

CASO CLÍNICO/CLINICAL CASE

Síndrome de apneia obstrutiva do sono associada a osteófito cervical devido a hiperostose esquelética idiopática difusa – Caso clínico

Obstructive sleep apnea syndrome associated with cervical osteophyt due to diffuse idiopathic skeletal hyperostosis – Clinical case

AUGUSTA MACHADO*, JOÃO CARLOS WINCK**, JOÃO ALMEIDA***

RESUMO

A síndrome de apneia obstrutiva do sono e a hiperostose esquelética idiopática difusa são doenças frequentes na população idosa, no entanto raramente tem sido descrita a sua associação.

ABSTRACT

Obstructive sleep apnea syndrome and diffuse idiopathic skeletal hyperostosis are frequent diseases in the elderly, however its association has rarely been described.

* Interna Complementar de Pneumologia

** Assistente Hospitalar Graduado de Pneumologia

*** Chefe de Serviço de Pneumologia

Serviço de Pneumologia - H. S. João, Porto. Director: Dr. Martins Coelho

Recebido para publicação/Received for publication: 03.07.08

Aceite para publicação/Accepted for publication: 03.08.13

Os autores descrevem um caso de síndrome de apneia do sono num doente com hiperostose esquelética idiopática difusa, que apresenta um osteófito gigante da coluna cervical, o qual condiciona obstrução da faringe, e fazem uma correlação entre as duas entidades.

REV PORT PNEUMOL 2003; IX (5): 427-433

Palavras-chave: Síndrome de Apneia Obstrutiva do Sono, Hiperostose Esquelética Idiopática Difusa.

The authors describe a case of obstructive sleep apnea syndrome in a patient with diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, with a giant osteophyte of the cervical column, which leads to obstruction of the pharynx and they discuss the association between both entities.

REV PORT PNEUMOL 2003; IX (5): 427-433

Key-words: Obstructive Sleep Apnea Syndrome, Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis.

INTRODUÇÃO

A obstrução anatómica das vias aéreas superiores tem sido apontada como um dos principais mecanismos responsáveis pela síndrome de apneia obstrutiva do sono (SAOS).

A hiperostose esquelética idiopática difusa (DISH) é uma doença degenerativa, caracterizada por ossificação das regiões anterior e lateral da coluna vertebral. Geralmente atinge a região dorsal causando dor e limitação da mobilidade articular;¹ no entanto, pode surgir em outras localizações, como é o caso da coluna cervical, onde pode causar obstrução significativa das vias aéreas superiores.^{2,3,5}

Apesar da elevada frequência das duas patologias na população idosa, a associação entre SAOS e DISH raramente tem sido descrita na literatura.^{2,4,5}

Os autores apresentam o caso de um doente com síndrome de apneia do sono grave que apresentava um osteófito gigante ao nível da coluna cervical no contexto de hiperostose esquelética idiopática difusa (DISH), e estabelecem uma relação causal entre as duas patologias.

CASO CLÍNICO

Doente do sexo masculino, de 59 anos, caucasiano, com história de hipertensão arterial e diabetes *mellitus* tipo 2, que foi referenciado à nossa consulta por apresentar um quadro de roncopatia, pausas respiratórias e sonolência diurna excessiva.

Referia também história de limitação progressiva da mobilidade articular com dor cervical e lombar, as quais sofreram agravamento nos últimos anos e se associaram ao aparecimento de disfagia. Negava dispneia ou estridor.

Ao exame objectivo apresentava bom estado geral, obesidade (índice de massa corporal de 33 kg/m²), pescoço curto e largo com dificuldade na flexão anterior e, sobretudo, na dorsiflexão. No restante exame físico não se observavam alterações de relevo, nomeadamente estridor ou outros sinais de dificuldade respiratória,

O Estudo Funcional Respiratório não mostrou alterações significativas, nomeadamente ao nível do braço inspiratório da curva de débito-volume.

O Estudo Poligráfico do Sono revelou a existência de um SAOS grave (Índice de apneia/hipopneia de 38/hora, 10% do tempo com SaO₂

abaixo de 90% e SaO₂ mínima de 70%). Iniciou CPAP nasal com pressão de 8 cmH₂O, com abolição dos eventos respiratórios e da dessaturação nocturna, melhoria sintomática e boa aderência (Fig. 1).

Para esclarecimento das queixas osteoarticulares efectuou TAC cervical com reconstrução tridimensional (Fig. 2 e 3) e ressonância magnética nuclear do pescoço (Fig.4) que mostraram extensa ossificação ao longo da vertente anterior dos corpos e discos intervertebrais da coluna cervical estendendo-se até T2; a hiperostose era mais proeminente em C1, em que se observava um osteófito de grandes dimensões que condicionava compressão da parede exterior da orofaringe a esse nível. Estes achados eram compatíveis com o diagnóstico de hiperostose esquelética idiopática difusa (DISH).

Dada a melhoria clínica significativa com a introdução de ventilação não invasiva, optou-se pela manutenção desta terapêutica e seguimento na nossa consulta. Dezoito meses depois, o doente

repetiu Estudo Poligráfico do Sono, o qual revelou uma melhoria da síndrome de apneia do sono (índice de apneia/hipopneia de 28/hora e 5% do tempo SaO₂ abaixo de 90%) (Fig. 5).

DISCUSSÃO

A extensa ossificação da coluna que ocorre na DISH com formação de osteófitos, por vezes de grandes dimensões, pode ter consequências clínicas importantes. São disso exemplo a ocorrência de disfagia, de mielopatia cervical, de pneumonia de aspiração e, ocasionalmente, de quadros de dificuldade respiratória por compressão extrínseca das vias aéreas.^{1,2,4,6,7,8,9,10} No entanto, a associação de DISH com roncopatia ou apneia obstrutiva do sono raramente tem sido referenciada.^{2,4,5}

Neste caso, a presença do osteófito gigante ao nível da região cervical parece ser o principal mecanismo responsável pelo quadro de apneia

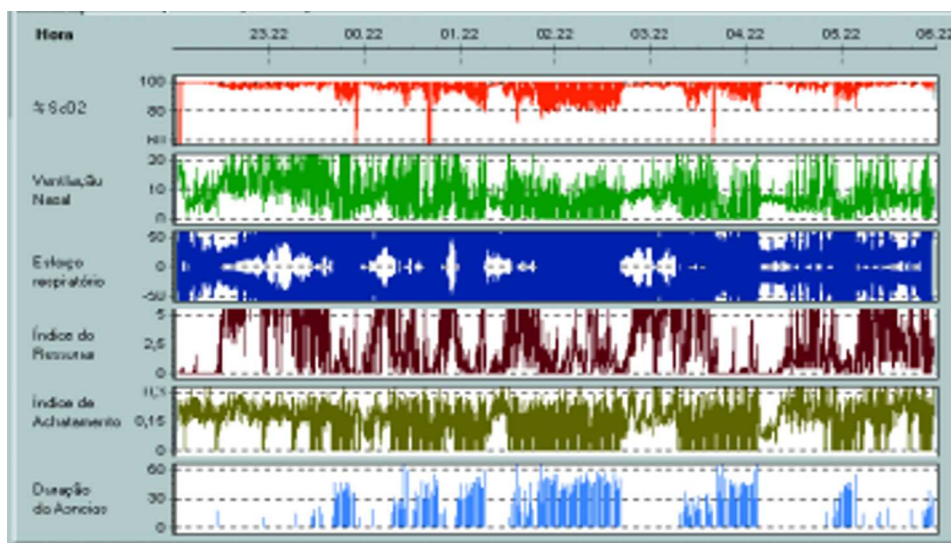


Fig. 1

SÍNDROMA DE APNEIA OBSTRUTIVA DO SONO ASSOCIADA A OSTEÓFITO CERVICAL DEVIDO A HIPEROSTOSE ESQUELÉTICA IDIOPÁTICA DIFUSA — CASO CLÍNICO/AUGUSTA MACHADO, JOÃO CARLOS WINCK, JOÃO ALMEIDA



Fig. 4

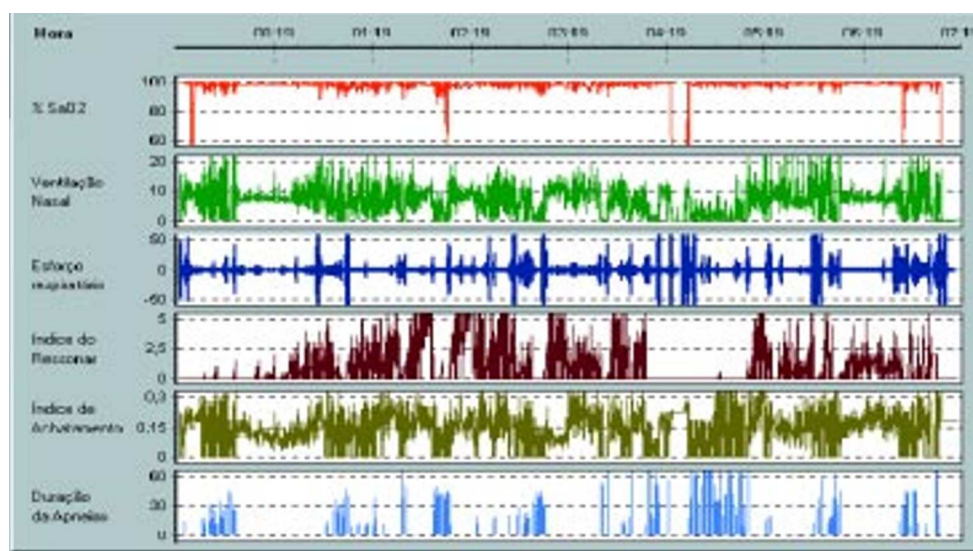


Fig. 5

obstrutiva do sono, apesar de o doente apresentar outros factores de risco para o desenvolvimento do mesmo, nomeadamente o aumento do perímetro cervical secundário à obesidade.

Embora a zona de estreitamento da via aérea superior possa variar de indivíduo para indivíduo no SAOS, parece ser a orofaringe o local onde ela é mais significativa. É precisamente nesta região que o osteófito se insinua, causando, pelas suas dimensões, significativa obstrução. Por um lado, devido ao seu volume, provoca compressão mecânica nesta área, por outro esta obstrução predispõe ao colapso da via aérea devido à necessidade de gerar pressões muito negativas na inspiração durante o sono, com aparecimento secundário de edema nesta zona. Outros mecanismo apontado é a irritação crónica associada à presença do osteófito, a qual provoca um processo inflamatório e edematoso, quer da mucosa faríngea, quer dos tecidos parafaríngeos, assim como espasmo do músculo cricofaríngeo, agravando ainda mais a obstrução.⁴

São estes mecanismos que estão na base da abordagem conservadora que tem sido advogada para esta patologia, nomeadamente através do uso de anti-inflamatórios e relaxantes musculares.¹ Nesta doença a cirurgia é apenas recomendada em situações em que não é observada qualquer resposta à terapêutica conservadora ou quando o crescimento dos osteófitos é de tal modo significativo que provoca sintomas graves, nomeadamente obstrução das vias aéreas. Após a cirurgia pode ocorrer recidiva da osteofitose.¹¹

No caso presente, optou-se por manter ventilação com CPAP e fazer um *follow-up* rigoroso com vista a pesquisa de eventual crescimento do osteófito condicionando agravamento clínico do doente, nomeadamente da disfagia, pneumonia de aspiração ou obstrução das vias aéreas. Facto curioso foi que após 18 meses de terapêutica com CPAP houve melhoria do SAOS, apesar de os restantes factores de risco se terem mantido. Ao tratamento com CPAP têm sido

descritas outras funções além da dilatação pneumática da via aérea superior, nomeadamente a diminuição do edema e da congestão da mucosa faríngea e o relaxamento dos músculos dilatadores da faringe, os quais têm uma actividade aumentada na tentativa de diminuir o estreitamento estrutural da faringe.^{4,12}

Tomando como exemplo este caso clínico e devido à frequência de osteófitos cervicais anteriores e SAOS na população idosa, uma radiografia cervical lateral pode ser útil para avaliar doentes com SAOS e rigidez cervical.

BIBLIOGRAFIA

1. KIRMIZAKIS D, PANGALOS A, BIZAKIS J, et al. Case 1: Disfagia due to diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (Forestier disease). Arch Otolaryngol Head Neck Surg 2001; vol 127: 83-85;
2. DEMUYNCK K, CALENBERGH FV, GOFFIN J, et al. Upper airway obstruction caused by a cervical osteophyte. Chest 1995; 108: 283-84.
3. CHABAN R, COLE P, HOFFSTEIN V. Site of upper airway obstruction in patients with idiopathic obstructive sleep apnea. Laryngoscope 1988;98:641-7.
4. BARBÉ F, PONS S, TOGORES B, et al. Continuous positive airway pressure is effective in treating upper airway oedema. Eur Respir J 1996; 9: 1092-3.
5. HUGHES TAT, WILES CM, LAWRIE BW, et al. Dysphagia and sleep apnoea associated with cervical osteophytes due to diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). J Neurol Neurosurg Psychiatr 1994; 57:384.
6. CARLSON MJ, STAUFFER RN, PAYNE WS. Ankylosing vertebral hyperostosis causing dysphagia. Arch Surg 1974;109:567-570.
7. PAKOSTAS K, THAKAR A. NANDAPALAN V, O'SULLIVAN G. An unusual case of stridor due to osteophytes of the cervical spine: (Forestier's disease). J Laryngol Otol. 1999;113:65-67.
8. UPPAL S, WHEATLEY AH. Transpharyngeal approach for the treatment of dysphagia due to Forestier's disease. The Journal of Laryngology and Otology 1999; Vol. 113: 366-368;
9. GOEL R, SAMPATH S, MIKAELIAN DO. Otolaryngology Head and Neck Surgery 1999;120 (1)92-96.
10. WARNICK C, SHERMAN MS, LESSER RW. Aspiration pneumonia due to diffuse cervical hyperostosis. Chest 1990; 98: 763-4.
11. SUZUKI K, ISHIDA Y, OHMORI K. Long term follow-up

SÍNDROMA DE APNEIA OBSTRUTIVA DO SONO ASSOCIADA A OSTEÓFITO CERVICAL DEVIDO
A HIPEROSTOSE ESQUELÉTICA IDIOPÁTICA DIFUSA — CASO CLÍNICO/AUGUSTA MACHADO,
JOÃO CARLOS WINCK, JOÃO ALMEIDA

of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in the cervical spine. *Neuroradiology* 1991; 33: 427-731.

12. RYAN CF, LOWE M, LI D. Magnetic ressonance imaging

of the upper airway in obstructive sleep apnea before and after chronic nasal CPAP therapy. *Am Rev Respir Dis* 1991; 144: 939-944.