

NOTA CLÍNICO-QUIRÚRGICA

TUMOR PARDO ÓSEO COMO PRIMERA MANIFESTACIÓN DE HIPERPARATIROIDISMO PRIMARIO

M. MARCOS GARCÍA*, V. PINO RIVERO, T. KEITUQWA YÁÑEZ**, M. ALCARAZ FUENTES*, G. TRINIDAD RUIZ*, A. BLASCO HUELVA*****

*MÉDICO RESIDENTE DE ORL. **F.E.A. ORL. ***JEFE DE SERVICIO DE ORL.

HOSPITAL INFANTA CRISTINA. BADAJOZ.

RESUMEN

Presentamos el caso clínico de una mujer de 26 años que refería tumoración mentoniana de 2 años de evolución con hipercalcemia (11,8 mg/dl) y PTH (paratohormona) de 761 pg/ml. Se realizó TAC mandibular y RMN, así como biopsia del tumor con exéresis del mismo por parte del Servicio de Máxilo-Facial. Nuestro Servicio de O.R.L. solicitó una gammagrafía (Tc99 S-mibi) y TAC cérvicotorácico que informaban de la presencia de una lesión que, tras cirugía y estu-

dio AP, resultó ser un adenoma de paratiroides inferior derecha. El hiperparatiroidismo primario que presentaba la paciente era el estímulo principal del tumor pardo, formado por células gigantes multinucleadas y macrófagos, siendo éste la primera manifestación del desorden metabólico. Esta presentación del hiperparatiroidismo es muy poco frecuente en la clínica. Realizamos una revisión de la literatura y establecemos el diagnóstico diferencial para tal patología.

PALABRAS CLAVE: Tumor Pardo. Hiperparatiroidismo Primario.

ABSTRACT

BROWN BONE TUMOUR AS THE FIRST MANIFESTATION OF PRIMARY HYPERPARATHYROIDISM

We report a clinical case of a 26 years old female who had a 2 years evolution chin tumour with hypercalcemia (11,8 mg/dl) and PTH (paratohormone) of 761 pg/ml. She underwent a CT scan and MRI of the mandible, as well as a biopsy followed by excision of the tumour by the maxillofacial surgeons. Our ENT Department asked for a Scintigraphy (Tc99s-mibi) and thoracic-cervical CT, which showed a lesion that turned out to be an adeno-

ma of the lower right parathyroid gland after surgery and pathological examination. The patient suffered a Primary hyperparathyroidism that was the main stimulus for the Brown Tumour made up by macrophages and multinuclear giant cells, being this the first manifestation of the metabolic disorder. This form of hyperparathyroidism is very rare in the clinic. We do a literature review to establish the differential diagnosis for such pathology.

KEY WORDS: Brown Tumour. Primary Hyperparathyroidism.

Correspondencia: Mónica Marcos García. Servicio de Otorrinolaringología. Hospital Infanta Cristina. Avda. de Elvas, s/n. 06080 Badajoz.

Fecha de recepción: 20-05-2002

Fecha de aceptación: 4-11-2002

INTRODUCCIÓN

El tumor pardo ("Brown tumour") es una lesión ósea uni o multifocal, clásicamente una osteítis fibrosa quística, que se diferencia de otras lesiones focales por la presencia de un hiperparatiroidismo, de tal modo que en muchas ocasiones su regresión va emparejada a la resolución del desorden metabólico anteriormente citado.

Presentamos el caso clínico de una mujer joven que presentaba un tumor pardo de mandíbula (mentoniano) como primera manifestación de un hiperparatiroidismo primario. En estas condiciones, la mandíbula es el hueso que preferentemente se afecta por esta lesión.

Microscópicamente se aprecian células gigantes multinucleadas y macrófagos cargados con hemosiderina. Se debe hacer diagnóstico diferencial con otras entidades tales como el granuloma reparativo de células gigantes, tumor de células gigantes, displasia fibrosa, quiste óseo aneurismático y querubismo. Dicho diagnóstico sólo es posible mediante la evaluación comparativa de la clínica, pruebas radiológicas y evidencias bioquímicas.

En la paciente de nuestro caso clínico se solicitaron las siguientes pruebas de imagen: TAC mandibular, RMN, ecografía cervical, gammagrafía tiroidea y TAC cérvico torácico, completando el estudio con analítica y biopsia de la lesión.

El tratamiento por parte de nuestro Servicio de ORL consistió en la realización de una paratiroidectomía inferior derecha por adenoma de paratiroides (hiperparatiroidismo primario). En este tipo de tumores es fundamental el tratamiento de la enfermedad de base lo que, en muchas ocasiones, provoca la mineralización y/o desaparición de los mismos. En el caso que presentamos, el Servicio de Máxilo-Facial procedió también a la extirpación del tumor mandibular.

Por último realizamos una revisión bibliográfica sobre esta asociación y presentación clínica poco frecuente en la literatura.

CASO CLÍNICO

Mujer de 26 años de edad que consulta por tumoración en región mentoniana de 2 años de evolución que ha experimentado un importante aumento (8 por 5 cm) durante el último embarazo con estabilización tras el parto. Entre los antecedentes familiares destacan infarto agudo de miocardio (IAM) materno, HTA (madre y una hermana), diabetes no insulino-dependiente (madre y hermano) y litiasis renal (hermano).

Entre los antecedentes personales, la paciente sufrió una crisis hipertensiva durante el embarazo y presentaba una plaquetopenia en estudio. La exploración ORL constataba la presencia de la citada tumoración mandibular, de consistencia dura, siendo el resto de la exploración normal. Dentro de la analítica que se solicitó a la paciente, el estudio metabólico fósforo-calcio mostró los siguientes datos clínicos: a) Calcemia: 11,8 mg/dl; b) Fosforemia: 1,9 mg/dl; c) Calciuria de 24h: 299 mg. Los valores de la paratohormona intacta (PTHi) eran de 761 pg/ml.

Se solicitó TAC mandibular que informaba de la presencia de una masa de 40 por 45 mm originada en la sínfisis mandibular, con bordes esclerosos y tabiques internos calcificados y contenido con densidad de tejidos blandos (Figuras 1 y 2).

La RMN mostraba una tumoración dependiente de la sínfisis mandibular y de crecimiento exófitico con características morfológicas que sugerían la probabilidad de correspondencia de la lesión con un osteocondroma (Figura 3). La biopsia de la lesión correspondía a un granuloma reparativo de células gigantes.



Figura 1. Imagen de TAC mandibular, donde se aprecia masa lesional a nivel de la sínfisis mandibular con bordes esclerosos, tabiques internos calcificados y densidad de tejidos blandos.

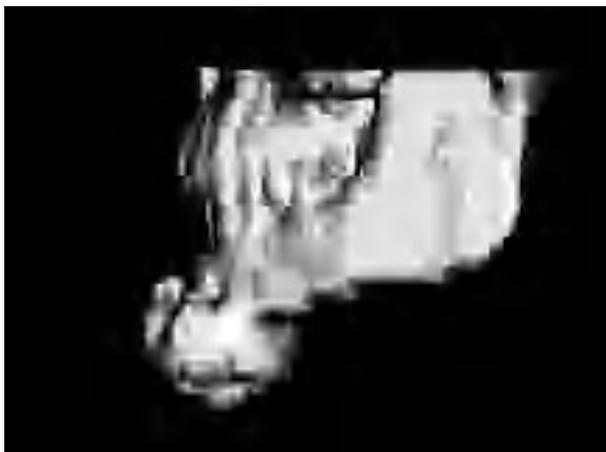


Figura 2. Imagen de TAC (corte sagital) que muestra tumoración exofítica dependiente de la sínfisis mandibular.

Con los datos clínicos y analíticos, se solicitaron las exploraciones que se citan a continuación, con sus resultados correspondientes: 1) Ecografía cervical: no evidencia de patología tiroidea ni paratiroidea; 2) Gammagrafía tiroidea (Tc 99 Sestamibi): área hipercaptante, 2-3 cm por debajo del polo



Figura 3. Imagen de RMN (corte axial) donde se aprecia de nuevo la citada lesión y su localización mandibular.

inferior del lóbulo tiroideo derecho; 3) TAC cévico-torácico: imagen nodular de 0,6 cm anterior a la carótida.

Por parte de nuestro Servicio se procedió a resección de adenoma de paratiroides inferior derecha. Durante el acto quirúrgico se determinó la PTHi rápida pre y postoperatoria, cuyos valores fueron 580,7 pg/ml y 33,4 pg/ml, respectivamente. Esta prueba confirmó, al igual que la AP definitiva, que se había procedido a la extirpación de un adenoma paratiroideo y que no existía otro tejido paratiroideo hiperfuncionante al descender los niveles de la hormona más de un 94%.

El Servicio de Máxilo-Facial de nuestro Hospital procedió posteriormente a extirpación de la lesión mentoniana y remodelación de la misma un mes después. Microscópicamente, el tumor pardo presentaba células gigantes multinucleares y macrófagos cargados de hemosiderina.

La evolución clínica de la paciente ha sido satisfactoria, con controles en Consultas Externas.

DISCUSIÓN

El tumor pardo es una lesión focal diferenciada de otros tumores de células gigantes por la presencia de hiperparatiroidismo¹. Aunque puede verse también en las formas secundarias de la enfermedad, son más frecuentes, dentro de su rareza, como primera manifestación de los hiperparatiroidismos primarios, sobre todo en la segunda década de la vida²⁻⁴.

Se trata de lesiones óseas uni o multifocales que tienen predilección por la mandíbula. En esta localización hay que diferenciar los tumores pardos de otras lesiones odontogénicas (con o sin mineralización) y no odontogénicas⁵. Entre las primeras, se establecerá diagnóstico diferencial con los ameloblastomas, queratoquistes odontogénicos y odontomas complejos. Entre las segundas, destacan lesiones fibro-óseas benignas (fibroma osificante juvenil, displasias óseas), quistes óseos traumáticos, granulomas celulares gigantes centrales, malformaciones arteriovenosas y carcinomas mucoepidermoides.

El tumor pardo representa el estadio o etapa terminal de la patología óseo-dependiente del hiperparatiroidismo. Los cambios producidos varían desde la desmineralización generalizada hasta la reabsorción ósea y sustitución por tejido fibroso con cambios quísticos⁶. La lesión clásica del tumor pardo es la osteítis fibrosa quística, siendo rara esta forma de presentación inicial en el hiperparatiroidismo primario.

Masson⁷ publicó el caso de un tumor pardo de mandíbula asociado a carcinoma de paratiroides en lugar de adenoma. Goshen y col. refieren asociación con adenoma atípico de paratiroides, lesión no carcinomatosa pero que posee algunas características microscópicas en común⁸. El resultado AP de nuestra paciente fue de adenoma de paratiroides sin rasgos de malignidad.

El diagnóstico de sospecha se basa en la clínica (con pruebas analíticas) y pruebas complementarias radiológicas o de imagen. Gayed y Elshazly defienden la utilidad de la gammagrafía con Tecnecio 99 sestamibi (Tc99m MIBI) en el diagnóstico de los tumores pardos como primera manifestación de adenomas paratiroides hiperfuncionantes⁹. Nosotros también hemos utilizado la TAC y la RMN, aunque ninguna de estas pruebas es diagnóstica por sí misma. Es típico, pero no patognomónico, de los tumores pardos la presencia de niveles líquido/fluido en la resonancia magnética¹⁰.

El diagnóstico diferencial de los tumores pardos, que son tumores que histológicamente están constituidos por células gigantes multinucleadas, debe ha-

cerse principalmente con los tumores de células gigantes, granulomas de idéntica celularidad, quistes óseos aneurismáticos, querubismo, displasia fibrosa, osteocondromas, condroblastomas, tumores malignos (sarcomas) y metástasis de carcinomas^{11,12}.

El tratamiento realizado en nuestra paciente fue doble y quirúrgico. Por una parte, procedimos a la resección del adenoma de paratiroides inferior derecha identificado quirúrgicamente. Está descrito que el tratamiento del hiperparatiroidismo primario puede ser por sí solo suficiente para provocar la mineralización e incluso la desaparición de los tumores pardos^{1,7,11}. En los casos de tumores persistentes o bien para evitar la rápida progresión de las lesiones óseas, puede efectuarse complementariamente la exéresis o curetaje del tumor pardo que, en nuestro caso, fue llevado a cabo por el Servicio de Máxilo-Facial. La respuesta al tratamiento quirúrgico es buena en general.

En todo paciente con una lesión mandibular cuyo informe microscópico revele la existencia de células gigantes multinucleadas, debe buscarse un hiperparatiroidismo como enfermedad de base.

REFERENCIAS

- 1.- Keyser JS, Postma GN. Brown tumor of the mandible. *Am J Otolaryngol* 1996; 17: 407-10.
- 2.- Aoune S, Khochtali H, Dahdouh C, Turki A, Mokni M, Bakir A. Giant cell lesions of the maxilla disclosing primary hyperparathyroidism. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 2000; 101: 86-9.
- 3.- Martínez-Gavidia EM, Bagan JV, Milian-Masanet MA, Lloria de Miguel E, Perez-Valles A. Highly aggressive brown tumour of the maxilla as first manifestation of primary hyperparathyroidism. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2000; 29: 447-9.
- 4.- Jap TS, Ho LT, Chang CY. Hyperparathyroidism presenting as a large bone tumour. A case report. *S Afr Med J* 1989; 75: 393-4.
- 5.- Scholl RJ, Kellet HM, Neumann DP. Cysts and cystic lesions of the mandible: clinical and radiologic-histopathologic review. *Radiographics* 1999; 19: 1107-24.
- 6.- Shanmugham MS, Alhady SF. Hyperparathyroidism with osteitis fibrosa cystica in the maxilla. *J Laryngol Otol* 1984; 98: 417-20.
- 7.- 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: 117-9.
- 8.- Goshen O, Aviel-Ronen S, Dori S, Talmi YP. Brown tumour of hyperparathyroidism in the mandible associated with atypical parathyroid adenoma. *J Laryngol Otol* 2000; 114: 302-4.
- 9.- Gayed IW, Elshazly SM, Vang RS, Barron BJ, Lamki LM. Technetium-99m sestamibi uptake in a maxillary brown tumour. *Clin Nucl Med* 2001; 26: 65-7.
- 10.- Davies AM, Evans N, Mingham DC, Grimer RJ. MR imaging of brown tumour with fluid-fluid levels: a report of three cases. *Eur Radiol* 2001; 11: 1445-9.
- 11.- Cicconetti A, Matteini C, Piro FR. Differential diagnosis in a case of brown tumor caused by primary hyperparathyroidism. *Minerva Stomatol* 1999; 48: 553-8.
- 12.- Salzer-Kuntschik M. Differential diagnosis of giant cell tumor of bone. *Verh Dtsch Ges Pathol* 1998; 82: 154-9.