

# Osteomielite mandibular em paciente com espondilite anquilosante com acometimento axial e periférico grave

Daniere Yurie Vieira Tomotani<sup>1</sup>, Aryádyne Allinne Machado de Miranda<sup>2</sup>, Lorena Penha Almeida<sup>2</sup>,  
Rebecca Souza Mubarak<sup>3</sup>, Anne Christine Garcia Neves<sup>3</sup>, Sandra Lúcia Euzébio Ribeiro<sup>4</sup>

ACTA REUMATOL PORT. 2012;37:346-350

## RESUMO

A Espondilite Anquilosante (EA) é uma doença inflamatória crônica que acomete preferencialmente o esqueleto axial, cursa com dor e incapacidade funcional. O envolvimento articular periférico ocorre em 30 a 40% dos casos. A osteomielite da mandíbula era relativamente comum antes do surgimento da antibioticoterapia preventiva e odontologia restauradora. Atualmente a infecção dos ossos faciais é uma condição rara, sendo o foco odontogênico o maior responsável pelos casos de acometimento mandibular. Os autores relatam o caso de um paciente com diagnóstico de EA com acometimento periférico grave, que evoluiu com osteomielite da mandíbula, secundária à infecção odontogênica devido atraso no diagnóstico e tratamento.

**Palavras-chave:** Espondilite anquilosante; Osteomielite; Mandíbula.

## ABSTRACT

Ankylosing spondylitis (AS) is a chronic inflammatory disease that affects mainly the axial skeletal system, causing pain and functional incapacity. The peripheral joint involvement occurs in 30 to 40% of cases. Osteomyelitis of the mandible was relatively common before the advent of preventive antibiotic therapy and restorative dentistry. Currently, the infection of the facial bones is a rare condition, being the odontogenic infection the most

responsible for cases with mandibular involvement. The authors report the case of a EA patient, with severe peripheral involvement, which progressed to osteomyelitis of the jaw, secondary to the odontogenic infection due to delay in diagnosis and treatment.

**Keywords:** Ankylosing spondylitis; Osteomyelitis; Jaw.

## INTRODUÇÃO

A Espondilite Anquilosante (EA) é uma doença inflamatória crônica que acomete a coluna vertebral, sendo a sacroilite bilateral o seu marco principal<sup>1,2</sup>. O envolvimento articular periférico ocorre em aproximadamente 30 a 40% dos casos, mais comumente em grandes articulações como joelhos e tornozelos e em menor escala punhos, metacarpofalangeanas (MCFs) e interfalangeanas proximais (IFPs)<sup>1,3</sup>. Ocorre em 0,1 a 1,4% da população, com predileção para homens e com HLA-B27 positivo em 80 a 90%<sup>1,4</sup>.

Doenças crônicas, imunodepressão e doenças associadas com diminuição de vascularização do osso parecem predispor à osteomielite<sup>5,6</sup>.

A osteomielite dos maxilares e mandibular era relativamente comum antes do surgimento da antibioticoterapia preventiva e odontologia restauradora. Essa patologia pode ser um processo inflamatório agudo ou crônico atingindo espaços medulares ou superfícies corticais do osso<sup>5</sup>. Atualmente a infecção dos ossos faciais é uma condição rara na população geral, sendo o foco odontogênico o maior responsável pelos casos de acometimento mandibular<sup>5</sup>.

O objetivo é descrever o caso de um paciente com diagnóstico de EA e acometimento periférico grave (mãos e punhos), que, no decurso de uma infecção odontogênica inadequadamente tratada, evoluiu para osteomielite e fratura do ramo mandibular direito.

1. Residente do Serviço de Clínica Médica HUCV-UFAM

2. Residente do Serviço de Reumatologia HUCV-UFAM

3. Médica Reumatologista e Preceptora do Serviço de Reumatologia HUCV-UFAM

4. Professora do Departamento de Clínica Médica, Disciplina de Clínica Médica II (Reumatologia) da UFAM, Supervisora da Residência Médica em Reumatologia do HUCV

## CASO CLÍNICO

RSB, sexo masculino, 51 anos, em acompanhamento no ambulatório de reumatologia (HUGV) há 11 anos com história de poliartrite com 2 anos de evolução envolvendo mãos, punhos, joelhos e tornozelos com rigidez matinal de uma hora. Ao exame físico apresentava poliartrite em MCFs, IFPs, punhos, joelhos e tornozelos, e laboratorialmente apresentava velocidade de hemossedimentação (VHS) de 80mm e fator reumatóide (FR) negativo. Com o diagnóstico presuntivo de artrite reumatóide (AR) foi iniciado o tratamento com metotrexato 15mg /semana, prednisona 10mg /dia e ibuprofeno 600mg 8/8 h. Após 1 ano de tratamento, com melhoria parcial do quadro articular periférico, iniciou lombosacralgia de ritmo inflamatório com rigidez matinal de 40 minutos. Laboratorialmente apresentava: VHS 129mm, proteína C reativa (PCR) 40mg/dl, FR e anticorpo anti-peptídeo citrulinado cíclico (anti CCP) negativos e HLA-B27 positivo. A radiografia de sacroilíacas mostrava sacroileíte grau II bilateral. Foi feito o diagnóstico de EA e acrescentado sulfassalazina (SSZ) 2 g/dia, o qual fez uso por 6 anos, sendo suspenso devido a intolerância gástrica. Posteriormente, acrescentou-se ainda leflunomida (LFN) 20mg/dia à terapêutica inicial. Após 4 anos do uso regular de LFN e 11 anos de MTX, a doente apresentou-se com um quadro de abscesso submandibular à direita e perda ponderal de 12Kg (6% da massa corporal). Ao exame físico apresentava regular estado geral, temperatura axilar de 38°C, com ulceração e flogose na região submandibular direita com drenagem purulenta,



**FIGURA 1.** Trismo

pele friável com áreas de retração e trismo (Figura 1). O exame objectivo do tórax e abdómen não apresentavam alterações a salientar. Na observação osteoarticular apresentava: punhos anquilosados com deformação em «dorso de camelo», desvio ulnar dos dedos e tumefação de 2º e 3º MCFs bilateral (Figura 2 A e B); artrite dos joelhos; Schober lombar: 3 cm, expansibilidade torácica: 2 cm, distância occipito-parede: 3,5 cm. Nas radiografias das sacroilíacas e coluna cervical evidenciava-se sindesmofito (Figura 3). Analiticamente destacava-se: hematócrito (Ht) 26,3%; hemoglobina (Hb) 7,7 mg/dl; plaquetas 443.000 células/mm; leucócitos 32.960 cél/mm (bastões: 14%; segmentados: 82%); VHS 98 mm/h; PCR 96mg/dl, hemoculturas negativas. Foi iniciado tratamento empírico com ciprofloxacina e clindamicina. O exame cultural de secreção de abscesso foi positivo para *Staphylococcus coagulase negativo* iniciando-se oxacilina (2gr de 6/6h por 28 dias). Realizou-se ressonância magnética (RM) da mandíbula que mostrou alteração do sinal da medula óssea do ramo mandibular direito, com imagem linear compatível com trajeto fistuloso e coleção adjacente e infiltração edematosa dos músculos masseter, pterigóides lateral e medial (Figura 4). A tomografia computadorizada (TC) foi sugestiva de osteomielite na mandíbula (Figura 5 A). O paciente foi submetido à exodontia e debridamento medular, com preservação da cortical do ramo mandibular. O exame histopatológico foi compatível com osteomielite supurativa com fistulização. Após 7º dia de pós operatório e 14º dia de oxacilina assistiu-se a uma melhora clínica e laboratorial (Ht 32,5%; Hb 10,3 mg/dl; plaquetas 449.000 cél/mm<sup>3</sup>; leucócitos 11.810 cél/mm<sup>3</sup>; bastões 03%; segmentados 68%; VHS: 46 mm/h), pelo que teve alta hospitalar medicado com cefalexina (500mg de 6/6h) por 45 dias e seguimento ambulatorial. Porém não seguiu orientações solicitadas, retornando após 3 meses na consulta, com agravamento do estado geral e da dor na região submandibular à direita. Apresentava igualmente dor na virilha esquerda com irradiação para coxa ipsilateral, que agravava com a marcha, ocasionando claudicação da mesma. Devido à aparente reativação do quadro infeccioso mandibular e para estudo da coxalgia, o doente foi reinternado, tendo-se solicitado culturas e iniciado antibioticoterapia (oxacilina 1,5g IV 4/4 h por 21 dias). A RMN da bacia revelou osteonecrose de cabeça de fêmur grau 3 e a TC da face osteomielite mandibular direita com fratura (Figura 5). Foi submetido a ressecção parcial de mandíbula (ramo direito) e implante de prótese de titânio, com



**FIGURA 2.** Mãos com deformidade em dorso de camelo. Raio-x mãos: erosões, géodos, aspectos de carpíte erosiva bilateralmente, esclerose e fusão de ossos do carpo



**FIGURA 3.** Sacroilíte bilateral. Sindesmofito

tratamento conservador para osteonecrose de cabeça de fêmur, com boa evolução clínica.

## DISCUSSÃO

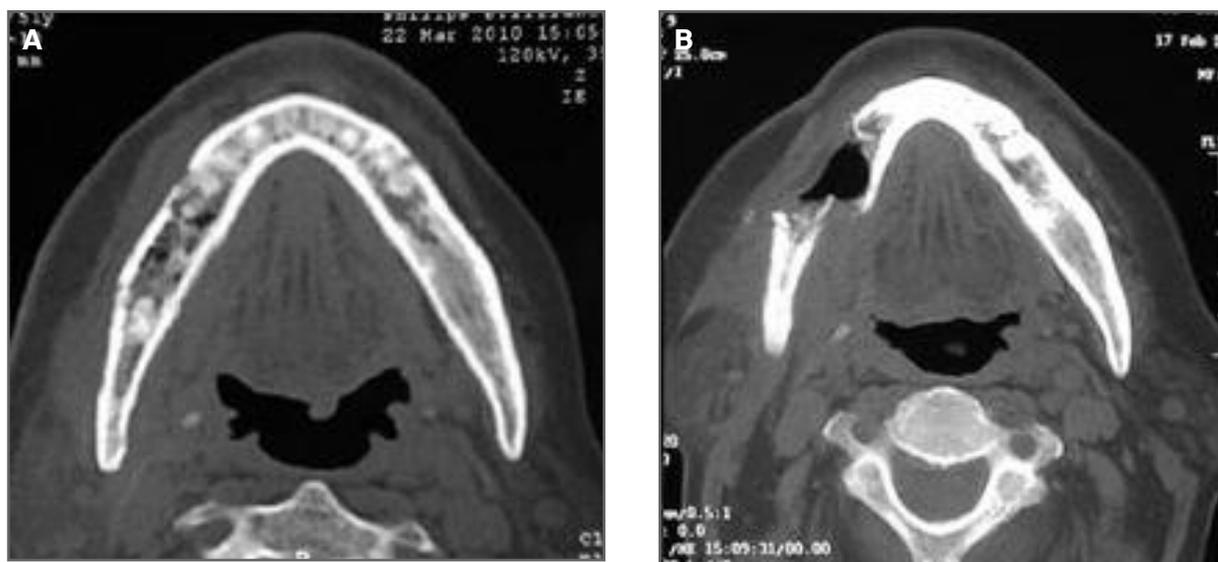
A AR e EA são duas importantes patologias inflamatórias crônicas articulares e apresentam uma incidência de 20 - 300 por 100.000 pessoas por ano e de 0,5 – 8,2 por 100.000 pessoas por ano, respectivamente<sup>6</sup>. A coexistência dessas patologias seria de 0.0002 a 0.0005%<sup>7</sup>. Diferenciam-se por vários aspectos, entre eles, incidência populacional, predominância no sexo, localização da artrite, autoanticorpos, e lesões articulares características de uma e de outra patologia<sup>6</sup>. Neste caso, aventou-se numa fase inicial a possibilidade de associação dessas patologias devido à exuberância do comprometimento articular periférico característico de AR. No entanto, o acometimento das pequenas articulações



**FIGURA 4.** RNM de coluna cervical – alteração difusa do sinal da medula óssea do ramo mandibular direito, com imagem linear correspondendo a trajeto fistuloso, além de coleção adjacente e infiltração edematosa dos músculos masseter, pterigóides lateral e medial

das mãos e punhos é possível e, além disso, a presença de HLA B27, a sacroilíte bilateral, a ausência de anti-CCP e fatores reumatóides séricos permitiu estabelecer o diagnóstico de EA.

Os pacientes com EA tem maior probabilidade de desenvolver doença periodontal quando comparados aos indivíduos saudáveis. A limitação física é um faci-



**FIGURA 5.** A. TC de mandíbula: irregularidade cortical sugestiva de osteomielite de ramo mandibular direito. B. Evolução da lesão após um ano: fratura e intenso seqüestro ósseo do ramo mandibular direito

litador de má higiene oral, aumento da placa bacteriana e, conseqüentemente, da doença periodontal inflamatória<sup>8</sup>. A extensão da inflamação é variável, estando mais relacionada com a baixa imunidade e uso de drogas imunossupressoras do que com o grau de infecção bacteriana, em muitos casos podendo evoluir com manifestações sistêmicas<sup>8</sup>.

A osteomielite é uma dessas condições inflamatórias. Envolve a cavidade medular, o córtex e o periosteio, podendo progredir para partes moles adjacentes. Os microorganismos podem atingir o osso pela circulação sanguínea, inoculação direta ou por contigüidade. A mandíbula é o local mais acometido devido a sua densidade, pobre vascularização e escasso suprimento sanguíneo dos feixes nervosos alveolares, geralmente secundários a uma dentição precária ou doença periodontal<sup>9,10</sup>.

A osteomielite crônica tem duração maior que seis semanas, geralmente evolui com fistulização e segue um curso indolente, com poucas manifestações sistêmicas<sup>9</sup>. O tratamento depende da exodontia e desbridamento cirúrgico local<sup>9,10</sup>.

A presença de uma doença sistêmica crônica, imunodepressão e a diminuição da vascularização óssea são fundamentais para a instalação da infecção. Os anaeróbios orofaríngeos são os agentes mais frequentemente isolados em osteomielite mandibular secundária à infecção odontogênica<sup>11</sup>. As infecções por fungos, micobactérias e actinomicose, são causas mais ra-

ras, porém, sempre devem ser consideradas<sup>12</sup>. No caso descrito a cultura revelou a presença de *S. aureus*, um dos principais responsáveis por osteomielite em outros locais, principalmente fêmur e tibia<sup>10,11</sup>.

Em conclusão, o paciente relatado apresentava manifestação axial e acometimento articular periférico, principalmente das mãos e punhos, com deformidades simulando padrão de AR, que não é a forma de acometimento articular periférico mais comum na EA. A imunodepressão desencadeada pela doença de base, os imunossupressores, as eventuais limitações físicas de boa higiene oral e a demora no tratamento da doença periodontal predispueram a evolução para osteomielite mandibular, afecção rara na atualidade.

#### CORRESPONDÊNCIA PARA

Sandra Lúcia Euzébio Ribeiro  
Rua Ramos Ferreira, n 1280, Bairro Centro  
CEP: 69020-080; Manaus – AM,  
E-mail: sandraler04@gmail.com

#### REFERÊNCIAS

1. Sampaio-Barros PD, Azevedo VF, Bonfiglioli R, et al. Consenso Brasileiro de Espondiloartropatias: Outras Espondiloartropatias Diagnóstico e Tratamento – Primeira Revisão. Rev Bras Reumatol 2007;47:243-250
2. Dakwar E, Reddy J, Vale FL, Uribe JS. A review of the pathogenesis of ankylosing spondylitis. Neurosurg Focus 2008;24:1-5.
3. Fendler C, Braun J. Clinical measures in rheumatoid arthritis and ankylosing spondylitis. Clin Exp Rheumatol 2009;27(4 Suppl 55):80-82
4. Reveille JD, Ball EJ, Khan MA. HLA-B27 and genetic predispo-

- sing factors in spondyloarthropathies. *Curr Opin Rheumatol* 2001; 13:265-72.
5. Vieira CL, Melo REVA. Osteomielite relato de caso clinico. *Int J Dent, Recife* 2006; 1: 35 – 40.
  6. Cross MJ, Smith EUR, Zochling J, March LM. Differences and similarities between ankylosing spondylitis and rheumatoid arthritis: epidemiology. *Clin Exp Rheumatol* 2009; 27 (Suppl. 55):36-42.
  7. Baksay B, Dér A, Szekanecz Z, Szántó S, Kovács A. Coexistence of ankylosing spondylitis and rheumatoid arthritis in a female patient. *Clin Rheumatol* 2011; 30:1119–1122.
  8. Pischon N, Pischon T, Gülmez E, et al. Periodontal disease in patients with ankylosing spondylitis. *Ann Rheum Dis* 2010; 69: 34-38.
  9. Rajkumar GC, Hemalatha M, Shashikala R, Kumar DV. Recurrent chronic suppurative osteomyelitis of the mandible. *Indian J Dent Res* 2010; 21:606-608.
  10. Ikpeme IA, Ngim NE, Ikpeme AA. Diagnosis and treatment of pyogenic bone infections. *Afr Health Sci* 2010; 10: 82-88.
  11. Cunha BA. Osteomyelitis in elderly patients. *Clin Infect Dis* 2002; 35: 287-293.
  12. Suei Y, Taguchi A, Tanimoto K. Diagnosis and classification of mandibular osteomyelitis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2005; 100: 207-214.
- 

## **39º CONGRESO NACIONAL DE LA SER**

**Tenerife, Espanha  
21 a 25 Maio 2013**

---

## **EULAR 2013**

**Madrid, Espanha  
12 a 15 Junho 2013**

---

## **V SIMPOSIO DE ESPONDILOARTRITIS DE LA SER**

**Ibiza, Espanha  
4 a 5 Outubro 2013**

---