

Quiste óseo aneurismático mandibular

Mandibular Aneurysmal Bone Cyst

Jorge Santana Álvarez^{1*} <https://orcid.org/0000-0001-5448-51366>

Erika Romero Romero² <https://orcid.org/0000-0002-2139-1333>

Mario Carlos Crespo Guerra³ <https://orcid.org/0000-0001-8739-5006>

Tamara Angelina Valle Sánchez⁴ <https://orcid.org/0000-0001-8325-3107>

¹Hospital Militar “Dr. Octavio de la Concepción y de la Pedraja”. Universidad de Ciencias Médicas. Camagüey, Cuba.

²Clínica Docente “Dr. Cruz Jiminián”. República Dominicana.

³Hospital Pediátrico “Eduardo Agramonte Piña”. Servicio de Maxilo Facial. Camagüey, Cuba.

⁴Facultad de Medicina, Departamento de Post Grado. Universidad de Ciencias Médicas. Camagüey, Cuba.

*Autor para la correspondencia: jorsan.cmw@infomed.sld.cu

RESUMEN

Introducción: Los quistes son tumores que se caracterizan por tener diferentes sustancias en su interior. Aparecen como consecuencia de una reacción inflamatoria o por causa no conocida y representan menos del 2 % de los quistes que se reportan en todo el organismo.

Objetivo: Presentar el infrecuente caso de una niña, operada en el Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello del Hospital Militar “Dr. Octavio de la Concepción y de la Pedraja” por un quiste óseo aneurismático mandibular.

Caso clínico: Paciente de siete años de edad, femenina, blanca, con buena salud que ingresó en el servicio por quiste óseo aneurismático, se le indica estudios histológicos e imaginológicos y tratamiento quirúrgico mediante abordaje retromandibular, la biopsia por parafina ratificó el diagnóstico inicial.

Conclusiones: Las causas del quiste óseo aneurismático no están claras y el antecedente de trauma real, es poco frecuente. El estudio clínico, imagenológico, histológico y la remoción total y reparación del defecto posquirúrgico son las claves para evitar recidivas y complicaciones por lesión de las estructuras vecinas.

Palabras clave: quiste óseo aneurismático; lesión ósea; quiste de los maxilares; quiste óseo traumático; quiste óseo simple.

ABSTRACT

Introduction: Cysts are tumors characterized by having different substances inside. They appear as consequence of an inflammatory reaction or for an unknown cause, they represent less than 2% of cysts that are reported throughout the body.

Objective: To report the rare case of a girl, operated on in the Otorhinolaryngology and Head and Neck Surgery Service at Dr. Octavio de la Concepción y de la Pedraja for a mandibular aneurysmal bone cyst.

Clinical case report: A seven-year-old, female, white patient, in good health was admitted to the service due to an aneurysmal bone cyst, she was underwent histological and imaging studies and surgical treatment using a retromandibular approach, the paraffin biopsy confirmed the initial diagnosis.

Conclusions: The causes of the aneurysmal bone cyst are not clear and the history of trauma is rare. The clinical, imaging, histological study and the total removal and repair of the postsurgical defect are primordial to avoid recurrences and complications due to injury to neighboring structures.

Keywords: aneurysmal bone cyst; bone injury; cyst of the jaws; traumatic bone cyst; simple bone cyst.

Recibido: 12/12/2020

Aceptado: 16/01/2021

Introducción

Los quistes son cavidades anormales en tejido blando o duro, que contienen fluido, un semifluido o gas y que pueden o no presentar epitelio. El quiste óseo aneurismático (QOA) es una lesión benigna, osteolítica, localmente destructiva y expansiva dependiente de la vascularización ósea, que constituye un reto diagnóstico y terapéutico.^(1,2)

El término, según cita *López Durán S*,⁽³⁾ fue descrito en 1942 por *Jaffe H*⁽⁴⁾ y *Lichtenstein L*,⁽⁵⁾ quienes encontraron quistes óseos solitarios, en dos enfermos que mostraron distensión del contorno del hueso con contenido hemático. Diez años después en estudios independientes, dieron más detalles; caracterizando una nueva entidad clínico-patológica benigna.

Según *Urs AB* y otros,⁽⁶⁾ la Organización Mundial de la Salud, define al quiste óseo aneurismático, como una lesión osteolítica expansiva que consiste en espacios llenos de sangre y canales divididos por tabiques de tejido conectivo, que contienen tejido osteoide y células gigantes multinucleadas.

La epidemiología muestra mayor frecuencia en huesos donde hay una presión venosa relativamente elevada;⁽⁶⁾ como los huesos del cráneo poseen presión venosa baja, el QOA es raro en estas áreas. Se ha observado que los quistes en los maxilares afectan individuos entre la primera y segunda décadas de la vida, especialmente entre 10 y 20 años de edad, con ligera predilección por hombres en una proporción de 60 %, en los maxilares, correspondiente a una relación: 3:2, pero la relación es contraria en la literatura reportada en huesos largos.⁽⁷⁾

En la actualidad se considera desde el punto de vista clínico como una lesión pseudotumoral, de origen fibroso o vascular, que recidiva con frecuencia y afecta a niños y adultos jóvenes del sexo femenino.

Para algunos autores^(2,6) la etiología es poco conocida, aunque se mencionan como posibles causas: anomalías vasculares (dilatación venosa vascular), hemorragia de lesiones anteriores y aunque no es de origen traumático se manifiestan como miositis parostal osificante localizada, cuyo origen es traumático.⁽⁸⁾

La elección del método quirúrgico depende del comportamiento clínico y del examen radiográfico. El tratamiento de elección para el quiste óseo simple ha sido la escisión y legrado. Los índices de recidivas son variables desde 8 % hasta 60 %, los cuales en la mayoría de los casos, se deben a la remoción inadecuada de la lesión.^(2,3,5,6)

Las complicaciones ocurren por una técnica defectuosa, o vecindad con órganos importantes como: glándula parótida, nervio facial, seno maxilar que puede generar una comunicación orosinusal y requerir una intervención adicional con colgajos de rotación locales.^(7,8)

Se ha reportado por *Docquier P*⁽⁹⁾ la curación espontánea luego de la biopsia, pero generalmente requiere tratamientos no invasivos. Hoy existen disponibles múltiples técnicas mínimamente invasivas que han dado buenos resultados como: las inyecciones periódicas de esclerosantes, trombosantes y fibrosantes, bajo anestesia general y radioscopia; también se ha empleado crioterapia, relleno con matriz ósea desmineralizada por inyección, inyección percutánea de calcitonina y metilprednisolona, inyección de sulfato de calcio y escleroterapia con polidocanol al 3 %.^(2,6,7)

Considerando la forma de presentación de los QOA y la compleja localización de la lesión en esta paciente, se decide realizar este trabajo con el objetivo de presentar el infrecuente caso en una niña operada en el Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello del Hospital Militar “Dr. Octavio de la Concepción y de la Pedraja” por un quiste óseo aneurismático mandibular.

Caso clínico

Paciente de siete años de edad femenina, piel blanca, con buena salud y que según manifiesta la madre, comenzó a notarle aumento de volumen de la región parotídea derecha, sin otras manifestaciones acompañantes. Acude al especialista en Maxilo Facial quien después de evaluarla la remite a la consulta de Cirugía de Cabeza y Cuello del Hospital Militar “Dr. Octavio de la Concepción y de la Pedraja”.

En consulta después de una anamnesis exhaustiva, se le indica estudios histológicos (citología por aspiración con aguja fina (CAAF) y resonancia magnética nuclear (Fig. 1).

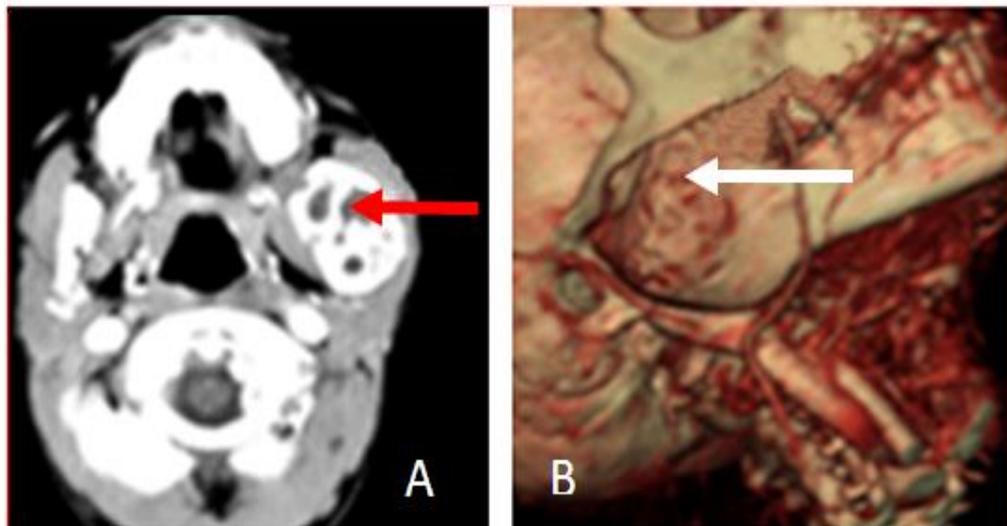


Fig. 1 - Imágenes de la resonancia magnética nuclear que muestran la localización del quiste óseo aneurismático señalado con las flechas, A. Corte axial. B. Se muestra la lesión en la rama ascendente derecha de la mandíbula en la rama ascendente derecha de la mandíbula en cortes: axial, sagital y coronal.

La biopsia: 122-3-18- indica presencia de lagunas de sangre venosa separadas por tabiques fibrosos con fibroblastos y espacios vacíos o con contenido de sangre sin endotelio, abundante componente osteoide y matriz ósea con presencia de calcificaciones. Diagnóstico: Quiste óseo aneurismático.

Se le inició tratamiento de acuerdo a las normas con betametasona en dos ciclos intratumorales con una frecuencia de 10 días sin mejoría en la evolución del quiste, por lo que se decide indicar tratamiento quirúrgico.

Se realiza cervicotomía con abordaje retromandibular, disección y separación del lóbulo superficial de la parótida y de la rama cervical del facial, ligadura de la carótida externa y exéresis y legrado del lecho del quiste (Fig. 2). Después de dos años, la paciente muestra una evolución favorable y sin recidiva tumoral.



Fig. 2 - Cervicotomía con incisión longitudinal retromandibular.

Discusión

Los quistes aneurismáticos se descubren con frecuencia de forma accidental, por el aumento de volumen, asimetría facial, en estudios radiográficos de rutina o por la manifestación de síntomas leves.

Purohit A.⁽¹⁰⁾ plantea que del 36 al 50 % de todos los QOA se encuentran en los huesos largos; la mayoría en la metáfisis de las extremidades inferiores y en el 25 % afecta a las vértebras, el hioide, la mandíbula y el odontoide. Constituyen el 2,5 % de todas las lesiones óseas primarias y un 10 % de los tumores óseos benignos.

La incidencia en el cráneo publicada en la literatura ronda el 2 - 6 %^(3,7) En localización craneana han sido publicados casos de afectación frontal, parietal, temporal y occipital. Según los casos publicados por *Tuna H.*⁽¹¹⁾ parece existir una prevalencia femenina (2:1) o menor, en coincidencia con la paciente descrita, aunque otros autores^(2,6,7) no consideran esta relación.

Jaffe y Lichtenstein, referidos por *Guibaud L.*⁽¹²⁾ describieron características que coinciden en la paciente descrita en este estudio: origen fibrovascular, frecuente en *niños mayores* o adultos jóvenes, sexo femenino.⁽¹⁰⁾

Clínicamente solo se observó contractura de la articulación témporo-mandibular y localización en un hueso plano. Sin embargo, en relación al sexo no se encontraron en las revisiones realizadas los mismos resultados.^(7,9,11)

De Conto F.⁽¹³⁾ al describir los hallazgos en la tomografía computarizada observó: lesión osteolítica, con límites definidos que, adelgaza, destruye o deja intacta la cortical del hueso, en relación al tamaño de la lesión. En ocasiones el QOA puede extenderse a las raíces de las piezas dentarias ocasionando rizólisis, maloclusión, movilidad y migración de los dientes envueltos en la lesión.

En el caso descrito por los autores, la lesión se encontraba en la rama ascendente del maxilar superior sin compromiso de las raíces dentarias lo que coincide con lo referido por *Jundt G.*⁽¹⁴⁾ y *Neville BW,*⁽¹⁵⁾ en sus trabajos refieren que las corticales de la lesión se expanden sin perforarse, permaneciendo recubierto el quiste por una fina lámina de hueso y periostio; mostrando la típica imagen en “cáscara de huevo”.

Aunque la etiología y patogénesis del QOA no están bien definidas y se han propuesto varias teorías; unas de las más aceptadas es la teoría del origen traumático descrita en 1965 por *Howe GL.*⁽¹⁶⁾ El autor señala que los traumatismos producen hematomas óseos intramedulares con organización y resolución defectuosa del coágulo, isquemia pos hemorrágica que induce a necrosis aséptica. Finalmente queda una cavidad ósea vacía, que luego es ocupada por un contenido claro o un fluido de tipo serosanguinolento.

Segall L. y otros,⁽¹⁷⁾ describen otras causas como: alteraciones en el metabolismo del calcio y alteración local en el crecimiento o el metabolismo óseo, secundario a neoplasias como la displasia cemento ósea, displasia fibrosa, infecciones locales leves, obstrucción venosa e isquemia local. Aunque la etiopatogénesis del quiste óseo aneurismático no sea clara, es considerada, como un proceso reactivo no neoplásico.⁽¹⁸⁾

El tratamiento quirúrgico después del diagnóstico clínico, imagenológico e histopatológico, es la norma y se planifica de acuerdo a la localización del QOA.⁽²⁾ En el caso descrito, dada la localización del tumor, se realizó disección y separación del lóbulo superficial de la glándula parótida y del musculo masetero homolateral. Los índices de recidivas son variables desde 8 % hasta 60 %, que en la mayoría de los casos se debe a la remoción inadecuada de la lesión.^(18,19,20,21) Los controles clínicos e imagenológicos periódicos permiten evaluar la resolución completa de la lesión.

Conclusiones

Las causas del quiste óseo aneurismático no están claras y el antecedente de un trauma real, es poco frecuente. Los estudios clínicos, imagenológicos, histológico y la remoción total y reparación del defecto posquirúrgico son las claves para evitar recidivas y complicaciones por lesión de las estructuras vecinas.

Referencias bibliográficas

1. Llanes F, Donado M. Introducción a las lesiones quísticas y tumorales buco maxilofaciales. En: Donado M, Martínez JM. Cirugía Bucal: Patología y técnica. 4ª ed. Barcelona: Elsevier Masson; 2014:475-80.
2. Baumhoer D. Bone-Related Lesions of the Jaws. Surg Pathol Clin. 2017;10(3):693-704.
3. López Durán Stern L. Traumatología y ortopedia. 3ª ed. Madrid: Ediciones Luzan. 1998: 283-93.
4. Jaffe HL. Aneurysmal bone cyst. Bull Hosp Joint Dis. 1950;11(1):3-13
5. Lichtenstein L. Aneurysmal bone cyst. Cancer. 1950; 3:279-89.
6. Urs AB, Augustine J, Chawla H. Aneurysmal Bone Cyst of the Jaws: Clinicopathological Study. J. Maxillofac Oral Surg. 2014;13(4):458-6.
7. Motamedi MH. Destructive aneurysmal bone cyst of the mandibular condyle: report of a case and review of the literature. J Oral Maxillofac Surg 2002;60(11):1357-61.
8. Roychoudhury A, Rustagi A, Bhatt K, Bhutia O, Seith A. Aneurysmal bone cyst of the mandible: report of 3 cases. J Oral Maxillofac Surg 2009;67(9):199-204.
9. Docquier PL, Glorion C, Delloye C. Kyste osseux anévrismal. EMC - Appareil locomoteur 2011; 6:1-11.
10. Purohit A, Chopra S, Sinha VD, Dharker SR. Aneurysmal Bone Cyst of the Temporal Bone. J. Neurol India, 2002; 50:511-13.
11. Tuna H, Karatas A, Yilmaz ER, Yagmurlu B, Ereku S. Aneurysmal Bone Cyst of the Temporal Bone: Case Report. Surg. Neurol. 2003; 60: 571-74.

12. Guibaud L, Herbreteau D, Dubois J. Aneurysmal bone cyst percutaneous embolization with an alcoholic solution of zein: series of 18 cases. *J. Radiology.* 1998; 208:369-73.
13. De Conto F, Moura de Bortoli M, Galvan J, Rovani G, Ericson M, Rhoden RM. Quiste óseo aneurismático. *Rev cubana Estomatol.* 2012;49(2):175-83.
14. Jundt G. Aneurysmal bone cyst. En Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. *WHO Classification of tumors: pathology and genetics of head and neck tumors.* Lyon: IARC 2005
15. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. *Patología Oral y Maxilofacial.* 3ª ed. Río de Janeiro: Elsevier 2009.
16. Howe GL. "Hemorrhagic cysts" of the mandible. I. *Br J Oral Surg* 1965;3(1):55-76.
17. Segall L, Cohen-Kerem R, Ngan BY, Forte V. Aneurysmal bone cysts of the head and neck in pediatric patients: a case series. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2008;72(7):977-83.
18. Flores IL, Hamilton ME, Zanchin-Baldissera E, Uchoa-Vasconcelos AC, Chaves-Tarquinio SB, Neutzling-Gomes AP. Simple and aneurysmal bone cyst: Aspects of jaw pseudocysts based on an experience of Brazilian pathology service during 53 years. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2017;22(1):64-9.
19. Gotmare S, Tamgadge A, Tamgadge S, Kesarkar K. Recurrent Psammomatoid Juvenile Ossifying Fibroma with Aneurysmal Bone Cyst: An Unusual Case Presentation. *Iran J Med Sci.* 2017;42(6):603-06.
20. Liu K, Guo C, Guo R, Meng J. Giant Aneurysmal Bone Cyst in the Mandibular Condyle. *J Craniofac Surg.* 2017;28(2):148-51.
21. Ogle O, Santosh A. Medication Management of Jaw Lesions for Dental Patients. *Dent Clin North Am.* 2016;60(2):483-95.

Conflicto de intereses

Los autores no declaran conflictos de intereses en relación con la publicación del artículo.

Contribuciones de los autores

Jorge Santana Álvarez: Conceptualización y análisis del trabajo, estudio del caso y revisión del texto

Erika Romero Romero: Recolección de datos y revisión bibliográfica.

Mario Carlos Crespo Guerra: Metodología y redacción del texto original

Tamara Angelina Valle Sánchez: Estudio estadístico y documental