

Lesiones óseas multicéntricas por trastorno paratiroideo: Reporte de de un caso clínico

Multicentric Bone Lesions Due to Parathyroid Disease: A Case Report

Gilligan Gerardo DDS¹; Moine Lorena DDS¹; Ferreyra Ruth DDS, PhD²; Panico René DDS, PhD¹

1. Cátedra de Estomatología "A", Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba.
2. Cátedra de Anatomía Patológica "A", Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba. Haya de la Torre SN. Ciudad Universitaria. Córdoba, Argentina.

Autor para correspondencia: Dr. Gerardo Marcelo Gilligan - ggilligan@unc.edu.ar

Recibido: 2-VIII-2017

Aceptado: 2-X-2017

Publicado Online First: 6-X-2017

DOI: <https://doi.org/10.15517/ijds.v0i0.30836>

RESUMEN

Introducción: El hiperparatiroidismo (Hpt) es un desorden endócrino que crea condiciones de hipersecreción de la hormona paratiroidea, propicias para el asentamiento de tumores en el tejido óseo. Si bien no es frecuente, los huesos maxilares, pueden estar involucrados en la patogenia de estas lesiones. **Pacientes y métodos:** En este trabajo, se presenta un caso clínico de una paciente femenina de 56 años de edad, con lesiones óseas multicéntricas maxilares y extramaxilares a predominio de células gigantes, vinculado a un hiperparatiroidismo. **Discusión:** El diagnóstico de un Tumor Pardo del Hiperparatiroidismo (TPH) es difícil en la clínica estomatológica, donde la metodología de diagnóstico debe reunir criterios serológicos, clínicos e histopatológicos. La multifocalidad de las lesiones, hacen a este caso un verdadero síndrome endócrino, siendo éste el aspecto más importante. Esta entidad, de incumbencia en la Endocrinología y en la Medicina Bucal, debe ser tratada fundamentalmente de forma interdisciplinaria para lograr un tratamiento exitoso.

PALABRAS CLAVE

Tumor maxilar; Tumor pardo del hiperparatiroidismo; Hiperparatiroidismo.

ABSTRACT

Introduction: Hyperparathyroidism is an endocrine disorder that could create parathyroid hormone hypersecretion conditions, propitious for bone tumors development. Although is not frequent, maxillary bones may be involved in the pathogenesis of these lesions. **PATIENTS AND METHODS:** In this case, a 56-year-old female is reported. An Hyperparathyroidism was diagnosed due to multiple maxillary and extra-maxillary multicentric bone lesions, with a predominance of giant cells, linked to her endocrine disorder. **Discussion:** The diagnosis of a Hyperparathyroidism Brown Tumor must meet serological, clinical and histopathological criteria. The multifocality of the lesions is the most remarkable clinical aspect in this case. For an adequate treatment of this entity is necessary an interdisciplinary and coordinate work between different areas of healthcare physicians and Oral Medicine specialist.

KEYWORDS

Maxillar tumor; Brown tumor of Hyperparathyroidism; Hyperparathyroidism.

INTRODUCCIÓN

Existen lesiones óseas en los huesos maxilares, que no son frecuentes en la práctica diaria. Estas lesiones, están causadas por una actividad osteoclástica rápida y destructiva, que involucra un fenómeno hormonal provocado por la glándula paratiroides. El Tumor Pardo del Hiperparatiroidismo (TPH), es actualmente considerado un proceso reparativo celular y no una verdadera neoplasia (1,2). Si bien, el hiperparatiroidismo (HPT) primario como el secundario, pueden manifestarse con alteraciones tumorales óseas, esta forma de presentación clínica es infrecuente (3,4).

Los TPH son lesiones óseas con una hiperactividad osteoclástica y una fibrosis peritrabecular. Es una forma localizada de osteítis fibrosa quística (5,6). Rara vez, el TPH se presenta como la primer manifestación de un HPT. Es una lesión que afecta preferentemente costillas, clavículas y pelvis, de lento crecimiento y localmente destructiva (7). El compromiso de los huesos faciales y maxilares en la presentación del TPH es raro. Sin embargo, en esta región el sitio de predilección es la mandíbula (8). El objetivo de este trabajo, es presentar un caso clínico, de incumbencia en la

práctica odontoestomatológica, donde se evidencian múltiples lesiones óseas asociadas al HPT.

REPORTE DE CASO

Paciente de sexo femenino, de 56 años de edad, que fue derivada por movilidad dentaria y edema en región maxilar derecha de un mes de evolución. Durante la anamnesis, la paciente declaró tener el diagnóstico de una lesión de cresta ilíaca con diagnóstico histopatológico de Osteoclastoma (Tumor de células gigantes). La Figura 1 A-B muestra los estudios tomográficos que la paciente llevó a la primer consulta. A la inspección extrabucal, se observó una ligera asimetría facial, borramiento del surco nasogeniano derecho y un discreto levantamiento del ala de la nariz, desviando la comisura labial derecha hacia el mismo lado.

Durante el examen intrabucal, se evidenció la presencia de los elementos dentarios: canino, incisivo lateral e incisivo central superior derechos con movilidad dentaria, no asociada a placa bacteriana ni a enfermedad periodontal activa. A nivel de mucosa alveolar y fondo de surco de dichos elementos dentarios, llamó la atención un marcado aumento de tamaño de la región con la

mucosa eritematosa que permitió observar por transparencia, la presencia de vasos sanguíneos subyacentes. A la palpación la lesión era fluctuante (Fig. 2-A).

Los patrones radiográficos periapicales y de ortopantomografía no se encontraban dentro de los parámetros normales, observándose una lesión radiolúcida comprometiendo los elementos dentarios afectados (Fig.3 A-B). Además, en los cortes tomográficos se observó una lesión radiolúcida, osteolítica extensa que involucró el macizo maxilar superior derecho, con una notable reabsorción de las porciones radiculares de los elementos dentarios, desviación de la línea media, sin llegar a involucrar fosas nasales o senos maxilares. En un corte tomográfico axial, la lesión presentó bordes difusos, discretamente corticalizados y en su interior se observó diferentes áreas radiolúcidas, entremezcladas con zonas radioopacas. Además, se comunicó la presencia de una lesión de características tomográficas similares a la anterior, en la región pterigoidea (Fig. 3 C-D).

Los exámenes de laboratorio revelaron un aumento de la eritrosedimentación (47 mm/1° hora), hipercalcemia (13,4 mg%), fosfatemia de 3,5 mg%, aumento de fosfatasa alcalina (2343 U/l) y aumento de PTH (mayor a 1900 pg/ml).

Al realizar la biopsia incisional, se observó un tejido tumoral friable, de color parduzco y con tendencia al sangrado (Fig. 2-B).

La observación microscópica permitió determinar la presencia de macrófagos y células gigantes multinucleadas con focos de hemosiderina y hemorragia en el seno de la lesión ósea (Fig. 4 A-B). El cuadro histopatológico fue idéntico al foco patológico ubicado en cresta ilíaca, tratándose del mismo proceso. La descripción histológica, fue acompañada de la Imagenología y el laboratorio correspondiente, llegando al diagnóstico de Tumor Pardo del Hiperparatiroidismo (TPH) a focos múltiples.

La paciente fue finalmente derivada a un Especialista en Endocrinología, quien terminó de diagnosticar el HPt Primario, con presencia de un adenoma paratiroideo. Se procedió a practicar la paratiroidectomía radical, junto al adenoma que involucraba dicha glándula. Durante el seguimiento y controles post-quirúrgicos, las lesiones óseas comenzaron a remitir, observando franca mejoría tanto radiológica como clínica a los dos meses de la cirugía. A los seis meses de la cirugía de paratiroides, el examen odontológico evidenció fijación de los elementos dentarios involucrados en el TPH. La paciente fue finalmente derivada para la rehabilitación protética.

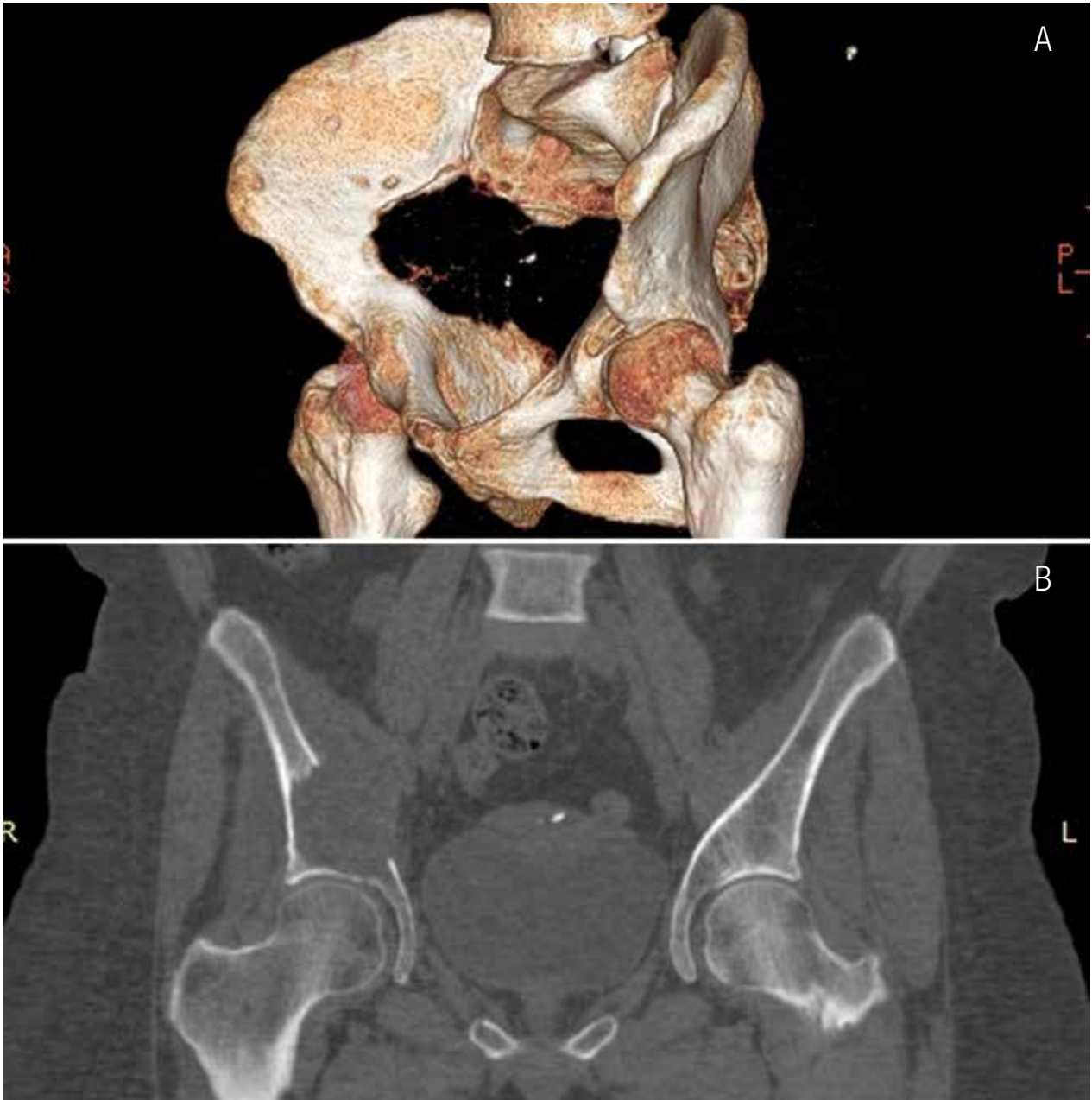


Figura 1. A. Imagen Tomográfica Computarizada: Lesión lítica de cresta ilíaca derecha-Reconstrucción multiplanar. B. Lesión osteolítica extensa, comprometiendo gran parte de medular y cortical.



Figura 2. A. Lesión tumoral con abultamiento del fondo de surco superior y elementos dentarios con movilidad involucrados en el espesor tumoral. La mucosa tumoral se observó atrófica, dejando ver por transparencia una marcada angiogénesis. B. Biopsia incisional. Presencia de un tejido color parduzco, dehiscente durante la manipulación quirúrgica, con marcadas áreas hemorrágicas.

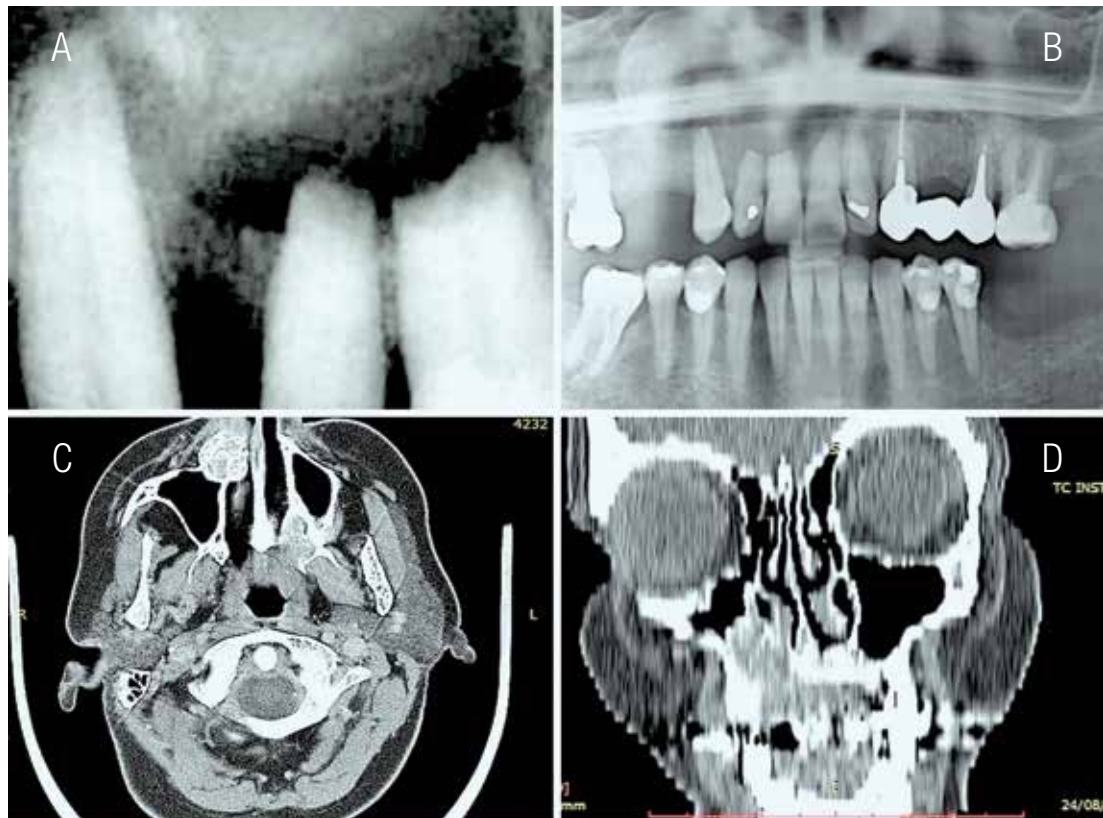


Figura 3. A. Radiografía periapical que demuestra claramente la rizólisis de los elementos dentarios involucrados en la masa tumoral. B. Ortopantomografía: masa osteolítica en la región maxilar superior derecha, involucrando incisivos y canino del mismo lado, que sobrepasa discretamente la línea media, llegando a involucrar región sinusal derecha y de fosas nasales. La delimitación de los márgenes tumorales no es clara. C-D. Tomografía Axial Computada Maxilar superior, que demostró la presencia de una lesión expansiva tumoral en maxilar superior derecho con importante destrucción ósea, acompañado por tejido de densidad variable de partes blandas. Áreas de calcificación intratumoral de aspecto condroide. La lesión erosionó paladar duro, pared antero-medial del seno maxilar y piso de fosa nasal. Su tamaño aproximado midió 45 mm en sentido céfalo-caudal x 34 mm en sentido transversal x 28 mm en sentido antero-posterior. De menor tamaño, se observó otra lesión similar que compromete pared posterior de seno maxilar, margen posterior de paladar duro y región de apófisis pterigoides.

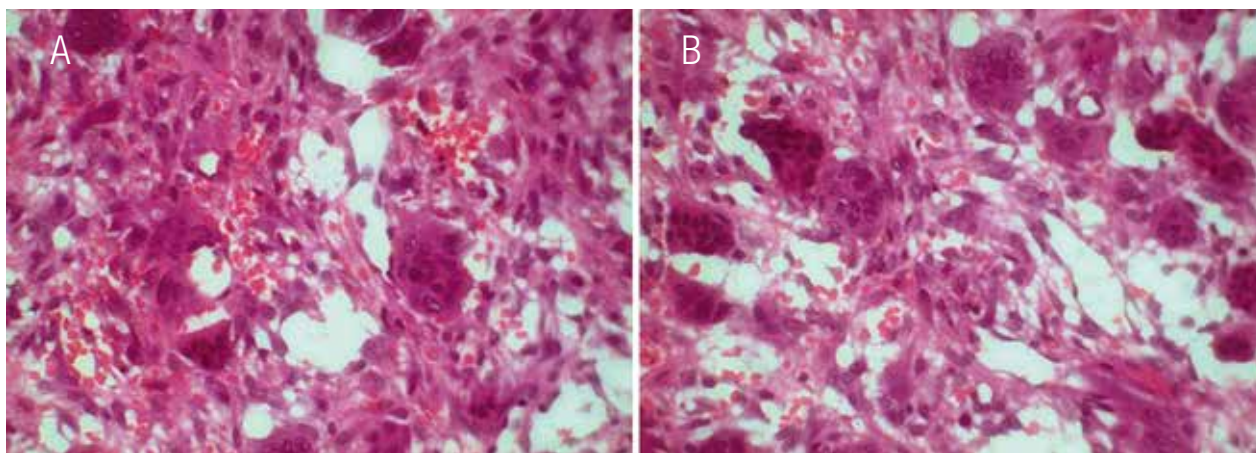


Figura 4. A. Presencia de un tejido fibroso arremolinado, muy vascularizado con extensas áreas hemorrágicas y la presencia de fibroblastos fusiformes y macrófagos. B. Múltiples células gigantes multinucleadas en tabiques de tejido fibroso y áreas de hemosiderina.

DISCUSIÓN

EL HPt puede producir lesiones óseas en forma solitaria o más infrecuentemente en forma múltiple (9). Cuando el TPH asienta sobre los huesos maxilares, es de mayor incidencia en maxilar inferior, mientras que su manifestación en el maxilar superior, como en este caso, es menos frecuente. En la serie de casos de Triantafillidou (2006), cuatro de los cinco tumores se encontraban ubicados en mandíbula (10).

Existen otras condiciones sistémicas que pueden alterar el normal funcionamiento paratiroideo. Baracaldo et al (2015), considera al TPH como una forma clínica más severa de la osteítis fibrosa quística, observando que en pacientes hemodializados con HPt secundario, la localización de los tumores fue en primer lugar el maxilar superior y en segundo lugar, la mandíbula (11). Para Tarello et al (1996), el TPH es raramente un signo temprano de HPt en pacientes hemodializados, pero aparecen en aquellos casos donde el HPt no fue diagnosticado a tiempo (12).

Las lesiones óseas multicéntricas (en más de un hueso), pueden observarse en cualquier tipo de HPt, como en el reporte de Gomez et al (2013), que presenta un caso de un paciente

joven con lesiones óseas múltiples (no maxilares) en clavícula y costillas, diagnosticadas en la etapa final de hemodiálisis(13). Según el caso presentado por Jafari-Pozve et al (2014), se observaron lesiones múltiples con compromiso máxilofacial en un paciente con lupus y secundarios a una insuficiencia renal crónica. Las lesiones asentaban en mandíbula, maxilar superior y miembros superiores (14).

Actualmente, existen pocos estudios donde se encuentran involucrados los huesos maxilares como forma de manifestación múltiple de HPt primario. En el reporte de Huang et al (2015), se observan tres casos de tumores pardos como primer manifestación de HPt primario, donde se puede evidenciar el caso de un paciente de 42 años con lesiones en acromion, maxilar y mandíbula. En los otros dos casos los huesos maxilares no estaban involucrados(15). En este sentido, la afectación de los huesos maxilares y la presentación multicéntrica de las lesiones óseas asociadas al HPt podrían estar en concordancia a la severidad de la alteración endócrina. En nuestro caso, la paciente no tenía antecedentes sistémicos relacionados a hemodiálisis ni nefropatías, y no fue posible conocer si los tumores óseos se manifestaron como un síntoma tardío o temprano de su HPt ya que no tenía exámenes de calcemia anteriores a la aparición del tumor, ni antecedentes

clínicos asociados a una hipercalcemia. Sin embargo, la multifocalidad de las lesiones óseas, podría ser considerada un signo tardío de su endocrinopatía.

En cuanto a los diagnósticos diferenciales de tumores de células gigantes de los maxilares se debe tener en cuenta granulomas de idéntica celularidad, quistes óseos aneurismáticos, querubismo, displasia fibrosa, sarcomas y metástasis de carcinomas (16). En el presente trabajo, la presencia de una lesión osteolítica de cresta ilíaca y una marcada osteólisis maxilar, generó una primer sospecha diagnóstica de un tumor metastásico de cavidad bucal, ya que no se conocía la histogenia del tumor primitivo. La relación con piezas dentarias, la rizólisis existente y la presencia de combinación de zonas radiolúcidas y radioopacas, son criterios válidos para hacer diagnóstico diferencial, también con algunos tumores odontogénicos.

CONCLUSIÓN

Es de notable importancia, el conocimiento de estas patologías óseas con asentamiento en los huesos maxilares, tanto del clínico en general como del odonto-estomatólogo, ya que pueden ser la forma de expresión de un cuadro endócrino y de compromiso sistémico. La importancia del diagnóstico temprano radica en la exhaustiva exploración clínica del paciente y en la indicación precisa de los exámenes complementarios de diagnóstico pertinentes al caso (laboratorio e imagenología). Las lesiones óseas resultantes de una alteración paratiroidea, son de tratamiento interdisciplinario donde todas las especialidades médicas y odontológicas involucradas, deben interactuar mancomunadamente de forma coordinada.

REFERENCIAS

1. Fineman I., Johnson J. P., Di-Patre P. L., Sandhu H. Chronic renal failure causing brown tumors and myelopathy. Case report

- and review of pathophysiology and treatment. *J. Neurosurg.* 1999 Apr; 90 (2 Suppl): 242-6.
2. Leal C. T. S., Lacativa P. G. S., Gomes E. M.S., Nunes R. C., Costa F. L.F. de S., Gandelmann I. H. A., et al. Surgical approach and clinical outcome of a deforming brown tumor at the maxilla in a patient with secondary hyperparathyroidism due to chronic renal failure. *Arq Bras Endocrinol Metabol.* 2006 Oct; 50 (5): 963-7.
3. Pappu R., Jabbour S. A., Regianto A. M., Reginato A. J. Musculoskeletal manifestations of primary hyperparathyroidism. *Clin Rheumatol.* 2016 Dec; 35 (12): 3081-7.
4. Queiroz I. V., Queiroz S. P., Medeiros R., Ribeiro R. B., Crusoé-Rebello I. M., Leão J. C. Brown tumor of secondary hyperparathyroidism: surgical approach and clinical outcome. *Oral Maxillofac Surg.* 2016 Dec; 20 (4): 435-9.
5. Parra Ramírez P. A., Lecumberri Santamaría B., Álvarez Escolá C., Pallardo Sánchez L. F. Hiperparatiroidismo primario con osteítis fibrosa quística simulando una neoplasia ósea maligna. *Endocrinol Nutr.* 2013 Feb 1; 60 (2): 96-8.
6. Cytogenetic findings in a case of brown tumor associated with hyperparathyroidism [Internet]. Available from: https://www.researchgate.net/publication/12413295_Cytogenetic_findings_in_a_case_of_brown_tumor_associated_with_hyperparathyroidism
7. Chavin H. C., Pisarevsky A. A., Chavín C., Kroll L., Petrucci E. A. Tumor pardo como manifestación inicial de hiperparatiroidismo primario. *Med B Aires.* 2008 Jun; 68 (3): 219-21.
8. Aghaghazvini L., Sharifian H., Rasuli B. Primary Hyperparathyroidism Misdiagnosed as Giant Cell Bone Tumor of Maxillary Sinus: A Case Report. *Iran J Radiol* [Internet]. 2016. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4841893/>

9. Airaghi L., Pisano G., Pulixi E., Benti R., Baldini M. Unusual presentation in a case of primary hyperparathyroidism. *J Res Med Sci Off J Isfahan Univ Med Sci.* 2011 Aug;16 (8): 1078-81.
10. Triantafillidou K., Zouloumis L., Karakinaris G., Kalimeras E., Iordanidis F. Brown tumors of the jaws associated with primary or secondary hyperparathyroidism. A clinical study and review of the literature. *Am J Otolaryngol.* 2006 Aug; 27 (4): 281-6.
11. Baracaldo R. M., Bao D., Iampornpipopchai P., Fogel J., Rubinstein S. Facial disfigurement due to osteitis fibrosa cystica or brown tumor from secondary hyperparathyroidism in patients on dialysis: A systematic review and an illustrative case report. *Hemodial Int Int Symp Home Hemodial.* 2015 Oct;19 (4): 583-92.
12. Tarello F., Ottone S., De Giovanni P. P., Berrone S. Brown tumor of the jaws. *Minerva Stomatol.* 1996 Oct;45 (10): 465-70.
13. Gómez M. C., Riquelme P., Sirandoni G., Sapunar J., Princic E., Lee B. Brown tumors in multiple locations: manifestation of severe renal osteodystrophy. Case report. *Rev Med Chil.* 2003 Oct;131 (10):1183-7.
14. Jafari-Pozve N., Ataie-Khorasgani M., Jafari-Pozve S., Ataie-Khorasgani M. Maxillofacial brown tumors in secondary hyperparathyroidism: A case report and literature review. *J Res Med Sci Off J Isfahan Univ Med Sci.* 2014 Nov;19 (11): 1099-102.
15. Huang R., Zhuang R., Liu Y., Li T., Huang J. Unusual presentation of primary hyperparathyroidism: report of three cases. *BMC Med Imaging.* 2015 Jul 16;15:23.
16. Marcos garcía M., Pino Rivero V., Keituqwa yáñez T., Alcaraz Fuentes M., Trinidadruiz G, Blasco huelva A. Tumor pardo óseo como primera manifestación de hiperparatiroidismo primario. *OTORRI Acta Otorrinolaringol Espanola.* 2003; 54 (6): 470-3.



Attribution (BY-NC) - (BY) You must give appropriate credit, provide a link to the license, and indicate if changes were made. You may do so in any reasonable manner, but not in any way that suggest the licensor endorses you or your use. (NC) You may not use the material for commercial purposes.