

NECROSE EM MAXILA DE PACIENTE PEDIÁTRICO POR ACTINOMYCES

MAXILLARY NECROSIS IN A PEDIATRIC PATIENT BY ACTINOMYCES

LEONARDO VITOR MAGRI^{1*}, ISABELA GOMES DE SENA RIBEIRO¹, AGNALDO ROCHA PRATA JUNIOR¹, JOAO ANDERVAL GREGORIO¹, LUCAS TEIXEIRA BRITO²

1. Cirurgião-Dentista, Residente do Serviço de Cirurgia e Traumatologia Bucocomaxilofacial do Hospital Estadual de Urgências Governador Otávio Lage de Siqueira (HUGOL), Goiânia, GO, Brasil; 2. Cirurgião-Dentista, Especialista em Cirurgia e Traumatologia Buco-maxilo-facial, Preceptor da Residência em Cirurgia e Traumatologia Bucocomaxilofacial do Hospital Estadual de Urgências Governador Otávio Lage de Siqueira (HUGOL), Goiânia, GO, Brasil.

* Hospital Estadual de Urgências Governador Otávio Lage de Siqueira (HUGOL), Serviço de Cirurgia e Traumatologia Bucocomaxilofacial, Avenida Anhanguera, 14.527, St. Santos Dumont, Goiânia, Goiás, Brasil. CEP: 74463-350. leonardovitor.magri@gmail.com

Recebido em 05/11/2022. Aceito para publicação em 20/02/2023

RESUMO

A actinomicose é uma infecção rara, causada por microorganismos do gênero *Actinomyces*. Suas características clínicas mimetizam outros processos infecciosos, o que torna complexo seu diagnóstico e dificulta o êxito do tratamento. O objetivo desse trabalho é relatar um caso de osteomielite decorrente de uma infecção bacteriana, discutir as manifestações clínicas, formas de diagnóstico e tratamento. Trata-se de um estudo descritivo, retrospectivo, qualitativo, feito por meio da técnica da observação direta. Paciente do sexo masculino, leucoderma, 14 anos de idade, hospitalizado com histórico de artrite séptica em quadril com evolução para choque séptico, desnutrição e lesão escranquiada em região de rebordo alveolar vestibular de maxila unilateral. Após identificação da lesão intraoral oral foi solicitado avaliação do serviço de cirurgia bucomaxilofacial. Ao exame físico, observou-se necrose de região anterior de maxila à esquerda, associada aos dentes 21, 22 e 23, com exposição óssea, bordas eritematosas, mobilidade dentária dos elementos associados grau 2 de miller, gengivite associada ao segundo sextante e teste de vitalidade pulpar negativo do 22 e 23. Solicitado de antemão uma tomografia computadorizada de face, a qual revelou áreas de sequestros ósseos, em região de osso alveolar. O tratamento preconizado foi a exérese da área hiperdensa e elementos associados, associado ao esquema de antibioticoterapia empírica. A avaliação histopatológica confirmou o processo infeccioso associado a colônias de bactérias *Actinomyces* sp. O paciente teve como desfecho a completa remissão do processo infeccioso. Desta forma, a confirmação histopatológica do material coletado é ferramenta indispensável para o rápido diagnóstico e tratamento efetivo, promovido pela associação terapêutica medicamentosa adequada. Tendo em vista que a actinomicose faz diagnóstico diferencial com diversas neoplasias e infecções de alta agressividade.

PALAVRAS-CHAVE: Actinomyces, necrose maxilar; osteomielite crônica pediátrica.

ABSTRACT

Actinomycosis is a rare infection caused by microorganisms of the genus *Actinomyces*. Its clinical characteristics mimic other infectious processes, which makes its diagnosis complex and makes successful treatment difficult. The objective of this

work is to report a case of osteomyelitis resulting from a bacterial infection, to discuss the clinical manifestations, forms of diagnosis and treatment. This is a descriptive, retrospective, qualitative study carried out using the technique of direct observation. Male patient, Caucasian, 14 years old, hospitalized with a history of septic arthritis in the hip with evolution to septic shock, malnutrition and a cranial lesion in the region of the vestibular alveolar ridge of the unilateral maxilla. After identifying the oral intraoral lesion, an evaluation by the oral and maxillofacial surgery service was requested. Physical examination showed necrosis of the anterior region of the left maxilla, associated with teeth 21, 22 and 23, with bone exposure, erythematous edges, tooth mobility of the associated elements Miller grade 2, gingivitis associated with the second sextant and vitality test. negative pulp from 22 and 23. Beforehand, a computed tomography scan of the face was requested, which revealed areas of bone sequestration in the alveolar bone region. The recommended treatment was excision of the hyperdense area and associated elements, associated with an empirical antibiotic therapy regimen. Histopathological evaluation confirmed the infectious process associated with colonies of *Actinomyces* sp. The patient's outcome was complete remission of the infectious process. Thus, histopathological confirmation of the material collected is an indispensable tool for rapid diagnosis and effective treatment, promoted by the appropriate drug therapy association. Considering that actinomycosis makes a differential diagnosis with several neoplasms and highly aggressive infections.

KEYWORDS: Actinomyces, maxillary necrosis, pediatric chronic osteomyelitis.

1. INTRODUÇÃO

A actinomicose dos maxilares é uma infecção relativamente incomum que pode mimetizar processos neoplásicos e infecciosos agressivos. A principal causa da actinomicose cervicofacial é a *Actinomyces israelii*. No entanto, *Actinomyces naeslundii*, *Actinomyces viscosus* e *Actinomyces odontolyticus* são ocasionalmente identificados e achados comuns da microbiota intraoral¹. *Actinomyces* ocasiona desenvolvimento de lesões crônicas, de crescimento e infiltração lento, particularmente quando normais barreiras mucosas são rompidas por trauma, cirurgia ou

infecção anterior.

A infecção é classicamente descrita como um edema submandibular crônico, mas tem sido documentada em várias regiões da cabeça e pescoço^{2,3}. A actinomicose pode manifestar dor, febre e perda de peso e pode ser diagnosticada erroneamente como outras doenças granulomatosas ou malignidades^{2,4}. As infecções podem ser complicadas pelo acometimento dos seios da face, pelo desenvolvimento de osteomielite regional localizada e bacteremia disseminada. Envolvimento do osso é raro e muita das vezes é resultado de outras comorbidades associadas que comprometem o sistema imune do hospedeiro. A infecção geralmente progride diretamente para os tecidos adjacentes. Ao contrário de outras infecções, a actinomicose não segue os planos anatômicos usuais, mas os atravessa e se torna um “pseudotumor” lobular.

A osteomielite crônica da maxila por *actinomyces* sp. é relativamente rara quando comparada à mandíbula, provavelmente devido à abundante circulação sanguínea que proporciona maior oferta de oxigênio e nutrientes^{5,6}. Por se tratar de um sítio pouco acometido, a actinomicose primária na maxila com envolvimento da mucosa alveolar maxilar possui inúmeras apresentações clínicas a depender da disseminação para tecidos adjacentes. É uma doença potencialmente benigna e completamente curável, mas se não for detectada precocemente, tem a propensão de causar danos extensos.

O processo de substituição granulomatosa leva ao acúmulo de espículas ósseas em vez de destruição lítica completa do osso. Processo compatível com osteomielite esclerosante, mimetizando tumores ósseos⁷. Marx et al. descreveram uma forma mais refratária de osteomielite esclerosante difusa crônica produzida por *Actinomyces* juntamente com outros organismos fastidiosos como *Eikenella* e *Arachnia*.; a qual possui predileção 2:1 por mulheres e um curso médio de quase 5 anos antes do diagnóstico⁸.

Actinomicose na maxila é responsável por apenas 0,5-9% de todos os casos de cabeça e pescoço^{5,6}. Embora o mecanismo patológico da osteomielite actinomicótica não seja claro, sugere-se que a inflamação comece quando a composição normal da microbiota oral é perturbada e a inflamação crônica leva a alterações patológicas localizadas no osso.

Assim, o presente estudo tem como objetivo relatar um caso de um paciente pediátrico acometido por osteomielite associada à *Actinomyces* sp. em área estética de maxila, bem como discutir as manifestações clínicas, formas de diagnóstico e tratamento.

2. RELATO DE CASO

Paciente do sexo masculino, leucoderma, 14 anos de idade, compareceu ao serviço de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Estadual de Urgências Governador Otávio Lage de Siqueira na cidade de Goiânia, Goiás, Brasil, com queixa principal dor espontânea em região de lesão

esbranquiçada em maxila. Durante a anamnese, o paciente relatou apresentar secreção purulenta prévia em região acometida do osso maxilar. Quanto ao histórico prévio hospitalar, o paciente portava artrite séptica em região de quadril, a qual evoluiu para choque séptico associado ao quadro de desnutrição. Não foi relatado demais alterações sistêmicas e uso de medicações contínuas.

Ao exame físico (Figura 1) observou-se necrose de região anterior de maxila à esquerda, com envolvimento dos dentes 21, 22 e 23, áreas de exposição óssea, bordas eritematosas, mobilidade dentária dos elementos associados grau 2 de miller, gengivite associada ao segundo sextante e teste de vitalidade pulpar negativo dos elementos 22 e 23. Entretanto, notou-se ausência de drenagem de secreção purulenta ativa, mucosas adjacentes íntegras e normocoradas e ausência de sintomatologia dolorosa à palpação local.



Figura 1. Aspecto intraoral pré-operatório

Foram solicitadas Tomografias Computadorizada de Face (Figura 2), onde revelou-se formação de uma área hiperdensa, bem delimitada, circunscrita por área hipodensa com aparente perda de estrutura óssea no alvéolo da região dos elementos 21, 22 e 23, compatível com as características de sequestros ósseos.

O paciente foi internado no dia 0, tratado inicialmente com clindamicina e oxacilina devido a queixa de dor, febre e limitação do movimento no quadril direito. A tomografia de pelve e abdome revelou presença de líquido em articulação coxofemoral à direita com intenso realce sinovial sugestivos de piodartrite.

Mediante ao quadro clínico geral, as hipóteses diagnósticas levantadas foram de: Choque séptico associado ao quadro de Piodartrite Tropical; Artrite séptica de quadril Estafilococcia; Injúria renal aguda; Lesão por pressão em região sacral e occipital; Pneumonia necrotizante; Actinomicose associada à osteomielite crônica; Imunodeficiência. No dia 2, foi realizada artrotomia de quadril direito, sem intercorrências.

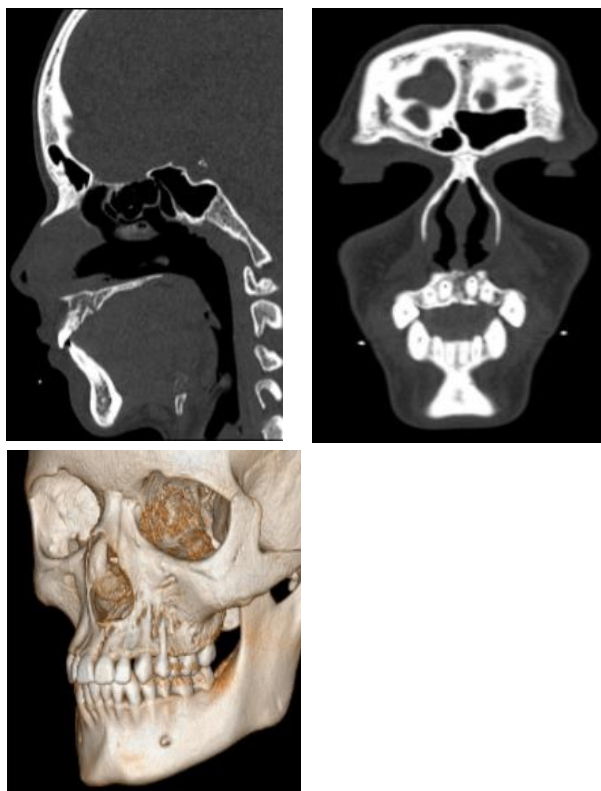


Figura 2. Exames de imagens pré-operatório (Tomografia computadorizada de face: corte sagital, coronal e reconstrução tridimensional, respectivamente).

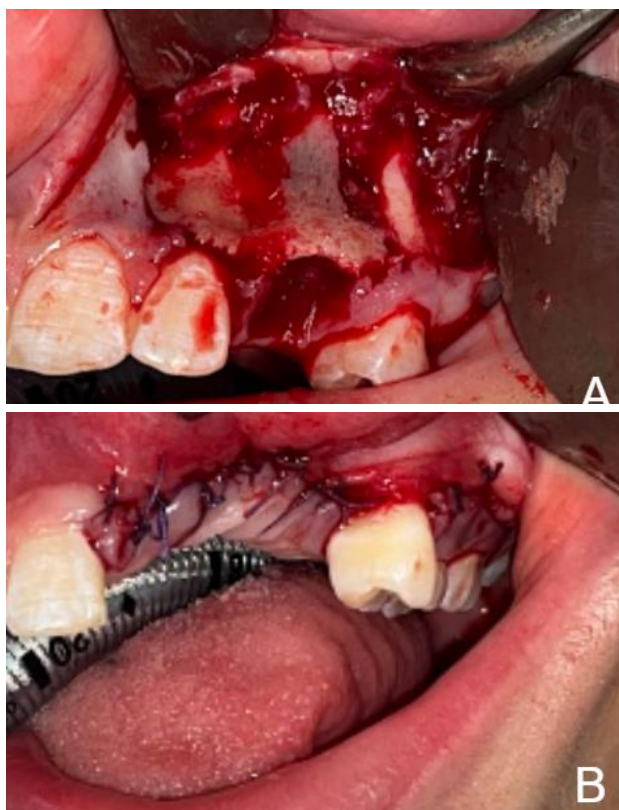


Figura 3. A: Aspecto intra oral após rebatimento de retalho de espessura total, evidenciando área de osso desvitalizado B: Aspecto intra oral após exérese de elementos comprometidos, curetagem, regularização óssea e síntese com Vicryl 4-0.

Frente a lesão em rebordo maxilar, sob anestesia geral balanceada, foi realizado no dia 14 procedimento cirúrgico de exérese da área de sequestro ósseo, curetagem e regularização final das arestas e espículas ósseas remanescentes com brocas de desgaste e micromotor (Figura 3).

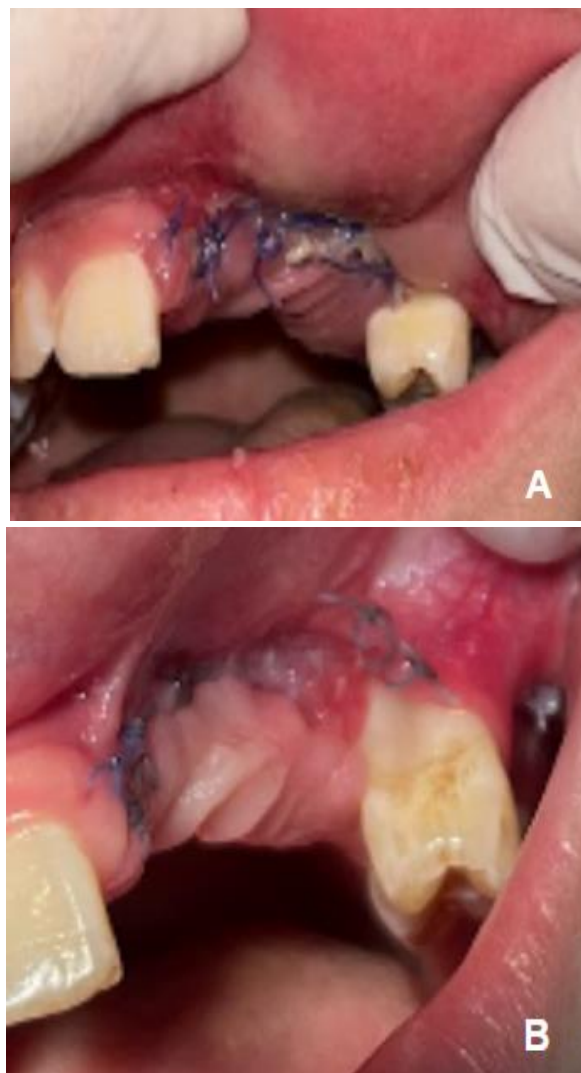


Figura 4. A: Aspecto intra oral pós operatório com 3 dias. B: Aspecto intra oral Pós operatório com 40 dias

A peça cirúrgica óssea associada aos elementos dentários acometidos foram armazenados em formol à 10% e enviados para análise histopatológica sob método de coloração: HE + FITE + PAS. Microscopicamente, observou-se trabeculado ósseo esponjoso que exibe osteomielite crônica granulomatosa, contendo células gigantes multinucleadas englobando grãos de actinomyces. No dia 25 foi confirmado o diagnóstico de Osteonecrose maxilar por actinomyces. Desse modo, no mesmo dia, a equipe de infectologia manteve o regime antimicrobiano inicial até a alta hospitalar ocorrida no dia 37.

No dia 17, o paciente evolui com quadro de deiscência e aspecto secreto purulento do sítio oral (Figura 4A). Dessa forma, cuidados com higiene oral foram reforçados e adicionados a rotina terapêutica prescrita o uso de gel de clorexidina 2%, duas vezes ao dia por 14 dias.

Com 40 dias pós-operatórios o paciente retornou para avaliação, não apresentando mais queixas. Ao exame físico foi observado padrão de cicatrização satisfatório visto ao quadro de deiscência previamente controlado (Figura 4B).

A tomografia computadorizada de face pós-operatória de controle com 40 dias apresentou início de formação óssea no local acometido pela lesão. O paciente continuou sendo acompanhado por mais 5 meses para verificar a completa remissão do caso.

3. DISCUSSÃO

Osteomielite actinomicótica resultante de origem hematogênica é raramente relatada, e a maioria dos casos ocorre em crianças ou pacientes imunocomprometidos que apresentam fatores predisponentes. No entanto, um pequeno número de casos de osteomielite actinomicótica na parte inferior das pernas de pessoas saudáveis, especialmente nos ossos longos, foi relatado⁹. Aspectos clínicos variáveis levam à confusão diagnóstica, pode mimetizar malignidade e resultar em terapia tardia. A osteomielite do osso longo é geralmente atribuída à disseminação hematogênica, trauma ou presença de um dispositivo protético^{9,10}. Dessa forma, o caso relatado assemelha-se às características comuns da literatura, defendendo a hipótese da disseminação hematogênica facilitada pelo quadro de imunodeficiência instalado.

A osteomielite anaeróbica geralmente é rara e tipicamente relatada em pacientes com uma doença crônica subjacente ou após uma fratura óssea complicada^{9,11}. Esses casos geralmente se apresentam sem disseminação hematogênica. O paciente relatado não possuía fonte de infecção específica ou doença predisponente, além de um quadro de gengivite e imunossupressão. Dessa forma, a hipótese de surgimento foi que higiene oral precária do sextante, a qual resultou na semeadura hematogênica de *Actinomyces* para um local distante, evoluindo para instalação do quadro de osteomielite.

Ao contrário da osteomielite dos ossos longos, onde os procedimentos cirúrgicos se restringem ao mínimo para a obtenção do diagnóstico e, em alguns casos, dos maxilares possuem indicações de cirurgias mais amplas, passando pela remoção dos sequestros ósseos, tecido infectado que não respondeu satisfatoriamente ao

tratamento medicamentoso, em pacientes com edema intenso e contagens elevadas de leucócitos¹².

A presença de microorganismos anaeróbios mistos na maioria dos casos, necessita de desbridamento cirúrgico para eliminar áreas de baixo potencial de óxido-redução que acabam por proteger os patógenos. Dessa forma, através da drenagem do conteúdo séptico, uma melhor distribuição da droga antimicrobiana na área infectada. Com a remissão da dor, edema e febre, o paciente pode vir a utilizar drogas antimicrobianas por via oral, o que também depende da capacidade do paciente em aderir satisfatoriamente ao tratamento por via oral¹³.

O desbridamento cirúrgico, em conjunto com antibioticoterapia prolongada (6-12 meses), é o plano terapêutico mais utilizado na literatura e é recomendado para lesões congênitas que se tornaram infectadas secundariamente. A terapia para osteomielite acaba sendo tipicamente mais longa do que para infecção não complicada¹⁴. Tetraciclina, eritromicina, clindamicina ou cefalosporinas de terceira geração também podem ser usadas, principalmente nos casos em que o paciente tem alergia à penicilina¹⁵. Como evidenciado no relato foi de grande eficácia o uso da oxacilina, um antibiótico pertencente ao grupo das penicilinas resistentes à betalactamase e penicilinase estafilocócica. A associação com a clindamicina revelou bom prognóstico, devido sua promessa de alta biodisponibilidade em tecidos ósseos acometidos.

4. CONCLUSÃO

Em conclusão, dois achados interessantes emergem deste relato de caso. Em primeiro lugar, uma abordagem de tratamento multimodal de longo prazo, que consiste em terapia medicamentosa combinada (oxacilina + clindamicina) e desbridamento cirúrgico oportuno, pode levar a uma melhora no quadro clínico geral e no resultado a longo prazo.

Em segundo lugar, o relato de caso destaca a natureza complexa do manejo da doença fúngica invasiva em pacientes afetados por várias condições crônicas concomitantes, como é frequentemente o caso em pacientes pediátricos subnutridos.

5. REFERÊNCIAS

- [1] Sezer B, Akdeni, BG, Günbay S, Hilmioğlu-Polat S, Başdemir G. Actinomycosis osteomyelitis of the jaws: Report of four cases and a review of the literature. *Journal of Dental Sciences*. 2017; 12(3):301–307. doi:10.1016/j.jds.2013.02.031
- [2] Gandhi K., van der Woerd, BD, Graham ME, Barton M., Strychowski JE. Cervicofacial Actinomycosis in the Pediatric Population: Presentation and Management. *Annals of Otology, Rhinology & Laryngology*, 000348942110212. doi:10.1177/00034894211021273

- [3] Boyanova L, Kolarov R, Mateva L, Markovska R, Mitov I. Actinomycosis: a frequently forgotten disease. *Future microbiol.* 2015; 10(4):613-628.
- [4] Varghese BT, Sebastian P, Ramachandran K, Pandey M. Actinomycosis of the parotid masquerading as malignant neoplasm. *BMC Cancer.* 2004; 4:7.
- [5] Gannepalli, A., Ayinampudi, B. K., Baghirath, P. V., & Reddy, G. V. Actinomycotic Osteomyelitis of Maxilla Presenting as Oroantral Fistula: A Rare Case Report. *Case Reports in Dentistry.* 2015; 1–5. doi:10.1155/2015/689240
- [6] T. Crossman, J. Herold. Actinomycosis of the maxilla—a case report of a rare oral infection presenting in general dental practice. *British Dental Journal*, vol. 206, no. 4, pp. 201–202, 2009.
- [7] M Miller, AJ Haddad. Cervicofacial actinomycosis—review. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontics.* 1988; 85(5):496–508.
- [8] Marx RE, Carlson ER, Smith BR, Toraya N. Isolation of *Actinomyces* species and *Eikenella corrodens* from patients with chronic diffuse sclerosing osteomyelitis. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery.* 1994; 52(1):26–33.
- [9] Ryu DJ, Jeon YS, Kwon HY, Choi SJ, Roh TH, Kim MK. Actinomycotic osteomyelitis of a long bone in an immunocompetent adult: a case report and literature review. *BMC Musculoskeletal Disorders.* 2019; 20(1). doi:10.1186/s12891-019-2576-2
- [10] Brook I, Frazier EH. Anaerobic osteomyelitis and arthritis in a military hospital: a 10-year experience. *Am J Med.* 1993; 94(1):21–8.
- [11] Walter G, Vernier M, Pinelli PO, Million M, Coulange M, Seng P, *et al.* Bone and joint infections due to anaerobic bacteria: an analysis of 61 cases and review of the literature. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis.* 2014; 33:1355–64.
- [12] Brook I. Actinomycosis: diagnosis and management. *Southern Med. J.* 2008; 101(10):1019-1023.
- [13] Brook, I. Microbiology and management of joint and bone infections due to anaerobic bacteria. *J. Orthop. Sci.* 2008; 13:160-9.
- [14] Robinson JL, Vaudry WL, Dobrovolsky W. Actinomycosis presenting as osteomyelitis in the pediatric population. *Pediatr Infect Dis J.* 2005; 24(4):365-369.
- [15] Lerner PI. Susceptibility of pathogenic actinomycetes to antimicrobial compounds. *Antimicrob Agents Chemother.* 1974; 5(3):302-309.