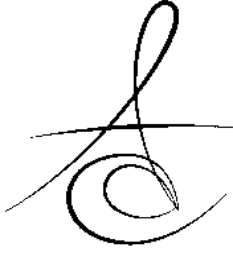


MANDİBULADA İZLENEN SAPHO SENDROMU: OLGU SUNUMU

SAPHO SYNDROME IN MANDIBLE: CASE REPORT



Arş. Gör. Çiğdem SARIKIR*
Doç. Dr Murat DİZBAY***

Yrd. Doç. Dr Adil BAŞMAN**
Doç. Dr Kemal FINDIKÇIOĞLU****
Doç. Dr İlkay PEKER*

Makale Kodu/Article code: 2568
Makale Gönderilme tarihi: 23.01.2016
Kabul Tarihi: 29.03.2016

ÖZ

SAPHO sendromu, nedeni bilinmeyen, nadir görülen sinovit, akne, püstüloz, hiperostoz ve osteit bulguları ile karakterize bir hastalıktır. Bu sendromda kemik, eklem ve deri tutulumu meydana gelebilir. Kemik lezyonlarının hedef bölgesi sıklıkla göğüs ön duvarı, klavikular, sternum ve sternoklaviküler eklemlerdir (yaklaşık %70-90). Mandibulada (yaklaşık %10) nadiren ortaya çıkar. Bu makalede SAPHO sendromlu bir olgunun klinik, radyografik bulguları ve tedavisi sunulmaktadır.

Anahtar kelimeler: mandibula, SAPHO sendromu,

ABSTRACT

SAPHO syndrome is a rare disorder of unknown etiology, characterized by synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis and osteitis. Bone, joint and skin involvement can occur in this syndrome. The most common target sites of bone lesions are the anterior chest wall, the clavicles, sternum, and sternoclavicular joints (approximately %70–90). It rarely seen in the mandible (approximately 10%). This report presents clinical and radiographic findings and also treatment in a case of SAPHO syndrome.

Key words: mandible, SAPHO syndrome

GİRİŞ

SAPHO sendromu, sinovit, akne, püstüloz, hiperostoz ve osteit bulgularıyla karakterize, kemik, eklem ve deri tutulumuyla seyreden, kronik bir hastalıktır. İlk kez Chamot ve arkadaşları¹ tarafından 1987 yılında tanımlanan, etiyojisi tam olarak bilinmeyen bu sendrom, klinik seyri ve takibi esnasında teşhis edilir. En sık sternum, kosta ve klavikulalarda hiperostoz, genişleme ve göğüs ön duvarı tutulumu görülür. Mandibulada nadiren ortaya çıkar ve tekrarlayan ağrı, pürülan olmayan şişlik ve trismus gibi şikayetlere neden olur.²

Bu olgu sunumunun amacı, SAPHO sendromu tanısı konulan 20 yaşındaki bir kadın hastanın, klinik, radyografik bulguları ve tedavisini değerlendirmektir.

OLGU SUNUMU

20 yaşındaki kadın hasta, Gazi Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi Ağız, Diş ve Çene Radyolojisi Anabilim Dalı'na Nisan 2013 tarihinde yüzünün sağ tarafındaki ağrı ve şişlik şikayetiyle başvurdu. Medikal anamnezde herhangi bir sistemik hastalığının olmadığı öğrenildi. Hasta, iki yıl önce sağ çenesinde oluşan şişliğin akneden kaynaklandığını düşünüp dermatoloji bölümüne gittiğini ve verilen ilaçlar alerji yaptığı için kullanmadığını ifade etti. Hasta dermatolojiden yarar görmediğini düşünerek gittiği serbest diş hekiminin, şişliğin yirmi yaş dişlerinden kaynaklanabileceğini belirterek, antibiyotik eşliğinde 6 ay arayla önce sağ, sonra sol yirmi yaş dişlerini çektiğini, şişlik geçmeyince de üniversite hastanesine yönlendirdiğini bildirdi.

Ekstraoral muayenede, yüzde asimetri, sağ tarafta daha fazla olmak üzere yüzde akneler gözlemlendi

*Gazi Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi, Ağız, Diş ve Çene Radyolojisi AD

**Gazi Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi, Periodontoloji AD

*** Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi, Enfeksiyon Hastalıkları AD

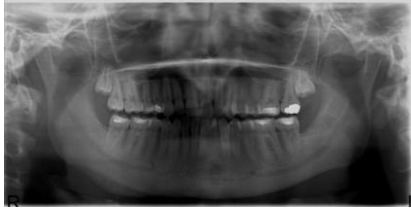
**** Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi, Plastik ve Rekonstrüktif Cerrahi AD



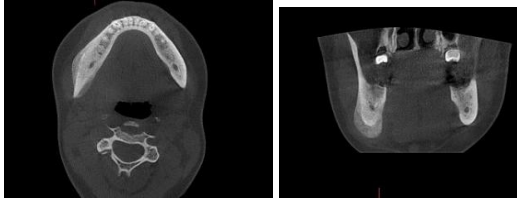
(Resim 1). İntraoral muayenede ise sağ tarafta şişliğe neden olabilecek bir patoloji izlenmedi. Panoramik radyografi incelemesinde sağ korpus mandibulada kortikal kemiği çevreleyen, sol tarafla karşılaştırıldığında asimetriye neden olmuş, kemik densitesinde radyo-opasite mevcuttu (Resim 2). Konik ışınli bilgisayarlı tomografi (KIBT) kesitlerinde sağ mandibular korpusta birinci premolar diş bölgesinden angulus mandibulaya doğru uzanan, mandibula korteksinin dışında, korteksi çevreleyen hiperostozis izlendi. Hastada akne sonucu meydana gelmiş kronik osteomyelite bağlı hiperostozis geliştiği düşünüldü (Resim 3).



Resim 1. Hastanın ilk ekstraoral fotoğrafı



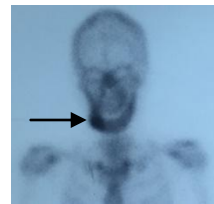
Resim 2. Hastanın ilk panoramik radyografi incelemesinde izlenen, sağ korpus mandibulada kortikal kemiği çevreleyen, kemik densitesindeki radyo-opasitenin görüntüsü.



Resim 3. Hastanın (A) aksiyel ve (B) koronal KIBT kesitlerinde sağ mandibular korpusta birinci premolar diş bölgesinden angulus mandibulaya doğru uzanan, mandibula korteksinin dışında, korteksi çevreleyen, trabeküler kemik densitesinde izlenen hiperostozis görüntüsü

Hastanın enfeksiyon bulguları açısından değerlendirilmesi için enfeksiyon hastalıkları bölümüne, aknelere için dermatoloji bölümüne konsülte edildi. Enfeksiyon hastalıkları ile konsültasyon sonucunda C-reaktif protein (CRP) düzeyinin yüksek (CRP:0,85, Normal:0-0,6) ve sedimentasyon hızının (SH) normal sınırlarda (SH:10, Normal:0-20) olduğu tespit edildi. Dermatolog

tarafından hastaya bir ay süreyle azitromisin grubu (Azitro 500 mg tb, 1x1) oral antibiyotik ile eritromisin ve benzoil peroksit içeren jel (Acnemix jel) reçete edildi. Anamnez bilgileri, klinik, radyografik bulgular ve laboratuvar bulguları sonucunda hastaya SAPHO sendromu tanısı konuldu. Vücutta başka tutulum olup olmadığını incelemek için hastadan kemik sintigrafisi istendi (Resim 4). Sintigrafi sonucu, mandibuladaki kronik osteomyelit bulgusunu destekler nitelikteydi. Dermatoloji tedavisi sonrasında hastanın aknelere önemli ölçüde azaldı. Hasta, ağız, diş ve çene cerrahisi bölümüne konsülte edildi ve sağ mandibuladan insizyonel biyopsi yapılması gerekli görüldü. Ancak hasta, cerrahi girişimi reddetti. Bu nedenle hastaya uzun süreli antibiyotik ve antiinflamatuvar ilaç tedavisi ile birlikte, 40 seans hiperbarik oksijen tedavisi planlandı. Hastaya altı ay süreyle kullanması için rok- sitromisin grubu antibiyotik (rulid 300 mg, 1x1) ve non-steroid anti inflamatuvar (xefe 8 mg, 1x1) ilaç reçete edildi. Hasta, hiperbarik oksijen tedavisini istemeyerek, sadece reçete edilen ilaçları kullandı ve dört haftalık periyotlarda klinik muayene ve laboratuvar testleri (CRP, SH ve karaciğer fonksiyon testleri) yapılarak altı ay boyunca takip edildi. Altı ay sonunda hastanın ağrı ve şişlik şikâyetleri önemli ölçüde azalmıştı. Hasta, ilacı kendi isteğiyle bırakınca şikâyetleri tekrarladı. Enfeksiyon hastalıkları bölümüne tekrar konsülte edilen hastaya üç ay süreyle sodyum fusidat grubu antibiyotik (Stafine 500 mg, 3x1) reçete edildi ve daha önce planlanan 40 seans hiperbarik oksijen tedavisi uygulandı. Bunun sonucunda, şişlik gerilemiş olmakla beraber, hasta estetik görünümünden memnun değildi ve isteği doğrultusunda estetik rehabilitasyonu için plastik ve rekonstrüktif cerrahi bölümüne konsülte edildi. Cerrahi tedavi planlandı ve hastaya iki hafta süreyle (ameliyat tarihine kadar) kullanması için moksifloksasin hidroklorür reçete edildi. Yapılan cerrahi tedavi sonrası iki hafta süreyle amoksisilin+klavulanik asit (Augmentin 1gr, 2x1) reçete edildi. Cerrahi tedaviden bir ay sonra kontrol edilen hastada şişlik ve mandibuladaki asimetri kaybolmuştu (Resim 5 ve 6).



Resim 4. Hastanın sintigrafik görüntüsünde sağ mandibulada izlenen tutulum (siyah ok).



Resim 5. Hastanın cerrahi tedavi sonrası fotoğrafı



Resim 6. Hastanın tedavi sonrası panoramik radyografi görüntüsü

TARTIŞMA

SAPHO sendromu, erişkinlerde en sık göğüs ön duvarı, klavikular, sternum ve sternoklavikuler eklemler (%70-90), sakroiliak bölge (%40), omurga (%33), mandibula (%10) ve pubik simfizde (%7) görülür.³⁻⁵ Mandibuladaki olguların çoğunlukla korpus ve ramus mandibulada, daha az oranda temporo-mandibuler eklem bölgesinde izlendiği bildirilmektedir.^{6,7} Bununla birlikte, hastalığın klinik bulgularının değişken olması, uluslararası kabul edilmiş bir sınıflandırma ve tanı kriterlerinin olmaması nedeniyle bu sendromun görülme sıklığıyla ilgili veriler yetersizdir. Hayem ve arkadaşları³ SAPHO sendromu görülen 120 olguyu inceledikleri çalışmada, kadınlarda ve 30 yaş altı bireylerde daha sık izlendiğini belirtmişlerdir. Yabe ve arkadaşları⁸ ise 11 hastayı değerlendirdikleri çalışmada orta yaşlı bireylerde hastalığın daha fazla görüldüğünü gözlemlemişlerdir. Bu olguda, 20 yaşındaki bir kadın hastaya SAPHO sendromu teşhisi konuldu ve mandibular korpus bölgesinde kronik osteomyelitte bağlı hiperostozis izlendi.

SAPHO sendromunun klinik bir tanı olduğu ve histopatolojik incelemeler de dâhil tek başına tanı koydurucu bir laboratuvar bulgusunun olmadığı bildirilmektedir.⁴ Ancak deri lezyonlarına eşlik eden karakteristik kemik ve/veya eklem patolojilerinin, radyolojik ve sintigrafik olarak saptanmasının tanı için

yeterli olduğu kabul edilmektedir.^{4,9} KIBT, kemik patolojilerinin üç boyutlu görüntülenmesine, kemik sklerozlarının ve kortikal ekspansiyonun değerlendirilmesine olanak sağlar.¹⁰ Kemik sintigrafisi, SAPHO sendromu tanısında oldukça spesifiktir. Genellikle bilateral ve simetrik olma eğilimindeki lezyonlar, hastalığın çok erken, asemptomatik olduğu dönemde sintigrafik olarak saptanabilmektedir. Radyolojik ve klinik bulgulara ek olarak bu sintigrafik bulguların saptanması durumunda, biyopsiye gerek kalmadan tanı konulabileceği bildirilmektedir.⁹ Osteomyelitte klinik ve radyografik değerlendirmenin yanı sıra, olguların teşhisi ve tedavinin takibinde spesifik olmamakla birlikte, eritrosit sedimentasyon hızı ve CRP seviyelerinin ölçümü yardımcı laboratuvar testleridir. Bu olguda tekrar eden aknelere karakterize deri bulguları, panoramik radyografi ve KIBT görüntülerinde sağ mandibulada kronik osteomyelitte bağlı hiperostozis mevcuttu. Vücudun başka bir yerinde tutulum olup olmadığını belirlemek için elde edilen sintigrafik sonucunda, sadece sağ mandibular bölgede tutulum olduğu tespit edildi. Aynı zamanda teşhis ve tedavinin takibi sürecinde önerilen laboratuvar testleri periyodik olarak yapıldı.

SAPHO sendromu için genel kabul görmüş bir tedavi stratejisi yoktur. Farklı araştırmacılar tarafından farklı tedavi yöntemleri önerilmiştir. SAPHO sendromunun enfeksiyöz bir hastalık olmadığı düşünülmesine rağmen, antibiyotik tedavisinin, hastalığın semptomlarının giderilmesinde etkili olduğu görülmektedir.² Bu hastalarda, tetrasiklin, makrolid, klindamisin ve roksitromisin gibi çeşitli antibiyotikler, non-steroid antiinflatuar ilaçlar ve hiperbarik oksijen tedavisi ile konservatif tedavi uygulanabilir.^{6,7} Birçok çalışmada uzun süreli roksitromisin veya bifosfonat tedavisiyle başarılı sonuçlar alındığı bildirilmiştir.^{2,11,12} Bifosfonat kullanımı sonucunda osteonekroz gelişme riski nedeniyle roksitromisin daha güvenlidir.² Öte yandan, kortikosteroidler ve antiromatizmal ilaçların da tedavi amacıyla kullanılabilirliği belirtilmektedir.¹³ Literatürde, mandibulada izlenen SAPHO sendromlu olgularda kombine roksitromisin ve non-steroid antiinflatuar, kombine makrolid ve levofloksasin ile kombine bifosfonat ve kortikosteroid grubu ilaçların uzun süreli kullanılması gibi birçok farklı tedaviler uygulanmış olgular mevcuttur.^{2,12,14} Bununla birlikte, ilaç tedavisiyle (makrolid ve non-steroid antiinflatuar) kombine cerrahi ya da sadece cerrahi tedavinin uygulandığı olgular da bildirilmiştir.⁴ SAPHO sendromunun spesifik bir tedavisi olmamakla birlikte, çoğu araştırmacı

tarafından uzun süreli antibiyotik ve/veya non-steroid antiinflatuar tedaviyle birlikte uygulanan hiperbarik oksijen tedavisinin ilk tedavi seçeneği olarak dikkate alınması önerilmektedir.^{2,6,14,15} İnatçı olgularda bu konservatif tedavi sonrası cerrahi tedavi yapılabilir.^{2,6,14,15} Bu olguda, öncelikle konservatif yaklaşımla, uzun süreli antibiyotik ve non-steroid antiinflatuar ilaçlarla birlikte hiperbarik oksijen tedavisi uygulandı. Semptomlar geriledi, ancak hastanın estetik kaygılarını gidermek için cerrahi tedavi yapıldı.

SAPHO sendromu nadir görülmekle birlikte, diş hekimlerinin bu hastalığın etiolojisi, klinik ve radyografik bulgularının farkında olmaları gerekir. Klinik pratikte, erken teşhis için uzun süreli şişlikler ve tedavi seçenekleri dikkatlice değerlendirilmelidir. Hastalığın optimal tedavi süresi ve ilaç tedavisinin etkisinin değerlendirilmesi için daha fazla araştırma ve klinik deneyime ihtiyaç vardır.

KAYNAKLAR

1. Chamot AM, Benhamou CL, Kahn MF, Beranek L, Kaplan G, Prost A. Le syndrome acne pustulose hyperostose osteite (SAPHO): resultats d'une enquete nationale. Rev Rheum Mal Osteoartic 1987;54:187-96.
2. Deng R, Yang X, Hao J. Effective medical treatment in a patient with SAPHO syndrome involving the mandible. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol 2012;114:401-3.
3. Hayem G, Bouchaud-Chabot A, Benali K, Roux S, Palazzo E, Silbermann-Hoffman O, et al. SAPHO syndrome: a long-term follow-up study of 120 cases. Semin Arthritis Rheum 1999;29:159-71.
4. Earwalker JW, Cotton CA. SAPHO: syndrome or concept? Imaging findings. Skeletal Radiol 2003;32:311-27.
5. Colina M, Govoni M, Orzincolo C, Trotta F. Clinical and radiologic evaluation of synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis, and osteitis syndrome: a single center study of a cohort of 71 subjects. Arthritis Care Res 2009;61:813-21.
6. Zemmann W, Pau M, Feichtinger M, Ferra-Matschy B, Kaercher H. SAPHO syndrome with affection of the mandible: diagnosis, treatment, and review of literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2011;111:190-5.
7. Utumi ER, Oliveira Sales MA, Shinohara EH, Takahashi A, Coracin FL, Rocha RG, 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-e72.
8. Yabe H, Ohshima H, Takano Y, Koyanaqi T, Usui H, Nojiri K, et al. Mucosal lesions may be a minor complication of SAPHO syndrome: a study of 11 Japanese patients with SAPHO syndrome. Rheumatol Int 2010;30:1277-83.
9. Freyschmidt J, Sternberg A. The Bull's Head Sign: scinting raphy pattern of sternoclavicular hyperostosis and putulotic arthrosclerosis. Eur Radiol 1998;8:807-12.
10. Aktan AM, Güngör E, Çiftçi ME, İşman Ö. Diş hekimliğinde konik ışınli bilgisayarlı tomografi kullanımı. Atatürk Üniv Diş Hek Fak Derg 2015;1;71-6.
11. Yoshii T, Nishimura H, Yoshikawa T, Furudo S, Yoshioka A, Takenono I, Ohtsuka Y, Komori T. Therapeutic possibilities of long-term roxithromycin treatment for chronic diffuse sclerosing osteomyelitis of the mandible. J Antimicrob Chemother 2001;47:631-7.
12. Kuijpers SC, de Jong E, Hamdy NA, van Merkesteyn JP. Initial results of the treatment of diffuse sclerosing osteomyelitis of the mandible with bisphosphonates. J Craniomaxillofac Surg 2011;39:65-8.
13. Matzaroglou CH, Velissaris D, Karageorgos A, Marangos M, Panagiotopoulos E, Karanikolas M. SAPHO treatment: report of five cases and review of the literature. Open Orthop J 2009;3:100-6.
14. Hatano H, Shigeishi H, Higashikawa K, Shimasue H, Nishi H, Oiwa H, et al. A case of SAPHO syndrome with diffuse sclerosing osteomyelitis of the mandible treated successfully with prednisolone and bisphosphonate. J Oral Maxillofac Surg 2012;70:626-31.
15. Cotti E, Careddu R, Schirru E, Marongiu S, Barca MP, Manconi PE, et al. A case of SAPHO syndrome with endodontic implications and treatment with biologic drugs. J Endod 2015;41:1565-70.

Yazışma Adresi

Doç. Dr. İlkey PEKER
Gazi Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi
Ağız, Diş ve Çene Radyolojisi Anabilim Dalı
2. Sokak No.4 Emek-Ankara
Tel: 0312 203 41 58
e-posta: drilkaypeker@gmail.com

