

Depressão Óssea Mandibular Lingual Posterior (Defeito Ósseo de Stafne)

Luis Monteiro *, António Sousa **

Resumo: As depressões ósseas mandibulares linguais posteriores são entidades raras, provocadas por uma pressão contínua sobre a face lingual da mandíbula, com múltiplas origens quer sejam da herniação da glândula submandibular, de tecido adiposo, linfóide ou vascular. São assintomáticas e geralmente detectadas em ortopantomografias. Correspondem a uma radiolucência localizada entre o ângulo mandibular e o primeiro molar inferior, inferiormente ao canal dentário inferior.

Os autores apresentam um caso clínico que ilustra uma típica depressão óssea mandibular lingual, detectada ocasionalmente numa ortopantomografia, provocada provavelmente por herniação da glândula submandibular. Este artigo mostra a utilidade da tomografia computadorizada na confirmação deste tipo de alteração. A evidência da abertura lingual definida por uma cortical íntegra exclui a maior parte dos diagnósticos diferenciais que podemos eventualmente propor.

Palavras-Chave: Defeito de Stafne; Depressões ósseas mandibulares; Glândulas salivares; Patologia oral

Abstract: Posterior lingual mandibular bone depressions are rare entities, caused by a continuous pressure on the lingual surface of the mandible, with multiple origins, whether by herniation of the submandibular gland or fat tissue, lymphatic tissue or vascular tissue. They're non symptomatic and accidentally detected by ortopantomography, that usually shows a radiolucent area between the mandibular angle and first inferior molar, below the inferior dental nerve canal. The authors present a case that shows a typical lingual mandibular bone depression, accidentally detected in an ortopantomography, probably caused by the herniation of the submandibular gland. This article shows the utility of CT scan in confirming this entity. The evidence of a lingual opening surrounded by perfectly sound cortical bone, excludes the majority of differential diagnosis that one may consider.

Key-words: Stafne's defect; Mandibular bone depressions; Salivary glands; Oral pathology

(Monteiro L, Sousa A. Depressão Óssea Mandibular Lingual Posterior (Defeito Ósseo de Stafne). Rev Port Estomatol Cir Maxilofac 2005;46:13-19)

* Médico Dentista. Regente de Biopatologia no IPSN-ESSVS

** Médico Dentista

INTRODUÇÃO

Em 1942, Edward Stafne descreveu uma série de 35 lesões radiolucentes, assintomáticas, localizadas perto do ângulo mandibular, a que chamou "cavidades ósseas situadas perto do ângulo da mandíbula"⁽¹⁾. Estas radiolucências de forma ovóide, mostravam margens ósseas muito densas e bem definidas. Desde então, várias publicações

têm referido a mesma alteração óssea utilizando sinónimos como defeito embrionário mandibular⁽²⁾, defeito congénito mandibular⁽³⁾, quisto hemorrágico latente⁽⁴⁾, cavidade óssea ideopática⁽⁵⁾, cavidade óssea estática⁽⁶⁾, inclusão da glândula salivar submandibular⁽⁷⁾, tecido da glândula salivar aberrante na mandíbula⁽⁸⁾, cavidade/defeito/ou quisto ósseo de Stafne^(9,10,11), depressão mandibular lingual de desenvolvimento

da glândula salivar⁽¹²⁾, concavidade/cavidade/defeito ósseo mandibular lingual posterior⁽¹³⁾ e combinações das anteriores.

Estas cavidades ósseas situadas na face lingual da região posterior da mandíbula, fazem parte de um conjunto de concavidades mandibulares chamadas de depressões ósseas mandibulares (DOM) que podem ser sistematizadas topograficamente em quatro variantes (por ordem decrescente de frequência): lingual posterior (DOM-LP), lingual anterior (DOM-LA), lingual no ramo mandibular (DOM-RL) e bucal no ramo mandibular (DOM-RB)⁽¹⁴⁾.

As depressões ósseas mandibulares linguais posteriores (DOM-LP) conhecidas como defeitos ósseos de Stafne são entidades bastante raras. Estudos publicados baseados na análise de ortopantomografias mostram uma frequência de 0.10 a 0.48%^(15,16). Porém, em estudos baseados na observação de mandíbulas secas, esta frequência é ligeiramente maior. Harvey e Noble⁽¹⁷⁾ encontraram 7 cavidades ósseas de Stafne em 950 mandíbulas (0,73%) e Kay⁽¹⁸⁾ encontrou 11 em 1385 mandíbulas (1,28%). Esta diferença de frequências entre os dois métodos referidos poderá estar relacionada com o facto dos casos mais pequenos não terem uma tradução radiológica evidente ou de nem todos os indivíduos com esta alteração realizar exames radiológicos, o que impossibilita o seu diagnóstico.

O sexo masculino é significativamente mais afectado (70-90%)^(13,14). São mais frequentes nas 5^o e 6^o décadas de vida^(9,14).

ETIOPATOGENIA

A etiologia e a patogenia destas cavidades ainda não estão claramente estabelecidas. Stafne

começou por as atribuir a uma hipoplasia mandibular devido a uma falha na calcificação da cartilagem de Meckel durante o processo de ossificação⁽¹⁾. Fordyce foi dos primeiros autores a identificar cirurgicamente a presença de tecido glandular nestes defeitos, acreditando desta forma, que representariam um defeito congénito anatómico provocado por restos embrionários da glândula submandibular que ficariam aprisionados dentro do corpo mandibular durante a sua ossificação⁽⁴⁾. Contudo, são escassos os casos em crianças⁽¹⁹⁾. Por outro lado, existem casos de cavidades de Stafne em mandíbulas previamente normais⁽⁶⁾. Mesmo Stafne, mais tarde, abandonou a sua tese inicial de defeito congénito.

Noutra hipótese a etiopatogenia estaria relacionada com a pressão vascular da artéria facial, que com o seu percurso sinuoso sobre o bordo inferior da mandíbula, poderia levar a necrose e reabsorção óssea, da mesma forma que um aneurisma aórtico causa reabsorção óssea nas costelas⁽¹⁸⁾. Para Lello e Makek seria o resultado de uma atrofia óssea focal devido a um processo isquémico⁽²⁰⁾. É no entanto difícil de explicar porque é que o tecido necrosado origina cavidades com limites tão bem definidos.

A abordagem cirúrgica destas alterações mostrou, em grande parte dos casos, a presença de glândula salivar^(2,4,8,21). Vários estudos utilizando sialografias, tomografias computadorizadas (TC) e ressonâncias magnéticas (RM) mostraram a presença de um lobo da glândula submandibular^(9,22). Existem também casos em que após a exérese da porção ou da totalidade da glândula, o defeito ósseo regrediu⁽²¹⁾. Por outro lado, Harvey e Noble observaram microscopicamente a cortical óssea destas cavidades e observaram zonas de remodelação óssea activas com actividade osteoclástica

na face lingual da concavidade, o que indica a existência de compressão sobre a cortical lingual⁽¹⁷⁾. Desta forma, a teoria defendida pela maior parte dos autores é que esta alteração é causada pela hipertrofia / hiperplasia da glândula submandibular, levando a uma remodelação óssea focal em resposta a uma pressão cronicamente exercida sobre a cortical óssea. Cavidades idênticas situadas na face lingual da região anterior mandibular mostraram estar relacionadas com a glândula sublingual⁽⁸⁾, assim como mais raramente da face bucal da região posterior do ramo da mandíbula associados à glândula parótida^(6,23). Segundo Waterhouse e Doniach, as glândulas salivares com a idade sofrem uma acumulação de infiltrado crónico linfocítico⁽²⁴⁾. Tal situação pode originar fibrose, hipertrofia ou mesmo hiperplasia da referida glândula⁽⁷⁾. Estaria explicada a etiologia e patogenia destes defeitos assim como a idade que estas lesões aparecem. Porém, faltam estudos que analisem a histopatologia das glândulas submandibulares associadas aos casos de DOM-LP e por outro lado, verificar se os processos inflamatórios crónicos glandulares provocam alterações ósseas compatíveis com DOM-LP.

Contudo, nem todas as abordagens cirúrgicas revelaram tecido glandular. Vários casos e estudos mostraram que locas de DOM-LP estavam ocupadas por tecido adiposo, tecido linfoide, tecido neuromuscular, tecido fibroso, ou até mesmo sem qualquer conteúdo^(9,20,22). Estudos e casos clínicos utilizando exames imagiológicos, quer com sialografias, TC, ou RM também revelaram que nem todos os casos contém tecido glandular^(9,25). Será que um processo de herniação da glândula submandibular em diferentes estados de actividade e de regressão explica estes factos? Por outro lado, Minowa em 12 casos de DOM-LP analisados com

TC/RM não encontrou tecido glandular, encontrando apenas tecido adiposo e estruturas vasculares. Os autores concluíram que estes defeitos não se devem à compressão da glândula submandibular mas devido à existência de malformações vasculares adquiridas com a idade⁽²⁵⁾.

Assim, parece-nos que etiopatogenia das DOM-LP resulta de uma anomalia de desenvolvimento provocada por uma pressão contínua com múltiplas origens quer sejam da herniação da glândula submandibular, de tecido adiposo, linfoide ou neuro-vascular.

MANIFESTAÇÕES CLÍNICAS E IMAGIOLOGIA

Quase todas as DOM-LP são assintomáticas, sendo detectadas ocasionalmente em exames radiográficos de rotina⁽¹⁴⁾. As manifestações clínicas são quase inexistentes. Quando presentes, manifestam-se por dor, tumefacção, representando um desenvolvimento activo da lesão por vezes com patologia subjacente (adenoma pleomórfico⁽¹³⁾ ou sialoadenite crónica⁽²¹⁾). No exame objectivo, durante a palpação mandibular pode, por vezes, ser identificada uma depressão côncava na sua face lingual.

O estudo radiológico revela uma imagem unilocular oval ou elíptica bem delimitada por margens ósseas espessas⁽¹⁶⁾. Em raras situações estas radiolucências podem ser biloculadas ou até mesmo multiloculadas⁽²⁶⁾. Esta radiolucência está localizada entre o ângulo mandibular e o primeiro molar inferior, sem contacto com dentes, caracteristicamente debaixo do canal dentário inferior^(13,16). O tamanho da lesão varia, em média, de um a três centímetros de diâmetro⁽¹⁴⁾. A forma de apresentação unilateral é a mais frequente, existindo casos de apresentação bilateral⁽¹¹⁾. Em cortes axiais de TC/RM a lesão mostra localizar-se mais para

lingual, na região posterior da mandíbula situada entre a linha milohioideia, o bordo anterior do músculo pterigoideu medial e o bordo inferior da mandíbula com abertura da concavidade em lingual⁽⁹⁾.

Por vezes, a lesão estende-se desde a superfície lingual até à cortical externa bucal provocando, por vezes, expansão da mesma. Por isso mesmo, Ariji classifica as DOM-LP em três tipos baseados na relação entre as corticais interna e externa. No tipo I a cortical côncava interna não atinge a cortical externa; no tipo II a cortical côncava atinge a cortical externa mas não a altera e no tipo III existe atingimento da cortical externa com expansão da mesma. O estudo realizado por Ariji, mostra curiosamente que todas as lesões de tipo III estão ocupadas por extensão da glândula salivar, ao contrário do tipo I onde não se identificou tecido glandular⁽⁹⁾.

DIAGNÓSTICO

O diagnóstico de uma DOM-LP pode ser realizado na maior parte dos casos na presença de imagem radiográfica típica, nomeadamente em ortopantomografias. Um dos aspectos mais importantes na confirmação deste diagnóstico é demonstrar a abertura da concavidade na face lingual da mandíbula, delimitada por uma cortical. Embora uma radiografia intra-oral oclusal possa ser útil nesta situação, cortes axiais de TC ou RM descrevem este facto melhor e de forma mais clara que qualquer outro exame. Por isso mesmo, em casos em que pretende um diagnóstico mais conclusivo ou que a lesão evidencie características atípicas (lesões de contornos irregulares, localizações e limites não característicos, com evolução de tamanho, com sintomatologia significativa)

podemos recorrer a vários exames imagiológicos quer TC, RM ou sialografias. As sialografias tem sido utilizadas classicamente para confirmar a presença dos ductos da glândula salivar dentro da cavidade óssea. Contudo, nem todos casos de DOM-LP tem glândula no seu interior⁽⁵⁾. Vários casos de DOM-LP comprovadas cirurgicamente mostraram negatividade na sialografia⁽⁵⁾. Por outro lado é uma técnica de difícil execução e desconfortável para o paciente. O exames por TC demonstram de forma clara a anatomia das DOM-LP podendo em alguns casos mostrar a natureza imagiológica destas cavidades. A sua principal desvantagem é a exposição do paciente à radiação. A ressonância magnética mostra ainda de melhor forma o conteúdo das cavidades de Stafne observadas. A sua principal desvantagem é o seu elevado custo, embora apresente a vantagem de não emitir radiação. Alguns autores defendem assim a utilização da RM como primeiro exame confirmatório de DOM-LP⁽²⁷⁾.

Um protocolo para o diagnóstico duma lesão suspeita de DOM-LP deve começar por uma história clínica cuidada com recolha de sintomas como dor, exame objectivo com detecção de sinais como tumefacção mandibular ou concavidade lingual à palpação e com a realização de um exame radiográfico panorâmico. Para o diagnóstico definitivo ou nos casos em que as características clinico-radiológicas mostrem alguma atipia está indicado o estudo da lesão com imagens de TC ou RM. Há autores que defendem ainda, a realização de biópsia da lesão, de preferência biópsia por citologia aspirativa (CBA) nos casos mais duvidosos⁽¹³⁾. Contudo, actualmente com a utilização das novas técnicas de imagiologia, os procedimentos invasivos são e devem ser cada vez mais limitados.

O diagnóstico diferencial das DOM-LP deve ser feito com quisto ósseo solitário, quisto ósseo traumático, quisto periapical, quisto dentífero, queratoquisto, quisto residual, fibroma não ossificante, displasia fibrosa, ameloblastoma, granuloma central de células gigantes, tumor de células gigantes, malformação vascular, mieloma múltiplo, ou tumor castanho do hiperparatiroidismo.

TRATAMENTO

Não existe indicação cirúrgica para as DOM-LP, uma vez que estas lesões representam entidades estáticas de comportamento benigno. Porém, em casos raros de desenvolvimento acentuado, com sintomatologia crescente, a abordagem cirúrgica da lesão poderá ser uma solução, procedendo-se à extirpação de parte ou da totalidade da glândula submandibular ou do tecido causal. Nestas situações de características atípicas poderão estar subjacentes patologias da própria glândula, como por exemplo, adenoma pleomórfico ou sialoadenite crónica⁽¹⁰⁾.

O controle das DOM-LP com exames radiográficos de rotina é importante, embora a grande maioria represente situações estáticas sem variações ao longo dos anos. Aliás, existem autores que utilizam estas cavidades, principalmente em casos bilaterais, para aumento de retenção de próteses removíveis inferiores⁽²⁸⁾.

CASO CLÍNICO

Um indivíduo de sexo masculino, de 47 anos, de raça caucasiana, recorreu a consulta de medicina dentária para efectuar tratamentos dentários.

Durante a anamnese o paciente não referiu qualquer sintomatologia. Referiu antecedentes de

cirurgias abdominais por apendicite e hérnia abdominal. Referiu também a realização de extracções dentárias na maxila por cáries. Não referiu qualquer cirurgia ou traumatismo a nível mandibular. Ao exame objectivo não foram detectadas tumefacções intra-orais, faciais, submandibulares ou cervicais. Durante a palpação da face lingual da mandíbula esquerda foi detectada discreta depressão.

O hemograma, a bioquímica geral e o ionograma mostraram valores considerados de normais.

Em ortopantomografia foi detectada uma radiolucência na zona posterior da mandíbula no 3º quadrante, unilocular, bem delimitada por bordos espessados e sem relação com dentes. O bordo superior estava ligeiramente sobreposto ao canal mandibular (fig. 1 e 2).

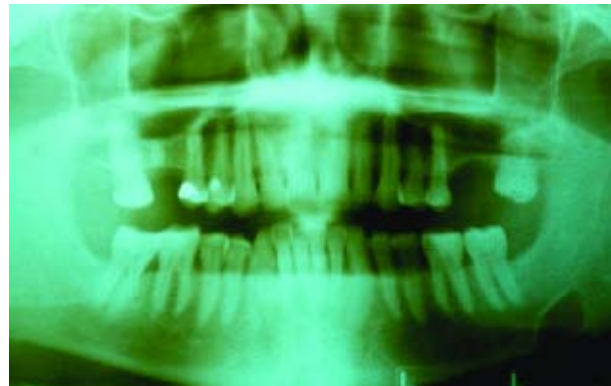


Figura 1 - Ortopantomografia com imagem radiolucente elíptica no 3º Q posterior



Figura 2 - Pormenor da radiolucência com bordos esclerosados

O diagnóstico provável foi de uma depressão óssea mandibular lingual posterior. Como diagnósticos diferenciais colocaram-se patologias como quisto ósseo solitário, queratoquisto, ameloblastoma, entre outras.

Para confirmação do diagnóstico proposto foi realizada uma tomografia computadorizada que revelou uma imagem osteolítica de 1,5 cm de maior diâmetro, com abertura em lingual, contendo no seu interior tecidos moles compatíveis com porção de glândula submandibular (fig. 3).

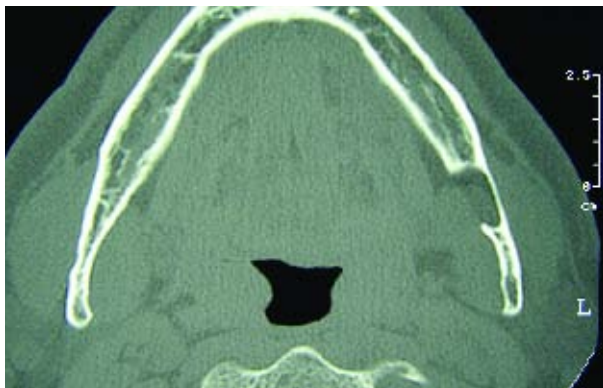


Figura 3 - Corte horizontal de TC evidenciando abertura lingual da cavidade de Stafne, contendo tecido mole no seu interior compatível com tecido glandular.

O diagnóstico final foi de depressão óssea mandibular lingual posterior.

Não foi realizado qualquer tratamento da DOM-LP, mantendo-se o paciente sob vigilância clínico-radiológica.

CONCLUSÕES

As DOM-LP são entidades raras, provocadas por uma pressão contínua sobre a face lingual mandibular, com múltiplas origens quer sejam da herniação da glândula submandibular, de tecido adiposo, linfoide, nervoso ou vascular. São assintomáticas e detectadas geralmente por ortopantomografias de rotina. Correspondem a uma

radiolucência localizada entre o ângulo mandibular e o primeiro molar inferior, caracteristicamente debaixo do canal dentário inferior. Um elemento chave na confirmação do seu diagnóstico é a presença de abertura da cavidade em lingual.

O caso clínico apresentado ilustra uma típica DOM-LP, detectada ocasionalmente numa ortopantomografia, provocada provavelmente por herniação da glândula submandibular.

Este artigo mostra também a utilidade da TC na confirmação deste tipo de alteração. A evidência da abertura lingual definida por uma cortical íntegra exclui a maior parte dos diagnósticos diferenciais que podemos eventualmente propor.

Uma vez que estas lesões representam entidades estáticas não está indicado qualquer tipo de tratamento. O carácter estático deve ser controlado clínico-radiograficamente.

O reconhecimento do diagnóstico destas lesões é importante, diferenciando com outros tipos de alterações como ameloblastomas, queratoquistos, quistos ósseos solitários, para os quais o tratamento cirúrgico é necessário.

BIBLIOGRAFIA

1. Stafne EC. Bone cavities situated near the angle of the mandible. *J Am Dent Assoc* 1942;29:1969-72.
2. Jacobs MH. The traumatic bone cyst. *Oral Surg* 1955;8:940.
3. Stafne EC. *Oral Roentgenographic diagnosis*, Philadelphia, PA, Saunders, 1963:43
4. Fordyce GL. The probable nature of so called latent haemorrhagic cysts of the mandible. *Br Dent J* 1956;101:40-2.
5. Branstetter BF, Weissman, Kaplan SB. Imaging of a Stafne Bone Cavity: What MR Adds and Why a New Name Is Needed. *Am J Neuroradiol* 1999;20:587-589.
6. Wolf J. Bone defects in mandibular ramus resembling developmental bone cavity (Stafne). *Proc Finn Dent Soc* 1985;81:215-21.
7. Sandy JR, Williams DM. Anterior salivary gland inclusion in the mandible. Pathological entity or anatomical variant? *Br J Oral Surg* 1981;19:223-9.
8. Richard EL, Ziskind J. Aberrant salivary gland tissue in mandible. *Oral Surg Oral Med Pathol Oral* 1957;10:1086-90.
9. Ariji E, Fujiwara N, Tabata O, Nakayama E, Kanda S, Shirtsuchi Y, Oka M. Stafne's bone cavity. Classification based on outline and content determined by computed tomography. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral* 1993;76:375-80.
10. Simpson W. A Stafne's mandibular defect containing a pleomorphic adenoma. *J Oral Surg* 1965;23:553.
11. Junquera LM, Albertos JM, Ferreras J, Baladron J. Stafne Bone Cyst. Revision of four cases, one of tem with bilateral affection. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac* 1999;116:295-298.
12. Correl RW, Jensen JL, Rhyne RR. Lingual cortical mandibular defects. *Oral Surg* 1980;50:287.
13. Grellner TJ, Frost DE, Brannon RB. Lingual Mandibular Bone Defect: Report of Three Cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1990;48:288-296.
14. Philipsen HP, Takata T, Reichart PA, Sato S, Suei Y. Lingual and buccal mandibular bone depressions: a review based on 583 cases from a world-wide literature survey, including 69 new cases from Japan. *Dentomaxillofac Radiol* 2002;31:281-290.
15. Oikarinen VJ, Jilku M. An orthopantomographic study of developmental mandibular bone defects (Stafne's idiopathic bone cavities). *Int J Oral Surg* 1974;3:71-6.
16. Uemura S, Fujishita M, Fuchihata H. Radiographic interpretation of so-called developmental defect of mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1976;41:120-8.
17. Harvey W, Noble WH. Defects on the lingual surface of the mandible near the angle. *Br J Oral Surg* 1968;6:75.
18. Kay LW. Some anthropologic investigations of interest to oral surgeons. *Int J Oral Surg* 1974;3:363-79.
19. Hansson LG. Development of a lingual mandibular bone cavity in a 11-years-old boy. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1980;49:376-378.
20. Lello GE, Makek M. Stafne's mandibular lingual cortical defect:discussion of aetiology. *J Maxillofac Surg* 1985;13:172-6.
21. Shibata H, Yoshizawa N, Shibata T. Developmental lingual bone defect of the mandible. Report of a case. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1991;20:328-329.
22. Bergenholtz A, Perrson G. Idiopathic bone cavities: A report of four cases. *Oral Surg* 1963;16:703.
23. Kocsis GS, Marcsik A, Mann RW. Ideopathic bone cavity on the posterior buccal surface of the mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1992;73:127-30.
24. Waterhouse JP, Doniach I. Post-mortem prevalence of focal lymphocytic adenitis of the submandibular salivary gland. *J Pathol Bacteriol* 1966;91:53-64.
25. Minowa K, Inoue N, Sawamura T, Totsuka Y, Nakamura M. Evaluation of static bone cavities with CT and MRI. *Dentomaxillofac Radiol* 2003;32:2-7.
26. Prapanpoch S, Langlais RP. Lingual cortical defect of the mandible: an unsual presentation and tomographic diagnosis. *Dentomaxillofac Radiol* 1994;23:234-237.
27. Barak S, Katz J, Mintz S. Anterior lingual mandibular salivary gland defect: a dilemma in diagnosis. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1993;31:318-320.
28. Jahangiri L, Jandinski J, Flinton RJ. Stafne's bone cavity and its utilization in complete denture retention. *J Prosthet Dent* 2002;87:245-7.