

Osteomielitis Crónica con Periostitis Proliferativa

Chronic Osteomyelitis with Proliferative Periostitis

Nicolau Conte Neto*; Marcelo Gonçalves**; Valfrido Antônio Pereira Filho***;
Waldner Ricardo Souza de Carvalho**** & Lucas Martins de Castro-Silva****

NETO, N. C.; GONÇALVES, M.; FILHO, V. A. P.; DE CARVALHO, W. R. S. & CASTRO-SILVA, L. M. Osteomielitis crónica con periostitis proliferativa. *Int. J. Odontostomat.*, 7(1):5-10, 2013.

RESUMEN: La osteomielitis crónica con periostitis proliferativa es un tipo de alteración caracterizada por una reacción periosteal exacerbada causada por un estímulo de baja intensidad, generalmente una lesión cariosa con patología periapical asociada. Actúa principalmente en niños y adolescentes con predilección por la región basilar de mandíbula. Clínicamente, se manifiesta a través de un aumento de volumen doloroso intra o extraoral, de consistencia endurecida. Radiográficamente presenta laminas óseas neoformadas, paralelas entre sí con superficie cortical, observándose el aspecto típico de "cascara de cebolla". El tratamiento incluye el retiro del factor etiológico con o sin antibioterapia y posterior restablecimiento de la simetría facial del paciente. Este trabajo presenta un caso de osteomielitis crónica con periostitis proliferativa en una paciente de sexo femenino de 11 años de edad, causada por una lesión cariosa en el primer molar inferior izquierdo, quien fue sometida a exodoncia del diente comprometido con posterior restablecimiento de la simetría facial.

PALABRAS CLAVE: Osteomielitis; Periostitis proliferativa; Caries.

INTRODUCTION

La osteomielitis crónica con periostitis proliferativa es un tipo específico de alteración ósea que se caracteriza por una reacción periosteal exacerbada, presentando un aspecto característico descrito como "cascara de cebolla" (Wood *et al.*, 1988; Rowe & Heslop, 1957; Kannan *et al.*, 2006). Fue definido por Garré el año 1893 y puede ser encontrada en la literatura con otras denominaciones, incluyendo periostitis osificante (Martin-Granizo *et al.*, 1999), periostitis osificante no supurativa (Rowe & Heslop; Kannan *et al.*), osteomielitis esclerosante no supurativa (Perriman & Uthman, 1972; Kannan *et al.*), inflamación esclerosante crónica de los maxilares (Wood *et al.*; Mattison *et al.*, 1981; Kannan *et al.*) y osteomielitis de Garré.

La periostitis proliferativa afecta normalmente niños y jóvenes con menos de 25 años de edad (Monteleone *et al.*, 1962; Gonçalves *et al.*, 2002; Kannan *et al.*), periodo en el cual el número de osteoblastos es abundante en el periostio (Monteleone *et al.*; Gonçalves

et al.; Tong *et al.*, 2006). La edad media de los pacientes sujetos a la enfermedad es cercana a los 13 años (Nortjé *et al.*, 1988; Tong *et al.*), siendo poco frecuente su presencia en pacientes ancianos (Nortjé *et al.*; Kannan *et al.*); presenta una discreta predilección por el sexo masculino y por la raza blanca (Nortjé *et al.*; Lichty *et al.*, 1980; Eversole *et al.*, 1979; Eisenbud *et al.*, 1981). Su alta incidencia en jóvenes se justifica por la capacidad proliferativa de los osteoblastos y también por el mayor índice de caries en estos individuos, toda vez que este es el principal agente etiológico (Wood *et al.*; Nortjé *et al.*; Lichty *et al.*; Eversole *et al.*; Benca *et al.*, 1987; Eisenbud *et al.*; Felsberg *et al.*, 1990; Gonçalves *et al.*; Ferreira & Barbosa, 1992; Tong *et al.*). Sin embargo, la literatura cita otros posibles factores etiológicos como la periodontitis blanda (Benca *et al.*; Gonçalves *et al.*; Ferreira & Barbosa; Tong *et al.*), quistes odontogénicos (Nortjé *et al.*; Ellis *et al.*; Benca *et al.*, 1987; Felsberg *et al.*, 1990; Kawai *et al.*, 1996; Tong *et al.*), fracturas e infecciones no odontogénicas (Nortjé *et al.*; Benca *et al.*; Kawai *et al.*; Tong *et al.*).

* Department of Periodontology and Implantology, Araraquara Dental School – São Paulo State University UNESP, Araraquara, Brazil.

** Department of Radiology, Araraquara Dental School – São Paulo State University UNESP, Araraquara, Brazil.

*** Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Araraquara Dental School – São Paulo State University UNESP, Araraquara, Brazil.

**** Department of Oral and Maxillofacial surgery, Piracicaba Dental School – University of Campinas UNICAMP, Piracicaba, Brazil.

En la región de cabeza y cuello la patología se presenta con mas frecuencia en la mandíbula (Nortjé *et al.*; Eversole *et al.*, Benca *et al.*; Eisenbud *et al.*; Felsberg *et al.*; Kannan *et al.*), en sus regiones vestibular, lingual o en el sector inferior de cuerpo de mandíbula, presentándose de forma aislada o asociada entre ellas (Nortjé *et al.*), siendo el lugar preferente en el reborde basilar (Nortjé *et al.*; Tong *et al.*). La mayoría de los casos es unifocal y unilateral, aunque se ha reportado un caso que envuelve los maxilares y mandíbula de forma bilateral (Eisenbud *et al.*), lo cual es poco frecuente (Kawai *et al.*). El diente mas comúnmente comprometido es el primer molar inferior izquierdo (Nortjé *et al.*; Felsberg *et al.*; Gonçalves *et al.*; Kannan *et al.*; Tong *et al.*), lo que puede ser explicado por los diferentes factores culturales de los pacientes reportados, dificultades en la higiene bucal o hábitos del paciente (Nortjé *et al.*).

La fisiopatología de la periostitis proliferativa envuelve la diseminación de la infección a través de la perforación de la cortical ósea, la que se atenúa y estimula la formación ósea por parte del periostio. Generalmente alterna periodos de exacerbación y remisión de la infección, lo que causa perforaciones repetidas del nuevo tejido óseo mas externo con rechazo del periostio resultando finalmente en capas repetidas de estructura ósea (Nortjé *et al.*; Kannan *et al.*).

Características clínicas y diagnósticas. Clínicamente se manifiesta como un aumento del volumen regional sin movimiento, de consistencia ósea (Lichty *et al.*; Ellis *et al.*, 1977; Felsberg *et al.*; Gonçalves *et al.*; Kannan *et al.*) y asintomático, aunque el dolor puede ser un síntoma frecuente. Este aumento volumétrico es cubierto por mucosa y piel (Batcheldor *et al.*, 1973; Felsberg *et al.*; Kannan *et al.*). A nivel intrasurcular se ubica en el fondo del surco vestibular, adyacente al diente involucrado. Ocasionalmente puede haber trismus (Tong *et al.*; Cheng *et al.*, 1984) y ganglios infartados aunque esta señal no se observara en el reporte de Martin-Granizo *et al.*

Los exámenes de imagen incluyen radiografías panorámicas, oclusales (Lahreim *et al.*, 1993), lateral oblicua y posteroanterior de mandíbula, además de cintigrafía (Jacobsson *et al.*, 1978) y tomografías computadorizadas (Felsberg *et al.*). En los estudios radiográficos se observa laminas radiopacas paralelas entre si y con la superficie cortical subyacente, originando una apariencia de cascara de cebolla (Pell *et al.*, 1955; Tong *et al.*).

Además, puede estar presente una línea radiolúcida que separa el hueso neoformado de la cortical original (Johannsen, 1977). Dentro del nuevo hueso, pequeñas áreas de secuestro o fenómenos de radiolúcidas osteolíticas pueden ser encontradas (Kannan *et al.*), además de un trayecto fistuloso en la área central de la proliferación (Gonçalves *et al.*).

La superficie externa o lateral del área afectada es generalmente regular y bien definida (Pell *et al.*; Gonçalves *et al.*), aunque también puede llegar a ser mal definida (Nortjé *et al.*). Ocasionalmente, en los casos que involucran la cortical ósea lateral o vestibular puede ser evidenciado en un aumento de la densidad de la mandíbula.

El diagnóstico es basado en los aspectos clínicos y radiográficos; generalmente no existe indicación de biopsia, aunque, especialmente cuando no fueron identificados focos odontogénicos, se indica una biopsia para excluir lesiones de aspecto similar, como una hiperqueratosis cortical infantil (enfermedad de Caffey's), osteomielitis sifilítica, callo óseo de fractura, sarcoma de Ewing's, sarcoma osteosarcoma o displasia fibrosa (Felsberg *et al.*; Tong *et al.*).

Histológicamente se observa una neoformación ósea reactiva con orientación perpendicular del trabeculado nuevo en un estroma fibroso moderadamente celular (Lichty *et al.*), además de la actividad osteoblastica periférica, osteoblastos, osteolastos centrales y un infiltrado inflamatorio crónico disperso o focal (Eversole *et al.*).

El tratamiento incluye el retiro de la fuente de infección (Nortjé *et al.*; Cheng *et al.*), que puede ser realizado por medio de la exodoncia o tratamiento endodóntico (Kawai *et al.*). Antibióticos han sido frecuentemente empleados (Ellis *et al.*; Mattison *et al.*), aunque su utilidad en el tratamiento de esta alteración no ha sido comprobada. En muchos casos presentados, la resolución del aumento de volumen se resuelve sin el uso de antibióticos (Batcheldor *et al.*; Benca *et al.*). Una vez que la causa es eliminada el tejido óseo sufre un proceso de remodelación gradual, con restablecimiento de simetría facial, usualmente después de un periodo de dos años, aunque puede persistir en algún ensanchamiento óseo residual (Tong *et al.*). Si la proliferación ósea es extensa, la remodelación quirúrgica puede ser indicada, presentando la ventaja de entregar una muestra para el análisis histopatológico (Belli *et al.*, 2002).

CASO CLÍNICO

Paciente sexo femenino de 11 años de edad acudió al Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial de un centro público del estado de Sao Paulo motivada por un aumento de volumen en la región de cuerpo de mandíbula izquierdo, con evolución de 30 días y que había comenzado después de un episodio doloroso asociado al primer molar inferior izquierdo.



Fig. 1. El examen clínico extraoral que muestra asimetría facial resultante de un aumento de volumen en el cuerpo de mandíbula izquierdo.



Fig. 2. El examen clínico intraoral que muestra extensa lesión cariosa en primer molar inferior izquierdo.

Al examen extraoral se observó una asimetría facial resultante de un aumento de volumen en el cuerpo de mandíbula izquierdo, con límites bien definidos, indurado y doloroso a la palpación, con normalidad en el tejido cutáneo y sin linfadenopatías palpables (Fig. 1).

El examen intraoral presentó mucosas sin alteraciones de volumen o color, extensas lesiones cariosas en primeros molares inferiores derecho e izquierdo, ambos sin vitalidad al test pulpar eléctrico y térmico, además de una disminución del vestíbulo del molar en relación al primer molar inferior izquierdo (Fig. 2).

En la radiografía panorámica se observó radiopacidad en la región del primer molar inferior izquierdo, extendiéndose desde la región del segundo premolar al segundo molar, además de una imagen radiolúcida sugiriendo compromiso de la furca del diente en cuestión y un área radiolúcida en la región apical sugiriendo la presencia de un granuloma periapical (Figura 3). La radiografía oclusal presentó una expansión de la cortical vestibular mandibular, con aspecto de cascada de cebolla además de una imagen radiolúcida lineal en el tejido óseo expandido, sugiriendo una lesión osteolítica en forma de fístula (Fig. 4).



Fig. 3. En la radiografía panorámica se observó radiopacidad en la región del primer molar inferior izquierdo, además de una imagen radiolúcida en la región apical sugiriendo la presencia de un granuloma periapical.



Fig. 4. Radiografía oclusal mostrando una expansión de la cortical vestibular mandibular, con aspecto de cascada de cebolla además de una imagen radiolúcida lineal en el tejido óseo expandido.

El tratamiento de la enfermedad consistió en la exodoncia del primer molar inferior comprometido (bajo técnicas rutinarias de aplicación de anestesia local), tratamiento con antibióticos (amoxicilina 500 mg v.o. cada 8 h por 7 d, antiinflamatorio (diclofenaco potásico 50 mg v.o. cada 8 h por 3 d), analgésico (dipirona sódica 500 mg v.o. cada 6 h por 4 d) y enjuagatorios bucales con antiséptico a base de clorhexidina cada 8 h por 15 días. Posteriormente se indicó tratamiento endodóntico en el primer molar inferior derecho.

La paciente retornó a los postoperatorios sin síntomas de dolor. Después de 30 días de seguimiento se observó restauración de la simetría facial y total ausencia de complicaciones. Actualmente la paciente se presenta sin recidiva del cuadro clínico y sin complicaciones asociadas a la patología tratada (Figs. 5 y 6).



Fig. 5. Radiografía oclusal que muestra aspecto en el maxilar inferior del rango normal.



Fig. 6. El examen clínico extraoral mostrando la recuperación de la asimetría facial.

DISCUSIÓN

La osteomielitis crónica con periostitis proliferativa es un tipo específico de alteración causada usualmente por una infección de baja virulencia, como lo es la caries (Wood *et al.*; Rowe & Heslop; Kannan *et al.*), que afecta principalmente a los niños y jóvenes con menos de 25 años de edad tiene predilección por el género masculino y por la raza blanca (Nortjé *et al.*; Lichty *et al.*; Eversole *et al.*; Eisenbud *et al.*). En este caso clínico se observó la misma tendencia en relación a la edad y el factor etiológico, no obstante difiere en lo que dice respecto al género y la raza de mayor incidencia, una vez que la paciente en cuestión es de género femenino y raza negra.

En la región de cabeza y cuello actúa con más frecuencia en la mandíbula, siendo más común en la región del borde inferior. La mayoría de los casos es unifocal y unilateral y el diente más comúnmente afectado es el primer molar permanente inferior izquierdo (Benca *et al.*; Gonçalves *et al.*; Ferreira & Barbosa; Tong *et al.*), quistes odontogénicos (Nortjé *et al.*; Ellis *et al.*; Benca *et al.*; Felsberg *et al.*; Kawai *et al.*; Tong *et al.*). El caso aquí relatado ratifica los aspectos citados por la literatura, a excepción de la región involucrada, toda vez que en este caso la lesión se desarrolló en el sector vestibular de la mandíbula.

Los aspectos clínicos de la osteomielitis crónica con periostitis proliferativa incluyen característicamente un edema endurecido y asintomático unilateral en los maxilares, aunque el dolor puede ser un síntoma frecuente (Nortjé *et al.*; Lichty *et al.*; Eversole *et al.*; Eisenbud *et al.*). Este edema es recubierto, generalmente, con una mucosa y piel normal, pudiendo presentar ganglios palpables o bien no presentar ninguna evidencia de este tipo (Nortjé *et al.*; Eversole *et al.*; Benca *et al.*; Eisenbud *et al.*; Felsberg *et al.*; Kannan *et al.*). Este caso corrobora estos aspectos clínicos, incluyendo sintomatología dolorosa, aunque no presentó ganglios infartados.

Los exámenes de imagen incluyen radiografía panorámica y oclusal, observándose laminas radiopacas paralelas entre sí con superficie cortical subyacente, originando una apariencia de "cascara de cebolla". Otros aspectos comúnmente observados incluyen aumento en la densidad sobre la cortical vestibular mandibular, presencia de una línea radiolúcida que separa el hueso neoformado y la cortical original, además de la radiolucidez osteolítica (Pell *et al.*; Tong *et al.*). En este caso se observaron los mismos aspectos radiográficos descritos en la literatura.

El diagnóstico es basado en los aspectos clínicos y radiográficos, sin necesidad de realizar un análisis histológico de la lesión, a menos de que no sean identificados focos odontogénicos, siendo necesario realizar el

diagnostico diferencial (Tong *et al.*); la asociación de un molar cariado, en este caso permitió descartar la necesidad de estudio histopatológico.

El tratamiento se direcciona a retirar la fuente infecciosa (Felsberg *et al.*; Cheng *et al.*), lo cual puede ser realizado por medio de la exodoncia o de la terapia endodóntica (Gonçalves *et al.*), aunque no siempre se considera el uso de antibioterapia asocia-

da (Wood *et al.*; Rowe & Heslop; Kannan *et al.*); en general, después del tratamiento inicial ocurre una remodelación ósea gradual hasta el restablecimiento de la simetría facial, aunque también puede persistir algún ensanchamiento óseo residual (Ellis *et al.*). El protocolo descrito en la literatura fue utilizado exitosamente en este caso sin la necesidad de remodelado óseo quirúrgico posterior ya que la simetría facial fue restaurada completamente.

NETO, N. C.; GONÇALVES, M.; FILHO, V. A. P.; DE CARVALHO, W. R. S. & CASTRO-SILVA, L. M. Chronic osteomyelitis with proliferative periostitis. *Int. J. Odontostomat.*, 7(1):5-10, 2013.

ABSTRACT: Chronic osteomyelitis with proliferative periostitis is a kind of osteomyelitis that is characterized by a great periosteal reaction resulting of low grade stimulation, usually a caries lesion associated a periapical pathology. It affects especially children and young adults, with the mandible as the most common site, usually in the inferior aspect. Clinically presents as a painless hard swelling intra and/or extra-oral. Radiographic aspects include bone layers new formed, parallel to each other and to the underlying cortical surface, giving the characteristic appearance of "onion skin". Treatment includes elimination of the cause, with or without antibiotics, being restored the facial symmetry of patient. The present article is a clinical case report of chronic osteomyelitis with proliferative periostitis affecting a female 11 year old patient, caused by a caries lesion in the left permanent first molar, that was submitted to a exodontia and the facial symmetry of the patient was restored with management.

KEY WORDS: osteomyelitis, proliferative periostitis, dental caries.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Batcheldor, G. D. Jr.; Giansanti, J. S.; Hibbard, E. D. & Waldron, C. A. Garré's osteomyelitis of the jaws: a review and report of two cases. *J. Am. Dent. Assoc.*, 87(4):892-7, 1973.
- Belli, E.; Metteini, C. & Andreano, T. Sclerosing osteomyelitis of Garré periostitis ossificans. *J. Craniofac. Surg.*, 13(6):765-8, 2002.
- Benca, P. G.; Mostofi, R. & Kuo, PC. Proliferative periostitis (Garré's osteomyelitis). *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 63(2):258-60, 1987.
- Cheng, K.; Werchola, O.; Sadowsky, D. & Friedman, J. Simultaneous occurrence of Garré's osteomyelitis with cervico-facial actinomycosis. *J. Oral Med.*, 39(1):44-6, 1984.
- Eisenbud, L.; Miller, J. & Robert, I. L. Garré's proliferative periostitis occurring simultaneously in four quadrants of the jaws. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 51(2):172-8, 1981.
- Ellis, D. J.; Winslow, J. R. & Indovina, A. A. Garré's osteomyelitis of the mandible. Report of a case. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 44(2):183-9, 1977.
- Eversole, L. R.; Leider, A. S.; Corwin, J. O. & Karian, B. Proliferative periostitis of Garré: its differentiation from other neoperiostosis. *J. Oral Surg.*, 37(10):725-31, 1979.
- Felsberg, G. J.; Gore, R. L.; Schweitzer, M. E. & Juli, V. Sclerosing osteomyelitis of Garré's (periostitis ossificans). *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 70(1):117-20, 1990.
- Ferreira, B. A. & Barbosa, A. L. B. Garré's osteomyelitis: a case report. *Int. Endod. J.*, 25(3):165-8, 1992.
- Gonçalves, M.; Pinto Oliveira, D.; Oliveira Oya, E. & Gonçalves, A. Garré's osteomyelitis associated with a fistula: a case report. *J. Clin. Pediatr. Dent.*, 26(3):311-4, 2002.
- Jacobsson, S.; Hollender, L.; Lindberg, S. & Larsson, A. Chronic sclerosing osteomyelitis of the mandible: scintigraphic and radiographic findings. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 45(2):167-74, 1978.
- Johannsen, A. Chronic sclerosing osteomyelitis of the mandible: radiographic differential diagnosis from fibrous dysplasia. *Acta Radiol. Diagn. (Stockh)*, 18(3):360-8, 1977.

Kannan, S. K.; Sandhya, G. & Selvarani, R. Periostitis ossificans (Garré's Osteomyelitis) radiographic study of two cases. *Int. J. Paediatric Dent.*, 16(1):59-64, 2006.

Kawai, T.; Murakami, S.; Sakuda, M. & Fuchihata, H. Radiographic investigation of mandibular periostitis ossificans in 55 cases. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol. Oral Endod.*, 82(6):704-12, 1996.

Larheim, T.A.; Aspestrand, F. & Trebo, S. Periostitis ossificans of the mandible. The value of computed tomography. *Dentomaxillofac. Radiol.*, 22(2):93-6, 1993.

Lichty, G.; Langlais, R. P. & Aufdemorte, T. Garré's osteomyelitis: literature review and case report. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 50(4):309-13, 1980.

Martin-Granizo, R.; Garcia-Gonzalez, D.; Sastre, J. & Diaz, F. J. Mandibular sclerosing osteomyelitis of Garré. *Otolaryngol. Head Neck Surg.*, 121(6):828-9, 1999.

Mattison, G. D.; Gould, A. R.; George, D. I. & Neb, J. L. Garré's osteomyelitis of the mandible: the role of endodontic therapy in patient management. *J. Endod.*, 7(12):559-64, 1981.

Monteleone, L.; Hary, D. M. & Hernandez, A. Garré's osteomyelitis. *J. Oral Surg.*, 20:423-31, 1962.

Nortjé, C. J.; Wood, R. E. & Grotepass, F. Periostitis ossificans versus Garré's osteomyelitis: Part II. Radiologic analysis of 93 cases in the jaws. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 66(2):249-60, 1988.

Pell, G. J.; Shafer, W. G.; Gregory, G. T.; Ping, R. S. & Spear, L. B. Garré's osteomyelitis of the mandible: report of a case. *J. Oral Surg. (Chic.)*, 13(3):248-52, 1955.

Perriman, A. & Uthman, A. Periostitis ossificans. *Br. J. Oral Surg.*, 10(2):211-6, 1972.

Rowe, N. L. & Heslop, I. H. Periostitis and osteomyelitis of the mandible in childhood. *Br. Dent. J.*, 103:67-78, 1957.

Tong, A. C.; Ng, I. O. & Yeung, K. M. Osteomyelitis with proliferative periostitis: an unusual case. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol. Oral Endod.*, 102(5):e14-9, 2006.

Wood, R. E.; Nortjé, C. J.; Grotepass, F.; Schmidt, S. & Harris, A. M. Periostitis ossificans versus Garré's osteomyelitis: Part I. What did Garré really say? *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 65(6):773-7, 1988.

Dirección para correspondencia:

Lucas Martins de Castro-Silva
Araraquara Dental School
São Paulo State University – UNESP
Department of Oral and Maxillofacial Surgery
Humaitá Street, 1680
14801-903 - SP
Araraquara – São Paulo
BRAZIL

Email: lucascastrosilva@hotmail.com

Recibido : 19-05-2012

Aceptado: 21-12-2012