

Tumor marrón en la mandíbula como forma de presentación inicial de hiperparatiroidismo primario

Brown tumor in the mandible as an initial presentation of primary hyperparathyroidism

Gonzalo Miranda Manrique^{1,a}

¹ Hospital Nacional Dos de Mayo. Lima, Perú.

^a Médico especialista en endocrinología. ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-0162-1952>

An Fac med. 2024;85(2)./ DOI: <https://doi.org/10.15381/anales.v85i2.27415>

Correspondencia:

Gonzalo Miranda Manrique
sith1685@hotmail.com

Recibido: 17 de febrero 2024

Aprobado: 12 de abril 2024

Publicación en línea: 13 de mayo 2024

Conflictos de interés: El autor declara no tener conflictos de interés.

Fuente de financiamiento: Autofinanciado.

Contribuciones de autoría: El autor realizó la concepción y diseño del reporte, recolección y obtención de resultados, redacción del manuscrito, revisión crítica del manuscrito y aprobación de su versión final. Asimismo, asume la responsabilidad frente a todos los aspectos del manuscrito.

Citar como: Miranda G. Tumor marrón en la mandíbula como forma de presentación inicial de hiperparatiroidismo primario. An Fac med. 2024; 85(2): . DOI: <https://doi.org/10.15381/anales.v85i2.27415>

Resumen

El tumor pardo (TP) es una lesión ósea benigna causada por un exceso de actividad osteoclastica y depósito de hemosiderina como resultado de hiperparatiroidismo primario o secundario. Se presenta el caso de un paciente varón de 71 años que presentaba un tumor mandibular y dolor óseo en miembros inferiores. Fue evaluado inicialmente por el servicio de cabeza y cuello quienes realizaron la exéresis de la lesión mandibular con diagnóstico histológico de células gigantes con áreas necróticas y hemorrágicas. Tres meses después se evidenció presencia de hipercalcemia y fue remitido al servicio de endocrinología. Se confirmó el diagnóstico de hiperparatiroidismo primario asociado a complicaciones esqueléticas y se programó paratiroidectomía con confirmación histológica de adenoma paratiroideo. El presente caso es de interés por la forma de presentación inicial de hiperparatiroidismo primario asociado a presencia de un tumor marrón como diagnóstico diferencial al evaluar a un paciente con tumor óseo mandibular.

Palabras clave: Mandíbula; Hiperparatiroidismo; Neoplasias (fuente: DeCS BIREME).

Abstract

Brown tumor (TP) is a benign bone lesion caused by excess osteoclastic activity and hemosiderin deposition as a result of primary or secondary hyperparathyroidism. We present the case of a 71-year-old male patient with a mandibular tumor and bone pain in the lower limbs. He was initially evaluated by the head and neck department who performed excision of mandibular lesion with histological result of giant cells with necrotic and hemorrhagic areas. 3 months later, hypercalcemia was evident, and he was referred to the endocrinology department. The diagnosis of primary hyperparathyroidism associated with skeletal complications was confirmed and parathyroidectomy was scheduled with histological confirmation of parathyroid adenoma. The present case is of interest because of the initial presentation of primary hyperparathyroidism associated with the presence of a brown tumor as a differential diagnosis when evaluating a patient with mandibular bone tumor.

Keywords: Mandible; Hyperparathyroidism; Neoplasms (source: MeSH NLM).

INTRODUCCIÓN

El tumor pardo (TP) es una lesión ósea benigna poco frecuente causada por un exceso de actividad osteoclástica y depósito de hemosiderina como resultado de hiperparatiroidismo primario o secundario (HPT) no controlado. Este tipo de tumor puede ser multifocal y localizarse en cualquier parte del esqueleto, pero con mayor frecuencia surge en los maxilares, costillas, clavículas, extremidades y cintura pélvica. Las lesiones clínicamente significativas en los huesos craneofaciales son raras. La afectación craneofacial puede causar desfiguración facial, comprometer la actividad social y funciones de masticación, de fonación y dificultad en la respiración ⁽¹⁾.

Pueden identificarse varias etiologías ante un paciente con un tumor a nivel de la mandíbula siendo una de ellas el hiperparatiroidismo. Asimismo, en individuos con hiperparatiroidismo pueden presentarse diferentes manifestaciones mandibulares, como los tumores pardos, la osteítis fibrosa/osteodistrofia renal y la leontiasis ósea, entre otras ⁽²⁾. Una mejor comprensión de estas afecciones puede conducir a un manejo clínico más adecuado.

En este caso clínico presentamos un paciente con un tumor pardo provocado por hiperparatiroidismo primario como forma de presentación inicial. Para la publicación de este reporte se obtuvo el consentimiento informado de parte de un familiar directo del paciente.

REPORTE DE CASO

El paciente fue de sexo masculino de 71 años sin antecedentes patológicos significativos, doce meses antes del ingreso presentó un tumor mandibular pardo y dolor óseo en miembros inferiores. Fue evaluado inicialmente por un servicio de cabeza y cuello. Se encontró lesión en región mandibular izquierda de consistencia dura con dolor a palpación de aprox. 5 cm. El paciente tenía una ecografía cervical en la que se encontró una masa sólida heterogénea, calcificaciones internas gruesas de 53x25x36 mm. En la tomografía axial computada (TAC) de contraste de cuello se observó un tumor mandibular infiltrante (Figura 1). Los médicos

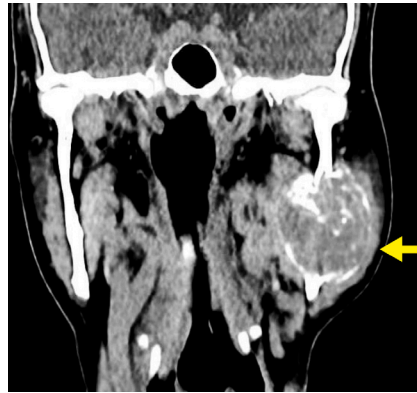


Figura 1. Tomografía computada muestra destrucción ósea. El tejido es de densidad variable con una calcificación intratumoral.

tratantes realizaron exéresis de la lesión mandibular con resultado histológico de células gigantes con áreas necróticas y hemorrágicas de 1,8 x 5 x 4 cm (Figura 2).

Ante los hallazgos anatómo-patológicos descritos se reevaluó al paciente considerando diagnósticos diferenciales, por lo que se solicitó estudios de calcio. El calcio sérico (Ca) resultó con niveles altos de manera persistente, su valor inicial fue de 14,3 mg/dL (valor normal 8,5 a 10,2 mg/dL). Este hallazgo permitió la presunción diagnóstica de una etiología benigna como el tumor pardo, por lo que fue remitido a la unidad de endocrinología tras 3 meses.

A la exploración física se encontró parálisis facial izquierda como complicación de la cirugía y ausencia de ramas hori-

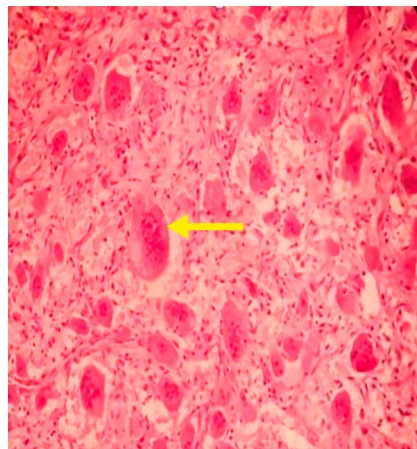


Figura 2. Resultado anatómo-patológico que muestra proliferación de células gigantes multinucleadas.

zontales a nivel mandibular izquierdo. Se confirmó el diagnóstico de hiperparatiroidismo primario ante los niveles séricos elevados de calcio y paratormonas (PTH). Estos niveles estuvieron asociados a las complicaciones esqueléticas por la presencia de tumor pardo mandibular.

Los valores prequirúrgicos del paciente fueron: Ca total de 14,59 mg/dL, PTH de 743 pg/dL, 25 hidroxivitamin D de 7,2 ng/dL, creatinina sérica de 0,55 mg/dL, fósforo de 2,7 mg/dL, calciuria de 405 mg/24 horas. Asimismo, contaba con estudios de imágenes de radiografía panorámica mandibular en la que se observó reabsorción ósea alveolar moderada generalizada, ecografía tiroidea con resultado de adenoma paratiroideo intratiroideo derecho de 14 x 16,6 mm (Figura 3). Estos hallazgos fueron consistentes en la gammagrafía paratiroidea con sestamibi (+) en el polo superior del lóbulo tiroideo derecho (Figura 4).

Se programó la paratiroidectomía derecha con confirmación histológica de adenoma paratiroideo. Posteriormente, el paciente presentó remisión de cuadro clínico y bioquímico. El paciente tuvo una evolución favorable con PTH y niveles de calcio con valores normales.

DISCUSIÓN

Se presenta el caso de una complicación del hiperparatiroidismo primario en un paciente que cursó con un tumor pardo de gran tamaño el cual se originó en la mandíbula y que sobresalía a través de la cavidad oral. Es necesario un diagnóstico diferencial en lesiones a nivel mandibular para neoplasias malignas y benignas de células gigantes como quiste óseo aneurismático, granuloma central de células gigantes y tumor pardo del hiperparatiroidismo. Asimismo, con hallazgos radiológicos como mixoma odontogénico, osteoblastoma, condroblastoma y ameloblastoma. Otros tipos de lesiones a considerar son la reacción a cuerpo extraño, lesiones vasculares y lesiones malignas, principalmente el osteosarcoma, pero también el histiocitoma de células de Langerhans y la leucemia ^(2,3).

El tumor pardo es una manifestación extremadamente rara del hiperparati-

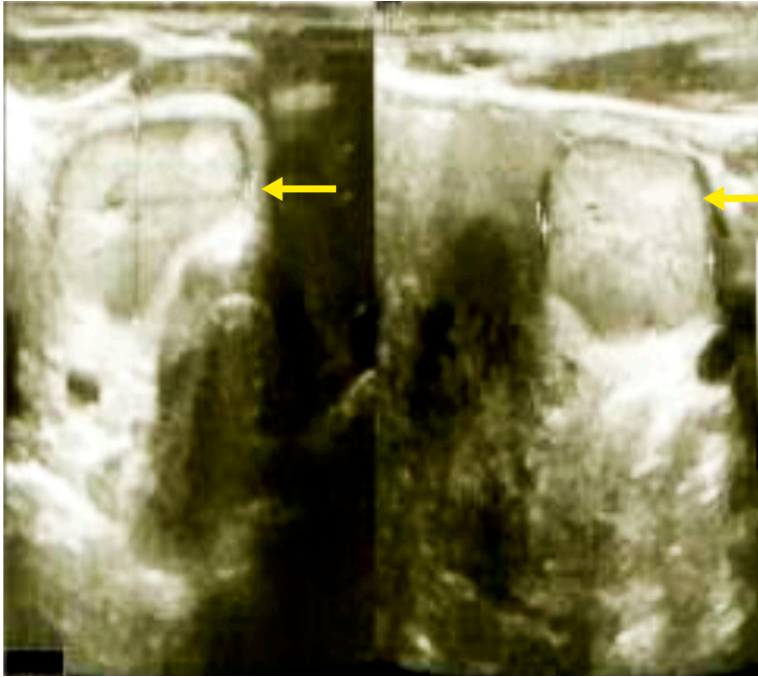


Figura 3. Radiografía panorámica que muestra adenoma paratiroideo intra tiroideo derecho.

roidismo tardío e incontrolado, con una incidencia del 1% entre pacientes con hiperparatiroidismo primario. Los tumores pardos son raras lesiones óseas focales no neoplásicas marcadas por adelgazamiento de la corteza ósea y sustitución de la médula ósea por tejidos fibroso. Es el resultado de un rápido recambio osteoclástico del hueso causado por la elevación anormal de la PTH. La coloración marrón se debe al depósito de hemosiderina⁽²⁻⁴⁾. Aunque los tumores son solitarios en la mayoría de los casos, hay reportes de lesiones en múltiples sitios⁽⁵⁻⁷⁾. Comúnmente afectan huesos largos como costillas, clavícula y fémur, aunque en el 4,5% de los casos se

ven afectados huesos de la cara como el maxilar y la mandíbula. El tratamiento del hiperparatiroidismo primario es el primer paso generalmente, y la normalización del nivel de PTH tras la paratiroidectomía a menudo hará que el tumor disminuya de tamaño o desaparezca^(7,8). Por lo general, no se recomienda la resección quirúrgica de un tumor marrón y solo se debe considerar si el paciente desea una resolución rápida, si la lesión ósea compromete las funciones corporales o promueve la deformación facial, o si la lesión no retrocede después de 1 a 2 años⁽⁸⁻¹⁰⁾.

Dependiendo de la causa de la sobre-



Figura 4. Gammagrafía paratiroidea con sestamibi a 15 min en cuello, 15 min en tórax y a las 2 horas

producción de PTH, los tumores pardos pueden ser consecuencia de 1 de los 4 subtipos de hiperparatiroidismo (HPTH): hiperparatiroidismo primario (HPTH, causado por una enfermedad primaria de las glándulas paratiroides), hiperparatiroidismo secundario (SHPTH, que aparece generalmente en un contexto de insuficiencia renal crónica), hiperparatiroidismo terciario (THPTH, debido a la autonomización de una glándula paratiroides agrandada en pacientes con hiperparatiroidismo secundario de larga duración), o hiperparatiroidismo cuaternario (QHPTH debido a una secreción ectópica de PTH). Por lo tanto, el tratamiento requiere un manejo delicado de la patología primaria cuya respuesta no siempre es predecible, especialmente en las de larga duración⁽¹⁰⁾.

En el caso del paciente presentado la evaluación por la especialidad y el diagnóstico fue posterior a la realización de la exéresis de la lesión mandibular. El diagnóstico de los tumores pardos es un reto ya que pueden confundirse radiológicamente con varias afecciones que desarrollan múltiples lesiones óseas o con neoplasias malignas. Además, son histológicamente indistinguibles del granuloma central de células gigantes, el granuloma periférico de células gigantes, entre otras entidades. Es muy importante, por tanto, revisar minuciosamente la historia clínica del paciente para guiar las investigaciones apropiadas y ayudar al diagnóstico, así como evaluar los niveles de calcio y hormona paratiroidea para poder lograr una normalización de esos valores en pacientes con hiperparatiroidismo asociado a este tipo de lesiones esqueléticas⁽⁷⁾. Este enfoque reducirá la tasa de diagnósticos erróneos, evitará daños a los pacientes y permitirá administrar el tratamiento adecuado⁽¹¹⁻¹³⁾.

Asimismo, el retraso del diagnóstico del HPTH fue demasiado, lo que entre otros factores está relacionado a determinantes sociales como el menor acceso a servicios y deficiencias propias de nuestro sistema sanitario. Esto último dado que, a diferencia de nuestro medio, en la actualidad en los países desarrollados el HPTH se diagnostica principalmente mediante un cribado bioquímico rutinario en pacientes sin signos clínicos que sugieran la enfermedad, por lo que las

manifestaciones clásicas del hiperparatiroidismo son raras en contraste al caso presentado^(14,15).

Por otro lado, es importante en el tratamiento preoperatorio de la paratiroidectomía, tener en cuenta que el nivel de la vitamina D debe evaluarse y tratarse en caso de deficiencia para prevenir la aparición de síndrome de hueso hambriento en el posoperatorio, así como el considerar el uso cinacalcet para reducir el calcio sérico de ser necesario⁽¹⁶⁾. El presente caso es de interés, pues en nuestro medio puede ser una forma de presentación inicial de hiperparatiroidismo primario.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Guimarães LM, Valeriano AT, Rebelo Pontes HA, Gomez RS, Gomes CC. Manifestations of hyperparathyroidism in the jaws: Concepts, mechanisms, and clinical aspects. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2022;133(5):547-555. DOI:10.1016/j.oooo.2021.08.020
- Lajolo C, Patini R, Limongelli L, Favia G, Tempesta A, Contaldo M, *et al.* Brown tumors of the oral cavity: presentation of 4 new cases and a systematic literature review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2020;129:575-584. DOI: 10.1016/j.oooo.2020.02.002
- Kabila B, Beqqali B, Obilat S, Haddad SE, Al-lali N, Chat L. Mandibular Brown Tumor Revealing Hyperparathyroidism in a Patient With Neurofibromatosis Type I: Case Report. *Glob Pediatr Health.* 2023;10:2333794X231219168. DOI: 10.1177/2333794X231219168
- Eldaya R, Eissa O, Herrmann S, Pham J, Calle S, Uribe T. Mandibular Lesions: A Practical Approach for Diagnosis Based on Multimodality Imaging Findings. *Contemporary Diagnostic Radiology* 2017; 40(6):1-7. DOI: 10.1097/01.CDR.0000513197.01378.d8
- Pham M, Bhatt P, Purvey TA. Massive Exophytic Brown's Tumor of the Bilateral Maxilla with Mandibular Involvement. *J Craniofac Surg.* 2022;33(3):897-900. DOI:10.1097/SCS.0000000000008308
- Xu B, Yu J, Lu Y, Han B. Primary hyperparathyroidism presenting as a brown tumor in the mandible: a case report. *BMC Endocr Disord.* 2020;20(1):6. DOI:10.1186/s12902-019-0480-2
- Dos Santos B, Koth VS, Figueiredo MA, *et al.* Brown tumor of the jaws as a manifestation of tertiary hyperparathyroidism: a literature review and case report. *Spec Care Dentist.* 2018;38: 163-171. DOI: 10.1111/scd.12284
- Zou H, Song L, Jia M, *et al.* Brown tumor of multiple facial bones associated with primary hyperparathyroidism: a clinical case report. *Medicine.* 2018;97:e11877. DOI: 10.1097/MD.00000000000011877
- Agnihotri M, Kothari K, Naik L. Ω Brown tumor of hyperparathyroidism. *Diagn Cytopathol.* 2017;45:43-44. DOI: 10.1002/dc.23631
- Fedhila M, Belkacem Chebil R, Marmouch H, *et al.* Brown Tumors of the Jaws: A Retrospective Study. *Clin Med Insights Endocrinol Diabetes.* 2023;16:11795514231210143. DOI:10.1177/11795514231210143
- Palla B, Burian E, Fliefel R, *et al.* Systematic review of oral manifestations related to hyperparathyroidism. *Clin Oral Investig.* 2018;22:1-27. DOI: 10.1007/s00784-017-2124-0
- Rai S, Rattan V, Bhadada SK. Giant cell lesions associated with primary hyperparathyroidism. *J Maxillofac Oral Surg.* 2015;14:930-4. DOI: 10.1007/s12663-014-0719-4
- Zou H, Song L, Jia M, Wang L, Sun Y. Brown tumor of multiple facial bones associated with primary hyperparathyroidism: A clinical case report. *Medicine.* 2018;97(33):e11877. DOI:10.1097/MD.00000000000011877
- Delgado-Gomez Manuel, Hoz-Guerra Sonsoles de la, García-Duque María, Vega-Blanco María, Blanco-Urbaneja Irune. Diagnóstico del hiperparatiroidismo primario. *Rev. ORL.* 2020; 11(3): 347-359. DOI: <https://doi.org/10.14201/orl.21428>
- Rappoport Wurgaft D, Caballero Quintana M, Cortés Bórquez N, Cabané Toledo P, Gac Espinoza P, Rodríguez Moreno F. Hiperparatiroidismo primario. *Rev Cir.* 2021;73(2). DOI:10.35687/s2452-45492021002910
- Bilezikian JP, Khan AA, Silverberg SJ, *et al.* Evaluation and Management of Primary Hyperparathyroidism: Summary Statement and Guidelines from the Fifth International Workshop. *J Bone Miner Res.* 2022; 37(11):2293-2314. DOI:10.1002/jbmr.