# LA SINDROME DELLA BOCCA URENTE **BURNING MOUTH SYNDROME (BMS)**

## ASPETTI NOSOLOGICI, CASI CLINICI, VALUTAZIONI MEDICO LEGALI

Campana A.\*, Bosotti M.\*, Guzzi G.\*, Scarpelli M.°

ODONTOLOGO FORENSE

\* LIBERO PROFESSIONISTA

#### **OBIETTIVI**

La responsabilità professionale odontoiatrica viene esaminata in riferimento a due casi di Sindrome della Bocca Urente o Burning Mouth Syndrome (BMS), non diagnosticati dagli odontoiatri.

### **MATERIALI E METODI**

#### **CASO CLINICO I**

La paziente di anni 58, in seguito alla comparsa di dolore sordo in corrispondenza dell'elemento 3.4 si rivolse all'odontoiatra YY, che diagnosticando una pericoronite dell'elemento 3.8 (già restaurato con amalgama dentale a base di mercurio e argento) procedette all'avulsione del dente senza effettuare esami radiologici. Durante l'avulsione il dente venne fratturato, con rilascio di mercurio metallico e particelle di amalgama dentale all'interno del cavo orale della paziente. Comparsa di sintomatologia dolorosa e disestesica che si accentuò progressivamente. A causa del perdurare della sintomatologia algica, il sanitario procedette, nell'arco di pochi mesi, alla rimozione di un ponte a livello degli elementi 3.5 e 3.7, a trattamento endodontico dell'elemento 3.5, all'avulsione degli elementi 3.5 e del 3.7, all'avulsione dell'elemento 1.7 e al trattamento endodontico degli elementi 1.6 e 3.4, senza ottenere la remissione della sintomatologia che si diffuse dal terzo quadrante a tutto il cavo orale della paziente. La paziente si rivolse ad altro odontoiatra che formulò un'ipotesi diagnostica di Sindrome della Bocca Urente (BMS), e inviò la paziente per una valutazione al dottor EE con esperienza di casi clinici con BMS.

#### **RELAZIONE CLINICA CASO I**

Accertamenti clinici e di laboratorio fatti eseguire dal dott. EE. Ipotesi diagnostica: Sindrome della bocca urente (BMS di tipo I):

- Raccolta dei dati relativi alle caratteristiche della sindrome algica facciale.
- Test epicutaneo (patch-test), per la serie odontoiatrica. Esito: negativo (falsi negativi 20-30%).
- Esame immunologico di linfotrasformazione LTT-MELISA®. Esito positivo: notevole sensibilizzazione allergica a Nickel (Indice di Stimolazione SI =12.38). [<2 negativo; > 10 reazione fortemente positiva].
- Blink Reflex Tests: esito negativo per patologia neuropatica.
- Tampone delle mucose orali: nessuna crescita nel cavo orale.
- Esame chimico-tossicologico della saliva: spettrometria di massa a plasma accoppiato induttivamente (ICP-MS). Esito: elevate concentrazione di nickel in saliva pari a 16  $\mu$ g/L, (limite soglia <2  $\mu$ g/L).
- Correnti galvaniche: confermata la presenza di galvanismo intra-orale.
- Furono escluse carenze nutrizionali, alterazioni nervose di tipo centrale e disordini di natura psichiatrica. Diagnosi finale: Sindrome della bocca urente (BMS).

### **CASO CLINICO II**

La paziente di 54 anni fu sottoposta tra 2007-2008 a chirurgia implantare per inserimento di impianti in titanio a supporto di protesi fissa in metallo ceramica mascellare e mandibolare (elementi 1.5, 1.3, 1.2, 2.2, 2.4, 2.5) + (elementi 3.2, 3.3, 4.2, 4.3). Paziente con anamnesi di reazioni avverse ai farmaci (anestetici) e di allergia al nickel, chiese l'utilizzo di una lega nobile a base di oro per le protesi in metallo ceramica. Immediatamente dopo implantoprotesi: comparsa di un dolore "sordo" di tipo viscerale nell'area corrispondente agli elementi 4.2 - 4.3. L'odontoiatra non indagò sulla natura di questo dolore neuropatico.

Nel Dicembre 2009 protesizzazione definitiva con protesi fisse in metallo ceramica in lega Ag-Pd. Sintomatologia seguente all'applicazione delle protesi definitive:

- 1. a livello locale algie del cavo orale (bruciore e dolore), anestesia del palato, ageusia, anosmia parziale,
- 2. a livello sistemico aumento della pressione arteriosa, febbre, riniti ricorrenti, edema del viso, parestesie agli arti, soprattutto agli arti inferiori, dolore retro sternale, difficoltà nella respirazione, episodi di ipertensione, difficoltà motorie.

Nel Gennaio 2010, rimozione della protesi fissa superiore. Persistenza della sintomatologia: la paziente si rivolse ad un altro odontoiatra, il dottor EE.

Rimozione della protesi fissa inferiore. Su consiglio del dottor EE, la paziente fu inviata a diversi specialisti per: esami allergologici, endocrinologici, metallografici, neurologici. Al termine dell'iter: diagnosi di allergopatia da metalli, e sindrome della bocca urente (BMS). Nel periodo Luglio— Novembre 2010 rimozione di tutti gli impianti mandibolari e mascellari.

Miglioramento significativo della sintomatologia locale e sistemica.

#### **RELAZIONE CLINICA CASO II**

Anamnesi patologica remota. Nel 1999 positiva a test allergologici al solfato di nickel. Esami a conoscenza dell'odontoiatra fin dalle prime visite. Nel corso degli anni 2009-2010, disturbi sistemici quali aumento della pressione arteriosa, febbri di basso grado, riniti ricorrenti, mal di testa, edema di viso e labbra, edema degli arti inferiori, parestesie agli arti superiori ed inferiori, gonfiore dei linfonodi inguinali e ascellari.

Anamnesi odontoiatrica remota Nel Dicembre 2009 la paziente fu riabilitata con protesi fisse in metallo ceramica dapprima all'arcata mandibolare e in seguito a quella mascellare. La composizione chimica della lega metallica utilizzata per le protesi (appurata in fase di perizia tecnica di parte): **lega in argento palladio** (51,8 % Ag, 39,9 % Pd, 3,0 % In, 4,0% Zn, 0,1% Au).

Esami eseguiti su indicazione del dr. EE. -patch test: positivo al solfato di nichel di tipo IV; - test LTT-MELISA® positivo al nichel con S.I. 6.17 (S.I. limite <2) - Blink Test Reflex esito: lesione neuro fisiopatologica bilaterale del nervo infraorbitario con ipoestesia nervosa; - visita neurochirurgica: diagnosi di algia atipica facciale associata a polineuropatia periferica tossica, provocata dalla lega metallica dentale; - Tampone delle mucose orali: no infezioni del cavo orale (miceti e batteri).

### **DISCUSSIONE**

La Sindrome della bocca urente o "Burning mouth syndrome" (BMS) è una sindrome algica cronica, non accompagnata da lesioni della mucosa orale. Durata almeno 6 mesi -> diversi anni; interessa la lingua, le labbra e la mucosa orale. Si manifesta tra i 40 e 50 anni, con maggior frequenza nelle donne (il rapporto donne-uomini è di 7:1). Il tasso di prevalenza: 0,7% - 4,6%. Etiologia e patogenesi: non chiarite; alterazioni neurologiche periferiche o centrali sono state riportate in letteratura. L'associazione tra alcuni tipi di BMS e neuropatia delle fibre nervose di piccolo diametro (Lauria et al., 2005), la tossicità da metalli pesanti e le loro implicazione nelle polineuropatie periferiche (England et al., 2004; Goyer et al., 2001), la ipersensibilità ritardata ai metalli (Schmidt et al., 2015), sono fenomeni che possono essere alla base della patogenesi di alcune forme di BMS.

### **VALUTAZIONI MEDICO LEGALI**

### CASO CLINICO I – BMS INDOTTA DA MERCURIO

Causa scatenante: l'avulsione dell'elemento 3.8, già restaurato con amalgama dentale a base di mercurio. La paziente è risultata fortemente sensibile al nickel. La metodica ICP-MS ha rilevato la presenza di nickel in saliva. Documentata presenza di Hg negli amalgami dentali (50-55%) + altri metalli (Ag, Zn, Sn, Cu) tra cui, in tracce, nickel e cobalto che possono causare allergie anche in piccole quantità (Guzzi G. et al., 2005). Documentata associazione tra presenza di Hg e insorgenza di patologie a livello orale, tra cui anche la BMS (Pigatto et al., 2004, 2007, 2013). Chiara relazione temporale tra l'insorgenza della BMS e l'avulsione dell'elemento dentale 3.8 con mercurio. Il dottor YY a seguito delle problematiche algiche della paziente, procedeva ad estrazioni seriali e trattamenti endodontici sia nel terzo che nel primo quadrante non giustificati da una approfondita indagine radiografica; si evidenzia la mancanza di un reale piano operativo, un procedere per tentativi; non venne considerata la possibilità di altra patologia, non vennero fatte approfondite analisi o ricorso ad altro clinico più esperto. Si sostanzia così a carico dell'odontoiatra un profilo di responsabilità professionale per imperizia, a seguito della sottovalutazione del caso clinico e per gli errori diagnostici (avulsione degli elementi 3.8, 3.7, 3.5, 1.7; trattamento endodontico di 1.6 e 3.4), che hanno determinato indebolimento dell'organo della masticazione; si configura un profilo giuridico di imprudenza, per - mancato approfondimento delle cause della sintomatologia, - per aver operato senza alcun accertamento radiografico - per non aver riferito a colleghi più esperti in materia una paziente la cui sintomatologia andava progressivamente peggiorando.

### **CASO CLINICO II**

Forme di allergia al titanio possono causare fallimento nell'osteointegrazione degli impianti (Sicilia et al. 2008; Muller et al. 2006). Documentata la presenza di riassorbimento osseo periimplantare (tessuto di granulazione) alla rimozione dell'impianto tra 4.2-4.3. L'applicazione di protesi in lega Ag-Pd su impianti in titanio ha generato un meccanismo di corrosione galvanica (Berzins et al. 2000) con rilascio di ioni metallici nel cavo orale. Il palladio ha dato luogo ad una reazione immunitaria di tipo ritardato: soggetti allergici al Ni possono presentare reattività crociata al Pd (cross reaction) (Kielhorn et al. 2002; Pigatto et. al. 2008). La paziente presentava allergia al nickel (documentata all'anamnesi); la sintomatologia locale e sistemica iniziò subito dopo la protesizzazione con lega Ag – Pd. I test diagnostici hanno confermato allergia a Ni e Co. La completa rimozione degli impianti e delle protesi dentali in Ag-Pd ha portato ad un miglioramento del quadro clinico sia a livello locale che sistemico. Esiste ed è dimostrabile un nesso di causa tra gli interventi protesici e l'insorgere della BMS. Sono pertanto soddisfatti il criterio cronologico (la sindrome comparve subito dopo la protesizzazione), topografico ( sintomi a livello del cavo orale), di idoneità lesiva (l'habitus allergico della paziente e l'esposizione a sostanze allergizzanti), il criterio di esclusione di altre cause (le approfondite analisi mediche di diversi specialisti ne hanno esclusa l'esistenza). Si evidenzia quindi un profilo di responsabilità professionale a carico dell'odontoiatra, per negligenza e imprudenza per mancata progettazione di un idoneo piano di trattamento in una paziente con anamnesi di allergie multiple a farmaci e nickel; per l'utilizzo di una lega non nobile (Ag-Pd), non considerando la possibilità che Ni e Pd si comportino come allergeni cross-reattivi; per non aver valutato la possibilità di fenomeni di corrosione galvanica; per aver sottovalutato o ignorato i sintomi locali e sistemici di notevole gravità della paziente; per non avere eseguito analisi cliniche e di laboratorio orientate alla BMS.

**CONCLUSIONI** In entrambi i casi clinici presentati si rileva l'esistenza di un nesso di causa tra l'operato degli odontoiatri e la comparsa della BMS; il nesso è soddisfatto dal criterio cronologico, topografico e di idoneità lesiva.

Norelli G. A., Pinchi V. et al. Odontologia Forense - Medicina legale in odontolatria Ed. Piccin Voll. 1–2- Padova 2011

Lynde CB., Grushka M., Walsh SR. Burning mouth syndrome: patch test results from a large case series. J Cutan Med Surg. 2014 May-Jun;18(3):174-9. Lopez-Jornet P., Camacho-Alonso F., Andujar-Mateos P., Sanchez-Siles M., Gomez-Garcia F. Burning mouth syndrome: an update. Med. Oral. Pigatto P. D., Feilzer A. J., Valentine-Thon E., Zerboni R., Guzzi G. Burning mouth syndrome associated with palladium allergy? EJD, vol. 18, n° 3, May-

Scala A., Checchi L., Montevecchi M., Marini I., Giamberardino MA. Update on burning mouth syndrome: overview and patient management. Crit. Rev. Oral Biol. Pigatto P. D., Guzzi G., Persichini P., Barbadillo S. Recovery from mercury-induced burning mouth syndrome due to mercury allergy Dermatitis. 2004 Med. 2003; 14: 275–91.

Jääskeläinen SK. Pathophysiology of primary burning mouth syndrome. Clin Neurophysiol. 2012 Jan;123(1):71-77.

lergy And Clinical Immunology & World Allergy Organization - Eaaci - World Allergy & Asthma Congress 2013, 22 – 26 June, Milan, Italy

Lauria G., Majorana A,. Borgna M., Lombardi R., Penza P., et al. Trigeminal small-fiber sensory neuropathy causes burning mouth syndrome. Pain. 2005;115:332-7. P.D. Pigatto, M. Scarpelli, S. Ferrucci, L. Brambilla, C. Guastella, G. Guzzi Oral Lichen Planus due to Allergy to Mercury Dental Amalgam "European Academy Of Al- Montagna F., De Leo D., et al.: Responsabilità professionale odontoiatrica - elementi di medicina legale e giuridica Ed. Martina 2010

Khamaysi Z., Bergman R, Weltfriend S. Positive patch test reactions to allergens of the dental series and the relation to the clinical presentations. Con-

tact Dermatitis 2006: 55: 216-218

ICHD-II: International Headache Society 2003

Grushka M., Epstein B. J., Gorsky M., Burning Mouth Syndrome Am Fam Physician. 2002 Feb 15;65(4):615-20.