

To cite this article:

Krasuska-Sławińska Ewa, Sobiech Iwona, Bętkowski Błażej, Białczak Rafał, Cichoń Katarzyna: Promienica kości szczęki u 8-letniej dziewczynki – opis przypadku, objawy, diagnostyka i metody leczenia. Actinomycosis in an 8-year-old girl – case report, symptoms, diagnostics and treatment methods. Nowa Stomatol 2022;27(4):149-153. DOI: 10.25121/NS.2022.27.4.149

To link to this article:

<https://doi.org/10.25121/NS.2022.27.4.149>

*EWA KRASUSKA-SŁAWIŃSKA¹, IWONA SOBIECH², BŁAŻEJ BĘTKOWSKI³, RAFAŁ BIAŁCZAK⁴, KATARZYNA CICHON¹

Promienica kości szczęki u 8-letniej dziewczynki – opis przypadku, objawy, diagnostyka i metody leczenia

Actinomycosis in an 8-year-old girl – case report, symptoms, diagnostics and treatment methods

¹Poradnia Chirurgii Stomatologicznej dla Dzieci i Dorosłych, Instytut „Pomnik Centrum Zdrowia Dziecka”, Warszawa

Kierownik Poradni: dr n. med. Ewa Krasuska-Sławińska

²Zakład Stomatologii Dziecięcej, Warszawski Uniwersytet Medyczny w Warszawie

Kierownik Zakładu: prof. dr hab. n. med. Dorota Olczak-Kowalczyk

³Klinika Chirurgii Czaszkowo-Szczękowo-Twarzowej, Warszawski Uniwersytet Medyczny

Kierownik Kliniki: dr hab. n. med. Paweł Zawadzki

⁴Poradnia Stomatologiczna dla Dzieci, Instytut „Pomnik Centrum Zdrowia Dziecka”, Warszawa

Kierownik Poradni: dr n. med. Ewa Krasuska-Sławińska

SŁOWA KLUCZOWE

promienica, dziecko, szczeka, diagnostyka, antybiotykoterapia

STRESZCZENIE

Promienica jest infekcyjną chorobą zapalną wywołaną przez bakterie z rodzaju *Actinomyces*. Najczęstsza postać twarzowo-szyjna objawia się deskowatym naciekiem tkanek miękkich wraz z tworzeniem ropni i przetok. W Polsce średnio choruje od kilkunastu do dwudziestu kilku osób rocznie.

Celem pracy jest opis przypadku 8-letniej dziewczynki, u której zdiagnozowano promienicę kości szczęki. Objawy kliniczne i radiologiczne sugerowały przewlekły proces zapalny lub rozwijający się proces nowotworowy. Dopiero badanie histopatologiczne pozwoliło zdiagnozować promienicę i rozpocząć właściwe leczenie.

Promienica jest wywołana bakteriami, które kolonizują jamę ustną. Podczas obniżenia odporności może dojść do ich patologicznego rozmnażania i wywoływania swoistego zapalenia. Pojawiające się objawy mogą być dość niecharakterystyczne, dlatego tak ważna jest znajomość przebiegu choroby i metod jej leczenia.

KEYWORDS

actinomycosis, child, jaw, diagnosis, antibiotic therapy

SUMMARY

Actinomycosis is an infectious inflammatory disease caused by a bacterium of the *Actinomyces* spp. The most common facial-cervical form is manifested by a planked infiltration of soft tissues along with the formation of abscesses and fistulas. In Poland, on average, from a dozen to twenty-some people are sick per year. The aim of the study is to describe the case of an 8-year-old girl who was diagnosed with actinomycosis of the jaw bones.

Clinical and radiological signs suggested a chronic inflammatory process or a developing tumor process. Only histopathological examination allowed to diagnose actinomycosis and start proper treatment.

Actinomycosis is caused by bacteria that colonize the oral cavity. During a decrease in immunity, their pathological reproduction and the induction of specific inflammation may occur. The symptoms that appear can be quite uncharacteristic, which is why it is so important to know the course of the above-mentioned disease and methods of its treatment.

WSTĘP

Promienica (aktynomikoza) jest przewlekłą, infekcyjną chorobą zapalną wywołaną przez Gram-dodatnie bakterie z rodzaju *Actinomyces* (1). Promieniowce stanowią saprofityczną florę jamy ustnej, a do rozwoju choroby dochodzi w stanach obniżenia odporności. Wyodrębniono pięć typów bakterii promieniowca: *israeli*, *bovis*, *odontolyticus*, *naeslundii*, *viscosus*. Rozwojowi zapalenia towarzyszą zakażenia mieszaną florą bakteryjną (1-4). Jest to rzadka choroba zakaźna ludzi. W Polsce zgłaszanych jest od kilkunastu do dwudziestu kilku zachorowań rocznie (5, 6). Proces chorobowy szerzy się przez ciągłość. Charakteryzuje się tworzeniem ropnia, włóknieniem i deskowatym naciekiem tkanek miękkich oraz tworzeniem przetok, a w surowiczo-ropnej wydzielinie znajdują się zmiany w postaci ziaren o średnicy 0,1-5 mm zawierające kolonie promieniowca (3, 7). Poprzez zdolność do naciekania tkanek i tworzenia zmian guzowatych zakażenie często przypomina chorobę nowotworową (8). Ze względu na umiejscowienie wyróżnia się postać:

- twarzowo-szyjną (najczęstsza),
- piersiową,
- brzuszna,
- moczowo-płciową,
- skórna.

Najczęstszą postacią promienicy jest postać twarzowo-szyjna (55%). Do zachorowania może dojść w każdym wieku, ze szczytem zachorowań w 4.-5. dekadzie życia, 2-4 razy częściej wśród mężczyzn niż kobiet (3, 9). Rozpoznanie promienicy opiera się na badaniu histopatologicznym, bakteriologicznym lub serologicznym (3, 10, 11). Leczeniem z wyboru w przypadku promienicy jest długotrwałe stosowanie (2-12 miesięcy) antybiotyków z grupy penicylin (3), a w niektórych przypadkach leczenie chirurgiczne, polegające na usunięciu martwiczej tkanki, przetoki, nacięciu i drenażu ropnia tkanek miękkich. Rokowanie zazwyczaj jest dobre (4, 10).

OPIS PRZYPADKU

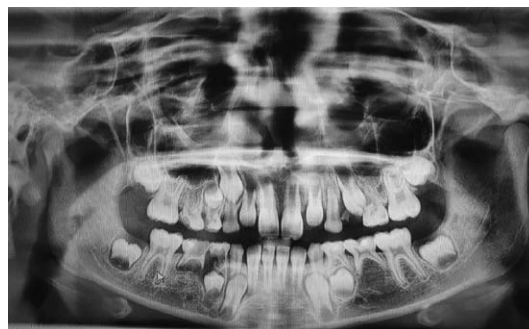
Do Zakładu Stomatologii Dziecięcej Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego 14 sierpnia 2020 roku zgłosiła się wraz z opiekunem prawnym 8-letnia pacjentka z powodu ropnia w obrębie wyrostka zębodołowego szczęki w rzucie niewyrzniętego drugiego bocznego zęba siecznego, w szczęce po stronie lewej. W wywiadzie: obrzmienie dziąsła od 2 dni, brak dolegliwości bólowych, brak towarzyszących objawów ogólnych. Z wywiadu uzyskano informację o pojawieniu się małej zmiany zapalnej mogącej odpowiadać przetoce ropnej w czerwcu 2020 roku. W badaniu klinicznym brak objawów zewnątrzustnych, wewnątrzustnie

widoczne ograniczone wygórowanie na dziąśle w okolicy niewyrzniętego zęba 22. Zmiana pokryta zaczerwienioną błoną śluzową, bolesną przy dotyku, mogącą odpowiadać ropniowi. Wykonano badanie radiologiczne (RTG) zęba 22. Na zdjęciu rentgenowskim brak zmian patologicznych kości, brak zawiązków zębów 23 i 24 (ryc. 1). Dodatkowo, pacjentkę skierowano na zdjęcie pantomograficzne celem diagnostyki ewentualnych ognisk zapalnych w jamie ustnej. Na zdjęciu pantomograficznym (ryc. 2) stwierdzono:

1. brak zawiązków zębów: 15, 25, 35, 45, 23/24,
2. liczne ubytki próchnicowe,
3. rozległe rozrzedzenie kostne w okolicy korzeni zębów 85 i 84 na tle martwicy mięszi,
4. przetrwały korzeń policzkowy zęba 64.



Ryc. 1. Zdjęcie zębowe zęba 22



Ryc. 2. Pantomogram

Podczas wizyty usunięto korzeń zęba 64, a następnie nacięto ropień w rzucie niewyrzniętego zęba 22, uzyskując obfity wysięk ropny. Przepłukano jamę ropnia metronidazolem i założono sącdek. Wizytę kontrolną wyznaczono na dzień następny. Stwierdzono podczas niej brak wycieku treści ropnej i prawidłowe gojenie rany po nacięciu ropnia. Zmiana zapalna wycofała się. W związku z pojawieniem się przetoki ropnej na początku stycznia 2021 roku pacjentka zgłosiła się, z opiekunem prawnym, na ponowną wizytę do Zakładu Stomatologii Dziecięcej Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego. W wywiadzie brak dolegliwości ze strony jamy ustnej. W badaniu klinicznym widoczna przetoka ropna w rzucie korzenia zęba 22. Reakcja na chlorek etylu zębów 12, 11, 21, 22 prawidłowa dodatnia. Reakcja na opukiwanie pionowe i poziome zębów 21 i 22 dodatnia. Wykonano zdjęcie zębowe. Na RTG widoczna zmiana o charakterze osteolizy, powyżej zęba 22, niezwiązana z korzeniem. Skierowano na tomografię komputerową o wiązce stożkowej (ang. *cone-beam computed tomography* – CBCT). Obraz CBCT ujawnił zmiany osteolityczne w wyrostku zębodołowym szczęki, od korzenia zęba 11 do 26, dochodzące do zatoki szczękowej i przekraczające linię pośrodkową podniebienia. Zmiany wypełnione treścią lłą i/lub płynną, z widocznymi przestrzeniami wypełnionymi gazem, ubytkami kości podniebienia twardego w okolicy zębów 22-26 oraz podobne ubytki w obrębie dna jamy nosa. Z uwagi na obraz CBCT pacjentkę skierowano do Poradni Stomatologicznej w Instytucie „Pomnik Centrum Zdrowia Dziecka”. Dodatkowo, w kolejnych dniach obserwowano uaktywnienie się przetoki ropnej i narastające obrzmienie szczęki po stronie lewej. Po 7 dniach włączono amoksycylinę z kwasem klawuleonowym w postaci tabletek 0,25 g + 0,125 g do przyjmowania co 12 godzin przez 7 dni i uzyskano poprawę stanu miejscowego. W badaniu w Poradni Chirurgii Stomatologicznej IPCZD po około miesiącu stan ogólny uległ poprawie, bez asymetrii twarzy, nos drożny, na wyrostku zębodołowym szczęki nad zębem 22 niebolesne zaczerwienienie w miejscu odpowiadającym przetoce ropnej. Poza tym liczne ubytki próchnicowe i zęby po leczeniu zachowawczym. Węzły chłonne obustronnie wyczuwalne, przesuwalne: podżuchwowe, pojedyncze, niebolesne przy dotyku, o największych rozmiarach w kątach żuchwy (o średnicy 1,2-2 cm). Po konsultacji chirurgicznej zmian potencjalnie sugerujących proces nowotworowy, skierowano pacjentkę do Poradni Onkologicznej celem rozszerzenia diagnostyki do różnicowania z przewlekłym stanem zapalnym. Z uwagi na fakt, że badanie CBCT nie obejmowało całej zmiany, w Poradni Onkologicznej zaplanowano wykonanie tomografii komputerowej (TK) głowy i szyi, bez i ze środkiem kontrastowym, w warunkach znieczulenia ogólnego. W obrazie TK stwierdzono guz – w okolicy szczęki po stronie lewej – powodujący niszczenie podniebienia twardego, dolnej ściany zatoki szczękowej lewej, wyrostka zębodołowego oraz zmiany częściowo przechodzące na stronę prawą (ryc. 3). Po podaniu środka kontrastującego widoczne niejednorodne wzmocnienie guza. Zaplanowano



Ryc. 3. Guz szczęki po stronie lewej

wykonanie biopsji zmiany. Wykonano morfologię krwi obwodowej i wskaźniki krzepnięcia, które nie wykazały żadnych nieprawidłowości. Po 10 dniach, w znieczuleniu ogólnym wykonano poszerzoną biopsję guza. Pobrany materiał wysłano do badania histopatologicznego. Ranę zaopatrzono pojedynczymi szwami. W badaniu histopatologicznym wykluczono złośliwy rozrost nowotworowy. Obraz ropnej ziarniny zapalnej z wielojądrowymi komórkami olbrzymimi mógł wskazywać na centralny ziarniniak olbrzymiokomórkowy CGCG (ang. *central giant cell granuloma*). W związku z postawionym rozpoznaniem histopatologicznym, które wiązało się z radykalnym zabiegiem chirurgicznym, po usunięciu zębów znajdujących się w sąsiedztwie zmiany, celem potwierdzenia rozpoznania zdecydowano o ponownej biopsji pobranej z kilku obszarów guza. Po 20 dniach wykonano zabieg poszerzonej biopsji guza szczęki po stronie lewej oraz ekstrakcję zębów 63 i 65. Pobrano również materiał z dwóch różnych miejsc (okolica podniebienia i po usuniętym zębie mlecznym) do badań mikrobiologicznych w kierunku bakterii beztlenowych i tlenowych. Wyniki wykazały jedynie fizjologiczną florę jamy ustnej. Rany zaopatrzono szwami. W pobranych wycinkach, histopatologicznie nie stwierdzono obecności komórek charakterystycznych dla CGCG. Stwierdzono natomiast fragmenty ropnej ziarniny zapalnej z koloniami *Actinomyces* spp. Po rozpoznaniu promienicy włączono penicylinę w ilości 3 mln j.m. w 3 dawkach na dobę. Antybiotykoterapię kontynuowano przez kolejne 6 miesięcy. W kolejnych badaniach kontrolnych zanotowano brak zmian patologicznych w okolicy zabiegu, a w wywiadzie brak występowania dolegliwości bólowych. Po 5 miesiącach antybiotykoterapii wykonano TK twarzoczaszki z użyciem kontrastu celem oceny zmiany w szczęce po stronie lewej. W badaniu była widoczna regresja zmian węzłowych, regresja zmian w częściach kostnych szczęki i podniebienia twardego. Widoczne były drobne, resztkowe, gładkie ubytki,



Ryc. 4. Gojenie zmian w obrębie szczęk

bez rozdęcia kości, bez ognisk złośliwej destrukcji. Doszło do regresji zmian w zatokach przynosowych i szczękowej lewej. Na podstawie badania przedmiotowego i radiologicznego postanowiono kontynuować antybiotykoterapię przez jeden miesiąc. Kolejne kontrolne badanie TK twarzoczaszki wykonano w maju 2022 roku. Badanie radiologiczne wykazało dalsze gojenie zmian w obrębie szczęk (ryc. 4). Węzły chłonne prawidłowe.

Pacjentka pozostaje pod stałą opieką Poradni Chirurgii Stomatologicznej IPCZD. Kolejne badanie TK zaplanowano na maj 2023 roku.

DYSKUSJA

Promienica (*Actinomyces*) jest przewlekłą chorobą, niezakaźną dla otoczenia. W Polsce rozpoznaje się około 20 przypadków rocznie. Najczęściej występuje postać twarzowo-szyjna. Proces chorobowy może szerzyć się z tkanek miękkich na kości twarzowej części czaszki lub pierwotnie rozwijać się w tkance kostnej (12, 13). Promienica pierwotnie występująca w tkankach kości jest rzadka i dość trudna do rozpoznania (14, 15). Bakterie beztlenowe *Actinomyces* stanowią fizjologiczną florę jamy ustnej, przewodu pokarmowego i żeńskich narządów płciowych, dlatego najczęściej w tych obszarach występują pierwsze kliniczne objawy promienicy. Promieniowce, jako bakterie fizjologicznej flory organizmu, rzadko stają się patogenami powodującymi zapalenia, zwłaszcza w populacji dziecięcej (15).

U pacjentki proces chorobowy rozpoczął się w tkankach kostnych, a jedynym niepokojącym objawem była pojawiająca się przetoka, która po podaniu antybiotyku goiła się, po czym nawracała. Pacjentka miała liczne zęby z ogniskami aktywnej próchnicy, była leczona zachowawczo-chirurgicznie przez lekarza dentystę. Pojawienie się ponownie przetoki po 3-4 miesiącach nad zdrowym wyrżniętym zębem stałym skłoniło lekarza do wykonania tomografii komputerowej stożkowej CBCT szczęki. Obraz radiologiczny był niecharakterystyczny do różnicowania z zapaleniem i rozrostem nowotworowym. Zła higiena jamy ustnej, próchnica, liczne ekstrakcje zębów, stan z obniżoną odpornością są istotnymi

czynnikami sprzyjającymi rozwojowi promienicy (14, 16). Według zespołu chirurgii dziecięcej dr hab. n. med. Beaty Jurkiewicz badania morfologii krwi i badania biochemiczne nie są pomocne w diagnozowaniu promienicy. U pacjentki wszystkie te badania były w normie. Badania mikrobiologiczne również mogą nie wykazać żadnych nieprawidłowości, tak jak u omawianej pacjentki. Bakteria beztlenowa promieniowca jest trudna do hodowli, a według piśmiennictwa w 30-50% udaje się uzyskać wynik dodatni (17). Diagnostyka mikrobiologiczna wymaga tlenowych i beztlenowych warunków do hodowli, z wydłużonym czasem inkubacji do około 3 tygodni (15). Według zespołu chirurgii stomatologicznej dr. hab. n. med. Jerzego Reymonda obraz mikroskopowy może być nieswoisty, dlatego w praktyce klinicznej kilkakrotnie pobiera się materiał do badań histopatologicznych i bakteriologicznych, a ujemny wynik nie może prowadzić do wykluczenia promienicy (12, 18). W naszym przypadku po pierwszej biopsji wynik był niejednoznaczny, sugerujący zapalenie nieswoiste lub CGCG. W czasie pierwszej biopsji nie wykonano badań mikrobiologicznych. Podczas drugiej biopsji usunięto zęby mleczne, wyłuszczone kość i pobrano materiał do badań z 6 miejsc. W materiale pobranym z miejsca po usuniętym zębie mlecznym w badaniu histopatologicznym wynik wskazał na promienicę. Pobrano również materiał z dwóch różnych miejsc (okolica podniebienia i po usuniętym zębie mlecznym) do badań mikrobiologicznych, w kierunku bakterii beztlenowych i tlenowych. Wyniki wykazywały jedynie fizjologiczną florę jamy ustnej, bez żadnych informacji o *Actinomyces*.

W terapii promienicy stosuje się leczenie farmakologiczne (antybiotykoterapię) i chirurgiczne. Wśród antybiotyków najczęściej zalecana jest penicylina krystaliczna dożylnie 100 000 do 150 000 j.m./kg mc. na dobę co 4-6 godzin przez 4-6 tygodni, a następnie penicylina doustnie. W przypadku oporności lub uczulenia na penicylinę można zastosować imipenem, erytromycynę lub klindamycynę, w stosownych do wieku dawkach (17). U pacjentki zastosowaliśmy penicylinę fenoksymetylową (Ospen) w dawce 1 milion jednostek co 8 godzin. Poprawa stanu miejscowego widoczna była w ciągu 2 tygodni, po 5 miesiącach wykonano CBCT, która potwierdziła skuteczną terapię tym antybiotykiem.

Leczenie chirurgiczne polega na żyzeczkowaniu kości, resekcji tkanki martwiczej, wycięciu przetok oraz drenażu ropni tkanek miękkich. Według Moturi i Kaila leczenie chirurgiczne jest leczeniem wspomagającym, a terapia powinna opierać się głównie na długotrwałej antybiotykoterapii (16). Według Neto i wsp. leczenie powinno być skojarzone, polegać na żyzeczkowaniu kości i usunięciu tkanki martwiczej wraz z podawaniem antybiotyków. Autorzy wspominają również o terapii tlenem hiperbarycznym, która wspomaga proces naprawczy kości (18). U pacjentki leczenie polegało tylko na antybiotykoterapii, a leczenie chirurgiczne, ze względu na regresję zmiany i poprawę stanu miejscowego, nie było konieczne.

WNIOSKI

1. Promienica to rzadkie, nadal trudne do diagnostyki schorzenie.
2. W przypadku przewlekłych, nieleczących się zapaleń należy pamiętać o zapaleniu swoistym.
3. Badania bakteriologiczne i histopatologiczne powinno się wykonywać kilkakrotnie, w przypadku braku jednoznacznych wyników.
4. Penicylina fenoksymetylowa jest skutecznym antybiotykiem w leczeniu promienicy.

KONFLIKT INTERESÓW

Brak konfliktu interesów

ADRES DO KORESPONDENCJI

*Ewa Krasuska-Sławińska
Instytut „Pomnik Centrum
Zdrowia Dziecka”
ul. Aleja Dzieci Polskich 20,
04-730 Warszawa
tel. +48 (22) 815-13-15
ewakrasuska26@gmail.com

PIŚMIENICTWO

1. Avijgan M, Shakeri H, Shakeri M: A case report of cervicofacial actinomycosis. *Asian Pac J Trop Med* 2010; 3: 838-840.
2. Gałkowska E, Owczarek B, Kiernicka M et al.: Stomatologu bądź gotowy rozpoznać promienicę. *e-Dentico* 2011; 5: 90-94.
3. Kolebach B, Stryjewska-Makuch G, Grzegorzek T: Postać twarzowo-szyjna promienicy – opis przypadku. *Otolaryngol Pol* 2004; 5: 1019-1022.
4. Manowska B, Kobus B, Adamczyk J et al.: Aktualne poglądy na temat promienicy. *e-Dentico* 2008; 1: 108-114.
5. Choroby zakaźne i zatrucia w Polsce w 2006; http://www.pzh.gov.pl/oldpage/epi-meld/2006/Ch_2006.pdf.
6. Choroby zakaźne i zatrucia w Polsce w 2008; http://www.pzh.gov.pl/oldpage/epi-meld/2008/Ch_2008.pdf.
7. Brook I: Actinomycosis: diagnosis and management. *South Med J* 2008; 111: 1019-1023.
8. Acevedo F, Baudrand R, Letelier LM et al.: Actinomycosis: a great pretender. Case reports of unusual presentations and a review of the literature. *Int J Infect Dis* 2008; 12: 358-362.
9. Mabeza GF, Macfarlane J: Pulmonary actinomycosis. *Eur Respir J* 2003; 21: 545-551.
10. Harris LF, Kakani PR, Selah CE: Actinomycosis. Surgical aspects. *Am Surg* 1985; 51(5): 262-264.
11. Składzie J, Trąbka-Zawicki P, Wierchowski W et al.: Promienica ucha środkowego. *Otolaryngol Pol* 2002; 56(3): 369-371.
12. Raymond J, Podsiadło M, Zaniewicz R et al.: Iontophoresis application in the treatment of actinomycosis of the soft tissue in the maxillofacial region – case report. *J Stoma* 2013; 66(3): 411-417.
13. Jurkiewicz B, Jankowski Ł, Samotyjek J et al.: Atypical inflammation of the soft tissue, most likely caused by Actinomyces infection – a case report. *Pediatr Med Rodz* 2016; 12(3): 337-343.
14. Verma S, Verma GK, Shanker V et al.: Pediatric cervicofacial actinomycosis disclosing an underlying congenital dermoid cyst. *Dent Res J* 2014; 11(2): 281-283.
15. Thacker SA, Healy CM: Pediatric Cervicofacial Actinomycosis: An Unusual Cause of Head and Neck Masses. *J Pediatric Infect Dis Soc* 2014; 3(2): e15-19.
16. Moturi K, Kaila V: Cervicofacial Actinomycosis and its Management. *Annals of Maxillofacial Surgery* 2018; 8(2).
17. Li Y, Li Y: Actinomyces and Alimentary Tract Diseases: A Review of Its Biological Functions and Pathology. *BioMed Research International* 2018; 8.
18. Neto CN, Carvalho WRS, Conceicao SML et al.: Maxillary osteomyelitis by actinomycetes in a child. *Int J Odontostomat* 2018; 12(1): 15-20.

nadesłano:

2.10.2022

zaakceptowano do druku:

23.10.2022