einstein
Publicação Oficial do Instituto Israelita de Ensino e Pesquisa Albert Einstein

ISSN: 1679-4508 | e-ISSN: 2317-6385

RELATO DE CASO

# Comprometimento da articulação temporomandibular como única manifestação da artrite idiopática juvenil: um relato de caso

## Temporomandibular joint disorders as the only manifestation of juvenile idiopathic arthritis: a case report

José Renato Ribeiro Pinto[1], Irineu Gregnanin Pedron[2], Estevam Rubens Utumi[3], Milton Edson Miranda[4], Elisa Cruz Pereira Pinto[2], Leopoldo Penteado Nucci[1,5]

[1] Hospital Israelita Albert Einstein, São Paulo, SP, Brasil.
[2] Universidade de São Paulo, São Paulo, SP, Brasil.
[3] Hospital de Aeronáutica de São Paulo, SP, Brasil.
[4] Faculdade de Medicina e Odontologia São Leopoldo Mandic, Campinas, SP, Brasil.
[5] Centro Universitário do Planalto Central, Brasília, DF, Brasil.

**DOI: 10.1590/S1679-45082018RC4003**

## RESUMO

Artrite idiopática juvenil é um termo usado para incluir toda artrite infantil crônica de etiologia desconhecida. É caracterizada por uma inflamação crônica, que persiste por pelo menos 6 semanas, com início antes dos 16 anos de idade. As características presentes são sinovite crônica, artralgia, mobilidade articular diminuída em pelo menos uma articulação, e erosão com destruição da cartilagem e do osso subcondral, podendo ser associada ou não com o envolvimento sistêmico, de acordo com cada subtipo da doença. Durante o processo patológico, a articulação temporomandibular pode ser envolvida pela artrite idiopática juvenil, resultando em disfunção mandibular severa, com maior frequência em pacientes do sexo feminino. Inicialmente, estas lesões podem mostrar pequenas alterações, como achatamento do côndilo e erosões, e evoluir para lesões graves, como a destruição da cabeça do côndilo. Relatou-se o caso de um paciente do sexo masculino, que apresentou destruição de ambos os côndilos, como resultado da artrite idiopática juvenil. Os mecanismos para explicar a artrite idiopática juvenil foram revisados na literatura. Neste relato de caso, o paciente não apresentou dor e nem processo inflamatório, sendo o comprometimento da articulação temporomandibular a única manifestação.

**Descritores:** Artrite juvenil; Transtornos da articulação temporomandibular; Côndilo mandibular

## ABSTRACT

Juvenile idiopathic arthritis is a term used to include all chronic childhood arthritis of unknown etiology. It is characterized by chronic inflammation persisting for at least 6 weeks, beginning before 16 years of age. The characteristics present are chronic synovitis, arthralgia, impaired joint mobility in at least one joint, and erosion with destruction of cartilage and subchondral bone, that could be associated or not with systemic involvement, according to each subtype of the disease. During the pathologic process, the temporomandibular joint can be involved by the juvenile idiopathic arthritis, resulting in severe mandibular dysfunction, with higher frequency in female patients. Initially, these lesions can show minor alterations like flattening of the condyle, erosions, and evolve to severe lesions, like destruction of the head of the condyle. We report a case of male patient who had destruction of both condyles, as a result from juvenile idiopathic arthritis. Proposed mechanisms to explain the juvenile idiopathic arthritis was reviewed. In this

**Como citar este artigo:**
Pinto JR, Pedron IG, Utumi ER, Miranda ME, Pinto EC, Nucci LP. Comprometimento da articulação temporomandibular como única manifestação da artrite idiopática juvenil: um relato de caso. einstein (São Paulo). 2018;16(3):eRC4003. https://doi.org/10.1590/S1679-45082018RC4003

**Autor correspondente:**
José Renato Ribeiro Pinto
Rua Clodomiro Amazonas,
1.422, sala 35 – Itaim Bibi
CEP: 04537-002–São Paulo, SP, Brasil
Tel.: (11) 3493-4546
E-mail: ejodontologia@gmail.com

**Data de submissão:**
25/1/2017

**Data de aceite:**
13/11/2017

***Copyright* 2018**

Esta obra está licenciada sob uma Licença *Creative Commons* Atribuição 4.0 Internacional.

report the patient did not have pain or inflammatory process, and the temporomandibular diseases was the only manifestation.

**Keywords:** Arthritis, juvenile; Temporomandibular joint disorders; Mandibular condyle

## INTRODUÇÃO

Artrite idiopática juvenil (AIJ) é um termo utilizado para incluir todas as artrites crônicas da infância de etiologia desconhecida (o termo foi estabelecido pela *International League of Associations for Rheumatology*). Trata-se de uma inflamação crônica, com duração de pelo menos 6 semanas, e que tem início antes dos 16 anos de idade, de acordo com os critérios do *American College of Rheumatology*.[1,2]

A articulação temporomandibular (ATM) pode ser afetada pela AIJ. As disfunções temporomandibulares (DTM), como clique, crepitação e deslocamento de disco em pacientes com AIJ, podem levar a alterações graves, como côndilos hipoplásticos, morfologia facial convexa e retrognatia.[1,2]

É uma doença que ocorre no mundo inteiro e afeta todos os grupos étnicos e raciais, porém, a falta de uma classificação universal torna difícil determinar suas taxas de incidência e prevalência, produzindo dados conflituosos.[2-5]

Uma nova denominação da AIJ substitui anteriores, e os termos "artrite crônica juvenil" e "artrite reumatoide juvenil" são utilizados de acordo com a área geográfica. A AIJ, de acordo com o novo critério de denominação, é redividida com base em características clínicas iniciais: oligoartrite, artrites afetando um ou pelo menos quatro das articulações nos 6 primeiros meses da doença; poliartrite, mais de quatro das articulações durante os 6 primeiros meses; e na forma sistêmica, artrite associada com manifestações de marcadores sistêmicos. Outras categorias são artrite psoriásica e artrite relacionada à entesite.[2]

A etiologia da doença ainda é obscura, porém infecções, traumas físicos, suscetibilidade genética, distúrbios imunológicos e estresse têm sido mencionados como fatores importantes.[3,6] A patogênese da AIJ ainda é pouco compreendida: a interação entre fatores ambientais e genes múltiplos tem sido considerada o mecanismo mais relevante para o desenvolvimento da AIJ. O conceito de que um número de micróbios coloniza ou infecta não apenas a superfície da mucosa, como a cavidade oral, mas também as vias aéreas e intestino, podendo desencadear processos autoimunes e resultando em artrites crônicas e AIJ, foi delineado no início do século passado.[6]

Durante o processo deletério, a ATM, como qualquer outra articulação, pode afetar a AIJ, causando disfunção mandibular crônica, incluindo redução da habilidade de mastigação, maloclusão e micrognatia.[7] Modificações na anatomia facial podem ser um efeito do distúrbio de crescimento, associado a danos do côndilo.[8,9] Ao longo da evolução, estas lesões mostram poucas alterações, aplainamento do côndilo, erosões, ou lesões graves, como destruição da cabeça do côndilo.[3]

O diagnóstico é clinico, e poucos pacientes têm sinais e sintomas atípicos no início da doença, retardando o diagnóstico e o tratamento da doença. As imagens radiográficas ajudam o diagnóstico da AIJ, permitindo detecção precoce da doença e, assim, intervenção precoce. A ATM pode ser primeiro ou mesmo o único sinal da AIJ.[3,10,11]

## RELATO DE CASO

Paciente caucasiano, 12 anos, encaminhado pelo ortodontista para avaliação de sua ATM por conta de a radiografia panorâmica mostrar aplainamento do côndilo bilateral. Clinicamente, o paciente mostrou micrognatia, retrognatia e pequena abertura anterior (Figuras 1A e D). Funcionalmente a abertura da boca, a fala e a mastigação estavam normais. Durante a abertura, o fechamento e a excursão lateral, não se observaram sons, desconforto e nem sintomas. O paciente não relatou sintomas ou dificuldade nas excursões laterais, e uma tomografia computadorizada tridimensional foi solicitada. O paciente foi encaminhado ao reumatologista que solicitou diversos exames. Dentre estes, o resultado foi positivo somente no exame de anticorpo antinuclear (ANA) por meio do método de imunofluorescência indireta: 1:80 (valor de referência de 1:40).

O diagnóstico clínico foi inconclusivo para AIJ, lúpus eritematoso sistêmico ou qualquer outra doença. Os achados da tomografia tridimensional mostraram erosão principal da cabeça de ambos os côndilos (Figuras 1B e C). A alteração morfológica da face, retrognatia, micrognatia e erosão de côndilo, mesmo sem sinais de inflamação e sem dor, levaram ao diagnóstico de AIJ. Nenhum tratamento invasivo foi conduzido, porém o paciente realizou seguimento anual.

Após 2 anos, o paciente foi examinado e não foram observados sintomas. Nesse período, solicitou-se nova radiografia tridimensional. O processo de erosão pareceu estar estável. O paciente não teve dificuldades nas excursões laterais, dor e nem sinais de processo inflamatório. A única diferença foi encontrada no exame ANA, por meio do método de imunofluorescência, que mostrou resultado positivo 1:60 (valor de referência 1:40).

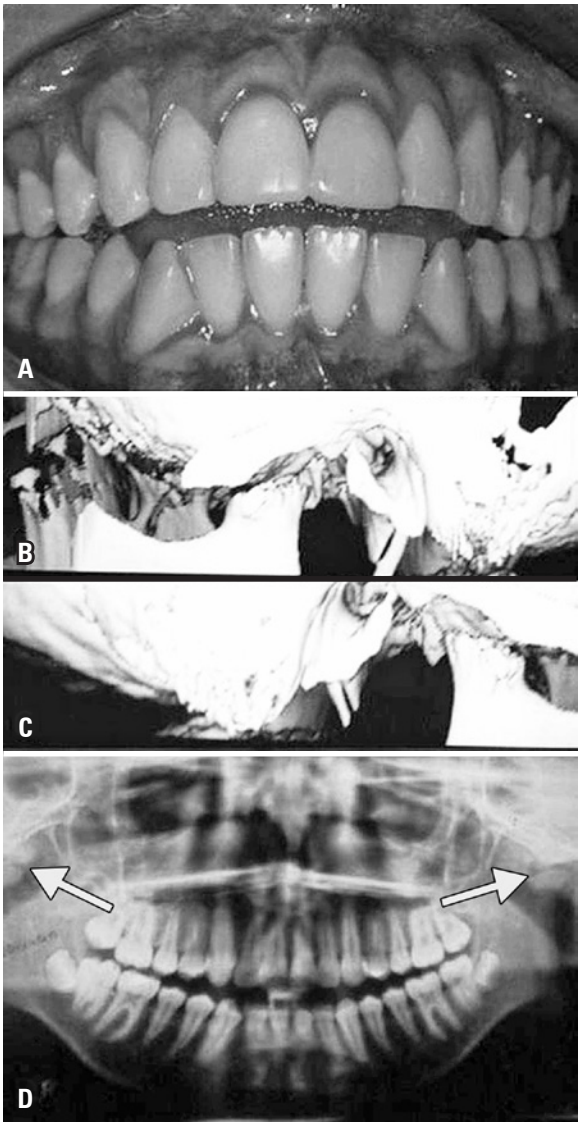


**Figura 1.** Alterações agudas na articulação temporomandibular com artrite idiopática juvenil, como detectado na tomografia tridimensional e na radiografia panorâmica. A imagem clínica do paciente mostra pequena abertura anterior (A). As alterações crônicas na articulação temporomandibular são mostradas em imagens sagitais, por meio de tomografia computadorizada tridimensional (B e C), envolvendo aplainamento do côndilo, erosões de côndilo e deslocamento do disco anterior. Os mesmos achados foram observados na radiografia panorâmica (D)

O paciente não tinha alterações em seu *status* radiográfico ou clínico, não tendo sido prescritos medicamentos. Apesar da redução no exame de ANA nos últimos 2 anos, o paciente foi reexaminado pelo reumatologista, e o diagnóstico foi novamente inconclusivo.

Entre a primeira consulta e o último exame clínico, realizou-se ressonância magnética para avaliar as alterações nos ossos e nos tecido mole, sem que fossem observadas mudanças morfológicas da região condilar, e nem modificações do perfil do paciente e da pequena abertura anterior. Uma vez que o tratamento do paciente com AIJ objetiva controlar a dor e a atividade inflamatória, não foram prescritos medicamentos.

Após 11 anos da primeira consulta, nenhum sinal de evolução da doença foi observado, e o paciente realizou *check-ups* anuais (exame clínico e radiográfico).

## DISCUSSÃO

Na AIJ, o acometimento do sistema mastigatório, especialmente envolvendo a ATM por processo de inflamação crônica, é relativamente comum. As mudanças mandibulares no tamanho e na forma podem ocorrer, uma vez que as mudanças patológicas afetam o côndilo, o centro do crescimento mandibular. Crianças afetadas por AIJ apresentam taxa de anormalidades condilar de 28%, e 40% delas são assimétricas. Alguns autores apresentam ATM como manifestações iniciais da AIJ ou apenas manifestações.[3,9]

A literatura relata prevalência de 12% de DTM em pacientes juvenis classificados por exames de imagem. Estes resultados indicam que doenças reumáticas podem levar a alto número de DTM em relação à população geral. É difícil comparar os resultados clínicos de nossa investigação da ATM àqueles da literatura, já que não há classificação para pacientes juvenis, como os critérios de diagnóstico clínico para classificação DTM, que referem-se a pacientes adultos.[3] A revisão da literatura mostra que clique, crepitação, e dor são os parâmetros mais encontrados para investigação da ATM juvenil. Além disso, os sintomas clínicos da DTM juvenil mudam durante o crescimento dos pacientes, tornando as comparações difíceis, já que estudos publicados não dividiram os pacientes em grupos de idades distintas.[2,7,11]

A avaliação clínica da ATM é difícil, especialmente em crianças pequenas, devido aos sintomas, como dor que pode oferecer avaliação somente indireta, por meio do questionamento dos parentes dos pacientes.[5] Além disso, os sintomas clínicos podem ser mascarados pela terapia antirreumática. O tratamento precoce de DTM pode prevenir mau funcionamento agudo da ATM, causado por côndilo hipoplásico e pelas mudanças no crescimento da mandíbula.[7,8] O aspecto mais importante deste relato é a DTM grave como única manifestação da AIJ em um paciente do sexo masculino, de 12 anos, que foi seguido por 11 anos.

Imagens radiográficas têm sido utilizadas para o diagnóstico de AIJ. No entanto, a dificuldade para determinar um programa terapêutico adequado está re-

lacionada à baixa sensibilidade das técnicas padrão da radiografia. Para avaliar os sintomas, uma boa história clínica é obrigatória. Somente as radiografias da ATM não são suficientes. As radiografias simples são difíceis de interpretar devido à sobreposição do osso. A tomografia computadorizada oferece detalhes dos ossos, mas expõe o paciente à radiação significante. A ressonância magnética é o métodos padrão-ouro para demostrar as doenças ósseas e de tecidos moles.[6] Ainda, a ressonância magnética e a ultrassonografia não apresentam risco de radiação e são vantajosas em relação à tomografia computadorizada.[9-11]

As doenças temporomandibular são geralmente mascaradas pela terapia antirreumática. Do ponto de vista do dentista, a intervenção terapêutica, terapia com placa, deve ser iniciada durante os estágios precoces de DTM.[6,7]

Outros estudos com mais pacientes, de grupos de idade distintas, são necessários para obter informações sobre a destruição da ATM em pacientes com AIJ. Isso possibilitaria a correção estatística entre a ultrassonografia e os resultados clínicos. As correlações significantes entre achados de imagens patológicas, a duração da doença reumática, e número de articulações periféricas tornam a técnica interessante para o uso como método de triagem.

## CONCLUSÃO

Durante o processo patológico, a articulação temporomandibular pode ser afetada pela artrite idiopática juvenil, resultando em disfunção mandibular grave, que apresenta alta frequência entre as mulheres. A disfunção temporomandibular pode ser o primeiro ou mesmo o único sinal de artrite idiopática juvenil. Quando o paciente não relata dor ou processo inflamatório, deve-se conduzir tratamento não invasivo, incluindo consultas e exame radiográfico anuais.

## INFORMAÇÃO DOS AUTORES

Pinto JR: https://orcid.org/0000-0003-0915-0884
Pedron IG: https://orcid.org/0000-0002-2677-5539
Utumi ER: https://orcid.org/0000-0002-3433-889X
Miranda ME: https://orcid.org/0000-0002-5410-6500
Pinto EC: https://orcid.org/0000-0001-6429-1570
Nucci LP: http://orcid.org/0000-0002-1234-5845

## REFERÊNCIAS

1 Ogilvie EM, Khan A, Hubank M, Kellam P, Woo P. Specific gene expression profiles in systemic juvenile idiopathic arthritis. Arthritis Rheum. 2007;56(6): 1954-65.

2. Taylor DB, Babyn P, Blaser S, Smith S, Shore A, Silverman ED, et al. MR evaluation of the temporomandibular joint in juvenile rheumatoid arthritis. J Comput Assist Tomogr. 1993;17(3):449-54.

3. Bakke M, Zak M, Jensen BL, Pedersen FK, Kreiborg S. Orofacial pain, jaw function, and temporomandibular disorders in women with a history of juvenile chronic arthritis or persistent juvenile chronic arthritis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 2001;92(4):406-14.

4. Saurenmann RK, Rose JB, Tyrrell P, Feldman BM, Laxer RM, Schneider R, et al. Epidemiology of juvenile idiopathic arthritis in a multiethnic cohort: ethnicity as a risk factor. Arthritis Rheum. 2007;56(6):1974-84.

5. Taylor J, Giannini EH, Lovell DJ, Huang B, Morgan EM. Lack of concordance in inter-rater scoring of the provider's global assessment of children with juvenile idiopathic arthritis with low disease activity. Arthritis Care Res (Hoboken). 2018;70(1):162-6.

6. Roth J, Bechtold S, Borte G, Dressler F, Girschick H, Borte M. [Diagnosis, prophylaxis and therapy of osteoporosis in juvenile idiopathic arthritis: consensus statement of the German Association for Pediatric Rheumatology]. Z Rheumatol. 2007;66(5):434-40. German.

7. Twilt M, Mobers SM, Arends LR, ten Cate R, van Suijlekom-Smit L. Temporomandibular involvement in juvenile idiopathic arthritis. J Rheumatol. 2004;31(7):1418-22.

8. Twilt M, Schulten AJ, Nicolaas P, Dülger A, van Suijlekom-Smit LW. Facioskeletal changes in children with juvenile idiopathic arthritis. Ann Rheum Dis. 2006;65(6):823-5.

9. Savioli C, Silva CA, Ching LH, Campos LM, Prado EF, Siqueira JT. Dental and facial characteristics of patients with juvenile idiopathic arthritis. Rev Hosp Clin Fac Med Sao Paulo. 2004;59(3):93-8.

10. Hu Y, Billiau AD, Verdonck A, Wouters C, Carels C. Variation in dentofacial morphology and occlusion in juvenile idiopathic arthritis subjects: a case-control study. Eur J Orthod. 2009;31(1):51-8.

11. Zwir LM, Terreri MT, Sousa SA, Fernandes AR, Guimarães AS, Hilário MO. Are temporomandibular joint signs and symptoms associated with magnetic resonance imaging findings in juvenile idiopathic arthritis patients? A longitudinal study. Clin Rheumatol. 2015;34(12):2057-63.