

Anquilose temporomandibular: uma rara manifestação da espondilite anquilosante

Temporomandibular ankylosis: a rare manifestation of ankylosing spondylitis

Belmiro Cavalcanti do Egito VASCONCELOS¹

Ricardo Viana Bessa NOGUEIRA²

Ricardo Wathson Feitosa CARVALHO²

Antonio Azoubel ANTUNES²

RESUMO

Espondilite anquilosante é considerada uma condição crônica do grupo de doenças inflamatórias sistêmicas, de padrão reumático, que acomete os tecidos conectivos, afetando, primariamente, o esqueleto axial, sendo incomum nas articulações periféricas. A doença traz limitações no cotidiano, através da atividade motora reduzida, em virtude da rigidez, comprometendo o estado emocional e a qualidade de vida. Apesar de ser pouco comum a queixa de sintomas na articulação temporomandibular, o envolvimento dessa articulação, em alguns casos, pode ocasionar sintomas graves. Episódios de cefaleia frequentes e de longa duração além de dor maxilar ao movimento de abertura bucal são os sintomas mais frequentes do acometimento temporomandibular. No início da doença, os sintomas são geralmente unilaterais e intermitentes. Conforme a doença avança, estes são mais severos, podendo chegar à rara ocorrência da anquilose temporomandibular. Os primeiros sinais clínicos da anquilose temporomandibular é a limitação dos movimentos mandibulares, sendo essencial o diagnóstico prematuro do acometimento dessa articulação, possibilitando uma abordagem precoce. Este artigo tem como objetivo relatar um caso raro de anquilose da articulação temporomandibular secundária à espondilite anquilosante, abordando seus aspectos clínicos e terapêuticos.

Termos de indexação: Anquilose. Doenças reumáticas. Espondilite anquilosante. Transtornos da articulação temporomandibular.

ABSTRACT

Ankylosing spondylitis is considered to be a chronic condition from the group of systemic inflammatory diseases of rheumatic pattern. It affects connective tissues and particularly the axial skeleton, but it is unusual for it to develop in peripheral joints. It poses limitations to the patients' daily life because of restrictions to motor activity caused by rigidity, thus compromising their emotional condition and quality of life. Although complaints about symptoms in the temporomandibular joint are not frequent, in some cases the involvement of this joint may lead to severe symptoms. Episodes of frequent, long-lasting headaches and maxillary pain when patients open their mouths fully are the most frequent symptoms of temporomandibular involvement. At the onset of the disease, symptoms are usually unilateral and intermittent. As the disease progresses, symptoms may become more severe, possibly leading to the rare occurrence of temporomandibular ankylosis. The first clinical sign of temporomandibular ankylosis is limited jaw movement. An early diagnosis of the involvement of this joint is essential so that an early approach can be made. The purpose of this paper is to report a rare case of ankylosis of the temporomandibular joint, secondary to ankylosing spondylitis, and to discuss its clinical and therapeutic aspects.

Indexing terms: Ankylosis Rheumatic diseases. Spondylitis ankylosing. Temporomandibular joint disorders.

INTRODUÇÃO

O termo espondilite anquilosante, derivado do grego spondylos (vértebra) e ankylos (enrijecimento), classificado no grupo de doenças inflamatórias crônicas sistêmicas, de padrão reumático¹, acomete tecidos conjuntivos, afetando primariamente o esqueleto axial². A etiologia dessa entidade patológica ainda é desconhecida, porém, é observada importante demarcação genética³.

Normalmente, os primeiros sintomas da espondilite anquilosante desenvolvem-se no final da adolescência ou

no início da idade adulta, em média, aos 38 anos⁴. Quando se manifesta antes da adolescência, é descrita como espondilite anquilosante juvenil⁵.

A lesão primariamente ocorre nos sítios cartilagosos, nos quais tendões, ligamentos, cápsulas articulares e fásia se inserem no osso. A entesopatia resulta da inflamação, que culmina em um processo de ossificação, causando rigidez articular⁶.

A espondilite anquilosante caracteriza-se pelo surgimento de dores, associadas à rigidez matinal, que diminui de intensidade durante o dia, tendo caráter agudo com o repouso e atenuando-se com a atividade física⁴.

¹ Universidade de Pernambuco, Faculdade de Odontologia, Departamento de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial. Av. Agamenon Magalhães, s/n., Santo Amaro, 50100-010, Recife, PE, Brasil. Correspondência para / Correspondence to: BCE Vasconcelos. E-mail: <belmiro@pesquisador.cnpq.br>.

² Universidade de Pernambuco, Faculdade de Odontologia, Departamento de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial. Recife, PE, Brasil.

O acometimento da articulação temporomandibular é uma situação raramente observada⁷. Porém, seu envolvimento, em alguns casos, pode ocasionar sintomas graves. Episódios de cefaleia frequentes de longa duração e dor maxilar ao movimento de abertura bucal são os sintomas mais frequentes⁸. Anormalidades estruturais da articulação temporomandibular incluem alterações condilares, como forma anormal e erosões.

O diagnóstico da espondilite anquilosante é baseado, fundamentalmente, em três pilares: sintomatologia, alterações radiológicas e determinação do antígeno HLA-B27⁹.

Embora não exista cura para a doença, o tratamento precoce e adequado busca atenuação dos sintomas e manutenção da mobilidade articular¹⁰ através de terapêutica medicamentosa e abordagem fisioterápica¹¹.

O presente trabalho relata um caso raro de anquilose da articulação temporomandibular secundária à espondilite anquilosante, abordando seus aspectos clínicos e terapêuticos, baseados na publicação científica vigente.

CASO CLÍNICO

Paciente do sexo masculino, 37 anos, melanoderma, compareceu ao Serviço de Cirurgia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário Oswaldo Cruz em Recife (PE), queixando-se de limitação de abertura bucal, associada à sintomatologia dolorosa e rigidez vertebral, com evolução de oito anos. Durante a anamnese, relatou sintomas mais intensos no período matutino, afirmando ser portador de espondilite anquilosante e sob tratamento terapêutico há um ano, no Serviço de Reumatologia do Hospital das Clínicas, observando melhora no quadro clínico geral. Ainda, durante a anamnese, afirmou não haver outro caso idêntico na família, estando desempregado há três anos em consequência de sua limitada mobilidade. Ao exame físico geral, observou-se rigidez na coluna vertebral e nas articulações sacroilíacas, fêmur-tíbio-patelar e temporomandibular (Figura 1a), com a impossibilidade de realizar hiperextensão cervical e dificuldade de locomoção. Ao exame intrabucal, verificou-se ausências dentárias, com limitados movimentos mandibulares, apresentando apenas 3mm de abertura bucal. Ao exame radiográfico de pelve, observou-se, bilateralmente, esclerose subcondral, erosões marginais e pseudoalargamentor (Figura 1b). As imagens tomográficas da



Figura 1. A) Vista geral em perfil, denotando rigidez vertebral; B) Radiografia de pelve, em PA, demonstrando sinais de esclerose subcondral, erosões marginais e pseudoalargamentor.

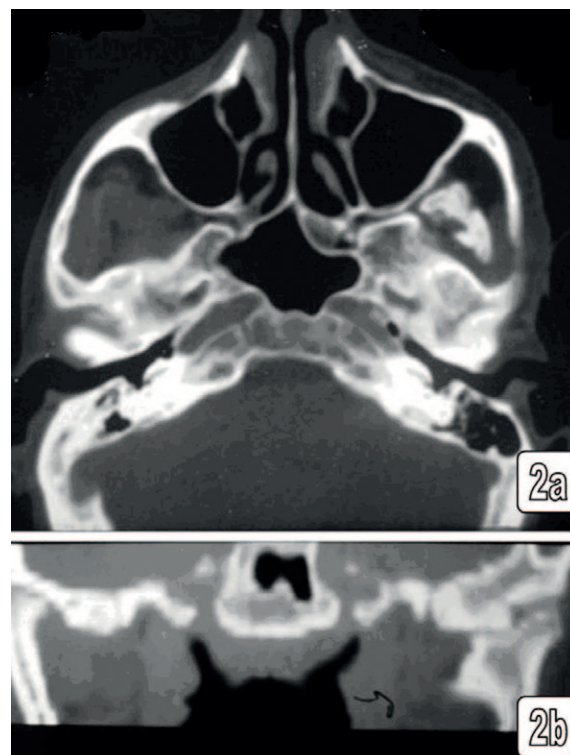


Figura 2. Exame tomográfico em cortes axial e coronal, respectivamente, denotando massa óssea anquilótica em ambas as articulações temporomandibulares.

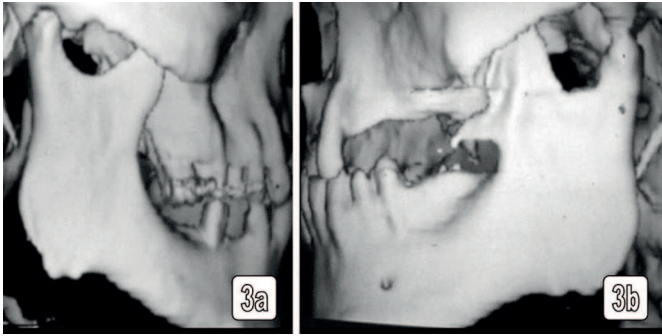


Figura 3. Reconstrução tridimensional, apresentando fusão óssea em ambas as articulações temporomandibulares.

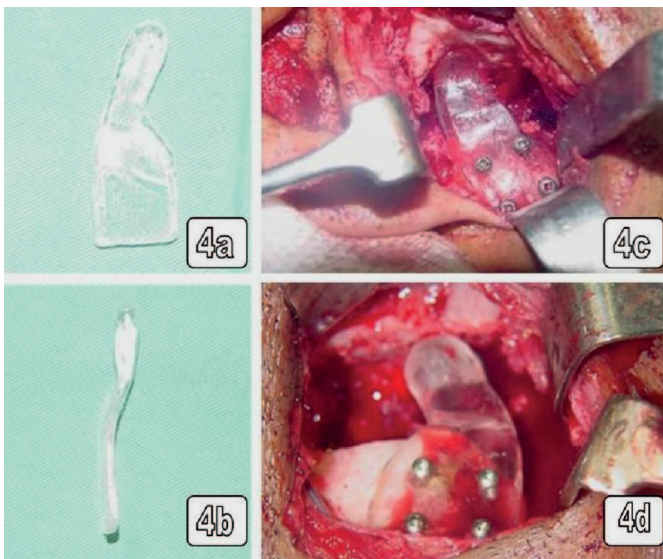


Figura 4. A e B) Côneis confeccionados em resina acrílica; C e D) Artroplastia e condilectomia direita e esquerda, com reconstrução condilar.

face demonstraram fusão óssea do côneilo mandibular e fossa articular bilateralmente (Figuras 2 e 3). Foi solicitado o HLA-B27, sendo positivo ao antígeno leucocitário humano B27, que, associado aos dados clínicos e imaginológicos, confirmou-se o diagnóstico de espondilite anquilosante.

O tratamento proposto e realizado foi a condilectomia e artroplastia bilateral, com reconstrução condiliana imediata (Figura 4). No pós-operatório, foi instituída fisioterapia bucal, apresentando satisfatória abertura bucal (Figura 5a). O paciente encontra-se sob acompanhamento, há cinco anos, sem sinais de recidiva (Figura 5b), apresentando bom grau de satisfação funcional e emocional.



Figura 5. A) Pós-operatório de uma semana; B) Abertura bucal satisfatória após cinco anos.

DISCUSSÃO

A espondilite anquilosante é considerada uma condição crônica e progressiva das espondiloartropatias^{2,12-15}, que é um grupo inter-relacionado de doenças caracterizadas por erosões e neoformação óssea¹.

Mudanças progressivas sinoviais, eventualmente, envolvem todas as articulações axiais^{2,16}, sendo rara a ocorrência de anquilose temporomandibular⁵. Existem apenas 73 referências na literatura mundial, quando se busca pelos unitermos: temporomandibular and ankylosing spondylitis. Destes, 34 relacionam-se à articulação temporomandibular. Considerando anquilose da articulação temporomandibular, apenas sete casos foram relatados até o presente momento, constituindo este o oitavo caso descrito na literatura.

Desde 1973, é conhecida a forte associação ao fator imunogenético - HLA-B27^{2,10,16-18}. A associação familiar é de tal forma que parentes de primeiro grau apresentam a susceptibilidade à doença³. Entretanto, no caso descrito, o envolvimento familiar não foi observado.

A maioria dos casos ocorre entre os 15 e 35 anos, permanecendo muitos desses casos assintomáticos durante anos, sendo diagnosticados tardiamente¹⁹. A espondilite anquilosante é frequentemente encontrada no sexo masculino¹⁵, apesar do gen leucocitário HLA-B27, incidir na mesma proporção em homens e mulheres. Apesar de acometer, principalmente, indivíduos leucodermas, possivelmente pela maior incidência de HLA-B27 nessa população, indivíduos melanodermas também estão

passíveis de serem acometidos, como se pode observar neste trabalho.

A espondilite anquilosante apresenta-se comumente com dores intermitentes, que são piores após inatividade^{42,19-20}. No caso descrito, pode-se observar que o paciente relatava que os sintomas mais intensos estavam presentes no período da manhã, especificamente nas primeiras horas após o despertar do sono.

Devido à progressão da doença, a deterioração óssea e da cartilagem pode levar à fusão dos componentes articulares, afetando, assim, a mobilidade²¹. A rigidez cervical pode causar dificuldade durante manobras de hiperextensão cervical²¹.

Devido ao longo período de evolução no caso descrito (8 anos), o paciente apresentava estágio avançado de deteriorização articular (Figura 1a). A impossibilidade de realizar hiperextensão cervical e o envolvimento temporomandibular evidenciam que, em uma possível situação de urgência/emergência, seria alto o risco de lesão medular à obtenção de vias aéreas.

O acometimento da articulação temporomandibular em pacientes com diagnóstico de espondilite anquilosante fica evidente quando da limitação e dor ao movimento mandibular⁹. No início da doença, os sintomas são geralmente unilaterais e intermitentes. Conforme a doença avança, estes são mais severos e constantes. O relato do caso demonstra o quanto os movimentos mandibulares podem estar reduzidos ou até mesmo impossibilitados em estágios avançados, apresentando o paciente apenas 3mm de abertura bucal, associada à dor articular.

Em virtude da reduzida atividade motora consequente à rigidez, o estado emocional e a qualidade de vida ficam comprometidos. Os pacientes, geralmente, ficam deprimidos, apáticos, desanimados para realizarem tratamento e reabilitação^{2,4}, situação oposta ao caso descrito, em que, apesar de todas as adversidades, mostrou destinado à busca de tratamento e melhora na qualidade de vida.

Yacoub et al.⁴ avaliaram pacientes marroquinos, relatando importantes consequências socioeconômicas devido à espondilite anquilosante, estando relacionados com a qualidade de vida danificada pelas limitações dos aspectos físicos e mentais. O presente trabalho demonstra que essa situação também é encontrada no Brasil.

Para o diagnóstico da espondilite anquilosante, a exemplo da artrite reumatóide, foram estabelecidos alguns critérios. São muito variadas essas séries de critérios²², mas a de Roma, estabelecida em 1961, é uma das mais

empregadas. Os critérios são: dor lombar, com mais de três meses de duração, não aliviada com o repouso; dor e rigidez na região torácica; limitação da expansibilidade torácica; limitação de movimento da coluna lombar; história ou evidência de irrite ou suas sequelas e sacroileíte bilateral, característica da espondilite anquilosante. O diagnóstico será firmado com quatro dos cinco critérios ou com o sexto e mais um critério.

A característica radiográfica da doença é temporária e, a princípio, sítios de envolvimento são as articulações sacrais e coluna, sendo incomum nas articulações periféricas¹. Neste trabalho, observa-se que, em casos severos, como o apresentado, várias articulações podem estar acometidas simultaneamente.

Em pacientes com sintomas clínicos de espondilite anquilosante, informações complementares devem ser obtidas o mais rápido possível, a fim de estabelecer o diagnóstico e iniciar o tratamento, evitando o desenvolvimento de anquilose. O longo período entre o diagnóstico e o início do tratamento, oito anos, contribuiu positivamente, para o desenvolvimento da anquilose temporomandibular no caso descrito.

Vários esforços têm sido envidados nos últimos anos para reduzir esse atraso no diagnóstico. Houve dois acontecimentos importantes na gestão da espondilite anquilosante que possibilitaram o diagnóstico precoce. Estes desenvolvimentos incluem o uso da ressonância nuclear magnética e a necrose tumoral.

Não há cura para esta doença, embora se tenha uma tendência para ser menos severa conforme a idade avança; o paciente deve estar consciente de que o tratamento deve ser constante e vitalício. O tratamento da espondilite anquilosante objetiva a remissão dos sintomas, com a redução da dor, da rigidez articular, da inflamação e da sua consequente incapacidade funcional²³⁻²⁴.

Recentes descobertas terapêuticas, como necrose tumoral, surgem como grande avanço para os pacientes refratários ao tratamento convencional^{2,25-26}. Os dados demonstraram rápida e consistente eficácia na redução dos sintomas, retardando a progressão da doença, porém, efeitos secundários à utilização podem surgir, como diabetes mellitus, uma maior incidência de linfomas e maior susceptibilidade a infecções.

Nas fases mais avançadas, a cirurgia é instituída e consiste na remoção da massa óssea anquilosada, geralmente associada à interposição de material autógeno ou aloplástico, para prevenir recidiva^{7,23-24}.

Dentre as técnicas que vêm sendo amplamente utilizadas, a condilectomia com reconstrução condiliana em resina acrílica é um método que produz bons resultados. O acrílico é barato, fácil de ser obtido, resistente, tem boa espessura e estabilidade físico-química. Além disso, o material é biocompatível, fácil de cortar, modelar e de ser incorporado pelo tecido conjuntivo neoformado do coto mandibular remanescente, possibilitando uma rápida recuperação dos movimentos e da altura do ramo da mandíbula, redução das complicações pós-operatórias e recidivas.

A reabilitação oral, substituindo dentes perdidos, também é de fundamental importância, minimizando as forças nas articulações temporomandibulares, reduzindo a recorrência dos sintomas⁸.

No caso apresentado, o planejamento se fundamentou na abordagem cirúrgica, seguida de intensa fisioterapia, sendo realizada condilectomia bilateral e reconstrução condiliana com material aloplástico, resina acrílica, com o objetivo de impedir o contato ósseo, minimizando as chances de recidiva, o que mostra ser um tratamento adequado.

Passada a fase aguda, a maioria dos pacientes não necessita de medicamentos, uma vez que fazem parte de um programa regular de exercícios. Os medicamentos são necessários esporadicamente, apenas quando os sintomas reaparecem, apesar da terapia com exercícios. No caso

descrito, o paciente é um frequentador assíduo das sessões fisioterápicas, apresentando considerável melhora nos aspectos funcional e emocional.

CONCLUSÃO

O tratamento conservador deve ser empregado, sempre que as condições do paciente possibilitarem. Para isso, faz-se necessário diagnóstico precoce, evitando estágios avançados de deteriorização, nos quais a ossificação da articulação faz-se presente, exigindo abordagem cirúrgica.

Colaboradores

BCE VASCONCELOS e RVB NOGUEIRA efetuaram o atendimento inicial e abordagem cirúrgica do caso. BCE VASCONCELOS, RWF CARVALHO e AA ANTUNES participaram na pesquisa bibliográfica. BCE VASCONCELOS, RVB NOGUEIRA, RWF CARVALHO e AA ANTUNES participaram na concepção, na redação do artigo e em sua revisão crítica.

REFERÊNCIAS

1. Maksymowych WP. Progress in spondylarthritis. Spondyloarthritis: lessons from imaging. *Arthritis Res Ther*. 2009;11(3):222.
2. Tayel MY, Soliman E, El Baz WF, El Labaan A, Hamaad Y, Ahmed MH. Registry of the clinical characteristics of spondyloarthritis in a cohort of Egyptian population. *Rheumatol Int*. In press 2011.
3. Reveille JD. The genetic basis of spondyloarthritis. *Ann Rheum Dis*. 2011;70(Suppl 1):i44-50.
4. Ibn Yacoub Y, Amine B, Laatiris A, Abouqal R, Hajjaj-Hassouni N. Health-related quality of life in Moroccan patients with ankylosing spondylitis. *Clin Rheumatol*. 2011;30(5):673-7.
5. Lin YC, Liang TH, Chen WS, Lin HY. Differences between juvenile-onset ankylosing spondylitis and adult-onset ankylosing spondylitis. *J Chin Med Assoc*. 2009;72(11):573-80.
6. Ibn Yacoub Y, Amine B, Laatiris A, Hajjaj-Hassouni N. Gender and disease features in Moroccan patients with ankylosing spondylitis. *Clin Rheumatol*. In press 2011.
7. Manemi RV, Fasanmade A, Revington PJ. Bilateral ankylosis of the jaw treated with total alloplastic replacement using the TMJ concepts system in a patient with ankylosing spondylitis. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2009;47(2):159-61.
8. Jerjes W, Upile T, Abbas S, Kafas P, Vourvachis M, Rob J, et al. Muscle disorders and dentition-related aspects in temporomandibular disorders: controversies in the most commonly used treatment modalities. *Int Arch Med*. 2008;1(1):23.
9. Braun J, Rudwaleit M, Sieper J. Spondyloarthritis. *Internist (Berl)*. 2011;52(6):657-70.
10. Tigau MM, Rezus E, Manole A, Matei M, Ivan A. Clinical epidemiologic study of admissions for ankylosing spondylitis at the Clinic of Rheumatology and Medical Rehabilitation, Hospital of Rehabilitation Iasi, between 1990 and 2007. *Rev Med Chir Soc Med Nat Iasi*. 2009;113(1):79-83.

11. Widberg K, Karimi H, Hafström I. Self- and manual mobilization improves spine mobility in men with ankylosing spondylitis--a randomized study. *Clin Rehabil.* 2009;23(7):599-608.
12. Castillo-Gallego C, Aydin SZ, Marzo-Ortega H. Clinical Utility of the New ASAS Criteria for Spondyloarthritis and the Disease Activity Score. *Curr Rheumatol Rep.* 2011;13(5):395-401.
13. Braun J, van der Horst-Bruinsma IE, Huang F, Burgos-Vargas R, Vlahos B, Koenig AS, et al. Clinical efficacy and safety of etanercept versus sulfasalazine in patients with ankylosing spondylitis: a randomized, double-blind trial. *Arthritis Rheum.* 2011;63(6):1543-51.
14. Baraliakos X, van der Heijde D, Braun J, Landewé RB. OMERACT Magnetic Resonance Imaging Initiative on Structural and Inflammatory Lesions in Ankylosing Spondylitis -- Report of a Special Interest Group at OMERACT 10 on Sacroiliac Joint and Spine Lesions. *J Rheumatol.* 2011;38(9):2051-4.
15. Dougados M, Baeten D. Spondyloarthritis. *Lancet.* 2011;377(9783):2127-37.
16. Sampaio-Barros PD. Epidemiology of spondyloarthritis in Brazil. *Am J Med Sci.* 2011;341(4):287-8.
17. Poddubnyy DA, Märker-Hermann E, Kaluza-Schilling W, Zeidler H, Braun J, Listing J, et al. Relation of HLA-B27, Tumor Necrosis Factor- α Promoter Gene Polymorphisms, and T Cell Cytokine Production in Ankylosing Spondylitis -- A Comprehensive Genotype-Phenotype Analysis from an Observational Cohort. *J Rheumatol.* In press 2011.
18. Warde N. Spondyloarthropathies: HLA-B27 and ERAP1 contribute to ankylosing spondylitis via aberrant peptide processing and presentation. *Nat Rev Rheumatol.* 2011;7(9):498.
19. Aggarwal R, Malaviya AN. Clinical characteristics of patients with ankylosing spondylitis in India. *Clin Rheumatol.* 2009;28(10):1199-205.
20. Barros VM, Seraidarian PI, Côrtes MI, de Paula LV. The impact of orofacial pain on the quality of life of patients with temporomandibular disorder. *J Orofac Pain.* 2009;23(1):28-37.
21. Raval C, Patel H, Patel P, Kharod U. Retrograde intubation in a case of ankylosing spondylitis posted for correction of deformity of spine. *Saudi J Anaesth.* 2010;4(1):38-41.
22. Ferreira ALM, Alvarenga CQM, Barcelos GF, Polito ETL. Espondilite anquilosante. *Rev Bras Reumatol.* 2008;48(4):243-7.
23. Pietrzak K, Strzyzewski W, Kaczmarek W, Pucher A, Ciesielczyk B. Total hip replacement in treatment of patients with deformity of the hip caused by ankylosing spondylitis. *Chir Narzadow Ruchu Ortop Pol.* 2010;75(5):282-6.
24. Felstead AM, Revington PJ. Surgical management of temporomandibular joint ankylosis in ankylosing spondylitis. *Int J Rheumatol.* 2011;2011:1-4.
25. Wendling D, Paccou J, Berthelot JM, Flipo RM, Guillaume-Czitrom S, Prati C, et al. New Onset of Uveitis During Anti-Tumor Necrosis Factor Treatment for Rheumatic Diseases. *Semin Arthritis Rheum.* In press 2011.
26. Guidi L, Pugliese D, Armuzzi A. Update on the management of inflammatory bowel disease: specific role of adalimumab. *Clin Exp Gastroenterol.* 2011;4:163-72.

Recebido em: 7/12/2010
 Versão final reapresentada em: 2/4/11
 Aprovado em: 29/4/2011