

2022;51(4):e02202033

Presentación de caso

Tumores pardos de región maxilofacial en paciente con hiperparatiroidismo secundario

Brown tumors of maxillofacial region in patient with secondary hyperparathyroidism

Yoimar Deronceré-Columbié¹* https://orcid.org/0000-0003-3205-5340 Dilber Cedeño-Ramos¹ https://orcid.org/0000-0001-8742-5850

¹Universidad de Ciencias Médicas de Granma. Hospital General Provincial "Carlos Manuel de Céspedes". Granma, Cuba.

*Autor para la correspondencia. Correo electrónico: ydc82@nauta.cu

RESUMEN

Introducción: Los tumores pardos ocasionados por hiperparatiroidismo, ya sea primario o secundario, son lesiones de tejido blando intraóseo vascularizado, que se presentan con mayor frecuencia en huesos largos; ocasionalmente, las lesiones llegan a ser periféricas y se localizan sobre procesos alveolares de maxilar y mandíbula.

Objetivo: Presentar un paciente bajo tratamiento de hemodiálisis, que presenta tumores pardos en región maxilofacial, en relación con hiperparatiroidismo secundario.

Caso clínico: Paciente de 39 años, con antecedentes de insuficiencia renal crónica, diagnosticada hace más de 20 años e hiperparatiroidismo secundario, para lo cual lleva tratamiento con régimen regular de diálisis. Acude por presentar deformidad facial; radiológicamente presenta lesiones osteolíticas en maxilar y mandíbula con impresión diagnóstica de tumores pardos.

Conclusiones: Esta manifestación de hiperparatiroidismo secundario se observa al incrementarse la longevidad de los pacientes con fallo renal. Una completa evaluación del paciente puede ayudar a un correcto diagnóstico.



2022;51(4):e02202033

Palabras clave: tumores; hiperparatiroidismo secundario; maxilar; mandíbula; diálisis renal.

ABSTRACT

Introduction: Brown tumors caused by hyperparathyroidism, primary or secondary, are lesions of the vascular soft intraosseous tissue that more frequently develop in long bones; occasionally, the lesions tend to be peripheral located on the alveolar ridges of the maxilla and mandible.

Objective: To describe a case of a patient under hemodialysis treatment with brown tumors of the maxillofacial region due to secondary hyperparathyroidism.

Clinical case: We describe a 39-year-old male, he received hemodialysis for 20 years, for chronic renal failure with secondary hyperparathyroidism, and he comes by facial deformity in the image evaluation, there are osteolytic lesions in maxilla and mandible were suspected to be brown tumors.

Conclusions: This manifestation of secondary hyperparathyroidism can be expected to occur with increased longevity of patients with renal failure. A complete evaluation can help to reach a correct diagnosis.

Keywords: neoplasms; secondary hyperparathyroidism; maxilla; mandible; renal dialysis.

Recibido: 19/04/2022

Aprobado: 18/07/2022

INTRODUCCIÓN

El hiperparatiroidismo es una entidad clínica que se caracteriza por presentar, analíticamente, niveles altos de calcio sérico combinados con niveles bajos de fósforo. Es causado por la secreción aumentada de la hormona paratiroidea (PTH). La hiperproducción de la hormona puede ser por causas primarias, secundarias o terciarias. El hiperparatiroidismo secundario es habitualmente producido por un fallo renal crónico que produce aumento de la retención de fósforo e hipocalcemia sistémica; se compensa con aumento en la producción de PTH.(1)



2022;51(4):e02202033

Se define al tumor pardo como una lesión focal y lítica, ósea, no neoplásica, secundaria a una alteración metabólica ósea. Es una forma localizada de osteítis fibrosa quística, a la que se llega después de una reabsorción medular ósea, que se remplaza progresivamente por tejido fibroso, con cambios quísticos. Debido al rápido recambio óseo por la acción de la PTH, se crean áreas de hemorragia local, tejido de granulación reparativo y proliferación fibrosa vascular, que remplazan al hueso sano. La progresión de este proceso da lugar a los quistes visibles macroscópicamente, que alcanzan en procesos avanzados la expansión ósea y las fracturas patológicas consecuentes. (2)

La incidencia de la lesión en los huesos maxilares es del 4,5 %; es más frecuente en la mandíbula que en el maxilar. (3) Es aún menos frecuente en ambos huesos maxilares simultáneamente. La presencia de síntomas depende de la localización y del tamaño de la lesión. (4) En casos de afectación de los maxilares, el paciente puede referir la presencia de una tumoración palpable, que abomba la cavidad oral, puede ser dolorosa o indolora, padecer alguna alteración masticatoria o dental, o bien ser totalmente asintomática y tratarse de un hallazgo casual tras una exploración radiográfica de rutina. En la enfermedad avanzada pueden causar deformidades estéticas y funcionales, como alteraciones de la respiración y la deglución. (5) El aspecto radiográfico en una vista panorámica es de una imagen lítica intraósea simple o multiloculada, con contorno tortuoso, los bordes son bien definidos o difusos de manera variable; puede causar una expansión de la cortical ósea. En las pruebas de imagen con contraste se presentan como áreas de intensa actividad metabólica, que no invaden tejidos blandos y no tienen reacción perióstica. (6)

Se presenta el caso de un paciente con lesiones óseas en maxilar y mandíbula, compatibles con tumores pardos, en relación con hiperparatiroidismo secundario en el curso de una enfermedad renal crónica avanzada.

CASO CLÍNICO

Se trata de un paciente masculino de 39 años de edad, procedencia rural, con antecedentes de insuficiencia renal crónica, diagnosticada hace más de 20 años, para lo cual lleva tratamiento con régimen regular de diálisis 3 veces por semana. Acudió al servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital Provincial "Carlos Manuel de Céspedes", por presentar deformidad facial.



2022;51(4):e02202033

El examen físico regional reveló una asimetría facial, dada por aumento de volumen en la región labial superior y nasal, que causaba deformidad y elevación del piso nasal derecho, con depresión del dorso nasal y desviación de la pirámide nasal hacia el lado izquierdo; no doloroso a la palpación y de consistencia duro-elástica, todo lo cual causa obstrucción nasal.

En la región intraoral presenta un aumento de volumen en el fondo del surco vestibular superior, en toda la región anterior y en la encía de dicho sector, hipercoloreado, de consistencia duro-elástica, que causa migración y movilidad dentaria. En la región parasinfisiaria mandibular, presenta lesiones clínicamente similares a las del maxilar, pero de menor tamaño.

El examen físico se complementó con los estudios radiográficos (radiografía panorámica y tomografía axial computadorizada). En la figura 1 se observa una imagen radiolúcida multilocular, que abarca prácticamente todo el maxilar; expande y destruye las corticales, provoca deformidad del sector ánterosuperior, migración dentaria y rizólisis del 22. En la región de los caninos inferiores (bilateral) se observan imágenes radiolúcidas uniloculares, la mayor del lado derecho.



Fig. 1 - Radiografía panorámica.



2022;51(4):e02202033

La tomografía muestra una imagen hiperdensa que ocupa el seno maxilar derecho y las fosas nasales; es heterogénea, con calcificaciones en su interior, produce destrucción de la pared lateral de la fosa nasal y penetra en ella, con destrucción del tabique nasal del seno, del septum nasal, abomba y produce destrucción del borde anterior del maxilar, lateraliza la nariz hacia la izquierda debido a la lesión ocupante de espacio que involucra al maxilar, seno maxilar derecho y fosas nasales (Fig. 2).

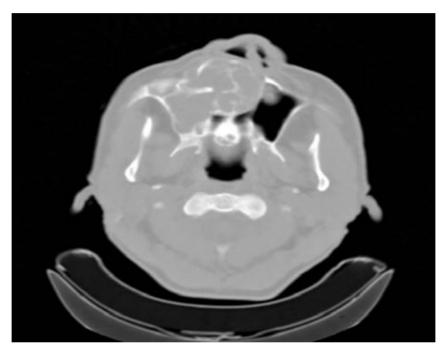


Fig. 2 - Tomografía axial computarizada.

Se practicaron los exámenes de laboratorio, que mostraron un aumento de las cifras de la fosfatasa alcalina, el calcio sérico y el fósforo, por encima de los límites normales, lo cual confirmó la impresión diagnóstica de tumor pardo por hiperparatiroidismo secundario.



2022;51(4):e02202033

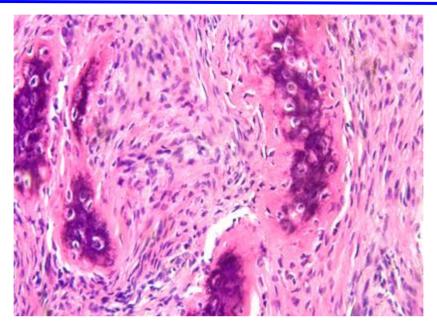


Fig. 3 - Corte histológico de la lesión.

Con los datos del examen físico, los estudios radiográficos y exámenes de laboratorio se realizó una biopsia incisional de la lesión del maxilar. La figura 3 detalla una imagen histopatológica de la lesión, en la que se muestran varias trabéculas de tejido óseo inmaduro, esparcidas en un estroma fibroso constituido por fibroblastos e histiocitos, además de células gigantes multinucleadas, zonas de hemorragia y pigmento de hemosiderina y hemosiderófagos.

El resultado histológico informó hallazgos a favor de un tumor pardo del hiperparatiroidismo.

COMENTARIOS

Las lesiones líticas de los maxilares pueden estar producidas por diversas entidades anatomopatológicas, tanto benignas como malignas. (5) En los pacientes con una o más lesiones óseas de aspecto lítico en la región maxilofacial, el diagnóstico diferencial resulta sumamente complejo. Un importante elemento diagnóstico es la confirmación histológica de una lesión con células gigantes. (6)

Las lesiones de células gigantes que afectan a los maxilares incluyen el tumor de células gigantes, el granuloma reparativo de células gigantes, el querubismo y el tumor pardo. Los tumores pardos son



2022;51(4):e02202033

resultado de un proceso destructivo óseo, relacionado con un hiperparatiroidismo grave primario, secundario o incluso terciario y es la forma localizada de la osteítis fibrosa quística. (7,8)

La incidencia de tumores pardos en la insuficiencia renal crónica varía desde 1,5 % a 13 % de los casos y se describe que es más frecuente cuando se presenta en mujeres jóvenes con tratamiento prolongado de hemodiálisis. (9)

La presencia de múltiples tumores pardos simultáneos en los huesos faciales, como en el caso descrito, es extraordinaria. Yamazaki y otros⁽¹⁰⁾ afirman que en pacientes adultos solo se habían reportado en la literatura 4 con tumores pardos simultáneos en la mandíbula y en los maxilares. (11)

El tratamiento de los tumores pardos debe dirigirse inicialmente a la curación del hiperparatiroidismo. (12) Después de la paratiroidectomía, cuando los valores bioquímicos se normalizan, las lesiones en la región maxilofacial tienden a involucionar espontáneamente de manera parcial o total; sin embargo, algunos autores recomiendan la resección inmediata del tumor. (13)

Si bien la presencia de tumores pardos ha sido básicamente descrita en el hiperparatiroidismo primario, esta presentación inusual en un caso de hiperparatiroidismo secundario en el curso de la insuficiencia renal crónica debe esperarse, si se considera que la población en diálisis incrementa su longevidad.

El tumor pardo representa el estadio más avanzado de la enfermedad ósea asociada al hiperparatiroidismo. En todo paciente con una biopsia compatible con un tumor de células gigantes debe descartarse un hiperparatiroidismo.

Es importante llegar a un diagnóstico final de certeza mediante la anatomía patológica para establecer un protocolo de actuación que sea lo menos agresivo y más curativo.

Por lo extremadamente raro de esta lesión en más de 20 años es el segundo caso diagnosticado en el hospital; el paciente se discutió en colectivo por los servicios de Cirugía General, Nefrología y Cirugía Maxilofacial y se decidió remitir a una institución de tercer nivel para continuar tratamiento.

Esta manifestación de hiperparatiroidismo secundario se observa al incrementarse la longevidad de los pacientes con fallo renal. Una completa evaluación del paciente puede ayudar a un correcto diagnóstico.



2022;51(4):e02202033

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- 1. Sutbeyaz Y, Yoruk O, Bilen H, Gursan N. Primary hyperparathyroidism presenting as a palatal and mandibular Brown tumor. J Craniofac Surg. 2009; 20:2101–4. DOI: 10.1097/SCS.0b013e3181bec5f3
- 2. Suarez-Cunqueiro MM, Schoen R, Kersten A, Klisch J, Schmelzeisen R. Brown tumor of the mandible as first manifestation of atypical parathyroid adenoma. J Oral Maxillofac Surg. 2004; 62(8):1024-8. DOI: 10.1016/j.joms.2004.02.011
- 3. Ramos B, Pinero A, Illana J, Palazón T, Méndez S, Parrilla Paricio P. Tumor pardo maxilar como primera manifestación del hiperparatiroidismo primario. Cir Esp. 2001; 69(5):498–500. DOI: 10.1016/S0009-739X(01)71790-3
- 4. Gallana Álvarez S, Salazar Fernández CI, Avellá Vecino FJ, Torres Gómez J, Pérez Sánchez JM. Tumor pardo maxilar: elemento diagnóstico de hiperparatiroidismo primario. Rev Esp Cir Oral Maxilofac. 2015 [acceso: 04/04/2022]; 27(4):225–30. Disponible en: https://scielo.isciii.es/pdf/maxi/v27n4/en caso2.pdf
- 5. Mirra JM. Bone Tumor. Clinical, Radiologic, and Pathologic Correlations. Philadelphia: PA, Lea & Febiger; 1989.
- 6. Gleason BC, Kleinman PK, Debelenko LV, Rahbar R, Gebhardt MC, Pérez- Atayde AR. Novel karyotypes in giant cell-rich lesions of bone. Am J Surg Pathol. 2007; 31(6):926-32. DOI: 10.1097/PAS.0b013e31802fb498
- 7. Chavin HC, Pisarevsky AA, Chavin C. Brown tumor as the initial manifestation of primary hyperparathyroidism. Medicine. 2008 [acceso: 04/04/2022]; 68(3):219-21. Disponible en: https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/18689153/
- 8. Angadi PV, Rekha K, Shetty SR. An exophytic mandibular brown tumor: an unusual presentation of primary hyperparathyroidism. Oral Maxillofac Surg. 2010; 14(1):67-9. DOI: 10.1007/s10006-009-0186-0
- 9. Sumer AP, Arik N, Sumer M, Karagoz F. A rare complication of secondary hyperparathyroidism. Brown tumor of the maxilla and mandible. Saudi Med J. 2004 [acceso: 04/04/2022]; 25(12):2010-2. Disponible en: https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/15711688/



2022;51(4):e02202033

- 10. Yamazaky H, Ota Y, Aoki T, Karakida K. Brown tumor of the maxilla and mandible: progressive mandibular brown tumor after removal of parathyroid adenoma. J Oral Maxillofac Surg. 2003; 61(6):719-22. DOI: 10.1053/joms.2003.50142
- 11. Kar DK, Gupta SK, Agarwal A, Mishra SK. Brown tumor of the palate and mandible in association with primary hyperparathyroidism. J Oral Maxillofac Surg. 2001; 59(11):1352-4. DOI: 10.1053/joms.2001.27533
- 12. Agarwal G, Mishra SK, Kar DK, Singh AK, Arya V, Gupta SK, et al. Recovery pattern of patients with osteitis fibrosa cystica in primary hyperparathyroidism after successful parathyroidectomy. Surgery. 2002;132(6):1075-85. DOI: 10.1067/msy.2002.128484
- 13. Lessa MM, Sakae FA, Tsuji RK, Aráujo BC, Voegels RL, Butugan O. Brown tumor of the facial bones: case report and literature review. Ear Nose Throat J. 2005 [acceso: 04/04/2022]; 84(7):432-4. Disponible en: https://journals.sagepub.com/doi/pdf/10.1177/014556130508400714

Conflictos de interés

Los autores no presentan conflicto de intereses.