

DIFUZNI SKLEROZIRAJUĆI OSTEOMIJELITIS GORNJE ČELJUSTI: PREGLED LITERATURE I PRIKAZ SLUČAJA

Vedran Uglešić, Marijo Bagatin

Klinika za kirurgiju lica čeljusti i usta Katedra za maksilofacijalnu kirurgiju
Stomatološkog i Medicinskog fakulteta.

Primljeno: 20. 9. 1988.

Sažetak

Kost na podražaj odgovara razgradnjom, stvaranjem nove kosti ili se razgradnja i stvaranje kosti kombiniraju. Stvaranje kosti, sklerozaciju, definiramo kao povećanje koštane mase bilo uslijed smanjene resorpcije ili stvaranje nove kosti. U radu se opisuju upalne sklerozirajuće lezije čeljusti: sklerozirajući osteitis, sklerozirajući periostitis Garre i difuzni sklerozirajući osteomijelitis. Iznešena je etiopatogeneza, klinička slika, histološki nalaz, dijagnostičke metode, terapije i prognoza svake bolesti. Prikazan je i naš slučaj rijetke lokalizacije difuznog sklerozirajućeg osteomijelitisa u maksili. U zaključku se upozorava da se kod svih dugotrajnih komplikacija nakon ekstrakcije zuba mora misliti i na difuzni sklerozirajući osteomijelitis kada, unatoč terapiji, bolest često recidivira.

Ključne riječi: difuzni sklerozirajući osteomijelitis, maksila

UVOD

Osteomijelitis je upala koja zahvaća spongiozu, kortikalis i periost kosti te koštanu srž (1). Klinički tok upale može biti akutan, subakutan i kroničan, a bolest može biti lokalizirana ili zahvatiti veliki dio kosti. U potrebnom antibiotika osteomijelitis postaje srazmjerno rijetka bolest, ali njegov kronični oblik predstavlja danas terapijski i prognostički problem. Najčešći uzrok osteomijelitisa čeljusti je odontogena upala (1, 2), a može nastati iz upale okolnog mekog tkiva (3, 4) ili je posljedica prijeloma kosti (1, 5), ili ozljede mekog tkiva (6). Preduvjeti za nastanak osteomijelitisa stvaraju i bolesti koje smanjuju obrambenu sposobnost organizma (diabetes, leukemija, agranulocitoza, sifilis, ekstremna malnutricija) (5), ili promjena cirkulacije u kosti nakon Pagetove bolesti (1, 5), osteopetroze (7) i radijacije (8, 2). Na podražaj kost odgovara razgradnjom, stvaranjem nove kosti ili se kombiniraju razgradnja i stvaranje nove kos-

ti (9). Robinson (10) naziva »koštanom displazijom« različitost koštanog odgovora na podražaj.

SKLEROZIRAJUĆE UPALNE PROMJENE ČELJUSTI

Stvaranje kosti, sklerozaciju, Bell (11) 1959 godine je definirao kao povećanje koštane mase, bilo smanjene resorpcije ili stvaranje nove kosti. Prvi put ga je pod nazivom osificirajući osteomijelitis opisao Thoma koji je s Kalil-om (12) 1943 godine iznio tri slučaja. U literaturi sklerozirajući osteomijelitis možemo naći i pod imenom: Primarni kronični osteomijelitis (13), nepurativni osteomijelitis (14) i osteomijelitis sicca (15).

Razlikujemo tri tipa kroničnog sklerozirajućeg osteomijelitisa: fokalni, sklerozirajući osteitis, sklerozirajući periostitis (Garre) i difuzni sklerozirajući osteomijelitis.

Sklerozirajući osteitis (SO) nastaje kao lokalni odgovor kosti na podržaj. Bolest je relativno česta i Boyne (16) ga nalazi u čak 4% svih pregledanih bolesnika. Etiologija nije do kraja razjašnjena; kako se proces nalazi samo u dijelu čeljusti koji nosi zube može biti posljedica širenja upale mikroorganizmima male virulencije iz periapsne regije na okolinu (17); kao mogući uzrok spominju se trauma (9) i sistemske bolesti (12). Kako bolest nalazimo kod mladih, Schafer (9) pretpostavlja da obrambeni mehanizmi tkiva ne dozvoljavaju širenje procesa u okolinu, a niska virulencija mikroorganizama umjesto osteolize potiče osteoblaste na stvaranje nove kosti. Češći je nalaz SO u crnaca, a pretpostavlja se da bikoštani odgovor bio sličan onome kod keloida koji je čest u ovoj rasi (11, 17, 16). Lezije mogu biti pojedinačne ili se javljaju multiplo u gornjoj i donjoj čeljusti (17). Bolest može proticati asimptomatski pa je nalazimo kao slučajan rtg nalaz (16) ili se bolesnik javlja zbog bolova koji imaju karakter neuralgije (9, 17). Pregledom se nađe »napuhanost« alveolnog grebena bilo bukalno ili lingvalno, najčešće u području pretkutnjaka i prvih kutnjaka. Orokutane ili intraoralne fistule s gnojnom sekrecijom su rijetke i nalazimo ih samo u uznapredovaloj bolesti. Radiološki razlikujemo tri stadija bolesti (17). u ranoj leziji je oštro ograničena sklerozacija kosti najčešće vezana uz korjenove zubi. Kod intermedijalne lezije alveolarni nastavak je proširen, a kost je bez osteolitičkih promjena. U uznapredovaloj bolesti naznačena je daljnja ekspanzija kosti, a javlja se i osteoliza. Prvi stadij bolesti je bezbolan dok se u drugom javljaju bolovi, a u trećem gnojna sekrecija. Histološki se radi o sklerozirajućem osteomijelitisu. Terapije u ranom stadiju nije potrebna, a kasnije se sastoji u kirurškom odstranjenju bolesnog dijela kosti.

Sklerozirajući periostitis (SP) prvi je na dugim kostima opisao Garre (18) 1893 godine, a na mandibuli Berger (19) 1948 godine. Svojestveno SP-u je periostalno celularno bujanje sa stvaranjem nove kosti iznad intaktnog korikalisa. Burna reakcija kosti na podražaj kod SP objašnjava se pojavom isključivo u mladih ljudi. Histološki nalaz je sličan

onom u fibrozne displazije s malo znakova upalne infiltracije. Bolest uvrštavamo u skupinu neoperiostoza (20). Katkada ga je teško razlikovati od sličnih bolesti, a periostalno celularno bujanje uz čuvan korikalis, karakterističan nalaz Garreovog periostitisa, može biti znak razvojnih bolesti (Morb. Caffey, dječje kolike s hiperostozama), bolesti metabolizma (fluoroza i avitaminoza C), reaktivnih bolesti (bubrežne i plućne bolesti, disproteinemija, polyarteritis nodosa, subperiostalni hematomi), metastatskih tumora (bronh i jetra) te tumora kosti (Ewing i osteosarkom). Odontogena upala je najčešći uzrok periostitisa (20, 1), mada je kao uzročnik prikazana trauma (19), tercijarni sifilis (11) i lokalne upale (21). Pregled literature i diferencijalnu dijagnostiku neoperiostaza prikazali su u svom radu Eversole i sur. (20) 1979 godine. Klinički nalazimo oštro ograničeni otok ili asimeriji lica. Otok je najčešće asimptomatski, mada su opisani bolovi pri palpaciji (22). Radiološki nalazimo samo zadebljanje li zadebljanje kortikalisa sa sklerozacijom i prosvjetljenjima kosti. U oba slučaja linija kortikalisa ostaje očuvana (20). Bolest je reaktivna pa je u terapiji najvažnije ukloniti uzrok bolesti nakon čega dolazi do smanjenja ili nestanka koštane hipertrofije. Modelacije kosti je rijetko potrebna.

Difuzni sklerozirajući osteomijelitis (DSO) je rijetka bolest čija etiologija i patogeneza nije razjašnjena, a dijagnosticanje i liječenje nam još uvijek zadaje problema. Nalazimo ga isključivo u ljudi srednje i starije dobi. Thoma i Kalil (12) su prvi opisali DSO kod bolesnika s tercijarnim sifilisom, a kao uzrok kosti naveo je slabe toksine koji stimuliraju koštanu srž. Eversole (20) i Labland (17) također su našli sklerozciju kosti kod bolesnika s tercijarnim sifilisom. Schafer (9) vidi uzrok DSO u nespecifičnoj, kroničnoj, neprogredijentnoj infekciji koja djeluje stimulirajuće na osteoblaste. Za razliku od sklerozirajućeg osteitisa, gdje isti faktori dovode do lokaliziranih promjena, iscrpljene obrambenesnage organizma ne mogu kontrolirati upalu i ona zahvaća veći dio kosti. Bell (11) se protivi Schaferovoj teoriji tvrdeći da ona ne objašnjava istovremenu pojavu bolesti na više mjesta u gornjoj i donjoj čeljusti. Razlog sklerozacije on nalazi u endokrinom ili metaboličkom stimuliranju fibrocita endoosta na produkciju nove kosti. DSO je vezan uz zube jer oni utiču na koštanu strukturu alveolnog grebena, pa ga isključivo i nalazimo na tom dijelu čeljusti (11). Opisan je DSO kao posljedica anaerobne upale (23) i gljivica (24). Jacobsson i sur. (25) smatraju da infekcija samo injicira bolest, a da su promjene u kosti uzrokovane poremetnjom cirkulacije. Ovome u prilog govore nađena histološka slika nekroze i upalne infiltracije stijenki krvnih žila. Slične promjene primjetio je Crockett (7) kod bolesnika s osteomijelitisom i Albers-Schonebergovom bolesti. Bolest ima kroničan tok, može prolaziti asimptomatski ili je karakteriziraju epizode napada boli i otoka. Kod je zahvaćene mandibule može se javiti trizmus (25). Schafer (9) nnavodi da su fistule s oskudnom sekrecijom čest nalaz, dok ih Jacobsson (25) nalazi samo izuzetno. Stvaranje nove kosti u ekstremnim slučajevima dovodi do asimetrije lica (5). Radiološki nalaz pokazuje sliku »vate: (»cotton wool«) (9) karakterističnu

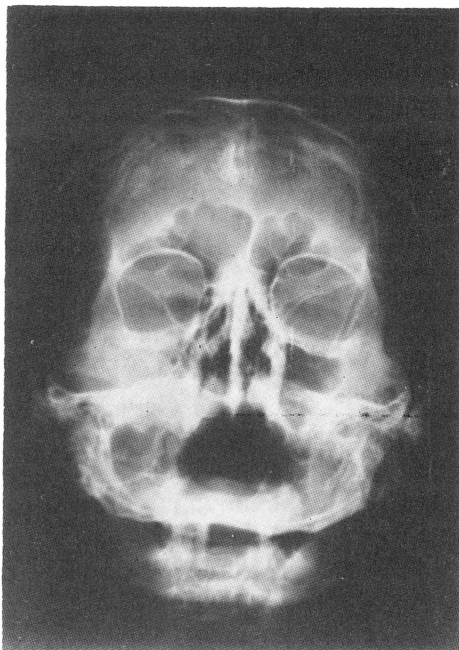
za neoštro ograničenu sklerozaciju koja zauzima često vrlo veliki dio kosti. Jacobson i sur. (25) uspoređivali su rtg nalaze i scintigrafiju s Tc 99. Zaključili su da scintigrafija ne može zamjeniti rtg pregled, ali da se njom može bolje odrediti opseg bolesti. Kompjutorizirana tomografija nije u literaturi spominjana kao dijagnostička metoda, ali je sigurno da ona ima svoje mjesto u točnom određivanju lokalizacije i opsega bolesti.

Patohistološka slika pokazuje osteosklerozu i nepravilnu proliferaciju zdrave kosti. Intersticijsko vezivno tkivo je jače razvijeno s malim brojem limfocita i plazma stanica (9). Bolest ima kroničan tok usprkos terapiji (25). Pokušalo se primjenom antibiotika od sedam dana do osamnaest mjeseci, salicilatima, antiflogisticima, Tegretolom, kortikosteroidima, radioterapijom (25), incizijom primjenom topline lokalno (11), hiperbaričnim kisikom, dekortikacijom kosti (9, 11, 25) te i resekcijom zahvaćenog dijela kosti (26). Jacobson i sur. (25) usporedili su pojedine metode terapije i njihovu uspješnost. Njihovo mišljenje je da je u početku bolest izazvana bakterijskom infekcijom te da je od odlučujuće važnosti rano postavljanje ispravne dijagnoze. Terapiju započinju antibiotikom po antibiogramu, a ako je antibiogram negativan ordiniraju penicilin kroz tri mjeseca. Za suzbijanje bolova i u kroničnih bolesnika kod kojih antibiotici ne koriste, upotrebljavaju kortikosteroide. Kod klinički uznapredovalih slučajeva s deformacijom lica vrši se dekortikacija i modelacija kosti. Salicati, antiflogistici i Tegretol nisu dovoljno efikasni u smirivanju bola te se preporučuje kortikosteroidi. Radioterapiju, kod jakih bolova, preporučuje Panders (15), ali je zbog kasnijih komplikacija treba primjeniti samo izuzetno. Hiperbarični kisik ne može biti osnovna terapija već se on koristi u kombinaciji s antibioticima i kirurgijom. Upotreba topline i fizikalna terapija te ekstrakcija zuba su kontraindicirani (25). Resekcija kosti se zbog benignog toka bolesti primjenjuje samo izuzetno i to kod bolesnika s izrazitom koštanom deformacijom i bolovima koji na drugu terapiju ne reaguju (26).

PRIKAZ BOLESNIKA

Bolesnik je muškarac, 53 godine, upućen u kliniku zbog koštane promjene u alveolarnom nastavku maksile desno. Porodična i osobna anamneza bile su bez osobitosti. Od bolesnika smo saznali da je prije osam mjeseci imao tešku ekstrakciju korjenova gornjeg desnog kutnjaka, nakon koje rana nije cijelila te je četiri mjeseca nakon ekstrakcije učinjena kontrolna rtg slika koja je pokazala da u području gornjih molara desno postoji još jedan retinirani korijen. Kod alveotomije je dio kosti alevolnog grebena poslan na patohistološku analizu koja je pokazala da seradi o kroničnom osteomijelitisu. U to vrijeme bolesnik se žali na povremene bolove u predjelu tubera maksile koji na terapiju analgetika prestaju.

Pri pregledu bolesnik je pokretan, afebrilan i dobre osteomuskularne građe. Opći status i svi učinjeni laboratorijski nalazi bili su uredni. Intra-



Slika 1. Zadebljana facijalna stijenka desnog maksilarnog sinusa.



Slika 2. Neoštro ograničena sklerozacija kosti desnog tubera maksile.

oralno desno je bukalno i palatinalno proširen alveolarni greben maksile. U području tubera nalazi se otvor fistule s kanalom koji slijepo završava i koja je bez sekcije. Rtg nalaz pokazivao je neoštro ograničenu sklerozaciju facijalne stijenke (sl 1), alveolnog nastavka i tubera maksile lijevo (Sl. 2). Liječenje je uključilo eksciziju fistule i modelaciju grebena

maksile. Uz fistulu nije bilo gnojnog sadržaja, a odstranjena kost je izrazito tvrda i bez krvarenja. Nađena facijalna stijenka maksile bila je debela jedan centimetar, a sluznica sinusa je bila nepromijenjena. Sinus se tamponira i drenira na nos. Postoperativni tok je protekao uredno. Četvrti dan je izvađen tampon iz sinusa, a šavi su odstranjeni desetog dana nakon operacije. Patohistološki nalaz pokazuje nepravilnu proliferaciju histološki urednih osteocita. Intersticijsko tkivo je pokazivalo više vezi-va nego kod zdrave kosti, a ono je bilo prožeto malim brojem limfocita i plazma stanica što govori za DSO. Bolesnik je bez recidiva dvije godine te ga možemo smatrati izliječenim.

DISKUSIJA I ZAKLJUČAK

Difuzni sklerozirajući osteomijelitis je rijetka bolest. U nama dostupnoj literaturi DSO zahvaća samo u mandibulu. Istina, opisani su bolesnici s osteomijelitisom maksile uzrokovanim ekstrakcijom zuba (27, 28), osteoradionekrozom (8) i anaerobnim mikroorganizmima (23), ali se kod svih radilo o purulentnom osteomijelitisu sa sekvestracijom kosti. Nekoliko autora (1, 25, 9) spominje mogućnost nastanka DSO i u maksili, što naš bolesnik i potvrđuje. Bell (11) također opisuje jedan slučaj kod kojeg se vjerojatno zbog multicentrične lokalizacije u gornjoj i donjoj čeljusti može zaključiti da se radi o sklerozirajućem osteitisu, a ne o DSO.

Zašto se difuzni sklerozirajući osteomijelitis rijetko nalazi u gornjoj čeljusti? DSO primarno nastaje endostalno, a maksila ima slabo razvijenu spongiozu. Spongiozu nalazimo u području tubera i sjekutića te su to jedine moguće lokalizacije bolesti (1, 2). Drugi razlog je bogata prokrvljenost maksile, za razliku od mandibule koja se opskrbljuje samo preko periosta i donje alveolane arterije je mogućnost prekida cirkulacija mnogo veća. Uzrok osteomijelitisa kod našeg bolesnika je koštana trauma. Traumu kao uzrok DSO spominje više autora (9, 20, 1). Ona djeluje kao inicalni faktor koji stvara preduvjete za razvitak bolesti, a bolest se razvija kao posljedica upale i naknadnog oštećenja cirkulacije. Slažemo se s Jacobssonom i suradnicima (25) da mikroorganizmi imaju ulogu u ranoj, a oštećenje krvnih žila i prekid cirkulacije u kasnoj fazi bolesti. Potvrdu za ovo našli smo i u operaciji gdje kod skidanja vanjskog sloja kosti nije bilo krvarenja. Ovim možemo objasniti pojavu bolesti u petom i šestom desetljeću života kada su degenerativne promjene na krvnim žilama već napredovale. Uvažavajući Lablandovu (17) podjelu sklerozirajućih lezija čeljusti na rane, intermedijarne i uznapredovale, bolesnika možemo svrstati u drugu skupinu. Učinjena dekortizacija zahvaćenog dijela alveolnog grebena bila je i jedina terapija. Uspjeh dekortizacije objašnjavamo time što se odstranjenjem bolesne, slabo prokrvljene kosti omogućuje ishrana preko periosta čime prekidamo krug avaskularne koštane nekroze i infekcije.

Koštana trauma kao uzrok DSO upozorava da se kod svih dugotrajnih komplikacija nakon ekstrakcije zubi i drugih povreda kosti mora misliti na DSO, naročito u petom i šestom desetljeću kada se bolest najčešće javlja (9, 11, 25). Rtg nalaz pokazuje neoštro ograničenu sklerozaciju kosti. U doređivanju opsega bolesti od velike je pomoći scintigrafija i kompjuterizirana tomografija. Diferencijalnodijagnostički važno je bolest razlikovati od koštanih displazija i osteogenog sarkoma. Histološka slika pokazuje proliferaciju koštanog tkiva s izraženim bujanjem veziva u intersticiju u kojem nalazimo oskudnu infiltraciju limfocita i plazma stanica. Bolest se u ranoj fazi liječi konzervativno antibioticima, a kada postoji deformacija kosti kirurški, dekortizacijom i modelacijom. Resekcija kosti koristi se izuzetno kod bolesnika s recidivom (26). DSO unatoč terapiji često recidivira (25, 1).

Etiologija, klinička slika, rtg nalaz i tok bolesti pokazuju da se DSO može javiti i u gornjoj čeljusti.

DIFFUSE SCLEROSING OSTEOMYELITIS A REVIEW AND CASE

Summary

The bone responds to stimulation with new bone formation, resorption or the combination of both. Exclusive bone formation i. e. sclerosation is defined as an increase in the bony mass which is a result of either decreased resorption or excessive bone production. The authors describe the following inflammatory sclerosing jaw lesions: sclerosing osteitis, sclerosing periostitis of Garre and diffuse sclerosing osteomyelitis. The etiopathogenesis, clinical features, histologic findings, diagnostic procedures, therapy and prognosis are presented for each pathologic entity. Further a case of rare localisation of diffuse sclerosing osteomyelitis in maxilla is reported. In conclusion, the authors point out that all persistent complication following tooth extraction must arise suspicion of among other problems, of diffuse sclerosing osteomyelitis, bearing in mind. Despite therapy the disease frequently recurs.

Key words: diffuse sclerosing osteomyelitis, maxilla

Literatura

1. MEYER I, LASKIN D M. Chronic infection of the jaws. U Laskin: Oral and maxillofacial surgery. St. Louis: Mosby Co, 1985.
2. MIŠE I. Oralna kirurgija. Zagreb: Med Naklada, 1983.
3. SCHUSTER A R, GRAHAM G. Osteomyelitis of the ramus of the mandible secondary to a peritonsillar abscess. Arch Otolaryngol 1954; 60:194—197.
4. HOERING H. Kinnfurunkel und Uterkieferosteomyelitis. Dtsch Z Chir 1931; 232. Cit prema Laskin D M: Oral and maxillofacial surgery. St. Louis: C V Mosby Co, 1985.
5. KILLEY H C, KAY L W. Inflammatory diseases of the jawbones. U Thoma K H.: Oral Pathology. St. Louis, Mosby Co, 1970.
6. IVY R H, COOK J T. Osteomyelitis arising from the periodontium. Am J Orthod (Oral surg sec) 1942; 43:86. Cit prema Laskin M D: Oral and Maxillofacial surgery. St. Louis: Mosby Co, 1985.

7. CROCKET D M, STANLY R B, LUBKA R. Osteomyelitis of the maxilla in a patient with osteopetrosis (Albers-Schoneberg disease). *Otolaryngol Head Neck Surg* 1986; 95:117—200.
8. MARCIANI R D, BROWDEN C M. Osteoradionecrosis of the maxilla: report of case. *J Oral Surg* 1973; 11: 56—59.
9. SHAFER W G. Chronic sclerosing osteomyelitis. *J Oral Surg* 1957; 15:138—145.
10. ROBINSON H B G. Osseus displasia: reaction of bone to injury. *J Oral Surg* 1956; 14:3—12.
11. BELL W H. Sclerosing osteomyelitis of the mandible and maxilla. *Oral Surg Oral Med Pathol* 1959; 12:391—397.
12. THOMA S H, KALIL F H. Osteomyelitis of the jaws. *Am J Ortodon Oral Surg* 1943; 29:533—537. Cit prema Bell 1959.
13. HJORTING-HANSEN E. Decortication in treatment of osteomyelitis of the mandible. *Oral surg* 1970; 29:641—647.
14. TURLINGTON E G. Chronic nonsuppurative osteomyelitis. *Kay: Oral surg.* 1970. Cit prema Meyer i Laskin, 1985.
15. PANDERS A K, HADDERS H N. Chronic Sclerosing inflammation of the jaws. *Oral Surg* 1970; 30:396—402.
16. BOYNE P. J. Incidence of osteosclerotic areas in the mandible and maxilla. *J Oral Surg* 1960; 18: 487—491.
17. LABLAND P F, LEACOCK A G. Sclerosing osteitis of the jaws. *J Oral Surg* 1967; 25:23—29.
18. GARRE C. Ueber besondere Formen und Folgezustände der akuten infektiösen Osteomyelitis *Beir Klin Chir* 1983; 10:241. Cit prema Eversole i sur 1979.
19. BERGER A. Perimandibular ossification of possible traumatic origin: report of case. *J Oral Surg* 1948; 6:353—357.
20. EVERSOLE L R, LEIDER A S, CORWIN J O, KARIAN B K. Proliferative periostitis of Garre: its differentiation from other neoperiostoses. *J Oral Surg* 1979; 37:725—730.
21. ROWE N L, HESLOP I H. Periostitis and osteomyelitis of the mandible in childhood. *Brit Dent J* 1957; 103:676. Cit prema Eversole i sur 1979.
22. SMITH S N, FARMAN A G. Osteomyelitis with proliferative periostitis (Garre's osteomyelitis). *Oral Surg* 1977;43: 183—188.
23. HIMALSTEIN M R. Osteomyelitis of the maxilla due to an anaerobic organism. *Laryngoscop* 1967; 77:559—563.
24. WALKER S, MIDDELKAMP J N, SCLAROFF A. Mandibular osteomyelitis caused by actinomycetes Israelii. *Oral Surg* 1981; 26:243—249.
25. JACOBSON S, HOLLENDER L, LINBERG S, LARSON A. Chronic sclerosing osteomyelitis of the mandible. *Oral Surg* 1978; 45:167—172.
26. FARNAM J, GRIFIN J E, SCHOW C E, MADER J T, GRANT J A. Recurrent diffuse osteomyelitis involving the mandible. *Oral Surg* 1986; 57:374—380.
27. LUMBA S P, NIROLA A, GREWAL B S. Healed osteomyelitis of maxilla with tooth in the floor of the nose. *J Laryngol Otol* 1971; 85:877—881.
28. REGE S R, SHAH K L, MARFATIA P T. Osteomyelitis of maxilla with extrusion of the teeth in the floor of the nose requiring extraction. *J Laryngol Otol* 1970; 77:533—535.