

**JOHN PATRIK MATTHIAS
BURKHARD
KURT LÄDRACH
TATEYUKI IIZUKA
STEFAN GERBER**

Universitätsklinik für Schädel-,
Kiefer- und Gesichtschirurgie,
Inselspital, Universitätsspital
Bern

KORRESPONDENZ

Dr. med. Dr. med. dent.
John Patrik Matthias Burkhard
Universitätsklinik für Schädel-,
Kiefer- und Gesichtschirurgie
Inselspital, Universitätsspital
Bern
Freiburgstrasse 18
CH-3010 Bern
Tel. 031 632 33 16
Fax 031 632 19 90
E-Mail: jp.burkhard@insel.ch



Myoarthropathische Beschwerden als Manifestation einer frühen Neuroborreliose

Ein Fallbericht

SCHLÜSSELWÖRTER

Myoarthropathie, Neuroborreliose,
Gesichtsschmerzen

Bild oben: Die Infektion mit *Borrelia burgdorferi*
geschieht in der Regel über einen Zeckenstich.

ZUSAMMENFASSUNG

Die Lyme-Borreliose ist eine weit verbreitete,
klinisch sich pleomorph manifestierende Erkran-
kung mit wenigen Verweisen in die zahnärztliche
Literatur. Borreliose-assoziierte orofaziale
Schmerzen stellen bei der Vielfältigkeit an Diffe-
renzialdiagnosen eine besondere Herausforde-
rung an den Behandler und an den Patienten dar.

Der vorliegende Fallbericht zeigt die Wichtigkeit
einer fundierten und strukturierten Anamnese
und Diagnostik bei – in der täglichen Praxis häu-
fig anzutreffender – orofazialer Schmerzsympto-
matik, um schwere Krankheitsverläufe früh zu
erkennen und im Bedarfsfall interdisziplinär zu
therapieren.

Fallbericht

Anamnese

Wir berichten über eine 31-jährige Patientin, die mit Schmerzen in der linken Gesichtshälfte von ihrer Privatzahnärztin zur weiteren Abklärung an die Klinik für Schädel-, Kiefer- und Gesichtschirurgie des Inselspitals Bern überwiesen wurde.

Die Patientin berichtete über progrediente Schmerzen im Bereich des linken Kiefergelenkes mit Ausstrahlung in die Ober- und Unterkieferzähne, die ungefähr vor zwei Wochen begonnen hätten. Die dumpfen und ziehenden Schmerzen wurden mit einer Intensität von 3 bis 5 auf einer 11-stufigen numerischen Ratingskala NRS (0: keine Schmerzen, 10: am stärksten sich vorstellbare Schmerzen) von 10 angegeben. Zudem war die Patientin durch die eingeschränkte Kieferöffnung im Alltag deutlich beeinträchtigt. Ausserdem bestand die Empfindung, dass die linke Gesichtshälfte gleichsam etwas geschwollen und die Wangenpartie bis zum Kinn diskret gerötet sei. Es lag ein nächtlicher Bruxismus vor. Die Patientin fühlte sich abgeschlagen und müde, was sie aber an Krebs erkrankten Mutter und ihrer dadurch starken psychischen Belastung zuschrieb. Deswegen unternahm sie zur Entspannung oft lange Spaziergänge in der Natur. Nennenswerte Vorerkrankungen oder Medikamenteneinnahme lagen anamnestisch nicht vor. Allergien und Medikamentenunverträglichkeiten wurden keine angegeben. Es lag gelegentlicher Alkohol- und Nikotinkonsum vor. Reiseanamnestisch gab sie einen kürzlich erfolgten Sprachaufenthalt in den USA an.

Status/Befunde

Klinisch

Extraoral lag keine Gesichtasymmetrie vor, aber eine diskret palpierbare, diffuse Schwellung im Bereich der Parotisloge links sowie submandibulär links.

Weitere Befunde:

- Schwache Rötung der linken Gesichtshälfte bei dunklem Hauttyp, keine Fluktuation, keine Sekretion.
- Kribbelparästhesie im Bereich des Hirnnerven V₃ links, übrige Sensomotorik der Hirnnerven V und VII beidseits symmetrisch intakt.
- Druckdolenz über dem linken Kiefergelenk ohne auskultierbare Knack- oder Reibgeräusche.
- Auf Palpation reproduzierbare Schmerzen des linken M. masseter, M. pterygoideus lateralis und der linken Nackenmuskulatur im Sinne einer Tendomyopathie, ohne klinische Zeichen einer Muskelhypertrophie.
- Beidseits indolente Speicheldrüsen mit diskret palpierbarer Schwellung der Parotisloge links sowie submandibulär links, mit auf Provokation klarer Speichelsekretion.

Die Kieferöffnung war mit 32 mm Schneidekantenabstand schmerzbedingt eingeschränkt. Es fand sich ein hart-elastisches Endgefühl mit Schmerzen bei forcierter Dehnung. Extraoral lagen keine Hinweise auf pathologische Befunde vor.

Dentaler Status:

Bis auf fehlende Weisheitszähne voll bezahntes Gebiss. Zahn 27 CO₂-negativ (endodontisch behandelt), übrige Zähne vital, nicht perkussionsempfindlich, Beweglichkeitsgrad 0. Altersentsprechend geringe okklusale Attritionen/Abrasiven.

Radiologisch

Im durchgeführten Orthopantomogramm zeigten sich weder auffällige Kiefergelenkbefunde noch Hinweise auf ossäre und/oder dentale Pathologien.

Arbeitsdiagnosen

- Unklare Kribbelparästhesie in Regio V₃ links
- Myofaszialer Schmerz des linken M. masseter mit eingeschränkter Kieferöffnung
- Arthralgie des linken Kiefergelenks
- Bruxismus (Kieferpressen)

Verlauf/Therapie

Zur Therapie einer kranio-mandibulären Dysfunktion bei zusätzlich eingeschränkter Kieferöffnung wurde eine Physiotherapie verordnet. Die unklare Schwellung der Glandulae parotis/submandibularis links vergesellschaftet mit einer Kribbelparästhesie des N. mentalis links wurden mittels Magnetresonanztomografie (MRT) weiter abgeklärt. In der Bildgebung zeigte sich eine diffus entzündliche Veränderung der Glandulae parotis und submandibularis links unter Einbezug des Fettgewebes und der Gesichtshaut, linksseitig bis nach retropharyngeal reichend.

In der Verlaufskontrolle zur Besprechung des MRT-Befundes stellte sich die Patientin mit einer beginnenden Fazialisparese links bei persistenter Schmerzsymptomatik und manifester Hypästhesie der Trigeminusäste V₁ bis V₃ vor. Auf Nachfrage gab die Patientin keine erinnerlichen Insektenstiche an.

Klinisch manifestierte sich eine periphere Fazialisparese Grad II links. Eine Rötung oder Überwärmung lagen ebenso wenig vor wie Fieber, Schüttelfrost, Odyno- oder Dysphagie. Es folgte das Hinzuziehen der Kollegen der Otorhinolaryngologie und die Erweiterung der Diagnostik durch Abnahme von Serologien: Borrelien, Epstein-Barr-Virus (EBV), Humanes Immundefizienz-Virus (HIV), Herpes-simplex-Virus (HSV), Varizella-Zoster-Virus (VZV) und Lues.

Bei der anfänglichen Arbeitsdiagnose einer idiopathischen Fazialisparese (DD: viral-assoziierte Fazialisparese) mit Begleitentzündung der Gll. parotis und submandibularis wurde empirisch eine medikamentöse Therapie mittels Zovirax® 5 × 800 mg pro Tag für insgesamt 7 Tage begonnen. Eine zusätzliche Steroidstherapie wurde empfohlen, von der Patientin jedoch abgelehnt.

Die Resultate der Mikrobiologie zeigten im Verlauf den Nachweis von Borrelien-Antikörpern. Im Screeningtest (ELISA) wurden positive IgM- und IgG-Antikörper, im rekombinanten Immunoblot-Bestätigungstest (recomLine Borrelia IgM; Mikrogen Diagnostik, D-Neuried) Borrelien-spezifische IgM-Antikörper nachgewiesen. Die übrigen Infekterologien fielen negativ aus. Nach Rücksprache mit den Kollegen der Universitätsklinik für Infektiologie des Universitätsspitals Bern wurde der Patientin zur Sicherung der Diagnose einer Neuroborreliose eine Lumbalpunktion empfohlen, was sie allerdings ablehnte. Bei hochgradigem Verdacht einer Neuroborreliose wurde eine antibiotische Therapie mit 2 × 100 mg Doxycyclin für 4 Wochen begonnen und zeitgleich die Zovirax®-Therapie abgesetzt.

In den Verlaufskontrollen zeigten sich eine vollständige Wiedererlangung der Fazialisfunktion bei remittierter Schmerzsymptomatik und eine deutliche Verbesserung der Sensibilität im Bereich des dritten Trigeminusastes links.

Diskussion

Unklare Gesichtsschmerzen im Mund-, Kiefer- und Gesichtsbereich ergeben eine lange Reihe von Differenzialdiagnosen und stellen im klinischen Alltag eine besondere Herausforderung für Behandler und Patienten dar, siehe dazu Tabelle I. Gemäss Klassifikation der International Headache Society (IHS) werden primäre (idiopathische) und sekundäre (symptomatische) Kopf- und Gesichtsschmerzen unterschieden (EVERS 2014).

Die vorgestellte Patientin klagte hauptsächlich über Schmerzen im Bereich des linken Kiefergelenks sowie der Ober- und Unterkieferseitenzähne. Zusätzlich war bei ihr eine ausgeprägte Parafunktion (Bruxismus) bekannt. Es bestand zu diesem Zeitpunkt primär der Verdacht auf das Vorliegen einer kranio-mandibulären Dysfunktion, trotz der nebenbefundlich diskreten Parästhesie des N. mentalis links und der diffusen Schwellung der Gll. parotis und submandibularis links.

Zum Ausschluss weiterer Pathologien wurde als Basisdiagnostik neben der klinischen Untersuchung eine radiologische Bildgebung angeordnet. Als Standardaufnahme wurde eine Panoramaschichtaufnahme (Orthopantomogramm, OPT) durchgeführt. Die Anfertigung eines OPT dient in erster Linie als Übersichtsaufnahme zum differenzialdiagnostischen Ausschluss von u.a. verlagerten Zähnen, Tumoren und Zysten. Kann – wie im vorliegenden Fall – bei negativem radiologischem Befund die Symptomatik nicht geklärt werden, kommen entsprechend dem klinischen Erscheinungsbild und den möglichen Differenzialdiagnosen weitere bildgebende Verfahren zum Einsatz (KIM ET AL. 2016). Im geschilderten Fall war aufgrund der beschriebenen Hypästhesie im Unterkiefer links und der Schwellung der Gll. parotis und submandibularis links die Durchführung einer MRT-Aufnahme indiziert. Diese zeigte eine

diffuse unilaterale Speicheldrüsenschwellung mit begleitender Pannikulitis ohne Hinweise auf eine Hirnnervenaffektion oder intrakranielle Pathologien. In der laborchemischen Basisuntersuchung konnten keine erhöhten Entzündungswerte (CRP 6 mg/dl, Leukozytenzahl 7800/µl) gefunden werden, was zunächst nicht an eine infektiöse Genese der Beschwerden denken liess.

Als die Patientin in der Verlaufskontrolle bei persistierenden Beschwerden zusätzlich eine isolierte, unilaterale periphere Fazialisparese zeigte, wurde die Diagnostik bei bereits vorbestehender zerebraler Bildgebung mit der Abnahme von Infektsereologien (Borrelien, EBV, HIV, HSV, VZV, Lues) erweitert, die positiv auf Borreliantikörper (ELISA und Immunoblot) waren.

Die Arbeitsdiagnose einer Borrelien-assoziierten Fazialisparese wurde gestellt, wobei die Gesichtsschmerzen als radikulitische Schmerzen bei einer Neuroborreliose und die Kiefergelenksbeschwerden als Arthralgie bzw. Arthritis interpretiert wurden.

Die klinische Manifestation der Lyme-Borreliose ist gut untersucht und beschrieben (Abb. 1 und EVISON ET AL. 2006). Gleichwohl ist die Abklärung und Diagnosefindung problematisch, weil es durch Dissemination der Erreger zur Infiltration verschiedener Organsysteme und zu einer unspezifischen Immunantwort kommt. Dies führt zu keiner pathognomonischen Organmanifestation und somit zu einer erschwerten Interpretation des klinischen Kontexts mit breiter Differenzialdiagnose (ORASCH 2007; EVISON ET AL. 2006; STEERE 1989).

Die Lyme-Borreliose bleibt demzufolge primär eine klinische Verdachtsdiagnose, die durch den laborchemischen Nachweis von Antikörpern (IgG, IgM) gegen Borrelien im Serum und/oder Liquor, gegebenenfalls direktem Nachweis mittels PCR oder Kultur aus Biopsien/Blut/Liquor/Synovialflüssigkeit, gestützt werden kann (WILSKE ET AL. 2007). Der positive Nachweis von Borrelien-spezifischen IgM- und/oder IgG-Antikörpern allein ist aber noch keine Bestätigung für eine Lyme-Borreliose, weil Infektionen mit asymptomatischer Serokonversion vorkommen können (MAIWALD ET AL. 1998) und zudem – trotz adäquater Behandlung einer Lyme-Borreliose – über Jahre erhöhte Werte von IgM- und IgG-Antikörpern im Serum und/oder Liquor nachgewiesen werden können (WILSKE ET AL. 2007; HAMMERS-BERGGREN ET AL. 1993; KALISH ET AL. 2001).

Darüber hinaus ist in der Schweizer Bevölkerung von einer Seroprävalenz bis zu 35% bei Risikogruppen auszugehen, wobei davon nur 3,5% innerhalb von 10 Jahren klinisch symptomatisch werden (FAHRER ET AL. 1988). Zudem sind neben der hohen Seroprävalenz falsch-positive serologische Befunde aufgrund anderer Ursachen möglich (beispielsweise durch EBV-, VZV-, CMV-, Syphilis- und Hepatitisinfektionen, polyklonale Antikörperstimulation bei z.B. HIV-Infektion, Autoimmunerkrankungen) (EVISON ET AL. 2006; WILSKE ET AL. 2007). Umgekehrt kann die Serologie in einer frühen Phase einer Borrelieninfektion, z.B. bei bereits manifestem Erythema migrans (nur ca. 50% der Patienten sind seropositiv), negativ ausfallen, da eine Serokonversion für IgM-Antikörper erst nach 3 bis 5 Wochen und für IgG-Antikörper nach 6 bis 8 Wochen zu erwarten ist (EVISON ET AL. 2006; WILSKE ET AL. 2007). Somit dient die Serologie nur zur Unterstützung der klinischen Diagnose und ist alleine nicht hinreichend für die Bestätigung einer Borreliose (EVISON ET AL. 2006) (Abb. 1).

Wie bei unserer Patientin beschrieben, muss in diesem Fall bei Hirnnervenaffektion primär von einer Neuroborreliose ausgegangen und als weitere Diagnostik eine Lumbalpunktion

Tab. I Klassifikation von orofazialen Schmerzen adaptiert nach PATÓ & STURZENEGGER (2008) und LUKIC ET AL. (2018)

Dentoalveolär
<ul style="list-style-type: none"> – Dentogen (Karies, Pulpitis, Fraktur, Dentinhypersensibilität) – Parodontal – Sinugen – Neuropathisch (atypische Odontalgie)
Muskuloligamentär, arthrogen oder weichteilbedingt
<ul style="list-style-type: none"> – Kiefergelenkarthralgie – Myofaszialer Schmerz der Kaumuskulatur – Speicheldrüsenerkrankung – Infektion (Candida, Lues, Borrelien usw.) – Neoplasie (primär, sekundär)
Okulärorbital
<ul style="list-style-type: none"> – Glaukom – Endokrine Orbitopathie – Thrombose (venös oder arteriell) – Orbitale Raumforderung
Neurologisch
<ul style="list-style-type: none"> – Neuralgie oder Neuropathie – Arteriitis temporalis (Vaskulitis) – Karotidisdissektion – Sinus-cavernosus-Thrombose – Idiopathisch



Abb. 1 Klinische Manifestation und Diagnosekriterien der Lyme-Borreliose (Evison 2006; STANEK ET AL. 2011; MMWR RECOMM REP 1997)



Abb. 2 Als unauffällig eingestufte Orthopantomographie bei der Erstvorstellung

durchgeführt werden. Dabei sind der Nachweis eines entzündlichen Liquorsyndroms mit lymphozytärer Pleozytose, Blut-Liquor-Schrankenstörung und die intrathekale Immunglobulinsynthese wegweisend, was bei zusätzlicher intrathekaler Synthese von Borrelien-spezifischen Antikörpern (IgG und/oder IgM) im Liquor die Diagnose sichert (WILSKE ET AL. 2007; HAMMERS-BERGREN ET AL. 1993). Unsere Patientin lehnte diese Untersuchung leider ab, was schliesslich zur Diagnose einer möglichen Neuroborreliose führte.

Die antibiotische Therapie sollte möglichst frühzeitig erfolgen, die je nach Krankheitsstadium in unterschiedlicher Verabreichungsform und Länge verordnet werden. Im vorliegenden Fall wurde bei einer möglichen Gelenkbeteiligung eine vierwöchige Antibiotikatherapie mit Doxycyclin 2 × 100 mg verordnet, wodurch eine vollständige Wiedererlangung der Fazialisfunktion bei remittierter Schmerzsymptomatik und deutlicher Verbesserung der Sensibilität im Bereich des dritten Trigeminusastes erzielt werden konnte. Zur exakten Therapiedauer bei Beteiligung des Kiefergelenks liegen allerdings keine Literaturangaben vor. Bei der Lyme-Arthritis, die hauptsächlich die grossen Gelenke (Knie, Ellenbogen, OSG) betrifft, wird eine vierwöchige Antibiotikatherapie empfohlen (ORASCH 2007; EVISON ET AL. 2006; LESNICAR ET AL. 2007).

Referenzen

- EVERS S: Kopfschmerzen – neu geordnet. *MMW Fortschr Med* 156: 63–66 (2014)
- EVISON J, AEBI C, FRANCIOLI P, PÉTER O, BASSETTI S, GERVAIX A, ZIMMERLI S, WEBER R: Lyme disease Part 1: epidemiology and diagnosis. *Rev Med Suisse* 2 (60): 919–924 (2006)
- EVISON J, AEBI C, FRANCIOLI P, PÉTER O, BASSETTI S, GERVAIX A, ZIMMERLI S, WEBER R: Lyme disease Part 2: clinic and treatment. *Rev Med Suisse* 2 (60): 925–928, 930–934 (2006)
- FAHRER H, SAUVAIN M J, VD LINDEN S, ZHIOUA A, GERN L, AESCHLIMANN A: Prevalence of Lyme borreliosis in a Swiss population at risk. *Schweiz Med Wochenschr* 118: 65–69 (1988)
- HAMMERS-BERGREN S, HANSEN K, LEBECH A M, KARLSSON M: Borrelia burgdorferi-specific intrathecal antibody production in neuroborreliosis: a follow-up study. *Neurology* 43: 169–175 (1993)
- HARRIS R J: Lyme disease involving the temporomandibular joint. *J Oral Maxillofac Surg* 46: 78–79 (1988)
- KALISH R A, KAPLAN R F, TAYLOR E, JONES-WOODWARD L, WORKMAN K, STEERE A C: Evaluation of study patients with Lyme disease, 10–20-year follow-up. *J Infect Dis* 183: 453–460 (2001)
- KIM S H, RYU E W, YANG C W, YEO S G, PARK M S, BYUN J Y: The prognostic value of electroneurography of Bell's palsy at the orbicularis oculi versus nasolabial fold. *Laryngoscope* 126: 1644–1648 (2016)
- LESNICAR G, ZERDONER D: Temporomandibular joint involvement caused by Borrelia burgdorferi. *J Craniomaxillofac Surg* 35: 397–400 (2007)
- LUKIC N, SANDOR P R, GANTENBEIN A R: Die Differentialdiagnose von Gesichtsschmerzen – meistens sekundär? *Nervenheilkd* 37: 33–37 (2018)
- MAIWALD M, OEHME R, MARCH O, PETNEY T N, KIMMIG P, NASER K, ZAPPE H A, HASSLER D, VON KNEBEL DOEBERTZ M: Transmission risk of Borrelia burgdorferi sensu lato from Ixodes ricinus ticks to humans in southwest Germany. *Epidemiol Infect* 121: 103–108 (1998)
- N.N.: Case definitions for infectious conditions under public health surveillance. *MMWR Recomm Rep* 46, 1–55 (1997)
- ORASCH C, ITIN P, FLÜCKIGER U: Lyme-Borreliose in der Schweiz. *Schweiz Med Forum* 7 (42): 850–855 (2007)
- PATÓ U, STURZENEGGER M: Gesichtsschmerzen. *Schweiz Med Forum* 8 (18–19): 336–340 (2008)
- STANEK G, FINGERLE V, HUNFELD K P, JAULHAC B, KAISER R, KRAUSE A, KRISTOFERITSCH W, O'CONNELL S, ORNSTEIN K, STRLE F, GRAY J: Lyme borreliosis: clinical case definitions for diagnosis and management in Europe. *Clin Microbiol Infect* 17: 69–79 (2011)
- STEERE A C: Lyme disease. *N Engl J Med* 321: 586–596 (1989)
- WILSKE B, FINGERLE V, SCHULTE-SPECHTEL U: Microbiological and serological diagnosis of Lyme borreliosis. *FEMS Immunol Med Microbiol* 49: 13–21 (2007)

Fälle über Borrelien-bedingte Gesichtsschmerzen wurden nur selten in der Fachliteratur beschrieben (LESNICAR & ZERDONER 2007). HARRIS (1988) beschrieb Kiefergelenkschmerzen bei Lyme-Borreliose als eine transiente, variable und progressiv verlaufende funktionelle Störung und postulierte, dass Patienten mit polyorganischen Syndromen und orofazialen Schmerzen, die nicht auf Analgetika ansprechen, eine differenziertere Abklärung benötigen. Isolierte Kiefergelenkarthritis als Manifestation einer Borreliose wurden in der bisherigen Literatur nicht beschrieben.

Fazit

Der vorliegende Fallbericht beschreibt eine atypische Manifestation einer möglichen Neuroborreliose im Mund-, Kiefer- und Gesichtsbereich bei fehlendem Warnsymptom des Erythema migrans als pathognomonisches Zeichen einer Borrelien-Infektion. Bei Patienten mit unklaren Gesichtsschmerzen, die nach zahnärztlicher bzw. kieferchirurgischer Abklärung immer noch unklar bleiben, sollten weiterführende, gegebenenfalls interdisziplinäre Abklärungen erfolgen, um schwere Krankheitsverläufe nicht zu verpassen.

Interessenkonflikt

Die Autoren haben keine finanziellen oder persönlichen Verbindungen im Zusammenhang mit diesem Beitrag deklariert.

Abstract

BURKHARD J P M, LÄDRACH K, IIZUKA T, GERBER S: **Borreliosis-associated orofacial pain: A case report** (in German). *SWISS DENTAL JOURNAL SSO* 126: 969–973

Lyme borreliosis is a prevalent disease with a wide variety of clinical manifestations. However, only a few pertinent references are found in the dental literature. Considering the diversity of differential diagnoses, borreliosis-associated orofacial pain may be a challenge for treatment providers and patients alike. The aim of this case report is to emphasize the importance of a sound, structured medical history and assessment to identify severe cases early and to start interdisciplinary therapy if indicated.