

Tumor pardo maxilar como primera manifestación del hiperparatiroidismo primario

B. Ramos, A. Piñero*, J. Illana*, T. Palazón, S. Méndez y P. Parrilla Paricio*

Servicios de Cirugía Maxilofacial y *Cirugía General y del Aparato Digestivo I. Hospital Universitario Virgen de la Arrixaca. Murcia.

Resumen

El tumor pardo u osteoclastoma es una de las formas en que se manifiesta la osteítis fibrosa quística, que representa el estadio terminal del proceso de remodelación ósea durante el hiperparatiroidismo.

La localización preferente de los tumores pardos es en los huesos largos, especialmente en su segmento medular central, siendo muy rara la presentación bimaxilar, y extremadamente infrecuente su presentación maxilar como síntoma inicial de un hiperparatiroidismo.

Presentamos el caso de una paciente en la que el hiperparatiroidismo primario se inició con un tumor pardo de localización bimaxilar, y se discuten los aspectos clínicos, radiológicos y terapéuticos de estos procesos.

Palabras clave: *Osteoclastoma. Tumor pardo. Maxilar superior. Hiperparatiroidismo.*

(*Cir Esp* 2001; 69: 498-500)

BROWN TUMOUR OF THE MAXILLA AS THE FIRST PRESENTATION OF PRIMARY HYPERPARATHYROIDISM

Brown tumor, or osteoclastoma, is one of the manifestations of osteitis fibrosa cystica, which represents the terminal stage of the bone remodeling process in hyperparathyroidism.

Brown tumors are preferentially situated in the long bones, especially in the central medullary segment. Bimaxillary presentation is rare and maxillary presentation as the first sign of hyperparathyroidism is exceptional.

We present the case of a female patient in whom primary hyperparathyroidism first presented as bimaxillary osteoclastoma. Clinical, radiological and therapeutic aspects of these processes are discussed.

Key words: *Osteoclastoma. Brown tumor. Upper maxilla. Hyperparathyroidism.*

Introducción

El tumor pardo u osteoclastoma es una de las formas en que se manifiesta la osteítis fibrosa quística, que representa el estadio terminal del proceso de remodelación ósea durante el hiperparatiroidismo. Su localización es más frecuente en los huesos largos y es rara en maxilares, sobre todo como forma de inicio de un hiperparatiroidismo. El diagnóstico se establece ante una lesión intraósea lítica, bien definida, expansiva, sintomática o no, en el contexto de un hiperparatiroidismo primario

o secundario, y cuyo análisis histopatológico ofrece el aspecto de un granuloma reparador de células gigantes o un tumor de células gigantes.

Presentamos el caso de una paciente en la que el hiperparatiroidismo primario se inició con un tumor pardo de localización bimaxilar. Se discuten los aspectos clínicos, radiológicos y terapéuticos de estos procesos.

Caso clínico

Mujer de 46 años con antecedente familiar de una hija intervenida por hiperparatiroidismo primario debido a adenoma paratiroideo. Cuatro meses antes de su consulta, fue intervenida en otro centro por una lesión quística mandibular relacionada con las piezas dentarias de la región incisal inferior, que histopatológicamente se correspondía con una lesión granulomatosa de células gigantes. Fue remitida a nuestro hospital para su estudio, y en la ortopantomografía se apreció una lesión radiolúcida en el maxilar superior que se biopsió, observándose des-

Correspondencia: Dr. A. Piñero.
Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo I.
Hospital Universitario Virgen de la Arrixaca.
30120 El Palmar. Murcia.

Aceptado para su publicación en julio del 2000.

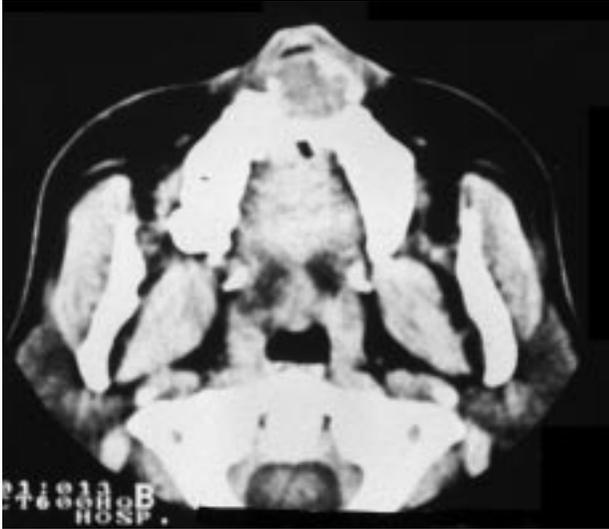


Fig. 1. TC craneofacial que objetiva la lesión osteolítica en el maxilar superior, en la base de la nariz, con densidad de partes blandas e interrupción del borde óseo.



Fig. 2. Imagen operatoria que evidencia un importante abombamiento de la mucosa vestibular y palatina del maxilar superior.

trucción de las trabéculas óseas por una proliferación fibrosa fusocelular, de carácter benigno, que presentaba acumulaciones densas de células gigantes de tipo osteoclastico, con depósitos focales de hierro y cavidades vasculares dilatadas. Con la sospecha de cambios óseos secundarios a hiperparatiroidismo, se realizó una analítica en la que destacaban cifras repetidas de hipercalcemia (11,5 mg/dl) e hipofosfatemia (2 mg/dl), y las cifras de PTH oscilaron entre 106 y 911 ng/ml (normal: 10-65 ng/ml). El estudio ecográfico demostró un nódulo hipoecoico de 20 × 14 mm en el polo inferior del tiroides derecho, y la TC una imagen osteolítica, de 1,8 cm, con masa de partes blandas y un borde óseo interrumpido, en la región central del maxilar superior, en la base de la nariz (fig. 1). En el área cervical se apreciaba una imagen hipodensa de 2 cm de tamaño, en el polo inferior del tiroides derecho, compatible con adenoma de paratiroides inferior derecha. La gammagrafía con ^{99m}Tc-Sestamibi no fue concluyente. Dados sus antecedentes, se realizó un estudio analítico y radiográfico de sus familiares de primera línea, que fueron normales.

Con el diagnóstico de osteoclastoma en el contexto de un hiperparatiroidismo, probablemente por adenoma paratiroideo inferior derecho, fue intervenida quirúrgicamente, extirpándose una tumoración del maxilar superior de 2 × 3 cm que destruía el hueso maxilar y el suelo nasal, y que producía un importante abombamiento de la mucosa vestibular y palatina (fig. 2). Mediante una cervicotomía anterior se abordó la celda tiroidea, encontrándose un adenoma paratiroideo inferior derecho de 3,3 × 1,5 cm. El informe anatomopatológico de las piezas confirmó el diagnóstico de osteoclastoma y adenoma paratiroideo, respectivamente. Tras más de 2 años de evolución la paciente permanece asintomática, y sin haberse registrado ningún caso más relacionado entre sus familiares.

Discusión

Las alteraciones óseas importantes se producen en el 13% de los hiperparatiroidismos graves de larga evolución^{1,2}, y varían desde una desmineralización generalizada del hueso en fases tempranas, hasta una reabsorción de la medular ósea que se reemplaza por tejido fibroso con cambios quísticos, forma conocida como osteítis fibrosa quística y de la que el tumor pardo u osteoclastoma es una variante. Durante mucho tiempo el tumor pardo se ha reconocido como una lesión típica del hiperparatiroidismo primario evolucionado, aunque una revisión de la bibliografía^{2,3} demuestra un incremento en la comunicación de casos asociados a hiperparatiroidismo secundario por insuficiencia renal crónica, por lo que al ser éste clínicamente mucho más frecuente, la mayoría de tumores pardos se encuentran asociados a él⁴. En el caso que presentamos, hay que añadir la circunstancia de ser una paciente con hiperparatiroidismo primario familiar no relacionado con neoplasia endocrina múltiple.

La localización preferente de los tumores pardos está en los huesos largos, especialmente en su segmento medular central^{1,2}, siendo su incidencia en los maxilares de aproximadamente un 4,5%⁴, con mayor frecuencia en mandíbula que en maxilar superior. Es muy rara la presentación bimaxilar⁵, y extremadamente infrecuente su presentación maxilar como síntoma inicial de un hiperparatiroidismo¹.

En su epidemiología aparecen más en mujeres entre 30 y 40 años³⁻⁵ y se asocian al hiperparatiroidismo primario debido a un adenoma paratiroideo en el 81% de casos, por hiperplasia en el 15% o por carcinoma en el 4%^{1,6}.

Su mecanismo de producción se debe a la acción directa de la PTH sobre el hueso, que conlleva un *turnover* osteoblástico rápido con hemorragia, tejido reparativo de granulación y proliferación fibrosa vascular que puede reemplazar a la medular³. En su estudio histológico los tumores pardos se caracterizan por la presencia de elementos mononucleares y células gigantes multinucleadas similares a células osteoclasticas, junto con infiltrados hemorrágicos y depósitos de hemosiderina, responsables del color marrónáceo del tumor^{2,4}.

Su diagnóstico diferencial incluye otras lesiones de células gigantes, fundamentalmente el tumor y el granuloma de células gigantes^{7,8}, y puesto que el aspecto histopatológico es inespecífico, y el diagnóstico de tumor pardo se lleva a cabo en el contexto de un hiperparatiroidismo^{2,3,7}, debe considerarse en todo paciente con lesión ósea de células gigantes e hiperparatiroidismo primario o secundario^{3,7,8}.

La clínica dependerá del tamaño y la localización del osteoclastoma. En la localización maxilar, la forma clínica más fre-

cuenta de presentación ha sido la de masa tumoral asintomática, por lo que el diagnóstico exige un alto índice de sospecha^{3,8}. En otras ocasiones puede presentarse como una tumefacción dolorosa de consistencia dura, como una alteración funcional del aparato masticatorio con movilidad dental o con una ausencia total de sintomatología siendo diagnosticados de forma accidental en una exploración radiológica².

Los hallazgos radiológicos en el maxilar se caracterizan por una lesión lítica intraósea, rápidamente evolutiva², inespecífica, normalmente de límites poco definidos, con insuflación cortical y frecuente compromiso del seno maxilar^{4,8}. Puede presentar también un aspecto pseudoquistico multilocular^{2,4}. Aunque en nuestro caso no se encontraron, frecuentemente estos hallazgos se asocian a otros signos radiológicos propios del hiperparatiroidismo, como la desaparición de la lámina dura, la osteoporosis esquelética difusa, la reabsorción subperióstica de las falanges distales o la existencia de otras lesiones quísticas difusas^{3,8}. La gravedad de una lesión causada por un tumor pardo puede, por tanto, conducir a una osteólisis evidente en el territorio maxilofacial, lo que implica la necesidad de realizar un estrecho seguimiento radiológico del área maxilofacial en este tipo de pacientes².

El potencial de degeneración de estas lesiones es bajo y su pronóstico es bueno en función de su posible regresión tras la corrección del hiperparatiroidismo³. A pesar de esto, creemos que el tratamiento debe asociar a la paratiroidectomía la extirpación del tumor pardo, pues su regresión puede ser muy lenta o incompleta^{2,3,9}, debido a incapacidad de remineralización por

la degeneración quística y el infiltrado de células gigantes^{2,9} o por la neoangiogénesis intensa secundaria a la influencia de un factor de crecimiento fibroblástico⁵.

Bibliografía

1. Shanmugham MS, Alhady SF. Hyperparathyroidism with osteitis fibrosa cystica in the maxilla. *J Laryngol Otol* 1984; 98: 417-420.
2. Tarello F, Ottone S, De Gioanni PP, Berrone S. Brown tumor of the jaws. *Minerva Stomatol* 1996; 4: 465-470.
3. Montes Jiménez J, Yáñez Vilas JI, Fernández Gallego J, Jiménez Fernández A, Palma Gómez A, Valiente Álvarez A. Tumor pardo maxilar en el curso de hiperparatiroidismo secundario. *Rev Esp Ciruj Oral Maxillofac* 1998; 20: 151-156.
4. Khochtali H, Ach K, Jliidi K, Bouhaouala H, Ben Gaid N, Essakly MK et al. Tumeur brune bilatérale des maxillaires. A propos d'un cas. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 1991; 92: 1169-1191.
5. Menard PH, Pauzie F, Philippe B, Bertrand JCh. Tumeur brune de la mandibule et lyperparathyroïdie secondaire a una insuffisance rénale chronique. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 1993; 94: 276-280.
6. Masson EA, MacFarlane IA, Bodmer CW, Vaughan ED. Parathyroid carcinoma presenting with a brown tumour of the mandible in a young man. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1993; 31: 117-119.
7. Bonk U. The problems of giant cell lesions of the jawbones and the concept of "brown tumour". *Verh Dtsch Ges Pathol* 1974; 58: 466-470.
8. Robinson PJ, Woodhead P. Primary hyperparathyroidism presenting with a maxillary tumour and hydrocephalus. *J Laryngol Otol* 1998; 102: 1164-1167.
9. Korzets A, Ori Y, Bar-Ziv J, Gafter U, Chagnac A, Zevin D. Maxillary bone brown tumour complicating secondary hyperparathyroidism in a haemodialysed patient. *Nephrol Dial Transplant* 1992; 7: 956-959.