

Osteomieliță mandibulară cu manifestare pseudotumorală

Osteomyelitis of the mandible with pseudotumoral manifestation

A. ZAMFIR-CHIRU-ANTON¹, A.E. STANCIU², D.C. GHEORGHE³

¹Spitalul Clinic de Urgență pentru Copii „G. Alexandrescu”, București

²Institutul Oncologic, București

³Spitalul Clinic de Urgență pentru Copii „M.S. Curie”,
Universitatea de Medicină și Farmacie „Carol Davila”, București

REZUMAT

Osteomielița mandibulei este o afecțiune severă și posibil invalidantă. Unele forme clinice pot îmbrăca aspecte pseudotumorale cu adresare către serviciul ORL.

Obiectiv. Prezentarea diagnosticului diferențial în cazul tumefacțiilor mandibulare inflamatorii la copil.

Material, metodă. Prezentarea unui caz internat și biopsiat în serviciul ORL.

Rezultate. Biopsia a demonstrat zone de liză osoasă și infiltrat inflamator prezente la nivelul unui os de neoformație. Sub tratament antiinflamator nesteroidian simptomatologia s-a remis, monitorizarea pacientului fiind în curs.

Concluzii. Osteomielița nu este întotdeauna o boală de origine infecțioasă evidentă. Elementele clinice, imagistice și biopsia sunt capitale pentru stabilirea unui diagnostic corect. Tratamentul este încă în curs de evaluare pentru formele noninfecțioase.

Cuvinte cheie: osteomielița mandibulei, copil

ABSTRACT

Osteomyelitis of the mandible is an uncommon disease, sometimes with severe invalidating symptoms. Some cases can present as tumors of the jaw and are possibly seen in ENT practice.

Objective. To present the differential diagnosis of mandibular swellings of inflammatory origin.

Material, method. Case presentation of a 9y child admitted and biopsied in the ENT department.

Results. Histologic examination showed focal areas of osteolytic lesions along with moderate inflammatory cellular infiltration, all within newly formed bone. Under NSAID drugs, the symptoms were alleviated, the patient remaining under close follow-up.

Conclusion. Osteomyelitis of the mandible is not always of infectious origin. The clinical examination, the imaging and biopsy are key elements to correct diagnosis. Therapy is still under evaluation for non-infectious osteomyelitis

Keywords: osteomyelitis of the mandible, child

Adresă de corespondență:

A. Zamfir-Chiru-Anton, Spitalul Clinic de Urgență pentru Copii „G. Alexandrescu”, Bd. Iancu de Hunedoara, nr. 30-32, sector 1, București
E-mail: zamfiradina@yahoo.com

Osteomielite mandibulară este o afecțiune rară, mai frecvent întâlnită în cadrul specialității oro-maxilofaciale. Aspectul său clinic îl poate determina pe un pacient să se adreseze departamentelor ORL, iar tratamentul este marcat de evoluții adesea dificile, dat fiind particularitățile florei microbiene implicate în etiologia sa (1). Germenii principal implicați în determinismul osteomielitei mandibulare sunt streptococii de tip viridans și anaerobii (*Peptostreptococcus* spp) (2). Rezistența acestei bacterii la antibiotice a crescut în ultimii ani, ceea ce poate determina o revenire importantă clinic a afecțiunii. Utilizarea unor scheme terapeutice eficiente necesită o revizuire periodică a sensibilității bacteriene la substanțele antimicrobiene utilizate curent (2).

Factorii care pot determina apariția unei osteomielite mandibulare sunt: infecțiile odontogene, traumatismele (operatorii) locale și osteoradionecroza (2). Evolutiv, boala decurge cel mai adesea cronic (2).

Diagnosticul osteomielitei mandibulare se bazează pe simptomele clinice (dureri, tumefacție, fistulă locală), în asociere cu analiza imagistică a regiunii sau scintigrafia cu Tc trifazic și biopsia sau cultura unui fragment osos recoltat steril (fără contaminare orală).

Au fost descrise mai multe forme de inflamație mandibulară. Osteomielite cronică multifocală este o boală recurentă, cu posibilă evoluție poliostotică (3). Ea debutează la copil și poate avea un caracter refractar la tratamentele aplicate (4).

Tratamentul osteomielitei infecțioase poate utiliza antibiotice moderne, cu spectru larg și acțiune dirijată către agenții etiologici menționați. Betalactaminele rămân alegerea de primă intenție, urmate de chinolone (moxifloxacină având efect și pe flora anaerobă) în cazul pacienților alergici (5). Studii publicate atestă osteogeneza normală chiar în prezența acestei clase de antibiotice (6).

PREZENTARE DE CAZ

O pacientă în vârstă de 9 ani s-a adresat departamentului ORL pentru tumefacție la nivelul hemimandibulei stângi, însoțită de dureri locale, spontan și la palpare. Din istoric a reieșit existența unui traumatism stomatologic, cu 3 luni înaintea prezentării. Anamnezic, a fost raportată existența unui drenaj al unui abces gingival inferior stâng, urmată de dureri locale persistente. Copilul a urmat tratamente antibiotice multiple,

pe cale generală, cu betalactamine și macrolide. Treptat, mama a remarcat tumefacția hemifetei inferioare stângi, motiv pentru care a solicitat și o evaluare ORL.

La examenul clinic al pacientului am constatat o tumefacție fermă evidentă, dureroasă, localizată în dreptul hemimandibulei stângi. Tumefacția prezenta o discretă zonă de fluctuență la palpare, cu localizare deasupra marginii inferioare a porțiunii orizontale stângi și dimensiune de aprox 20 mm, relativ fixată la osul subiacent. Nu s-a observat nici o carie dentară clară la nivelul dinților de pe arcada inferioară ipsilaterală și nici mobilitate dentară patologică. Ecografia locală nu a reușit să confirme existența unui abces local. S-a efectuat o examinare imagistică prin computer tomograf.

S-a pus în evidență în acest mod o apozitie osoasă care îmbrăca hemimandibula stângă, pornind de la nivelul liniei mediane și ajungând până la nivelul condilului articular de aceeași parte. Conturul osos al mandibulei prezenta zone de liză multifocală, atât la nivelul ramului ascendent, la nivelul unghiului mandibulei, dar și în porțiunea orizontală (Fig. 1, 2). Ambele corticale osoase (externă și medială) erau afectate în acest proces. În plus, mici zone cu aspect de fistulă osoasă și microabcese au fost observate în țesuturile moi adiacente.

În absența unui răspuns terapeutic la antibioticele administrate, s-a decis intervenția chirurgicală exploratorie (de drenaj). Am ales abordul endobucal, prin incizie gingivogugală inferioară stângă largă. După decolarea țesuturilor moi, am evidențiat apozitie osoasă de consistență relativ moale, fără colecție lichidiană (abces) la nivelul tumefacției angulare a mandibulei. Marginile osoase prezentau contur neregulat, adesea întrerupt. Fragmentele osoase recoltate au fost trimise pentru biopsie. Rezultatul a arătat prezența unui os compact și spongios cu marcat edem interstițial, cu discretă proliferare fibroblastică și ușor infiltrat inflamator mixt. S-au constatat, de asemenea, zone focale de remanieră osoasă, cu ușoară activitate osteoclastică și fără elemente de malignitate.

Postoperator, evoluția a fost marcată de apariția unui hematom important care a fost drenat, cu vindecare favorabilă ulterioară.

S-a decis administrarea de tratament antiinflamator nesteroidian, cu monitorizarea secundară a pacientei. După 3 luni de tratament, evoluția a fost staționară, fără modificarea aspectului local extern și simptomatologiei.

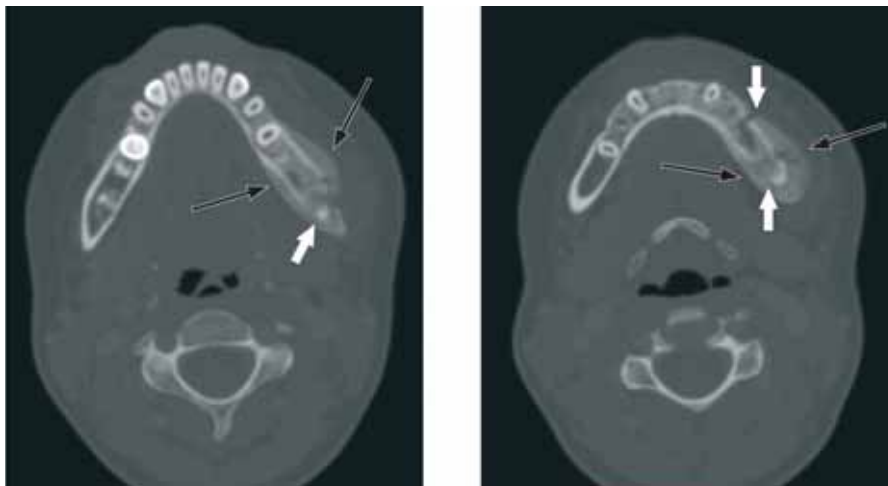


FIGURA 1, 2. Imagini CT arătând apoziție osoasă (săgeți negre) și zone de liză ale conturului original al mandibulei (săgeți albe)

DISCUȚII

Osteomiелita non-infecțioasă a mai fost descrisă în literatură (3). Totuși, localizarea unifocală, mandibulară izolată, este rară (7). Cazul prezentat se încadrează în manifestările descrise de alți autori. Prezența leziunilor inflamatorii osoase, apoziția osoasă și osteoliza evidente atât imagistic, dar și histologic sunt elemente clare de diagnostic. Dat fiind vârsta pacientei și simptomatologia, o serie de alte posibile diagnostice au fost discutate.

Displazia fibroasă poate afecta copilul mare, dar se caracterizează histologic prin prezența unui os imatur, alături de trabecule osoase dispuse neregulat.

Boala Paget osoasă prezintă cel mai adesea un istoric familial și are un debut mai tardiv.

Osteomiелita sclerozantă (difuză) a mandibulei Garré este o altă afecțiune descrisă relativ recent în populația pediatrică, apărută secundar unui proces de iritație și infecție locală cu *Propionibacterium acnes* (8), urmată de apoziție osoasă (postinflamatorie). Se caracterizează histologic prin straturi succesive de neoformație osoasă, suprapuse peste un os cortical integru (9). Ea poate exista izolat sau în contextul unui sindrom complex (SAPHO, sinovită, acnee, pustuloză, hiperostoză și osteită) (10). Nu toți autorii consideră că afecțiunea face parte din tabloul SAPHO ci poate fi descrisă și separat ca osteită difuză sclerozantă a mandibulei (11). Criteriile de diagnostic sunt legate de prezența osteomiелitei multifocale și a periostitei osifiante, dar în absența unei supurații osoase. Aceste caracteristici nu au corespuns cu datele imagistice ale cazului prezentat, unde liza osoasă era prezentă în paralel pe tot conturul zonei de osificare. De

asemenea, pacienta nu prezenta nici un simptom general specific sindromului SAPHO.

În condițiile în care punctul de plecare a fost odontogen, se poate, de asemenea, presupune existența infecției bacteriene la baza fenomenelor osoase locale. Lipsa de eficacitate a terapiei antibiotice se poate explica prin: existența unei osteomiелite cronice, evolutive, cu germeni rezistenți (de tipul *Propionibacterium acnes*) sau persistența unui proces inflamator aseptice, neinfecțios, eventual autoimun.

Tratamentul osteomiелitei non-infecțioase poate fi variat. Unii autori au folosit bifosfonații pentru micșorarea activității osteoblastice excesive (7). Alții au folosit antiinflamatoriile nesteroidiene, care pot ameliora simptomatologia pe termen lung (11). Se încearcă actual și folosirea TNF-alfa pentru controlul simptomatologiei, cu rezultate relativ bune (12).

Terapia chirurgicală a osteomiелitelor neinfecțioase înseamnă reducerea/rezecția osului nou apoziționat. Riscul de recidivă este însă mare (13).

CONCLUZII

Tumefacțiile inflamatorii ale mandibulei la copil nu înseamnă doar infecții odontogene. Osteomiелita sclerozantă difuză poate fi întâlnită printre pacienții care se adresează specialistului ORL. Biopsia și imagistica stabilesc adesea un diagnostic, iar tratamentul trebuie tatonat în funcție de noile cercetări pe plan imunologic. Depistarea unei eventuale infecții multirezistente local, cu germeni recunoscuți, poate și ea contribui la evaluarea acestor entități cronice, cu morbiditate importantă.

BIBLIOGRAFIE

1. **Hudson J.W.** Osteomyelitis of the jaws: A 50-year perspective. *J Oral Maxillofac Surg*, 1993. 51(12): p. 1294-301.
2. **Pigrau C., et al.** Osteomyelitis of the jaw: resistance to clindamycin in patients with prior antibiotics exposure. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis*, 2009. 28(4): p. 317-23.
3. **Carr A.J., et al.** Chronic multifocal osteomyelitis. *J Bone Joint Surg Br*, 1993. 75(4): p. 582-91.
4. **Chun C.S.** Chronic recurrent multifocal osteomyelitis of the spine and mandible: case report and review of the literature. *Pediatrics*, 2004. 113(4): p. e380-4.
5. **Stefanopoulos P.K., Kolokotronis A.E.** The clinical significance of anaerobic bacteria in acute orofacial odontogenic infections. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 2004. 98(4): p. 398-408.
6. **Makinen T.J., et al.** In vitro and in vivo release of ciprofloxacin from osteoconductive bone defect filler. *J Antimicrob Chemother*, 2005. 56(6): p. 1063-8.
7. **Rasmussen A.Q., et al.** Non-infectious osteomyelitis of the mandible in a young woman: a case report. *J Med Case Rep*, 2014. 8: p. 44.
8. **Assmann G., et al.** Efficacy of antibiotic therapy for SAPHO syndrome is lost after its discontinuation: an interventional study. *Arthritis Res Ther*, 2009. 11(5): p. R140.
9. **Kannan S.K., Sandhya G., Selvarani R.** Periostitis ossificans (Garre's osteomyelitis) radiographic study of two cases. *Int J Paediatr Dent*, 2006. 16(1): p. 59-64.
10. **Kahn M.F., et al.** Is diffuse sclerosing osteomyelitis of the mandible part of the synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis, osteitis (SAPHO) syndrome? Analysis of seven cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 1994. 78(5): p. 594-8.
11. **Fleuridas G., et al.** (Diffuse sclerosing osteomyelitis of the mandible and SAPHO syndrome). *Rev Stomatol Chir Maxillofac*, 2002. 103(2): p. 96-104.
12. **Henriques C.C., et al.** The dark side of SAPHO syndrome. *BMJ Case Rep*, 2011. 2011.
13. **Suei Y., et al.** Partial resection of the mandible for the treatment of diffuse sclerosing osteomyelitis: report of four cases. *J Oral Maxillofac Surg*, 1997. 55(4): p. 410-4; 414-5.