

## Сочетание болезни Форестье и рака гортани: редкое клиническое наблюдение

А.М. Зайцев, А.П. Поляков, М.В. Ратушный, Т.М. Кобылецкая, С.А. Кисарьев,  
А.Л. Сугаипов, О.Н. Кирсанова

Московский научно-исследовательский онкологический институт им. П.А. Герцена — филиал ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр радиологии» Минздрава России; Россия, 125284 Москва, 2-й Боткинский пр-д, 3

Контакты: Ольга Николаевна Кирсанова o.n.kirsanova@gmail.com

**Цель работы** — описать редкий клинический случай сочетания болезни Форестье (диффузного идиопатического гиперостоза скелета) и рака гортани, имеющих общие симптомы.

**Клиническое наблюдение.** Пациент 68 лет обратился к врачу с жалобами на осиплость голоса, усилившуюся в течение года. При непрямой ларингоскопии заподозрено образование голосовой складки. При гистологическом исследовании верифицирован плоскоклеточный ороговевающий высококодифференцированный рак гортани. Опухоль размером 6 мм находилась в проекции правой голосовой складки без признаков перехода на надскладочный и подскладочный отделы гортани и переднюю комиссуру. Других очаговых патологий не было выявлено. Выполнена эндоларингеальная лазерная резекция гортани, трахеостомия. После удаления зонда наблюдались нарушения глотания со значительным забросом содержимого пищевода в просвет трахеи, в основном обусловленные органическими изменениями в шейном отделе позвоночника на уровне сегмента  $C_3-C_4$ , где имело место массивное локальное обызвествление передней продольной связки. Обращало на себя внимание выраженное ограничение подвижности шейного отдела позвоночника: амплитуда движений не превышала  $10^\circ$ . Образование сегмента  $C_3-C_4$  удалено через вентролатеральный доступ.

**Заключение.** Дисфагия, дисфония и диспноэ могут свидетельствовать о наличии как злокачественного образования, так и остеофита значительных размеров, вызывающего компрессию трахеи и пищевода. В данном клиническом случае неучтенность этих симптомов после удаления опухоли гортани заставило заподозрить наличие второго заболевания — болезни Форестье.

**Ключевые слова:** диффузный идиопатический гиперостоз, болезнь Форестье, дисфагия, рак гортани

**Для цитирования:** Зайцев А.М., Поляков А.П., Ратушный М.В. и др. Сочетание болезни Форестье и рака гортани: редкое клиническое наблюдение. Опухоли головы и шеи 2020;10(2):79–84.

DOI: 10.17650/2222-1468-2020-10-2-79-84



### Combination of Forestier's disease and laryngeal cancer: a rare clinical case

A.M. Zaytsev, A.P. Polyakov, M.V. Ratushny, T.M. Kobyletskaya, S.A. Kisariev, A.L. Sugaipov, O.N. Kirsanova

P.A. Herten Moscow Oncology Research Institute — branch of the National Medical Research Radiology Center,  
Ministry of Health of Russia; 3 2<sup>nd</sup> Botkinsky Dr., Moscow 125284, Russia

**The objective** of the scientific report is to describe a rare clinical case of a combination of Forestier's disease (diffuse idiopathic skeletal hyperostosis) and laryngeal cancer that have common symptoms.

**Case report.** A 68-year-old male patient presented with hoarseness lasting for a year. Indirect laryngoscopy revealed a vocal fold tumor. Histological examination confirmed well-differentiated keratinizing squamous cell carcinoma of the larynx. A 6-cm tumor was located in the projection of the right vocal fold and had no signs of invasion into the supraglottis, subglottis, and anterior commissure. No other focal disorders were detected. The patient has undergone endolaryngeal laser resection of the larynx and tracheostomy. After probe removal, the patient had swallowing difficulties with esophageal content passing to the trachea mainly due to organic changes in the cervical spine at the  $C_3-C_4$  level, where there was a massive local calcification of the anterior longitudinal ligament. We also noticed severe movement restriction in the cervical spine: the amplitude of movements did not exceed  $10^\circ$ . The formation of the  $C_3-C_4$  segment was removed via ventrolateral approach.

**Conclusion.** Dysphagia, dysphonia, and dyspnea may indicate both malignant tumor and large osteophyte causing compression of the trachea and esophagus. In this case, no symptom resolution after tumor removal led to the suspicion of a second disease, namely Forestier's disease.

**Key words:** diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, Forestier's disease, dysphagia, laryngeal cancer

**For citation:** Zaytsev A.M., Polyakov A.P., Ratushny M.V. Combination of Forestier's disease and laryngeal cancer: a rare clinical case. Opuhohli golovy i shei = Head and Neck Tumors 2020;10(2):79–84. (In Russ.).

### Введение

Рак гортани составляет около 2,9 % от общего числа случаев злокачественных опухолей [1]. В Российской Федерации заболеваемость в 2018 г. составила 4,58 случая на 100 тыс. человек. Средний возраст пациентов на момент постановки диагноза составляет 62,6 года. Частота развития рака гортани имеет линейную связь с курением табака, риск развития этого заболевания у курильщиков в 10–15 раз выше, чем у некурящих, а при значении индекса пачка-лет >10 риск выше в 30 раз [2]. Доказано также канцерогенное действие некоторых типов вируса папилломы человека, контакта с асбестом, полициклическими ароматическими углеводородами и текстильной пылью. Основные симптомы рака гортани – дисфония, инспираторная одышка и дисфагия.

Очаги болезни Форестье (диффузного идиопатического гиперостоза скелета) в шейном отделе позвоночника также могут проявляться дисфагией и нарушениями дыхания: инспираторной одышкой, стридором, кашлем и апноэ во сне.

Болезнь Форестье относится к распространенным заболеваниям. В США она диагностирована у 25 % мужчин и 15 % женщин старше 50 лет и у 35 % мужчин и 26 % женщин старше 80 лет. Однако болезнь Форестье зачастую протекает бессимптомно, что обуславливает ее гиподиагностику [3]. При этом характерные патологические изменения позвоночного столба могут стать причиной сложностей при интубации, повреждения пищевода при гастроскопии, а также аспирационной пневмонии.

Болезнь Форестье была впервые описана J. Forestier и J. Routhier-Querol в 1950 г. [4]. В 1975 г. в качестве названия болезни была введена аббревиатура DISH (diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, диффузный идиопатический гиперостоз скелета). Болезнь Форестье остается заболеванием неизвестной этиологии; к факторам риска относят возраст, мужской пол, наличие сахарного диабета, травмы позвоночного столба. Критерии ее диагностики были определены D. Resnick и G. Niwayama:

- 1) кальцификация и окостенение паравертебральных связок, в которые вовлекаются тела по меньшей мере 4 позвонков с костными выростами или без них;
- 2) относительное сохранение высоты межпозвоночного диска в пораженных участках без признаков дегенерации;
- 3) отсутствие апофизарного анкилоза, эрозии или склероза крестцово-подвздошного сочленения [5].

Лечение оссификации продольной связки позвоночника преимущественно хирургическое: выполняется остеотомия с целью декомпрессии пищевода и трахеи.

В данной статье мы описываем редкий клинический случай сочетания болезни Форестье и рака гортани, имеющих общие симптомы.

### Клиническое наблюдение

**Пациент К., 68 лет,** обратился в Московский научно-исследовательский онкологический институт им. П.А. Герцена с жалобами на осиплость голоса, усиливающуюся в течение года.

При непрямой ларингоскопии заподозрено образование голосовой складки. Многократно выполнялась фиброларингоскопия с целью верификации диагноза; при последнем гистологическом исследовании выявлен плоскоклеточный ороговевающий высокодифференцированный рак гортани. В проекции правой голосовой складки по свободному краю визуализирована опухоль 6 мм, без признаков перехода на надскладочный и подскладочный отделы гортани и переднюю комиссуру. По данным комплексного обследования признаков другой очаговой патологии не выявлено.

Ввиду вовлечения в опухолевый процесс только 1 голосовой складки решено провести органосохраняющее хирургическое лечение. В отделении микрохирургии выполнена эндоларингеальная резекция гортани углекислотным лазером (хордэктомия Vb типа справа и резекция надскладочного отдела) с интраоперационной фотодинамической диагностикой; наложена трахеостома.

При гистологическом исследовании удаленного образования гортани обнаружены комплексы клеток инвазивного высокодифференцированного плоскоклеточного рака. В удаленной правой вестибулярной складке в краях резекции опухолевых клеток не выявлено.

Ранний послеоперационный период протекал гладко. После удаления зонда наблюдалось нарушение глотания в положении сидя, что потребовало возобновления зондового питания. В дальнейшем зонд был удален, однако развились бульбарные расстройства, в связи с чем пациент мог глотать, лишь наклоняясь вперед. Через 4 нед после операции произведена попытка деканюляции, но наблюдалось выраженное диспноэ. При рентгеноскопии выявлено нарушение акта глотания со значительным забросом контрастного вещества в просвет трахеи, что было в основном обусловлено органическими изменениями в шейном отделе позвоночника на уровне сегмента C<sub>3</sub>–C<sub>4</sub>, где имело место массивное локальное обызвествление передней продольной связки, оказывавшей сильное давление на просвет глотки (на уровне лепестка надгортанника) (рис. 1).

Далее проведено комплексное обследование, позволявшее исключить рецидив рака гортани и оценить распространенность дегенеративно-дистрофических изменений шейного отдела позвоночника (рис. 2–4). Прогрессирование онкологического заболевания подтверждено не было. При физикальном обследовании обращало на себя внимание выраженное ограничение подвижности шейного отдела позвоночника: амплитуда движений не превышала 10°.

В отделении нейрохирургии проведено удаление образования позвонков C<sub>3</sub>–C<sub>4</sub> через вентролатеральный доступ. Положение пациента – лежа с поворотом головы влево. Выполнен разрез длиной 10 см вдоль кивательной



**Рис. 1.** Рентгенография шейного отдела позвоночника в боковой проекции. Изменения в шейном отделе позвоночника на уровне сегмента  $C_3-C_4$  – массивное локальное обызвествление передней продольной связки  
**Fig. 1.** X-ray of the cervical spine in the lateral projection. Changes in the cervical spine at the  $C_3-C_4$  level – a massive local calcification of the anterior longitudinal ligament



**Рис. 2.** Магнитно-резонансная томография шейного отдела позвоночника в сагиттальной проекции, T1-взвешенное изображение. Грубые дегенеративно-дистрофические изменения шейного отдела позвоночника, массивные передние спондилезные скобки на уровне сегмента  $C_2-C_3$  с деформацией прилежащих мягких тканей, а также выраженное утолщение передней продольной связки на уровне сегментов  $C_2-Th_1$ , суживающие просвет гортаноглотки до  $4 \times 9$  мм  
**Fig. 2.** Magnetic resonance imaging of the cervical spine in sagittal projection, T1-weighted image. Gross dystrophic malformation in the cervical spine, massive anterior spondylolisthesis “brackets” at the level of  $C_2-C_3$ , with deformation of adjacent soft tissues, as well as a pronounced thickening of the anterior longitudinal ligament at the level of  $C_2-Th_1$ , narrowing the laryngopharynx to  $4 \times 9$  mm are noted

мышцы. Разведена подкожная мышца шеи, кивательная мышца отведена вбок, выделен сосудисто-нервный пучок шеи, отведен вбок. Вскрыта предпозвоночная фасция. Обнаружен массивный остеофит позвонка  $C_3$ . С помощью костных кусачек и высокоскоростного бора остеофит удален. Пищевод укрыт фасцией. Кровотечение из мягких тканей остановлено путем биполярной коагуляции с применением гемостатической марли, из костных структур – путем монополярной коагуляции с применением воска. Рана ушита послойно. Установлен назогастральный зонд.



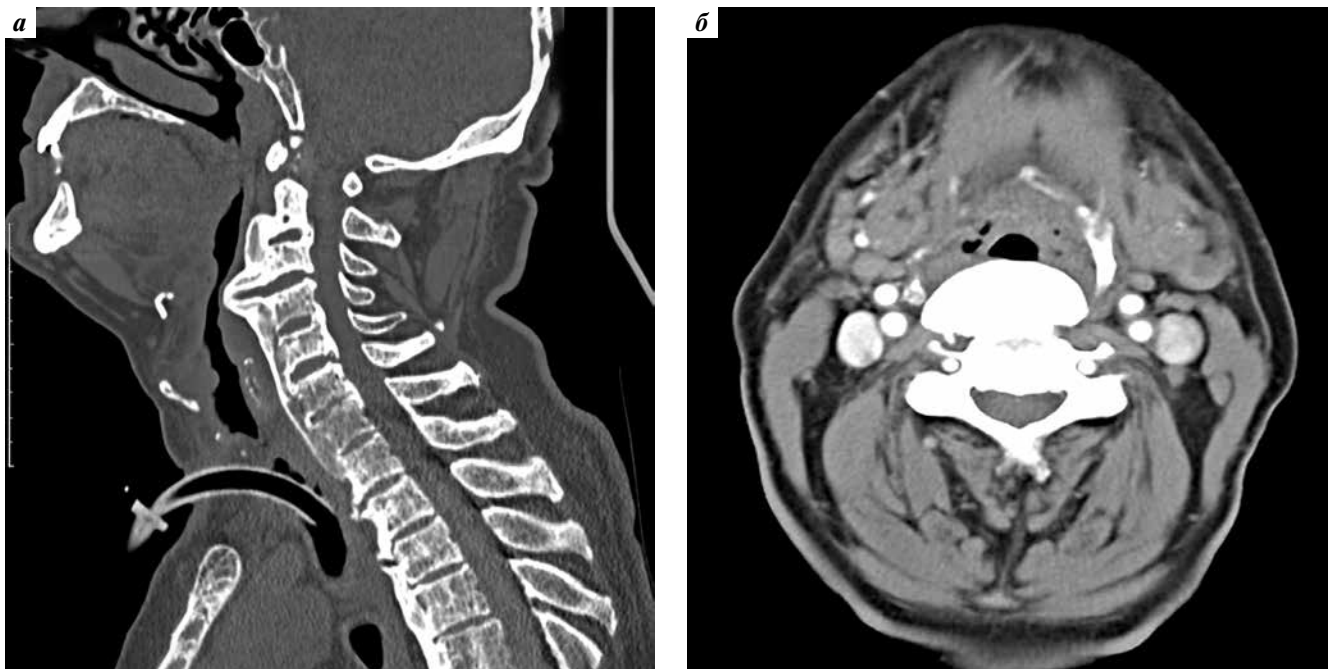
**Рис. 3.** Фиброларингоскопия. Эндоскоп встречает препятствие сразу после надгортанника. Провести далее эндоскоп невозможно  
**Fig. 3.** Fibrolaryngoscopy. The endoscope meets an obstacle immediately after the epiglottis. It is not possible to conduct an endoscope further

Назогастральный зонд удален через 3 дня после операции, деканюляция проведена через 5 дней. При контрольном обследовании подтверждено, что биомеханика глотания не нарушена (рис. 5). Пациент выписан через 6 дней после операции.

**Обсуждение**  
 В анамнезе пациента обращали на себя внимание значительный стаж табакокурения (индекс пачка/лет 28,5, к настоящему моменту отказался от курения) и закрытая черепно-мозговая травма во время дорожно-транспортного происшествия 48 лет назад. Эти факторы риска можно рассматривать как причины развития соответственно рака гортани и болезни Форестье.

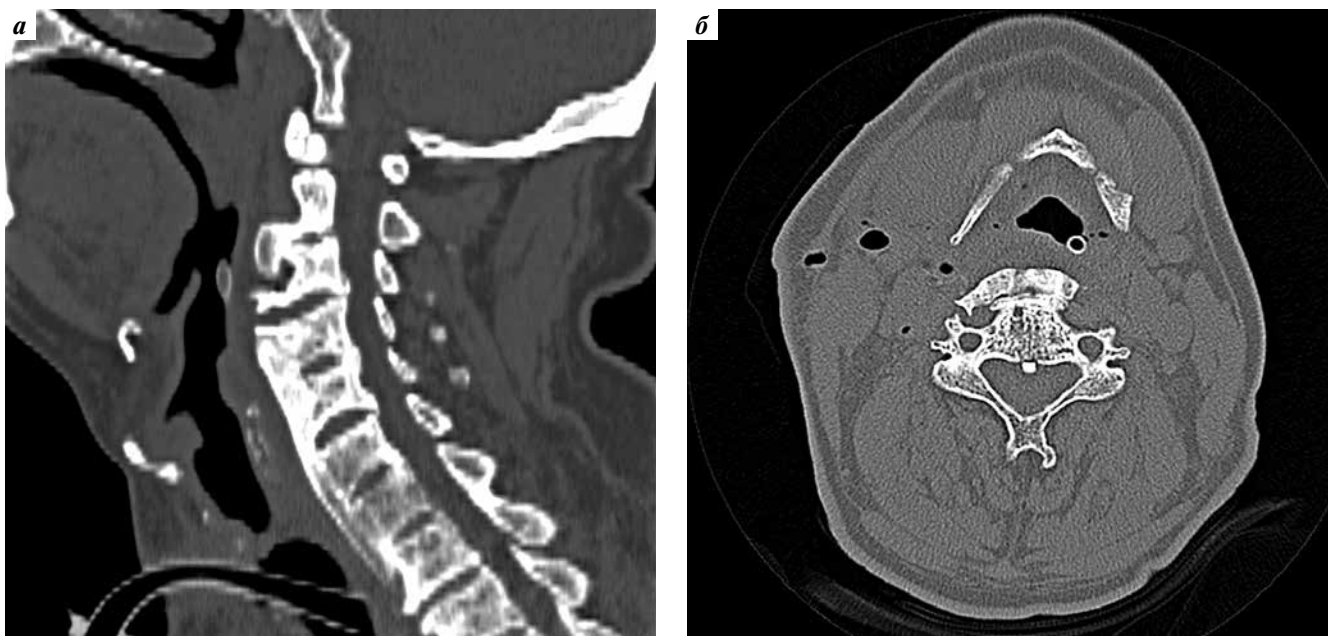
Единственная техническая трудность, с которой мы столкнулись при проведении операции, – трудность позиционирования пациента ввиду малоподвижности шейного отдела позвоночника. Доступ к шейным остеофитам может быть переднелатеральным, заднелатеральным или трансоральным. Переднелатеральный доступ к шейному отделу позвоночника обеспечивает возможность выполнения манипуляций на уровне сегментов  $C_3-C_7$  в полном объеме, а также возможность обзора сосудисто-нервного пучка. Доступ слева предпочтителен из-за более медиального расположения возвратного гортанного нерва. Заднебоковой доступ подходит для манипуляций на уровне сегментов  $C_3-C_6$ , обеспечивает хороший обзор структур латерального треугольника шеи, но требует большей тракции сосудисто-нервного пучка и повышает риск повреждения





**Рис. 4.** Компьютерная томография шейного отдела позвоночника: а – сагиттальная реконструкция. По передней поверхности шейного и грудного отделов позвоночника визуализирован скелетный гиперостоз с формированием анкилоза, клювовидных остеофитов, максимально (на 19 мм) выступающих кпереди на уровне сегмента  $C_3$ – $C_4$ ; б – аксиальный срез на уровне позвонка  $C_3$

**Fig. 4.** Computer tomography of the cervical spine: a – sagittal reconstruction. On the front surface of the cervical and thoracic spine, skeletal hyperostosis with the formation of ankylosis, coracoid osteophytes, maximally (up to 19 mm) anteriorly located at the level of  $C_3$ – $C_4$ ; б – axial section at the level of  $C_3$



**Рис. 5.** Компьютерная томография шейного отдела позвоночника после удаления остеофита: а – сагиттальная реконструкция; б – аксиальный срез на уровне позвонка  $C_3$

**Fig. 5.** Computer tomography of the cervical spine after the resection of  $C_3$ – $C_4$  segment osteophyte: a – sagittal reconstruction; б – axial section at the level of  $C_3$  vertebra

симпатического ствола. Трансоральный и трансфарингеальный доступы имеют преимущество в эстетическом плане, а также несут меньший риск поражения магистральных сосудов, блуждающего и возвратного нервов.

Они относительно удобнее при локализации остеофитов на уровне сегмента  $C_1$ – $C_2$ . Тем не менее некоторые авторы указывают на ограниченность обзора и потенциальный риск инфицирования предпозвоночной

фасции и развития остеомиелита из-за контаминации операционного поля при этих доступах [6]. Важно не повредить пищевод при резекции остеофита через любую из перечисленных доступов.

После хирургического лечения абсолютное большинство пациентов отмечают быстрое исчезновение дисфагии, нарушений дыхания. Однако болезнь Форестье является диффузной болезнью соединительной ткани, в связи с чем часто рецидивирует. В работе К. Miyamoto и соавт. проанализированы результаты резекции остеофитов через 10 лет. Скорость роста остеофитов в зоне резекции в среднем составила 1 мм в год [7]. Ввиду этого пациент, случай лечения которого описан выше, останется под наблюдением не только по поводу онко-

логического заболевания, но и по поводу идиопатического гиперостоза.

### Заключение

С проявлениями болезни Форестье могут встретиться специалисты различных направлений: отоларингологи, гастроэнтерологи, неврологи [8], торакоабдоминальные хирурги и, как показывает данное наблюдение, онкологи. В ходе дифференциальной диагностики патологию шейного отдела позвоночника также следует рассматривать как причину дисфагии, дисфонии и диспноэ. Первичная диагностика данной патологии проста и заключается в выполнении рентгенографии шейного отдела позвоночника в боковой проекции.

## ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Злокачественные новообразования в России в 2018 году (заболеваемость и смертность). Под ред. А.Д. Каприна, В.В. Старинского, Г.В. Петровой. М.: МНИОИ им. П.А. Герцена, 2019. 250 с. Доступно по: [http://www.glavonco.ru/cancer\\_register/Забол\\_2018\\_Электр.pdf](http://www.glavonco.ru/cancer_register/Забол_2018_Электр.pdf). [Malignant tumors in Russia in 2018 (morbidity and mortality). Ed by A.D. Kaprin, V.V. Starinsky, G.V. Petrova. Moscow: MNIIOI im. P.A. Gertzena, 2019. 250 p. Available at: [http://www.glavonco.ru/cancer\\_register/Забол\\_2018\\_Электр.pdf](http://www.glavonco.ru/cancer_register/Забол_2018_Электр.pdf). (In Russ.)].
2. Kuper H., Boffetta P., Adami H.O. Tobacco use and cancer causation: association by tumour type. *J Intern Med* 2002;252(3):206–24. DOI: 10.1046/j.1365-2796.2002.01022.x.
3. 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.
4. Forestier J., Rotes-Querol J. Senile ankylosing hyperostosis of the spine. *Ann Rheum Dis* 1950;9(4):321–30. DOI: 10.1136/ard.9.4.321.
5. Resnick D., Niwayama G. Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Radiology* 1976;119(3):559–68. DOI: 10.1148/119.3.559.
6. Pulcherio J.O., Velasco C.M., Machado R.S. et al. Forestier's disease and its implications in otolaryngology: literature review. *Braz J Otorhinolaryngol* 2014;80(2):161–6. DOI: 10.5935/1808-8694.20140033.
7. Miyamoto K., Sugiyama S., Hosoe H. et al. Postsurgical recurrence of osteophytes causing dysphagia in patients with diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Eur Spine J* 2009;18(11):1652–8. DOI: 10.1007/s00586-009-1133-3.
8. Гончаров М.Ю., Прокопович В.С. Болезнь Форестье как причина вторичной дисфагии в неврологической практике. *Уральский медицинский журнал* 2017;(10):19–21. [Goncharov M.Yu., Prokopovich V.S. Forestier's disease as the cause of secondary dysphagia in neurological practice. *Ural'sky meditsinsky zhurnal = Ural Medical Journal* 2017;(10):19–21. (In Russ.)].

### Вклад авторов

А.М. Зайцев: проведение операции, научное консультирование, научное редактирование статьи;  
 А.П. Поляков: научное консультирование, научное редактирование статьи;  
 М.В. Ратушный: проведение операции;  
 Т.М. Кобылецкая: обзор публикаций по теме статьи;  
 С.А. Кисарьев: курация больного;  
 А.Л. Сугаипов: проведение операции, курация больного;  
 О.Н. Кирсанова: проведение операции, курация больного, написание текста статьи.

### Authors' contributions

A.M. Zaytsev: surgical treatment, scientific advice, scientific editing of the article;  
 A.P. Polyakov: scientific advice, scientific editing of the article;  
 M.V. Ratushny: surgical treatment;  
 T.M. Kobyletskaya: reviewing of publications on the article's theme;  
 S.A. Kisariyev: patient management;  
 A.L. Sugaipov: surgical treatment, patient management;  
 O.N. Kirsanova: surgical treatment, patient management, article writing.

### ORCID авторов / ORCID of authors

А.М. Зайцев / A.M. Zaytsev: <https://orcid.org/0000-0002-1905-9083>  
 А.П. Поляков / A.P. Polyakov: <https://orcid.org/0000-0003-2095-5931>  
 М.М. Ратушный / M.V. Ratushny: <https://orcid.org/0000-0002-4293-2725>  
 Т.М. Кобылецкая / T.M. Kobyletskaya: <https://orcid.org/0000-0002-7934-7917>

**Конфликт интересов.** Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.  
**Conflict of interest.** The authors declare no conflict of interest.

**Финансирование.** Исследование проведено без спонсорской поддержки.  
**Financing.** The study was performed without external funding.

**Соблюдение прав пациентов.** Пациент подписал информированное согласие на публикацию своих данных.  
**Compliance with patient rights.** The patient gave written informed consent to the publication of his data.

**Статья поступила:** 16.12.2019. **Принята к публикации:** 19.04.2020.  
**Article submitted:** 16.12.2019. **Accepted for publication:** 19.04.2020.