A. Enfermedad de Forestier-Rotes Querol (hiperostosis difusa esquelética idiopática). Medicina de Familia SEMERGEN. 2006; 32(9): 461-463. doi: [https://doi.org/10.1016/S1138-3593\(06\)73317-2](https://doi.org/10.1016/S1138-3593(06)73317-2) (último acceso jul. 2024).