

Οστεομυελίτιδα του Garre ιδιοπαθούς αιτιολογίας: αναφορά περίπτωσης και ανασκόπηση της βιβλιογραφίας

Νικητάκης Ν.¹, Σφακιανού Αικ.², Τόσιος Κ.¹, Σκλαβούνου Α.³

Η οστεομυελίτιδα του Garre ή οστεοποιός περιοσίτιδα είναι μια σχετικά σπάνια οντότητα που συνίσταται σε σχηματισμό αντιδραστικού οστού, λόγω ενεργοποίησης του περισσέου. Ως συνηθέστερος αιτιολογικός παράγοντας θεωρείται υποκείμενη φλεγμονή, προερχόμενη από βαθιά τερηδόνα και συνοδό ακρορριζική βλάβη, ενώ μπορεί ακόμα να σχετίζεται με κάταγμα, κύστη ή περιοδοντική νόσο. Σε κάποιες περιπτώσεις θεωρείται ιδιοπαθούς ή άγνωστης αιτιολογίας, πιθανώς σχετιζόμενη με παρακείμενο οδοντοθυλάκιο ή περιοδοντικό θύλακο.

Παρουσιάζουμε το περιστατικό ενός εξάχρονου κοριτσιού που προσήλθε στην Κλινική της Στοματολογίας της Οδοντιατρικής Σχολής του Πανεπιστημίου Αθηνών για μια διόγκωση στη δεξιά περιοχή της κάτω γνάθου. Η βλάβη είχε εμφανιστεί πριν δύο εβδομάδες και έβαινε μειούμενη σε μέγεθος τις τελευταίες τρεις ημέρες. Η βλάβη ήταν ανώδυνη και δε συνοδευόταν από πυρετική κίνηση. Το ιατρικό ιστορικό της ασθενούς ήταν ελεύθερο και δεν αναφέρθηκε τραυματισμός στην περιοχή.

Η ενδοστοματική εξέταση αποκάλυψε σκληρής σύστασης διόγκωση του παρεϊακού οστικού πετάλου αντίστοιχα προς τα #85 και #46, καλυπόμενη από φυσιολογικό βλεννογόνο. Δεν υπήρχε εμφανές αίτιο φλεγμονής.

Η ασθενής παραπέμφθηκε για ακτινογραφικό έλεγχο, ο οποίος έδειξε εναποθέσεις οστού, παράλληλες μεταξύ τους και προς την περιφέρεια του σώματος της κάτω γνάθου, δίνοντας εικόνα ομοιάζουσα με «φύλλα κρεμμυδιού».

Η κλινική και ακτινογραφική εικόνα, καθώς και το γεγονός ότι η βλάβη εμφάνισε προοδευτική μείωση σε μέγεθος έως πλήρους αποδρομής, οδήγησε στη διάγνωση οστεομυελίτιδας του Garre ιδιοπαθούς αιτιολογίας.

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Η οστεομυελίτιδα του Garre ή οστεοποιός περιοσίτιδα, αποτελεί μια σχετικά σπάνια οντότητα, η οποία περιγράφηκε αρχικά από τον Carl Garre το 1893 ως εστιακή πάχυνση του περισσέου με εναπόθεση οσίτη ιστού, λόγω φλεγμονής ή

Λέξεις ευρητηρίου: Οστεομυελίτιδα του Garre, οστεοποιός περιοσίτιδα, περιοσική αντίδραση, διόγκωση της γνάθου

Εργαστήριο Στοματολογίας, Οδοντιατρική Σχολή, Εθνικό και Καποδιστριακό Πανεπιστήμιο Αθηνών

¹ Επίκουρος καθηγητής

² Μεταπτυχιακή φοιτήτρια

³ Καθηγήτρια

Η εργασία ανακοινώθηκε στο 38ο Πανελλήνιο Παιδοδοντικό Συνέδριο στην Πάτρα, με τη μορφή ελεύθερης ανακοίνωσης.

ήπιου ερεθισμού. Στην πρώτη περιγραφή δεν υπήρχε ιστολογική αξιολόγηση και ακτινογραφίες, καθώς αυτές δεν είχαν ακόμη ανακαλυφθεί. Για το λόγο αυτό προτιμάται ο όρος οστεοποιός περιοσίτιδα, αν και ο όρος οστεομυελίτιδα του Garre συχνά χρησιμοποιείται ως συνώνυμος.^{1,2,3}

Η οστεοποιός περιοσίτιδα είναι αποτέλεσμα της αντίδρασης του περισσέου σε ήπιο συνήθως φλεγμονώδες ερέθισμα, με αποτέλεσμα την περιφερική εναπόθεση οστεοειδούς και εν συνεχεία οστού. Οι διακυμάνσεις που υπάρχουν στην ένταση της φλεγμονής αντανακλούν στην περιοδική οστεοποιό δραστηριότητα του περισσέου, με αποτέλεσμα το σχηματισμό της χαρακτηριστικής ακτινογραφικής εικόνας των φύλλων κρεμμυδιού και λιγότερο συχνά των ακτίνων του ανατέλλοντος ηλίου.

Όπως αναμένεται, το συνηθέστερο γενεσιουργό αίτιο είναι η περιακρορριζική φλεγμονή ως αποτέλεσμα νέκρωσης του πολφού λόγω οδοντικής τερηδόνας. Έχουν όμως αναφερθεί και άλλοι παράγοντες όπως περιοδοντική φλεγμονή και/ή παρουσία περιοδοντικού θυλάκου, κάταγμα ή τραυματισμός της περιοχής, εξαγωγή δοντιού, περιστεφανίτιδα, φλεγμονώδεις οδοντογενείς κύστες^{4,5} και μη οδοντογενείς λοιμώξεις.^{2,4}



Εικ. 1: Πανοραμική ακτινογραφία

^{5, 6, 7, 8} Τέλος, κάποια περιστατικά είναι αγνώστου αιτιολογίας και έχουν αποδοθεί στην παρουσία οδοντοθυλακίου υποκείμενου δοντιού.^{2, 8, 9, 10}

Η νόσος είναι συχνότερη σε νέα άτομα ή παιδιά, επειδή σε αυτές τις ηλικίες η οστεοβλαστική δραστηριότητα του περιοστέου βρίσκεται στο μέγιστο δυνατό επίπεδο, η αντίσταση στο μικροβιακό παράγοντα είναι μεγάλη και η τοπική παροχή αίματος είναι αυξημένη.^{3, 5} Ο μέσος όρος ηλικίας εμφάνισης της νόσου είναι τα 13 χρόνια, αν και στη βιβλιογραφία έχει αναφερθεί ακόμα και περιστατικό ασθενούς ηλικίας 65 ετών.¹¹ Η οστεοποιός περιοσίτιδα που εμφανίζεται σε μικρές ηλικίες αναφέρεται και ως εξεσημασμένη οστεοποιός περιοσίτιδα (gross periostitis ossificans – GPO). Η συχνότητα εμφάνισης της νόσου είναι η ίδια και για τα δύο φύλα.

Η οστεοποιός περιοσίτιδα, στο σύνολο των οστών του σώματος, εμφανίζεται συχνότερα στα μακρά οστά.¹² Στη στοματογναθική περιοχή εντοπίζεται ως επί το πλείστον στην κάτω γνάθο, χωρίς να αποκλείεται και η εμφάνισή της στην άνω γνάθο, ενώ στη βιβλιογραφία έχει αναφερθεί περιστατικό με ταυτόχρονη προσβολή και των τεσσάρων τεταρτημορίων των γνάθων.¹³ Η βλάβη συνθέστερα εντοπίζεται στην περιοχή των γομφίων και των προγομφίων και για άγνωστους λόγους με μεγαλύτερη συχνότητα στο αριστερό ημμόριο. Ο υποπεριοστικός σχηματισμός οστού εκτείνεται συνήθως προς το κάτω χείλος της κάτω γνάθου (82,7%), ενώ λιγότερο συχνά (10,55%) η επέκταση γίνεται παρειακά.⁴

Στην παρούσα εργασία γίνεται αναφορά μιας περίπτωσης οστεομυελίτιδας του Garre ιδιοπαθούς αιτιολογίας και γίνεται ανασκόπηση της βιβλιογραφίας με έμφαση στη διαφορική διάγνωση από άλλες κεντρικές βλάβες των γνάθων που μπορούν να προκαλέσουν περιοστική αντίδραση.

ΑΝΑΦΟΡΑ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Κορίτσι ηλικίας 6 ετών προσήλθε στην κλινική της Στοματολογίας της Οδοντιατρικής Σχολής του Πανεπιστημίου Αθηνών με ελαφρά ασυμμετρία προσώπου λόγω διόγκωσης μεγέθους 2 X 1,5 εκ στη δεξιά μούρα της κάτω γνάθου, η οποία παρατηρήθηκε από οδοντίατρο, πριν δύο εβδομάδες.



Εικ. 2: Οπισθοφατνιακή ακτινογραφία στην περιοχή των 46 και 85

Από τη μελέτη του ιστορικού δε διαπιστώθηκε τραυματισμός της περιοχής. Δεν αναφέρθηκε αυτόματος πόνος, ούτε πυρετική κίνηση. Το ιατρικό ιστορικό ήταν ελεύθερο. Σύμφωνα με τους γονείς, η βλάβη είχε αρχίσει να υποστρέφει τις τελευταίες 3 ημέρες.

Κατά την εξωστοματική κλινική εξέταση διαπιστώθηκε διόγκωση σκληρής σύστασης, αντίστοιχα προς την περιοχή των γομφίων, μεγέθους 1,5 X 1 εκ, η οποία προκαλούσε ήπια ασυμμετρία στο πρόσωπο της ασθενούς. Το υπερκείμενο δέρμα είχε φυσιολογική χροιά και θερμοκρασία.

Κατά την ενδοστοματική εξέταση παρατηρήθηκε διόγκωση στην περιοχή του #46, επεκτεινόμενη παρειακά και καλυπόμενη από φυσιολογικό βλεννογόνο. Η βλάβη ήταν σκληρής σύστασης και ελαφρώς επώδυνη κατά τη ψηλάφηση. Τα δόντια και το περιοδόντιο της περιοχής ήταν υγιή, ενώ η στοματική υγιεινή της ασθενούς, παρά το νεαρό της ηλικίας, ήταν ικανοποιητική.

Η πανοραμική ακτινογραφία (Εικ. 1) αποκάλυψε την παρουσία μικτού φραγμού, χωρίς συγγενείς ελλείψεις ή παρουσία υπεράριθμων δοντιών ή άλλα παθολογικά ευρήματα. Οπισθοφατνιακή ακτινογραφία στην περιοχή των #46 και #85 (Εικ. 2) δεν αποκάλυψε παρουσία τερηδονικής εξεργασίας ή ακρορριζικής βλάβης, αλλά κατέδειξε τη φυσιολογική γειννίαση των ριζών των νεογιλών γομφίων με τα υποκείμενα οδοντικά σπέρματα των προγομφίων. Η ακτινογραφία δήξεως (Εικ. 3) παρουσίαζε πάχυνση του παρειακού πετάλου του σώματος της κάτω γνάθου δεξιά, αντίστοιχα προς τον #46, η οποία περιελάμβανε αλληλοδιάδοχες λεπτές ακτινοσκοπικές και ακτινοδιαγναστικές ζώνες, ομοιάζουσες με την εικόνα «φύλλων κρεμμυδιού».



Εικ. 3. Ακτινογραφία δήξεως της περιοχής. Το βέλος αντιστοιχεί στην περιοχή της περιοστικής αντίδρασης.

Λαμβάνοντας υπόψη το ιστορικό, το γεγονός ότι η βλάβη έβαινε μειούμενη σε μέγεθος, την κλινική εικόνα και κυρίως τα ευρήματα της ακτινογραφίας δήξεως, τέθηκε η διάγνωση οστεομυελίτιδας του Garre ιδιοπαθούς αιτιολογίας. Καθώς η βλάβη είχε ήδη αρχίσει να υποστρέφει όταν η ασθενής προσήλθε στην κλινική, δεν κρίθηκε σκόπιμη η άμεση βιοψία και ιστοπαθολογική εξέταση, αλλά συστάθηκε παρακολούθηση. Διαπιστώθηκε πλήρης αποδρομή της βλάβης σε διάστημα δέκα ημερών, χωρίς επακόλουθες υποτροπές.

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Η οστεομυελίτιδα του Garre ή οστεοποιός περιοστίτιδα αποτελεί υπότυπο της χρόνιας οστεομυελίτιδας, που χαρακτηρίζεται από εναπόθεση νεοπλαστικού οστού από το περίοστεο. Εξωστοματικά εμφανίζεται άλλοτε άλλου βαθμού διόγκωση της γνάθου με πιθανή ασυμμετρία του προσώπου, όπως παρατηρήθηκε και στην περίπτωση της ασθενούς μας. Το υπερκείμενο δέρμα είναι συνήθως φυσιολογικό. Ενδοστοματικά παρατηρείται διόγκωση της γνάθου με σκληρή σύσταση, η οποία καλύπτεται από φυσιολογικό βλεννογόνο. Η βλάβη είναι δυνατόν να είναι πλήρως ασυμπτωματική, ελαφρώς επώδυνη στη ψηλάφηση, όπως στην ασθενή της περίπτωσης μας, ή να συνοδεύεται από έντονο πόνο^{4, 5, 8, 14, 15, 16, 17} και λιγότερα συχνά παραισθησία στα δόντια, το δέρμα και το χέλιος.⁵ Τέλος, ορισμένες περιπτώσεις συνοδεύονται από τραχηλική λεμφαδενίτιδα, πυρετική κίνηση και καχεξία,⁶ ενώ τρισμός αναφέρεται στο 60% των περιπτώσεων.^{6, 8, 15}

Η ακτινογραφική και απεικονιστική διερεύνηση της οστεομυελίτιδας του Garre μπορεί να περιλαμβάνει οπισθοφανιακές και οπισθομυλικές ακτινογραφίες της περιοχής, πανοραμική και ακτινογραφία δήξεως, όπως και υπολογιστική και μαγνητική τομογραφία και σπινθηρογράφημα. Χαρακτηριστικά παρα-

τηρούνται από 1 έως 12 ακτινοσκιερές σιβάδες, παράλληλες μεταξύ τους και στο φλοιώδες πέταλο της κάτω γνάθου, δίνοντας την χαρακτηριστική εικόνα φύλλων κρεμμυδιού, όπως παρατηρήθηκε στην ακτινογραφία δήξεως της ασθενούς μας.² Μία ακτινοδιαγαστική ζώνη συνήθως παρεμβάλλεται μεταξύ της βλάβης και του φλοιού της γνάθου. Σε άλλες περιπτώσεις το σχηματιζόμενο οστόν φαίνεται να είναι πιο πυκνωτικό ή να οργανώνεται σε ένα πλέγμα δοκίδων κάθετων στο περίοστεο, που ενώνουν ως γέφυρες τις παράλληλες προς το φλοιό γραμμωειδείς ακτινοσκιάσεις. Άλλες φορές οι κάθετες στο περίοστεο δοκίδες δίνουν εικόνα ακτίνων ανατέλλοντος ηλίου.³ Τέλος, είναι δυνατόν να εμφανίζονται οστικά απολύματα μέσα σε οστεολυτικές ακτινοδιαγαστικές περιοχές.^{8, 9, 15} Οι Kawai et al⁸ ταξινόμησαν την οστεοποιό περιοστίτιδα της κάτω γνάθου με βάση την ακτινογραφική της εικόνα σε δύο τύπους: Ο τύπος I χαρακτηρίζεται από διατήρηση της περιφέρειας της κάτω γνάθου, ενώ στον τύπο II η αρχική περίμετρος της γνάθου εξαφανίζεται. Περαιτέρω ταξινόμηση έγινε σε δύο υποτύπους για κάθε τύπο και βασίζεται στη θέση της βλάβης και τη σχέση της με το πέταλο της κάτω γνάθου. Θα πρέπει να σημειωθεί ότι η ακτινογραφική απεικόνιση της βλάβης είναι ασαφής στα αρχικά στάδια, εφόσον δεν είναι εμφανής η εναπόθεση οστού.

Η οστεοποιός περιοστίτιδα αφορά σε ινοοστική βλάβη. Ιστολογικά παρατηρούνται παράλληλες σειρές νεοπλαστικού οστού μέσα σε ινώδη συνδετικό ιστό. Η παρουσία λεμφοκυττάρων και πλασματοκυττάρων είναι περιορισμένη ή σχηματίζονται φλεγμονώδεις εστίες.^{14, 15} Οι οστικές δοκίδες είναι παράλληλες μεταξύ τους και κάθετες προς την επιφάνεια του οστού. Σε άλλες περιπτώσεις έχουν ακανόνιστο σχήμα ή σχηματίζουν δίκτυο.^{2, 14} Στην περιφέρεια των δοκίδων παρατηρούνται ενεργείς οστεοβλάστες και οστεοκλάστες.¹⁵ Τέλος είναι δυνατόν να ανευρεθούν οστικά απολύματα ως αποτέλεσμα οστικής νέκρωσης.

Εκτός από την οστεομυελίτιδα, περιοστική εναπόθεση οστού μπορεί επίσης να προκαλείται από τραυματικά ή νεοπλασματικά αίτια. Στον Πίνακα 1 παρουσιάζονται νεοπλασματικές βλάβες που προκαλούν περιοστική αντίδραση και οι οποίες θα πρέπει να συμπεριλαμβάνονται στη διαφορική διάγνωση. Επιπλέον η διαφορική διάγνωση της οστεοποιό περιοστίτιδας συμπεριλαμβάνει άλλες παθολογικές καταστάσεις που προκαλούν διόγκωση των γνάθων, ιδιαίτερα σε παιδιά και εφήβους, συμπεριλαμβανόμενες άλλες βλάβες αντιδραστικής αιτιολογίας (όπως η διάχυτη σκληρυντική οστεομυελίτιδα), βλάβες αναπτυξιακής ή δυσπλαστικής αρχής (όπως το κεντρικό γιγαντοκυτταρικό κοκκίωμα, η ανευρυσματική κύστη, η ινώδης δυσπλασία, ο χερουβισμός και η νόσος του Caffey), καλοήθη νεοπλασμάτα (όπως το κεντρικό αιμαγγείωμα, το οστεοβλάστωμα, το οστεοποιό ίνωμα, το αδαμαντινοβλάστωμα, το αδαμαντινοβλαστικό ίνωμα/ινοοδοόντωμα και το οδοντογενές μύζωμα) και κακοήθη νεοπλασμάτα (όπως το οστεοσάρκωμα, το χονδροσάρκωμα και το σάρκωμα Ewing).

Η διάχυτη σκληρωτική οστεομυελίτιδα της παιδικής ηλικίας χαρακτηρίζεται από μη ειδική χρόνια φλεγμονώδη διεήθηση του οστού, χωρίς σχημασμό πύου και συριγγίων. Είναι αγνώστου αιτιολογίας και συνοδεύεται από πόνο, διόγκωση της περιοχής και τρισμό, όταν εντοπίζεται στην κάτω γνάθο.

Το κεντρικό γιγαντοκυτταρικό κοκκίωμα και η ανευρυσματική κύστη ανήκουν στις γιγαντοκυτταρικές βλάβες.¹⁸ Προσβάλλουν συχνότερα γυναίκες, παρά άνδρες και συνήθως η ηλικία των ασθενών κυμαίνεται μεταξύ της πρώτης και τρίτης δεκαετίας. Εμφανίζονται ως μονόχωρες ή πολύχωρες ακτινοδιαυγάσεις και μπορούν να προκαλέσουν απορρόφηση ριζών.

Η ινώδης δυσπλασία^{18, 19} συνήθως παρατηρείται σε ασθενείς ηλικίας μικρότερης των 20 ετών, με την ίδια συχνότητα μεταξύ ανδρών και γυναικών. Εμφανίζεται συχνότερα στην άνω γνάθο. Η μονοοστική της μορφή προκαλεί ανώδυνη διόγκωση που αναπτύσσεται αργά, με ή χωρίς μετατόπιση των δοντιών. Πολυεστιακή ινώδης δυσπλασία μπορεί να συνυπάρχει με café au lait κηλίδες και ορμονικές διαταραχές (σύνδρομο Jaffe και McCune-Albright). Ο χερουβισμός¹⁸ οφείλεται σε αυτοσωματικό επικρατές γονίδιο. Παρατηρείται συνήθως αμφοτερόπλευρη, συμμετρική διόγκωση, τόσο στην άνω, όσο και στην κάτω γνάθο. Ο σχηματισμός της βλάβης αρχίζει από την ηλικία των 2-5 ετών, αλλά η διάγνωση τίθεται συνήθως στην αρχή της εφηβείας. Οι διογκώσεις μπορεί να συνοδεύονται από τραχηλική λεμφαδενίτιδα και ανωμαλίες στην οδοντοφυία. Τέλος, η νόσος του Caffey ή φλοιώδης υπερόσωση της παιδικής ηλικίας, αφορά συνήθως πολύ νεαρούς ασθενείς, είναι πολυεστιακή και αποδράμει χωρίς θεραπευτική παρέμβαση.

Το κεντρικό αιμαγγείωμα είναι μια σπάνια νεοπλασματική βλάβη, η οποία συχνότερα εμφανίζεται σε παιδιά και εφήβους. Προσβάλλει συχνότερα τις γυναίκες από τους άνδρες, με αναλογία 2:1. Συνηθέστερη εντόπιση στη γναθοπροσωπική χώρα είναι το σώμα και ο κλάδος της κάτω γνάθου. Δεν συνοδεύεται από συμπτώματα, αλλά κάποιες φορές προκαλεί αργά αυξανόμενη διόγκωση, με πιθανή κινητικότητα και μετανάστευση των δοντιών της περιοχής.⁽²⁰⁾ Το οστεοβλάστωμα^{18,19} αναπτύσσεται στις γνάθους ατόμων ηλικίας κάτω των 30 ετών, συνήθως στις οπίσθιες περιοχές και με μικρή υπεροχή των ανδρών έναντι των γυναικών. Η βλάβη συνοδεύεται από πόνο, όπως και στο οστεοειδές οστέωμα, αλλά μπορεί να λάβει πολύ μεγάλες διαστάσεις, μέχρι και 10 εκατοστά. Σε ότι αφορά το οστεοειδίωμα, ο τύπος που φαίνεται να επικρατεί σε παιδιά και εφήβους, είναι το επιθετικό ή εφηβικό (aggressive/juvenile).^{18, 19} Το νεόπλασμα αυτό έχει αργή ανάπτυξη και εμφανίζεται με μεγαλύτερη συχνότητα στην άνω γνάθο.² Σε λίγες περιπτώσεις, κυρίως σε παιδιά ηλικίας κάτω των 15 ετών, η βλάβη εμφανίζει γρήγορη ανάπτυξη, προκαλεί διάβρωση του οστικού πετάλου και παρουσιάζει τάση υποτροπής μετά την εξαίρεση.¹⁹ Ακτινογραφικά παρατηρείται διαύγαση, με ακτινοσκοιερὰ στοιχεία ή με εικόνα νεφελώματος.

Ασυμπτωματική διόγκωση των γνάθων μπορεί να προκληθεί και από οδοντογενείς όγκους.^{17, 18} Το μονοκυτταρικό αδαμαντινοβλάστωμα προσβάλλει άτομα ηλικίας μικρότερης των 20 ετών και συνήθως εντοπίζεται στην οπίσθια περιοχή της κάτω γνάθου. Το αδαμαντινοβλαστικό ίνωμα εμφανίζεται συνήθως στην περιοχή των γομφίων της κάτω γνάθου, σε ασθενείς μέσης ηλικίας 15 ετών, ως αργά αναπτυσσόμενη διόγκωση. Το αδαμαντινοβλαστικό ινοοδόντωμα επίσης προσβάλλει άτομα μικρότερα των 20 ετών, με την ίδια συχνότητα στα δύο φύλα,

ως ασυμπτωματική διόγκωση της γνάθου. Οι παραπάνω βλάβες συχνά σχετίζονται με τη μύλη εγκλείστου δοντιού. Το οδοντογενές μύζωμα προσβάλλει άτομα νεαρής ηλικίας και εμφανίζεται ως αργά αναπτυσσόμενη διόγκωση με τοπικά διηθητική τάση συχνότερα στην οπίσθια περιοχή της κάτω γνάθου.

Όσον αφορά σε κακοήθη νεοπλασμάτα που μπορούν να προσβάλλουν παιδιά και εφήβους, το οστεοσάρκωμα, το δεύτερο σε συχνότητα νεόπλασμα του οστίτη ιστού μετά το πολλαπλούν μυέλωμα, μπορεί να προσβάλλει τις γνάθους με μέση ηλικία εμφάνισης τα 34 έτη, και εμφανίζεται συνήθως ως διόγκωση, συνοδευόμενη από πόνο, παραισθησία και κινητικότητα των δοντιών.^{21, 22} Το χονδροσάρκωμα μπορεί να προκαλέσει παρόμοια σημεία και συμπτώματα με το οστεοσάρκωμα προσβάλλοντας ευρύ φάσμα ηλικιών και δείχνοντας προτίμηση για την άνω γνάθο.^{17, 21} Εμφανίζεται κυρίως στη λευκή φυλή, συνήθως σε άτομα ηλικίας κάτω των 20 ετών, με ελαφρά υπεροχή των αγοριών έναντι των κοριτσιών. Παρατηρείται διόγκωση, η οποία εμφανίζεται συνηθέστερα στην οπίσθια μοίρα της κάτω γνάθου και συχνά συνοδεύεται από πυρετό, πόνο, παραισθησία του κάτω χείλους, προσωπική νευραλγία και πιθανώς διάμεση ωτίτιδα.²⁵

Στην περίπτωση που παρουσιάστηκε η κλινική και ακτινογραφική εικόνα σε συνδυασμό με την μείωση των διαστάσεων της βλάβης και τη γενικότερη κλινική πορεία της νόσου, έθεσαν τη διάγνωση της οστεομυελίτιδας του Garre. Καθοριστικής σημασίας ήταν η ακτινογραφική διαπίστωση περιοστικής αντίδρασης στην ακτινογραφία δήξεως. Επειδή στη συνολική διερεύνηση του περιστατικού δεν διαπιστώθηκε κάποιος εξειδικευμένος αιτιολογικός παράγοντας, η παθολογική κατάσταση θεωρήθηκε ιδιοπαθούς αιτιολογίας. Η βιοψία της αλλοίωσης δεν θεωρήθηκε απαραίτητη, εφόσον η βλάβη ήδη από την πρώτη κλινική εξέταση είχε μειωθεί σε μέγεθος και στη συνέχεια εμφάνισε πλήρη αποδρομή. Εντούτοις, σε περιπτώσεις επιμονής ή μεγέθυνσης της βλάβης η βιοψία και ιστοπαθολογική εξέταση κρίνονται απαραίτητες.

Στο περιστατικό που αναφέρουμε δεν ήταν δυνατόν να εντοπίσουμε το αίτιο φλεγμονής, αν και η πιθανότητα ύπαρξης κάποιας κρυφής τερηδόνας η οποία να μην ήταν δυνατόν να εντοπιστεί κατά τη στιγμή της κλινικής εξέτασης, δεν μπορεί να αποκλειστεί. Επίσης παρατηρήθηκε στενή σχέση της διόγκωσης με το οδοντοθυλάκιο του #45, γεγονός που θα μπορούσε να αποτελέσει το γενεσιουργό αίτιο της περιοσίτιδας. Στη βιβλιογραφία έχουν αναφερθεί πολλά περιστατικά οστεομυελίτιδας του Garre αγνώστου αιτιολογίας, σε ορισμένα από τα οποία η βλάβη ερχόταν σε σχέση με το οδοντοθυλάκιο υποκείμενου δοντιού.^{2, 8, 9, 10} Τέλος έχει προταθεί ο πιθανός αιτιολογικός ρόλος περιοδοντικής φλεγμονής ειδικά σε συσχέτιση με ανατελλόντες γομφίους σε έκτοπη θέση.⁶ Η δημιουργία οχισμοειδούς χώρου μεταξύ της μύλης του ανατελλόντος και του περιοδοντίου μπορεί να αποτελέσει αίτιο εστιακής φλεγμονής που πιθανώς να συμβάλει στην ενεργοποίηση του περιοστέου.⁶ Η πιθανότητα το περιστατικό που περιγράφηκε να συσχετίζεται με εστιακή παροδική φλεγμονώδη αντίδραση του περιοδοντίου κατά την ανατολή του πρώτου γομφίου δεν μπορεί να αποκλειστεί.

ΒΛΑΒΕΣ	ΑΚΤΙΝΟΓΡΑΦΙΚΗ ΕΙΚΟΝΑ	
	Κεντρική βλάβη	Περιοστική αντίδραση
ΚΑΛΟΗΘΕΙΣ		
Κεντρικό Αιμαγγείωμα	Πολύχωρη διαύγαση με σαφή ή ασαφή όρια (εικόνα κερήθρας ή φυσαλίδων σαπουνιού), απορρόφηση ριζών	Ακτίνες ανατέλλοντος ηλίου
ΚΑΚΟΗΘΕΙΣ		
Οστεοσάρκωμα	Διαύγαση, σκίαση ή συνδυασμός με ασαφή όρια, διεύρυνση περιρριζικού χώρου, απορρόφηση ριζών	Ακτίνες ανατέλλοντος ηλίου, σπανιότερα «φύλλα κρεμμυδιού»
Χονδροσάρκωμα	Διαύγαση με ασαφή όρια, με ή χωρίς ακτινοσκοιερές περιοχές, διεύρυνση περιρριζικού χώρου, απορρόφηση ριζών	Ακτίνες ανατέλλοντος ηλίου, σπανιότερα «φύλλα κρεμμυδιού»
Σάρκωμα Ewing	Διαύγαση με ασαφή όρια	«φύλλα κρεμμυδιού»
ΑΝΤΙΔΡΑΣΤΙΚΕΣ ΒΛΑΒΕΣ		
Οστεοποιός Περιοστίτιδα	Διαύγαση με ασαφή όρια, με ή χωρίς ακτινοσκοιερές περιοχές (μπορεί να απουσιάζει)	«φύλλα κρεμμυδιού», σπανιότερα ακτίνες ανατέλλοντος ηλίου

Πίνακας 1. Κεντρικά νεοπλάσματα των γνάθων που προκαλούν περιοστική αντίδραση και σύγκριση της ακτινογραφικής τους εικόνας με αυτή της οστεομυελίτιδας του Garre ή οστεοποιού περιοστίτιδα.

Η πρόγνωση της οστεοποιού περιοστίτιδας είναι καλή και σχετίζεται με το αίτιο της βλάβης και την εφαρμοζόμενη θεραπεία. Η έκβαση της βλάβης ελέγχεται ακτινογραφικά. Η αποδρομή εμφανίζεται ως μείωση ή εξαφάνιση της περιοστίτιδας με ομαλοποίηση του φλοιώδους πετάλου. Αντίθετα, όταν η βλάβη παραμένει, μπορεί να παρατηρηθεί σχηματισμός νέου οστού, οστεοσκληρωτικές αλλαγές στο δοκιδώδες οστό, αύξηση του μεγέθους των οστεολυτικών περιοχών, εξαφάνιση του φλοιώδους πετάλου και δυσμορφία της γνάθου.

Η θεραπεία έγκειται στην απομάκρυνση του αιτίου, δηλαδή στην ενδοδοντική θεραπεία ή εξαγωγή του υπευθύνου δοντιού, στην αντιμετώπιση του περιοδοντικού προβλήματος και γενικότερα στην εξάλειψη της φλεγμονής. Μετά τη θεραπεία η περιοχική επανέρχεται στο φυσιολογικό ύστερα από 6-12 μήνες μέσω αναδιαμορφωτικών διεργασιών από τη δράση των μυών της μάσησης (κυρίως του μαστήρα). Πέραν των ενδεδειγμένων οδοντιατρικών πράξεων, η θεραπεία περιλαμβάνει την χορήγηση αντιβιοτικών για χρονικό διάστημα ως και έξι εβδομάδων, όταν απαιτείται.^{5, 7, 15} Εάν η βλάβη επιμένει, γίνεται χειρουργική επαναδιαμόρφωση του σώματος της γνάθου. Τελευταία έχει χρησιμοποιηθεί και ενδοσκοπική μέθοδος για το σκοπό αυτό.¹⁶

Συμπερασματικά, σε περιπτώσεις περιοστικής αντίδρασης σε παιδιά, η γρήγορη ανάπτυξη της διόγκωσης και το νεαρό της ηλικίας των ασθενών προβληματίζουν τον κλινικό ως προς την φύση και την αιτιολογία της εξεργασίας. Το οστεοσάρκωμα και το σάρκωμα Ewing είναι τα κυριότερα κακοήθη νεοπλάσματα που θα πρέπει να συμπεριληφθούν στη διαφορική διάγνωση. Όμως η συνισταμένη των κλινικών χαρακτηριστικών, η παρου-

σία φλεγμονωδών παραγόντων, το ιστορικό της βλάβης και η χαρακτηριστική ακτινογραφική εικόνα, οδηγούν στην κλινική διάγνωση της νόσου, η οποία πρέπει να επιβεβαιώνεται ιστολογικά σε περιπτώσεις απουσίας εμφανούς φλεγμονώδους αιτίου και μη υποτροφής της βλάβης. Επομένως ο κλινικός θα πρέπει στη διαφορική διάγνωση διογκώσεων των γνάθων στην παιδική ηλικία, να συμπεριλαμβάνει και την οστεομυελίτιδα του Garre, λαμβάνοντας πάντα υπόψη τη συχνότητα και τα ιδιαίτερα χαρακτηριστικά της νόσου.

SUMMARY

Garre's Osteomyelitis of Idiopathic Etiology: Case report and review of the literature

Nikitakis N., Sfakianou Aik., Tosios k., Sklavounou A.

Garre's osteomyelitis or periostitis ossificans is a relatively rare entity that consists of reactive bone formation due to periosteal activation. The underlying cause is usually an infection that derives from periapical inflammation due to pulp necrosis. It also seems to be related with mandibular fracture, cysts, periodontal disease and adjacent dental follicle. Yet there are some cases that the cause remains unknown.

A 6-year old girl presented to the Oral Medicine Clinic of the Dental School, University of Athens with a complaint of swelling on the right side of the mandible. The lesion was present for approximately two weeks, decreasing in size during the past

three days. There was no episode of pain or fever, no report of trauma in the area and the medical history was non-contributory.

Intraoral examination revealed a bony hard swelling, showing buccal expansion at the area of #46 and #85. No visible cause of inflammation could be detected. The radiographic investigation revealed layers of bone formation resembling an 'onion-skin' pattern.

The clinical and radiographic findings, in addition to the fact that the lesion was decreasing in size lead to the diagnosis of periostitis ossificans possibly related to the dental follicle of the unerupted 45.

Review of the literature revealed a number of cases of Garre's osteomyelitis that the inflammatory cause could not be detected. A correlation has been made with an undetected periodontal pocket or adjacent dental follicle.

Index Words: *Garre's osteomyelitis, periostitis ossificans, periosteal reaction, mandibular swelling.*

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ

- Wood RE, Nortje CJ, Grotepass F, Schmidt S, Harris AMP. Periostitis ossificans versus Garre's osteomyelitis. Part I. What did Garre really say? Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1988;65:773-7.
- Neville BW, Damm DD, Allen EK, Bouquot JE. Oral and Maxillofacial Pathology. 2nd ed. Philadelphia Saunders 2002:131-2.
- Marx RE, Stern D. Oral and Maxillofacial Pathology. A rationale for diagnosis and treatment. Illinois Quintessence publishing Co, Inc 2003:61-62
- Kannan SK, Sandhya G, Selvarani R. Periostitis ossificans (Garre's osteomyelitis) radiographic study of two cases. Int J Paediatr Dent. 2006;16:59-64.
- Betts NJ, Abaza NA, Kazemi A. An expansile bony lesion of posterior mandible in a 12-year-old girl. J Oral Maxillofac Surg. 1996;54:203-9.
- Oulis C, Berdousis E, Vadiakas G, Goumenos G. Garre's osteomyelitis of an unusual origin in a 8-year-old child. A case report. Int J Paediatr Dent. 2000;10:240-4.
- Tong AC, Ng IO, Yeung KM. Osteomyelitis with proliferative periostitis: an unusual case. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 2006;102:e14-9.
- Kawai T, Murakami S, Sakuda M, Fuchihata H. Radiographic investigation of mandibular periostitis ossificans in 55 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 1996;82:704-12.
- Kawai T, Hiranuma H, Kishino N, Murakami S, Sakuda N, Fuchihata H. Gross periostitis ossificans in mandibular osteomyelitis. Review of the English literature and radiographic variation. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 1998;86:376-81.
- Ellis DJ, Winslow JR, Indovina AA. Garré's osteomyelitis of the mandible. Report of a case. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1977;44:183-9.
- Martin-Granizo R, Garcia-Gonzalez D, Sastre J. Mandibular sclerosing osteomyelitis of Garre. Otolaryngol Head Neck Surg. 1999;121:828-9.
- Collert S, Isacson J. Chronic sclerosing osteomyelitis (Garre). Clin Orthop Relat Res. 1982;164:136-40.
- Eisenbud L, Miller J, Roberts IL. Garre's proliferative periostitis occurring simultaneously in four quadrants of the jaws. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1981;51:172-8.
- Felsberg GJ, Gore RL, Schweitzer ME, Jui V. Sclerosing osteomyelitis of Garré (periostitis ossificans). Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1990;70:117-20.
- Belli E, Matteini C, Andreano T. Sclerosing osteomyelitis of Garré periostitis ossificans. J Craniofac Surg. 2002;13:765-8.
- Belli E, Matteini C, D'Andrea GC, Mazzone N. Navigator system guided endoscopic intraoral approach for remodelling of mandibular condyle in Garré syndrome. J Craniofac Surg. 2007;18:1410-5.
- Αγγελόπουλος ΑΠ, Παπανικολάου Σ, Αγγελόπουλου Ε. Σύγχρονη Στοματική και Γναθοπροσωπική Παθολογία, 3η Έκδοση, Ιατρικές Εκδόσεις Λίτσας, 2000: 384-7, 459-84, 561-2.
- Regezi JA. Odontogenic cysts, odontogenic tumors, fibroosseous, and giant cell lesions of the jaws. Mod Pathol. 2002;15:331-41.
- Donald- Jankowski DS. Fibro- osseous lesions of the face and jaws. Clin Radiol. 2004;59:11-25.
- Αγγελόπουλος ΠΑ, Σπυρόπουλος ΔΝ, Τσιχλάκης Κ, Σύγχρονη Στοματική και Γναθοπροσωπική Διαγνωστική και Ακτινολογία. 3η Έκδοση, Αθήνα, Ιατρικές Εκδόσεις Λίτσας, 2001:482-3.
- Khanna G, Sato Y, Smith RJ, Bauman NM, Nerad J. Causes of facial swelling in pediatric patients: Correlation of clinical and radiologic findings, Radiographics. 2006;26:157-71.
- Fernandes R, Nikitakis NG, Pazoki A, Ord RA. Osteogenic sarcoma of the jaw: a 10-year experience. J Oral Maxillofac Surg. 2007;65:1286-91.

Ευχαριστούμε την οδοντίατρο κ. Εντέλλα Καλογέρη, M.Sc. για την παραπομπή του περιστατικού.

Διεύθυνση για ανάτυπα:

Νικόλαος Νικητάκης
Επίκουρος Καθηγητής Στοματολογίας
Οδοντιατρική Σχολή ΕΚΠΑ
Θηβών 2, Γουδί 11527
Τηλ. 210 746 1003 – 693 9008507
FAX 210 746 1220