

ABSTRACT

Svær infektion i mandiblen hos patient med SAPHO-syndromet

Baggrund – Synovitis, Akne, Pustulose, Hyperostose og Osteitis syndromet (SAPHO) er karakteriseret ved en række inflammatoriske knogle-, led- og hudforandringer. Tilstanden er vigtig at kende for tandlæger, idet de kliniske og radiologiske forandringer i mandiblen kan forveksles med anden inflammatorisk knoglesygdom.

Patienttilfælde – En 43-årig mand blev henvist til Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk afdeling, Hillerød Sygehus, med henblik på behandling af svær infektion i mandiblen. Patienten havde gennem længere tid lidt af psoriasis og haft pussekretion submandibulært. Ortopantomografisk undersøgelse viste sekvestrering af basis mandibulae, og knogleskintigrafi viste aktivitetsophobning i mandiblen, hoften og venstre ankel. Under dække af højdosis antibiotisk behandling blev der i generel anæstesi udført sekvestrektomi. Det postoperative forløb var komplikationsfrit.

Konklusion – Patienter med knoglehævelser i sammenhæng med anden knoglesmerter og/eller kutane læsioner bør udredes klinisk, radiologisk og histologisk under tentativ diagnose SAPHO. Ætiologien anses for benign og inflammatorisk betinget, den funktionelle prognose for patienterne er god, men behandlingen er i dag fortsat livslang.

Inflammatoriske knogle-, led- og hudforandringer

Mette Hørberg, tandlæge, Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk afdeling, Køge Universitetssygehus

Niels Ulrich Hermund, overtandlæge, specialtandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, ph.d., Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk afdeling, Rigshospitalet

Else Marie Pinholt, professor, specialtandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, konsulent, dr.odont., Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk afdeling, Køge Universitetssygehus

En 43-årig mand blev henvist til Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk afdeling, Hillerød Sygehus, fra Øre-, Næse- og Halsafdelingen samme sted med henblik på behandling af svær infektion i mandiblen. Patienten var tidligere diagnosticeret med svær psykiatrisk sygdom, men ellers generelt medicinsk sund. Han havde gennem længere tid haft pussekretion submandibulært, og først da sekretionen blev så kraftig, at det blev socialt belastende, ønskede patienten henvisning til hospital mhp. behandling. Patienten havde ikke tidligere været undersøgt af tandlæge for nærværende symptomer.

Patienttilfælde

Der blev udført klinisk undersøgelse, som foruden fire submandibulære fistelåbninger med aktivt pusflåd viste psoriasislignende hudforandringer. Ortopantomografisk undersøgelse viste sekvestrering af basis mandibulae, og knogleskintigrafi viste aktivitetsophobning i mandiblen, hoften og venstre ankel. Under den tentative diagnose, osteomyelitis acuta, blev patienten sat i højdosis antibiotisk behandling med Zinacef® i.v. og metronidazol. Efterfølgende blev der i generel anæstesi udført sekvestrektomi med submandibulær adgang.

Det postoperative forløb var komplikationsfrit, hvorefter patienten blev henvist til Bispebjerg Hospital, dermatologisk afdeling, med henblik på behandling af svær psoriasis.

[Klinisk beskrivelse fra 2008](#)

Anamnese

Patienten klagede over jævnlig pusafgang fra underkæben, men ingen væsentlige smerter.

EMNEORD

SAPHO syndrome;
synovitis; acne;
pustulosis;
hyperostosis;
osteomyelitis

Objektiv undersøgelse

Patienten havde på store dele af kroppen udbredt, men kun let infiltrerede skællende plak-psoriasis-

Hudmanifestation



Fig. 1a. Psoriasismanifestationer på overkroppen før behandling.

Fig. 1a. Trunkal psoriatic manifestations before treatment.

Præoperativ manifestation inden sekvestektomi



Fig. 1b. Ekstraorale fisteludgange med pus.

Fig. 1b. Extraoral fistulae containing pus.

hudforandringer (Fig. 1a). Der fandtes ingen postulose eller akne.

Ekstraoralt – Let rødmosset ydre med manifestationer af psoriasis. Submentalt og submandibulært fandtes rødme og hævelse uden fluktuation samt multiple fistler med pusafgang (Fig. 1b).

Intraoralt – Gabeevnen var indskrænket til ca. 20 mm interincisalt, hvilket besværliggjorde en sufficient objektiv undersøgelse. Mundslimhinden vurderedes normal, og patienten var fuldt betandet med et tandsæt præget af megen caries. Der blev observeret normale anatomiske forhold uden opdrivning af knoglen facialt eller lingvalt for tænderne, som ikke udviste abnorm mobilitet.

Præoperativ ortopantomografisk undersøgelse

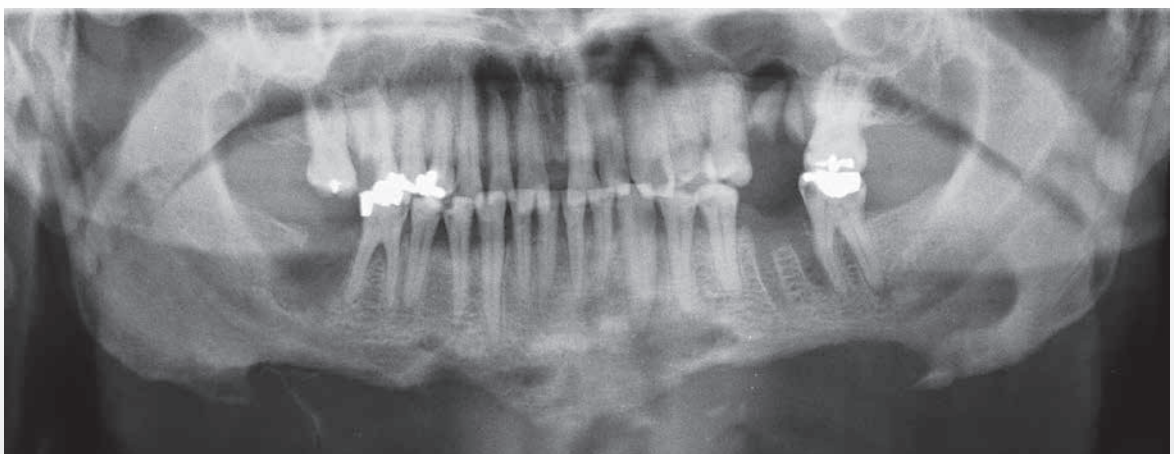


Fig. 2. Rareficerende oplæringer og tydelig sekvestrering langs basis mandibulae regio 7- til -7, dog uden relation til odontologisk fokus.

Fig. 2. Radiolysis and sequestration at the mandibular base between the second molar regions without connection to any odontogenic focus.

Knogleskintigrafi ved henvendelsen i 2008



Fig. 3. Der ses aktivitetsophobning i mandiblen, hofte og venstre ankelregion.

Fig. 3. Scintigraphic increased activity in the mandible, hip and left ankle.

Røntgen

Ortopantomografisk optagelse viste rareficerende forandringer svarende til basis mandibulae, og der sås tydelige tegn på sekvestrering af basis mandibulae uden tegn på patologisk fraktur (Fig. 2). Der blev ligeledes registreret carieslæsioner/superficielt substansstab svarende til 6- og -7. -7 viste tillige en let udvidelse af parodontalspalten uden relation til sekvestre-

Sekvestrektomi



Fig. 4a. Péan ses fæstnet til sekvester.

Fig. 4a. Sequester fixated by clamp

Sekvester

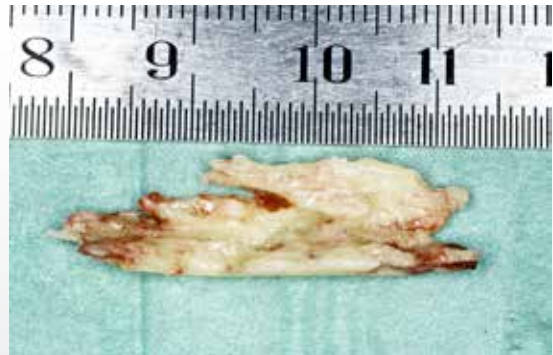


Fig. 4b. 3 cm stort sekvester udtaget fra basis mandibulae.

Fig. 4b. A sequestre three cm in size removed from the base of the mandible.

Sekvestrektomi submentalt



Fig. 5. Status efter sekvestrektomi.

Fig. 5. Situation after sequestrectomy.

Submental cicatrice



Fig. 6. Submental cicatrice uden tegn på recidiv 2 måneder postoperativt.

Fig. 6. Submental scarring without any sign of relapse two month postoperatively.



ringen. Tilsvarende sås profunde carieslæsioner med tilhørende periapikal opklaring i 6+ og +6.

Knogleskintigrafi viste aktivitetssophobning i mandiblen, hoften og venstre ankel (Fig. 3).

Mikrobiologi

Aspiration fra den submentale region viste ingen tegn på hverken aerob eller anaerob vækst.

Tentativ diagnose

Osteomyelitis i mandiblen med sekvesterdannelse.

Behandling

I generel anæstesi blev der ved ekstraoral adgang foretaget fjernelse af den sekvestrerede knogle samt sårtoilette (Fig. 4a, b og 5). Der blev ikke fundet noget tandfokus, hvorfor der ikke blev foretaget tandekstraktioner. I hele forløbet var patienten i antibiotisk behandling med Zinacef® i.v. og metronidazol.

Ligeledes gennemgik patienten sideløbende et udredningsforløb på Rheumatologisk afdeling, Bispebjerg Hospital, med henblik på behandling af sin psoriasis. Patientens hudmanifestationer helede efter otte ugers behandling med Stelara®, som er en injektionsvæske, der administreres fire gange årligt, og der sås ophelelse af knoglen og de kutane fistler uden tegn på recidiv i det submentale område (Fig. 6).

Followup

Patienten blev fulgt to måneder postoperativt i kontrolregi, hvor man konstaterede regression af såvel osteomyelitis som psoriasis (Fig. 6-8). Patienten udeblev efterfølgende fra kon-

KLINISK RELEVANS

Synovitis, Akne, Pustulose, Hyperostose og Osteitis syndromet (SAPHO) er karakteriseret ved en række inflammatoriske knogle-, led- og hudforandringer. Antallet af nye tilfælde i Danmark er ukendt. Sygdommen er velkendt i den medicinske litteratur, hvor det er blevet

anerkendt, at svær infektion i mandiblen kan være en lokal manifestation af SAPHO-syndromet.

Da tandlægen ser patienter til regelmæssige undersøgelser, er det vigtigt at have kendskab til denne tilstand, idet tidlig diagnostik og behandling har betydning for prognosen.

troller og mødte først efter fem år til kontrol, nu på Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk Klinik, Rigshospitalet, og havde i den mellemliggende periode ikke været kontrolleret af tandlæge. Ved denne kontrol havde patienten ingen subjektive gener, og objektivt fandtes hverken ekstra- eller intraorale fistler eller tegn på anden akut infektion (Fig. 9). Patientens tandstatus var dog yderligere forværret, og mange tænder var ekstraktionsmodne (Fig.10). Ortopantomogram og Cone Beam CT-scanning viste apikal parodontitis -4,5 samt yderligere erosion af basis mandibulae (Fig. 10 og 11). Psoriasismanifestationerne var under fortsat behandling med Stelara® med godt resultat og uændret fra to mdr.s kontrol.

2 måneder postoperativt ortopantomografisk undersøgelse

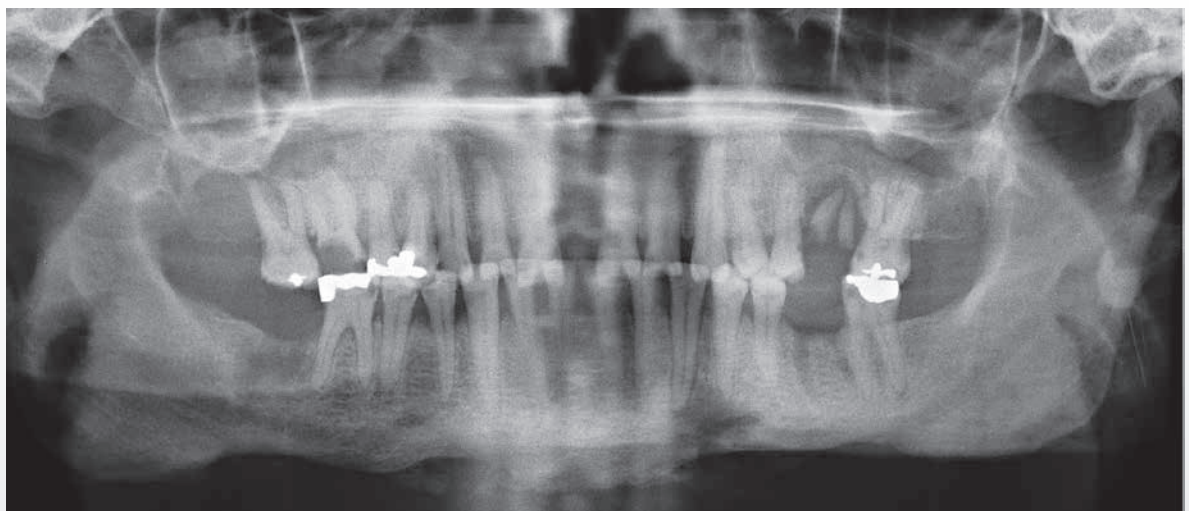


Fig. 7. Her ses en mere ensartet knoglestruktur uden tegn på yderligere sekvesterdannelse.

Fig. 7. This area shows a more normal bonestructure without sign of sequester formation.



Hudmanifestation



Fig. 8. Psoriasismanifestationer på overkroppen efter 2 mdr. behandling med Selara®.

Fig. 8. Trunkal psoriatic manifestations two months after treatment using Stelara®.

Faktaboks

Kliniske tilstande, som indgår i SAPHO-syndromet

Synovitis: Synovitis betyder betændelse i synovialmembranen (synovium) og manifesterer sig typisk som varme, ømhed, smerter, hævelse og stivhed af de involverede led (gigt).

Akne: Akne er en hudlidelse bestående af små inflammære områder med pusdannelse i relation til hårfolliklen. Akne opstår oftest i ansigtet og på øvre rygregion.

Postulose: Postulose er en inflammatorisk hudsygdom, som manifesterer sig som store væskefyldte blister (pustler), typisk på håndfladerne og/eller fodsålerne. Huden afskaller i disse områder (eksfolierer).

Hyperostose: Hyperostose betyder unormal overdreven vækst af knoglen. Ved SAPHO manifesterer hyperostose sig typisk i regioner for senetilhæftning og generelt i brystvæggen.

Osteitis: Osteitis betyder betændelse i knoglen. Ved dette syndrom manifesterer det sig typisk som nakke- og ryg-stivhed.

Diskussion

Patofysiologien bag SAPHO syndromet er vanskelig at fastlægge. Syndromets osteoartikulære manifestationer dækker over et bredt spektrum af tilstande, og diagnosen stilles oftest på baggrund af eksklusion af andre tilstande (1-3).

Såvel histologiske som mikrobiologiske fund kan være non-specifikke (4), og i aktuelle tilfælde viste de mikrobiologiske prøver ingen tegn på anaerob eller aerobe bakteriefund, hvilket muligvis skyldes, at der udelukkende blev podet fra operationsfeltet og ikke udtaget væv til dyrkning.

I herværende patienttilfælde viste knogleskintigrafien intens knogleaktivitet i mandiblen, hoften samt venstre ankel, men kun via supplerende kliniske undersøgelser var det muligt at stille diagnosen SAPHO-syndrom.

Som følge af de uspecifikke fund er samarbejdet mellem kæbekirurger, radiologer, patologer, mikrobiologer og dermatologer vedrørende denne patientgruppe helt afgørende.

Grundet det brede spektrum af kliniske manifestationer og mangel på validerede diagnostiske kriterier anses diagnostik af SAPHO-syndromet at være underestimeret.

Tidlig diagnostik af SAPHO-syndromet er vigtigt for at undgå unødvendige invasive procedurer samt langvarig antibiotikumbehandling, som bl.a. benyttes ved behandling af osteo-artikulære læsioner (5).

Patienter med knoglehævelser i sammenhæng med anden knoglesmerte og/eller kutane læsioner bør udredes såvel klinisk, radiologisk samt histologisk under tentativ diagnose SAPHO. Ætiologien anses for benign og inflammatorisk betinget, den funktionelle prognose for patienterne er god, men behandlingen er i dag fortsat livslang.

Submental cicatrice



Fig. 9. Her ses den submentale cicatrice uden tegn på recidiv 5 år postoperativt.

Fig. 9. Submental scarring five years postoperatively without signs of relaps.

5 år postoperativt ortopantomografisk undersøgelse

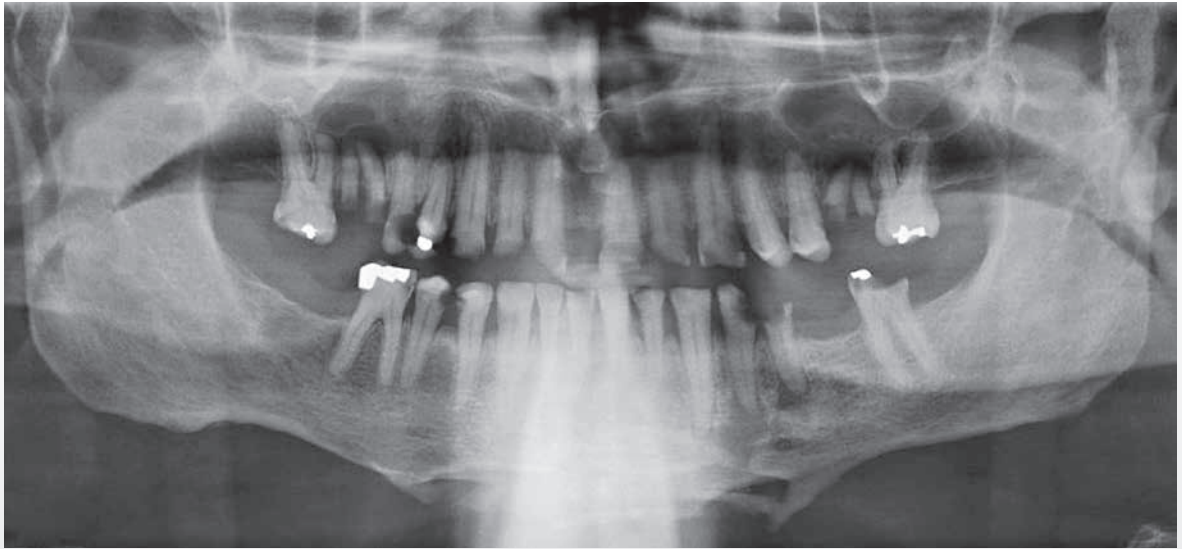


Fig. 10. Der ses apikal parodontitis på -4,5 og yderligere erosion i basis mandibulae.

Fig. 10. Periodontitis apically to the left mandibular premolars and extended erosion at the mandibular base.

Cone Beam CT-scanning ved 5-årskontrol

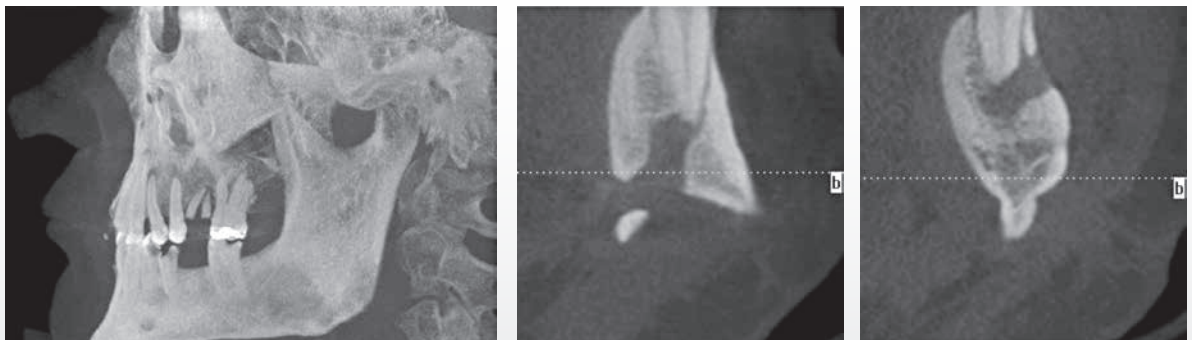


Fig. 11. Erosion og disfiguration af basis mandibulae tillige med apikale forandringer -4,5.

Fig. 11. Erosion and disfiguration at the mandibular base and apical radiolucencies to the left mandibular premolars.

ABSTRACT (ENGLISH)

Inflammatory bone, joint and skin changes

Background – The *Synovitis, Acne, Pustulosis, Hyperostosis and Osteitis syndrome (SAPHO)* is characterized by a variety of inflammatory bone, joint and skin changes. The condition is important for dentists, since the clinical and radiological changes in the mandible, are similar to other inflammatory bone diseases.

Case study – A 43- year-old man was referred to the Oral and Maxillofacial Surgery Department, Hillerød Hospital, for treatment of severe mandibular infection. His medical history included psoriasis and submandibular pus secretion. Orthopantomographic evaluation revealed sequestration of the base of the mandible,

and scintigraphic bone examination showed increased uptake in the mandible, hip and left ankle. Anaesthesia and high dose antibiotic treatment sequestrectomy was performed, the mandible healed uneventful and the post-operative course was without complications.

Conclusion – A patient with bone swelling, in conjunction with other bone pain and / or cutaneous lesions should be evaluated both clinically, radiologically, and histologically under the tentative diagnosis SAPHO. Aetiology is considered benign and inflammatory, the functional prognosis for patients is good, but the treatment is still life long.



Litteratur

1. Nguyen MT, Borchers A, Selmi Cet al. The SAPHO syndrome. Semin Arthritis Rheum 2012;42:254-65.
2. Chamot AM, Kahn MF. [SAPHO syndrome]. Z Rheumatol 1994;53:234-42.
3. Kahn MF, Khan MA. The SAPHO syndrome. Baillieres Clin Rheumatol 1994;8:333-62.
4. Utumi ER, Oliveira Sales MA, Shinohara EH et al. SAPHO syndrome with temporomandibular joint ankylosis: clinical, radiological, histopathological, and therapeutical correlations. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2008;105:e67-72.
5. Zhao Z, Li Y, Li Y et al. Synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis and osteitis (SAPHO) syndrome with review of the relevant published work. J Dermatol 2011;38:155-9.

> Effektiv og omkostningsbevidst service - ring til vores serviceteam!

DDD - dygtige, dynamiske, dedikerede

XO[®] units hos DDD

Nyhed! Vi er nu certificeret XO[®] forhandler

Digital Dental Danmarks sortiment og kompetence udvides markant med tilgang af XO units og tilhørende kendte serviceteknikere. DDD er således det nye stærke XO team i Danmark og 100% klar til at tilbyde de danske tandlæger en

fremragende investering - den nye XO 4 arbejdsplads med 3 års garanti! Kort sagt: EXTRAORDINARY DENTISTRY. Nysgerrig? Ring straks til os, så kommer vi forbi og viser dig alle XO 4 fordelene for netop din klinik!



Jan Bjur 2293 4467



Henrik W Andersen
2293 5417



Søren Andersen
2292 1058

DDD - Fair priser til de danske tandlæger

DIGORA[®] · MINRAY[®] · CRANEX[®] · SCANORA[®]
BWT-HOH · INFORM[®] · W&H[®] · DÜRR DENTAL ·
MELAG · DIGITAL DOC · XO[®] UNITS

Digital Dental Danmark ApS
Tel +45 72 344 233
info@digitaldental.dk
www.digitaldental.dk



Ring 72 344 233 for kompetent rådgivning!