

OSTEOMIELITE COM PERIOSTITE PROLIFERATIVA EM  
PACIENTE PEDIÁTRICO: RELATO DE CASO

## Osteomyelitis with proliferative periostitis in a pediatric patient: case report

<sup>1</sup>Thalles moreira Suassuna; <sup>2</sup>Maria Taywri Almeida Costa; <sup>3</sup>Fábio Andrey da Costa Araújo;  
<sup>4</sup>Salvador de Oliveira Brandão Neto; <sup>5</sup>Jorge Luis Pagliarini; <sup>6</sup>Jhemisson mathews e Silva Carneiro;  
<sup>7</sup>Giovanna Luise Amorim de Oliveira; <sup>8</sup>Everson Matos Batista;  
<sup>9</sup>Brenda Lourenço Martins; <sup>10</sup>Luiza miranda dos Santos; <sup>11</sup>Waléria Pinheiro De Araújo  
<sup>12</sup>Ivaniro Rodrigues da Costa Neto; <sup>13</sup>Rodolfo José Gomes de Araújo

## RESUMO

Introdução: Osteomielite é um processo inflamatório agudo ou crônico nos espaços medulares ou nas superfícies corticais do osso, sendo a infecção bacteriana a principal causa para a sua manifestação. A Osteomielite com Periostite Proliferativa (OPP) é um tipo de osteomielite que é causada por infecção e irritação leve e contínua, levando a proliferação reacional do periosteio. Objetivo: Relatar um caso de OPP em paciente pediátrico e discutir os principais aspectos diagnósticos e terapêuticos. Relato de caso: Paciente RSL, nove anos e gênero feminino, que apresentava aumento de volume endurecido e indolor na região de corpo mandibular direito com um a dois anos de evolução. Biópsia, remoção da causa, osteoplastia e acompanhamento foram instituídos para tratar o caso. Análise histopatológica confirmou o diagnóstico de OPP. Conclusão: A biópsia da lesão é essencial para conclusão do diagnóstico, e a remoção da fonte infecciosa fundamental para o sucesso do tratamento.

**Palavras-chave:** Osteomielite; Mandíbula; Criança.

## ABSTRACT

Introduction: Osteomyelitis is an acute or chronic inflammatory process in the medullary spaces or cortical surfaces of the bone, with bacterial infection being the main cause for its manifestation. Osteomyelitis with Proliferative Periostitis (PPO) is a type of osteomyelitis that is caused by infection and mild and continuous irritation, leading to reactional proliferation of the periosteum. Objective: To report a case of PPO in a pediatric patient and discuss the main diagnostic and therapeutic aspects. Case report: Patient RSL, nine years old and female, who presented with a hard and painless increase in volume in the region of the right mandibular body with one to two years of evolution. Biopsy, removal of the cause, osteoplasty and follow-up were instituted to treat the case. Histopathological analysis confirmed the diagnosis of OPP. Conclusion: A biopsy of the lesion is essential to conclude the diagnosis, and the removal of the infectious source is fundamental to the success of the treatment.

**Keywords:** Osteomyelitis; Jaw; Child

1. Faculdade de Odontologia de Pernambuco - UPE
2. Universidade da Amazônia (UNAMA), Ananindeua – PA
3. Faculdade de Odontologia de Pernambuco - UPE
4. Universidade Tiradentes – Aracaju- SE
5. Universidade da Amazônia (UNAMA), Ananindeua – PA
6. Universidade da Amazônia (UNAMA), Belém – PA
7. Universidade da Amazônia (UNAMA), Ananindeua – PA
8. Faculdade Faci Wyden- PA
9. Universidade de Nova Iguaçu em Itaperuna -RJ.
10. Universidade da Amazônia (UNAMA)- PA

## Autor de correspondência

Maria Taywri Almeida Costa - taywrialmeida12@gmail.com

## INTRODUÇÃO

A osteomielite é um processo inflamatório agudo ou crônico nos espaços medulares ou nas superfícies corticais do osso, sendo a infecção bacteriana a principal causa para sua manifestação. É uma condição incomum encontrada na prática clínica oral e é considerada um desafio em termos de diagnóstico e tratamento<sup>1</sup>.

O termo osteomielite tem sido utilizado para abranger uma ampla variedade de patologias como a osteomielite supurativa aguda ou crônica, osteomielite esclerosante difusa ou focal, osteomielite crônica primária e Osteomielite com Periostite Proliferativa (OPP). Mas estas entidades apresentam comportamentos clínicos e necessidades de tratamento bem diferenciadas<sup>1,2</sup>.

A OPP é um tipo de osteomielite que é causada por infecção e irritação leve. É mais comum em pacientes jovens devido ao alto número de osteoblastos no periósteo deste grupo e a ocorrência é maior na porção lateral da mandíbula devido à natureza relativamente avascular do osso cortical denso<sup>2</sup>.

Tal condição foi primeiramente descrita por Karl Garrè em 1983, e desde então vários outros termos têm sido usados para descrever essa reação do periósteo: Osteomielite de Garrè, periostite ossificante, periostite ossificante não supurativa e ossificação perimandibular<sup>3</sup>.

Os fatores etiológicos mais comuns são extração dental, erupção dentária, inflamação periapical associada às cáries, infecção periodontal, fraturas e infecções não odontogênicas<sup>4</sup>.

Clinicamente os pacientes podem apresentar um aumento de volume na mandíbula, fixo e duro à palpação, assimetria facial evidente, linfadenopatia regional ou não, ausência de supuração, trismo e até mal-estar<sup>5,6</sup>. Os achados radiográficos podem exibir imagens camadas de lâminas de osso paralelas entre si ou organização radial na superfície da porção envolvida, dando um aspecto característico de “casca de cebola”, além de áreas radiolúcidas de sequestro ósseo ao longo do trajeto infeccioso. Pode-se destacar uma zona radiotransparente de tecido mole entre a cortical óssea original e o osso reativo recém-formado<sup>7</sup>.

Histologicamente ela se apresenta com fileiras paralelas de osso trabecular reacional e altamente celular, com o trabeculado muitas vezes no sentido perpendicular à superfície e rico em fibras colágenas<sup>1</sup>, com uma extensa proliferação de novo osso subperiosteal interposto ao estroma<sup>6</sup>. Um discreto infiltrado inflamatório linfocitário pode estar presente, além de uma massa supracortical e subperiosteal composta por tecido reativo neoformado com aparência osteóide, identificando-se osteoblastos circundando essas trabéculas.<sup>5</sup> Está presente algumas áreas de sequestro ósseo.<sup>1</sup>

O diagnóstico diferencial da OPP pode incluir: Displasia Fibrosa Monostótica, Hematoma Calcificante, Exostose, Hiperostose Cortical Infantil, Osteoma, Sarcoma de Ewing e Sarcoma Osteogênico<sup>8</sup>.

O tratamento dessa patologia possui certa controvérsia, mas a forma de intervenção básica envolve a eliminação da origem da infecção<sup>9</sup>.

O presente trabalho tem por objetivo relatar um caso de Osteomielite com Periostite Proliferativa em uma criança de nove anos de idade com envolvimento mandibular e discutir os principais aspectos diagnósticos e terapêuticos.

## RELATO DE CASO

Paciente RSL, gênero feminino, nove anos, cor parda, apresentando aumento de volume na região de corpo mandibular direito com um a dois anos de evolução conhecida. Não

referia dores, possuía história de asma na primeira infância e havia relatos de câncer na família.

Clinicamente havia assimetria facial na região de terço inferior da face devido ao importante abaulamento do corpo mandibular direito, que era mais saliente para vestibular e inferior. À inspeção intra-oral notamos dentição mista com o elemento 46 com extensa destruição coronária por cárie (Figura 1). À palpação, a tumoração era de consistência endurecida, fixa e indolor à palpação. No lado direito da face da paciente havia uma extensa mancha mais escura que a pele da paciente, sem hiperpigmentações.



Fig. 1: A) Paciente na primeira consulta apresentando assimetria facial com aumento de volume endurecido no lado direito. B) Abaulamento ósseo no vestibular. Observe foco infeccioso dentário no elemento 46.

Exame de imagem (inicialmente Rx panorâmico) mostrava osso da região com ligeira alteração do trabeculado e densidade, devido à sobreposição, o que conferia um aspecto de osso displásico. Cortes axiais da Tomografia

Computadorizada evidenciavam proliferação de camadas de tecido mineralizado na superfície. Era visível presença de patologia periapical no entorno do ápice do elemento 46 e formação de trajeto radiolúcido dentro da lesão óssea (Figura 2).

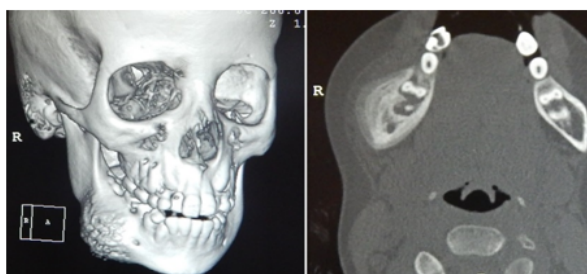


Fig. 2: A) Imagem tomográfica em reconstrução tridimensional evidenciando crescimento ósseo importante e bem delimitado na face vestibular direita da mandíbula. B) Corte axial mostrando deposição óssea em camadas semelhante a "casca de cebola". Observe hipodensidade circundando o elemento dental envolvido.

Foi instituído tratamento cirúrgico para a mesma, com o intuito não de ressecar a lesão, mas principalmente de realizar biópsia e remover o foco infeccioso. Através da abordagem intra-oral a lesão foi acessada. Removeu-se os restos radiculares do elemento 46, curetagem da lesão periapical, remoção de quantidade suficiente da

lesão para análise microscópica e leve osteoplastia na porção vestibular, até onde o acesso permitiu. Não foi identificado plano de clivagem entre o excesso de osso e o original. Macroscopicamente este era poroso e menos endurecido em relação ao osso normal (Figura 3).

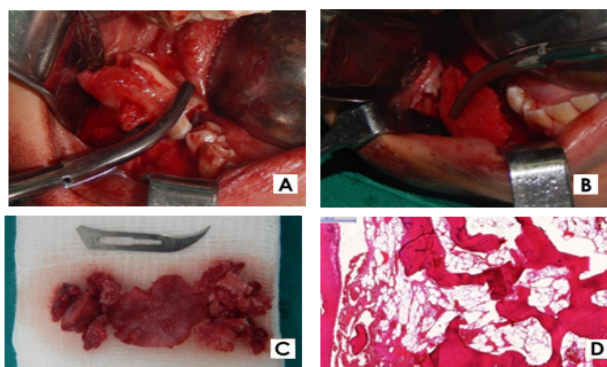


Fig. 3: A) Trans-operatório de remoção do elemento dental e curetagem do alvéolo. B) Remoção de material para biópsia. C) Material da lesão removido. D) Fotomicrografia exibindo trabéculas ósseas maduras formando uma malha interconectada e uma cortical densa. Há osteoblastos na periferia e entre as trabéculas, observa-se tecido conjuntivo fibroso.

Laudo histopatológico apontou essas trabéculas, observou-se tecido conjuntivo fibroso. Este quadro concluiu o diagnóstico de OPP (Figura 4)

Laudo histopatológico apontou essas trabéculas, observou-se tecido conjuntivo fibroso. Este quadro concluiu o diagnóstico de OPP (Figura 4)

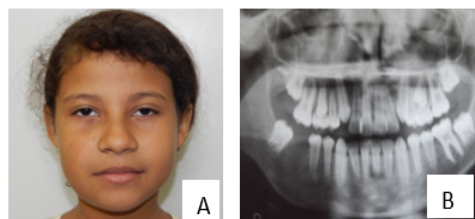


Fig. 4: A) Aspecto pós-operatório de um ano após a remoção da causa e biópsia da lesão. B) Rx Panorâmico apontando hígidez óssea e remodelação na região que possuía a lesão

Diante do diagnóstico optou-se pelo acompanhamento, sem indicação de nova abordagem ou uso contínuo de antibióticos, visto que a provável fonte de infecção foi removida e era esperada a regressão da lesão. Atualmente a mesma se encontra em acompanhamento pós-operatório de um ano e meio e evidencia-se lenta remodelação e regressão do aumento de volume ósseo (Figura 5)

## DISCUSSÃO

A OPP é uma entidade patológica bem relatada, no entanto o mecanismo da proliferação periosteal ainda é alvo de estudos. Acredita-se que seja causada pela inflamação persistente de baixa intensidade e por tentativa de isolamento da lesão por parte do organismo<sup>11</sup>.

Tommasi et al. (1982) relata algumas justificativas para a proliferação periosteal: a

virulência do microrganismo, que costuma ser baixa, e a resistência tecidual alta. Dessa forma, o periósteo estimulado intensifica a deposição de osso neoformado. Nos jovens, o periósteo está mais ativo e pode reagir à infecção por microrganismos aumentando a atividade osteoblástica e a deposição de novo tecido ósseo. E pode-se enfatizar também o alto potencial de resposta defensiva nessa faixa etária. Nos processos inflamatórios ósseos tanto a atividade osteoclástica como a osteoblástica estão aumentadas, podendo assim ocorrer a sobreposição de um processo sobre o outro, no qual a predominância de um deles seria de acordo com os fatores individuais<sup>5,10</sup>.

Embora as características clínicas e radiográficas da OPP sejam bastante sugestivas do diagnóstico, deve-se indicar a biópsia para se descartar outras patologias e poder instituir o tratamento com mais segurança. No presente caso, foi indicado a realização de biópsia incisional dado às vastas possibilidades diagnósticas, o histórico familiar da paciente e as manchas que a mesma apresentava na pele da face, o que poderia ser característica de alguma síndrome associada à displasia fibrosa poliostótica.

O tratamento da OPP permanece controverso, principalmente em relação à abordagem cirúrgica ou a administração de medicamentos. O objetivo principal da terapia, independente de qual abordagem seja utilizada, é eliminar a infecção e proporcionar qualidade de vida ao paciente. Caso não tenha a presença

de um dente cariado, deve ser realizada a procura por outra fonte de irritação ou fator etiológico<sup>3</sup>.

A extração do dente infectado ou o tratamento endodôntico do elemento são descritos como métodos de sucesso no tratamento da OPP de origem odontogênica. Então o novo osso é consolidado dentro seis a doze meses depois da eliminação da infecção, e posteriormente, ocorre o processo de remodelação natural influenciado pelas demandas funcionais<sup>9</sup>. Segundo Belli et al. (2002), a osteoplastia é necessária para dar o contorno ao osso afetado apenas se a proliferação periosteal for muito grande e a remodelação para a forma original não acontecer<sup>11,12</sup>. No caso em questão, a osteoplastia (ainda que parcial) foi instituída no mesmo ato operatório da biópsia e remoção do causa infecciosa, para não deixar espículas ósseas e acelerar a resolução do aumento de volume na face da paciente.

Com relação à terapia antimicrobiana, existe controvérsia na literatura. Alguns autores relatam que a terapia antibiótica é sempre necessária para o tratamento das Osteomielites<sup>10</sup>, já outros autores indicam antibioticoterapia apenas quando se tem sintomas e sinais associados, que podem incluir febre, mal-estar, linfadenopatia, trismo, supuração e inchaço rápido de tecido mole, os quais são incomuns na OPP<sup>3</sup>.

Lincoln e Webber (2012) relataram o caso de uma paciente de 17 anos, que apresentava trismo doloroso do lado direito e inchaço na mandíbula havia um mês após a remoção de terceiro molar, cujo diagnóstico histopatológico foi de OPP. O

tratamento instituído foi o uso de amoxicilina e ácido clavulânico (875/125 mg duas vezes ao dia) e uso de analgésico, o que, segundo os autores, foi resolutivo. Os mesmos concluíram que essa modalidade terapêutica é válida em casos em que a morbidade cirúrgica for alta<sup>13</sup>.

Embora esta terapia reduza a quantidade de microrganismos, sem a eliminação da causa, não se elimina completamente a infecção. Pelo contrário, pode prolongar a inflamação e perpetuar o processo<sup>15,16,17</sup>, no caso relatado, os autores não viram indicação de manter terapia antibiótica na paciente além de sete dias pós-operatórios, pois a mesma se encontrava assintomática, com a causa removida e sem infecções ativas.

De uma forma geral, nas osteomielites alguns tratamentos mais agressivos podem ser indicados, como a sequestrectomia, debridamentos, decorticação e saucerização, tais métodos consistem basicamente na remoção de tecido desvitalizado para promover uma maior chegada de aporte sanguíneo para a região e combater melhor a infecção. Estes procedimentos tem a vantagem de encurtar o tempo de uso do antibiótico, pois permitem a penetração deste no osso antes desvitalizado<sup>4</sup>, no entanto essas modalidades não têm se aplicado à OPP, visto que essa patologia tem uma boa resposta ao tratamento menos invasivo.

Terapias adjuvantes podem ser empregadas em alguns casos específicos. Temos como exemplo a terapia com Bifosfonatos, que são drogas anti-reabsortivas que agem especificamente sobre os

osteoclastos, e a Oxigenoterapia Hiperbárica, que consiste na administração de Oxigênio a 100% a uma pressão de 2,4 atm, assim melhorando a oxigenação e cicatrização dos tecidos<sup>18</sup>. Embora a aceitação e utilização de terapias adjuvantes tenham aumentado nos últimos anos, existe controvérsia na literatura atual e falta de qualidade clínica nos estudos, não justificando assim o seu uso nas OPPs.

## CONCLUSÃO

A OPP é uma condição que necessita de intervenção, e a eliminação da causa infecciosa é aceita como a base da terapia. O uso de antibióticos e osteoplastia tem indicações para casos selecionados. Além disso, a biópsia da lesão é essencial para conclusão do diagnóstico.

## REFERÊNCIAS

1. Neville, BW, et al. Patologia Oral & Maxilofacial. 4ª ed. Rio de Janeiro: Elsevier; 2016. 972p.
2. Tommasi AF. Diagnóstico em Patologia Bucal. 4a ed. São Paulo: Artes Médicas, 2014; p. 575.
3. Padwa BL, Dentino K, Robson CD, Woo SB, Kurek K, Resnick CM. Pediatric Chronic Nonbacterial Osteomyelitis of the Jaw: Clinical, Radiograph, and Histopathologic Features. *J Oral Maxillofac Surg.* 2016 Dec;74(12):2393-2402. doi: 10.1016/j.joms.2016.05.021
4. Shah KM, Karagir A, Adaki S. Chronic non-suppurative osteomyelitis with proliferative periostitis or Garre's osteomyelitis. *BMJ Case Rep.* 2013 May 13;2013. doi: 10.1136/bcr-2013-009859.
5. Lincoln TA, Webber SJ. An Extremely Unusual Case of Garre's Osteomyelitis of the Mandibular Condyle After Surgical Removal of Third Molars. *J Oral Maxillofac Surg.* 2012; p. 2748-2751. doi: 10.1016/j.joms.2012.05.032.
6. Chattopadhyay PK, Nagori SA, Thanneermalai B. Osteomyelitis of the Mandibular condyle: a report of 2 cases with review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 2017 Feb;75(2):322-335. doi: 10.1016/j.joms.2016.08.018.
7. Park J, Myoung H. Chronic suppurative osteomyelitis with proliferative periostitis related to a fully impacted third molar germ: a report of two cases. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg.* 2016 Aug;42(4):215-20. doi: 10.5125/jkaoms.2016.42.4.215.

8. Baur DA, Altay MA, Flores-Hidalgo A, Ort Y, Quereshy FA. Chronic osteomyelitis of the mandible: diagnosis and management—an institution's experience over 7 years. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery: Official Journal of the American Association of Oral and Maxillofacial Surgeons* 2015;73(4):655-665. Available from: [https://www.researchgate.net/publication/322579438\\_Chronic\\_Localized\\_Osteomyelitis\\_in\\_an\\_Immunocompetent\\_Patient](https://www.researchgate.net/publication/322579438_Chronic_Localized_Osteomyelitis_in_an_Immunocompetent_Patient) [accessed May 28 2018].
9. Alves RM, Miranda MPA, Dias LM, Lira HM, Xavier FCA, Falcão AFP, et al. Chronic Osteomyelitis With Proliferative Periostitis in a Child: Case Report. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology and Oral Radiology*, February 2014, Vol.117(2), pp.e147-e147. doi: 10.1016/j.oooo.2013.11.078.
10. Tardast A, Sjöman R, Loes S, Abtahi J. Bisphosphonate associated osteomyelitis of the jaw in patients with bony exposure: prevention, a new way of thinking. *J Appl Oral Sci*. 2015 May; p. 310-314. doi: 10.1590/1678-775720140506.
11. Akiyama K, Omori K, Kondok, Kobayashi J, Yoshimura H, Tobita T, et al. Root-end resection for preservation of the causative molar in Garré's osteomyelitis of the mandible: A case report. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery, Medicine, and Pathology* 25. 2013 Mar; p. 139–142. doi: 10.1016/j.ajoms.2012.03.005.
12. Roul-Levy A, Looten V, Bachy M, Carbajal R, Vialle R. Oral Ambulatory Treatment of Acute Osteomyelitis in Children: A Case-Control Study. *Pediatr Emerg Care*. 2016 Mar;32(3):154-6. doi: 10.1097/PEC.0000000000000725.
13. Koorbusch GF, Deatherage JR, Curé JK. How Can We Diagnose and Treat Osteomyelitis of the Jaws as Early as Possible? *Oral Maxillofacial Surg Clin N Am*. 2011; p. 557–567. doi: 10.1016/j.coms.2011.07.011.
14. Fernandes VCS. Osteomielite crônica com periostite proliferativa: Revisão de literatura. Universidade Federal de Minas Gerais. 2012 Jun.
15. Singh D, Subramaniam P, Brayya PD. Periostitis ossificans (Garre's osteomyelitis): Na unusual case. *J Indian Soc Pedod Prev Dent*. 2015 Oct-Dec;33(4):344-6. doi: 10.4103/0970-4388.1657.18
16. Chattopadhyay PK, Nagori SA, Menon RP, Thanneermalai B. Osteomyelitis of the mandibular condyle: A report of 2 cases with review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg*. 2017 Feb;75(2):322-355. doi: 10.1016/j.joms.2016.08.018.
17. Berglund C, Ekströmer K, Abtahi J. Primary Chronic Osteomyelitis of the Jaws in Children: An Update on Pathophysiology, Radiological Findings, Treatment Strategies, and Prospective Analysis of Two Cases. *Case Reports in Dentistry*. 2015 Aug; p. 1-12. doi: 10.1155/2015/152717.
18. Seok H, Kim SG, Song JY. Proliferative periostitis of the mandibular ramus and condyle: a case report. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg*. 2015 Aug;41(4):198-202. doi: 10.5125/jkaoms.2015.41.4.198.

**Observação:** os/(as) autores/(as) declaram não existir conflitos de interesses de qualquer natureza.