

PRESENTACIÓN DE CASO

Quiste óseo aneurismático

Aneurysmal bone cyst

**PhD. Ferdinando de Conto, Manoela Moura de Bortoli, Jéssica Galvan, MSc.
Gisele Rovani, PhD. Mateus Ericson Flores, Dr. Roque Miguel Rhoden**

Universidad de Passo Fundo-RS, Brasil.

RESUMEN

El quiste óseo aneurismático (QOA) es una lesión benigna rara en huesos maxilares, su mayor frecuencia es en huesos largos del esqueleto y columna vertebral. Algunos autores especulan que el origen sea por trauma, mala formación o un neoplasma. El aspecto radiográfico puede mostrar desde una imagen difusa hasta una imagen bien definida, muy semejante a las otras lesiones de los maxilares volviendo el diagnóstico diferencial amplio. Con la destrucción del córtex óseo puede todavía formar una imagen reacional del periostio en forma de rayos de sol, característico de una lesión maligna. En este estudio, se presenta caso de paciente femenino, 17 años de edad, que buscó el Servicio de Cirugía y Traumatología Buco maxilofacial del Hospital São Vicente de Paulo-RS, que presentó dolor y aumento de volumen en la mandíbula. Informó que hace cerca de un año empezó a sentir malestar en la región junto al ángulo mandibular derecho, lo cual fue progresivamente aumentando de volumen. El aspecto radiográfico acordaba una lesión maligna. Después de la confirmación histopatológica de QOA, el tratamiento seleccionado para el caso fue quirúrgico conservador, con legrado de la cavidad ósea, y fue mantenido en control posoperatorio de rutina con 6 y 18 meses. En las radiografías panorámicas realizadas se verifica la neoformación ósea y cura del caso.

Palabras clave: cirugía, diagnóstico, quiste, patología, mandíbula.

ABSTRACT

The aneurysmal bone cyst (ABC) is a benign and rare lesion in maxillary bones, is more frequent in largo bones of skeletal and spinal column. Some authors speculate about that its origin be traumatic, malformation or neoplasm. The radiographic

appearance may show from a diffuse image up to a well defined image very similar to the other maxillary lesions turning wide the differential diagnosis. With destruction of the bone cortex it is possible to create a reaction image of periosteum in sunbeams characteristic of malignant lesion. This is the case of a female patient aged 17 seeking help in the Bucco-maxillofacial Surgery and Traumatology Service of the São Vicente de Paulo Hospital RS, presenting with pain and an increased mandibular volume. She manifested that around one year she began to feel a discomfort next to the right mandibular angle, which was progressively increasing the volume. The radiographic appearance resembled a malignant lesion. After the histopathology verification of ABC, treatment chosen for this case was of type conservative surgical with bone cavity curettage and was maintained under systemic postoperative control for 6 and 18 months. In the taken panoramic radiographies is verified the bone neoformation and the cure of case.

Key words: Surgery, diagnosis, cyst, pathology, mandible.

INTRODUCCIÓN

El quiste óseo aneurismático (QOA) fue primeramente identificado como entidad clinocopatológica por *Jaffe* y *Lichtenstein* en 1942 que lo denominaron quiste óseo, para definir una lesión intraósea que contiene una fina capa de hueso, generalmente cuando posee una cavidad llena de sangre y aneurismático, para enfatizar la pérdida ósea cortical acompañada de expansión ósea.¹ Pero no es un quiste verdadero, porque no tiene revestimiento epitelial.²

La Organización Mundial de la Salud definió el QOA como una lesión osteolítica expansiva constituida por espacios llenos de sangre y canales divididos por septos de tejido conjuntivo que pueden contener tejido osteoide y osteoclastos como células gigantes.^{3,4} Aunque sea una lesión benigna, ella puede comportarse localmente de forma agresiva por causa de su rápido crecimiento y capacidad osteolítica.⁵

El QOA es más frecuente donde hay una presión venosa relativamente elevada y mayor contenido de la médula.⁶ Como los huesos del cráneo poseen presión venosa baja, el QOA es raro en estas áreas.² Ha sido observado en casi todas las partes del esqueleto, aunque más del 50 % del total de casos ocurren en los huesos largos y entre un 12 a un 30 % ocurren en la columna vertebral.⁷

En los huesos gnáticos no es común, con aproximadamente un 2 % relatado en los maxilares. La edad más prevalente es en niños y adultos jóvenes con una media de edad aproximada de 20 años. No ha sido observada ninguna predilección por género,⁸ pero existe una predilección por la mandíbula de 3:1 en relación a la maxila.^{4,9,10}

El QOA de los maxilares puede ser encontrado en asociación con otras lesiones óseas tales como, fibroma osificante central, condroblastoma, tumor de células gigantes, granuloma central de células gigantes o displasia fibrosa, estas lesiones combinadas han sido designadas como QOA -plus. La mayoría de las lesiones combinadas fueron descriptas en huesos largos, pero la literatura bucal y máxilofacial también ha relatado ese tipo de caso.^{11,12}

Etiología y patogénesis

La patogénesis del quiste óseo aneurismático permanece controvertida, con teorías que van desde un postrauma local, relativa mala formación vascular, hasta la predisposición a desarrollar tumores óseos.^{11,13} Aunque la patogénesis del quiste óseo aneurismático sea oscura, generalmente es considerada como representativo de un proceso reactivo en lugar de neoplásico o quístico. En este sentido varias teorías fueron propuestas, entre ellas el trauma, disturbio vascular, oclusión venosa súbita o desvío arterio venoso.^{9,11}

Características clínicas

La manifestación clínica más común del QOA es el abombamiento facial que normalmente se desarrolla rápido. Puede ser observado en algunas ocasiones mala oclusión, movilidad, migración o reabsorción de los dientes envueltos. En la maxila la lesión frecuentemente se extendió para el seno adyacente.⁸ Los principales síntomas del QOA incluyen dolor sordo y edema. La parestesia, compresión y crepitación son observadas raramente. En dependencia de su localización otros síntomas pueden ser encontrados como cefalea, diplopía, pérdida de vista, movilidad dentaria, pérdida auditiva, entre otros.^{5,11,12}

Durante el acto quirúrgico al penetrar en la lesión hay un sangramiento excesivo. La consistencia del tejido ha sido comparable a una esponja con grandes poros embebida en sangre, que representan los espacios cavernosos de la lesión. La lesión puede perforar la cortical y permanece recubierta por periostio o por una fina lámina de hueso.⁸

Características radiográficas

La imagen radiográfica generalmente es radiolúcida, que tiende a expandir y producir abombamiento de la cortical ósea, la cual generalmente es unilocular. Otras son descritas como septos claramente discernibles o trabeculaciones, y algunos casos son descritos como multiloculares, como panales de abeja o pompas de jabón. Puede haber reabsorción de las raíces y desplazamiento de los dientes de la región, estos son vitales. Raramente son observados dentro de la radiotransparencia focos radiopacos pequeños, supuestamente trabéculas óseas reaccionales.^{8,9,12}

El QOA se presenta radiográficamente muy semejante a otras lesiones de los maxilares lo que hace su diferenciación difícil. Ocasionalmente la destrucción de la cortical ósea puede ser identificada. Exhibe una imagen de reacción periostal en forma de rayo de sol, efecto que es característico de osteosarcoma, con que el diagnóstico diferencial debe ser realizado.^{6,12}

Aspectos histológicos

El aspecto histológico prominente son los espacios cavernosos llenos de sangre, de tamaños variables, limitados por células fusiformes, achataadas y separados por delicados septos de tejido conjuntivo laxo. Los espacios llenos por sangre no son revestidos por endotelio. La lesión puede contener células multinucleadas y trabéculas de osteoide, áreas de hemorragia y hemosiderina.^{8,9,12,14}

En algunos casos la pared contiene una calcificación semejante a un encaje que no es común en otras lesiones intraóseas. En aproximadamente el 20 % de los casos, el QOA está asociado con otras lesiones, generalmente una lesión fibroósea o granuloma central de células gigantes.⁸

Diagnóstico diferencial

El diagnóstico preoperatorio del QOA puede ser difícil por causa da su similitud con otras lesiones, como el ameloblastoma, tumor de células gigantes, hiperparatiroidismo, mixoma, quiste óseo traumático y tumor odontogénico ceratoquiste. La aspiración de sangre de la lesión debe llevar al clínico a sospechar de una lesión vascular o QOA. La ausencia de ruidos, palpitación y falta de presión de pulso ayudan clínicamente a diferenciar el QOA de una lesión vascular. Es esencialmente un diagnóstico de exclusión.

El diagnóstico definitivo solo puede ser hecho después del examen histopatológico. La biopsia debe ser realizada solamente cuando una lesión vascular haya sido descartada.^{2,11,15} En dependencia de la constitución histológica de la lesión, cuando hubiere un gran número de células gigantes multinucleadas, fibroblastos, hemorragia y hemosiderina, puede semejar el cuadro del granuloma a células gigantes en las áreas sólidas, con presencia de osteoide a la displasia fibrosa y fibroma osificante.^{5,6,11,12,14}

Tratamiento y pronóstico

El tratamiento para el quiste óseo aneurismático de los maxilares ha sido la escisión y legrado en algunos casos y se ha podido complementar con criocirugía. Los índices de recidivas son variables desde un 8 % a un 60 %, que en la mayoría de los casos transcurre de la remoción inadecuada de la lesión. La mayoría de los autores recomiendan la resección quirúrgica para remoción del QOA.^{8,9,12,16} En los casos en que la resección no es recomendable la radioterapia es una alternativa terapéutica, pero no es indicada en los casos en que el paciente es joven, pues existe un riesgo significante de desarrollo de un futuro sarcoma.¹¹

El interferón alfa-2a es otra alternativa para el tratamiento de pacientes con lesiones vasculares de la cabeza y el cuello de acceso quirúrgico difícil, como el quiste óseo aneurismático y el granuloma central de células gigantes. Pero también puede ser utilizado como terapia coadyuvante al tratamiento quirúrgico. Cuando se usa antes de la operación promueve una reducción en el tamaño de la lesión.¹¹

La metilprednisolona puede ser usada en combinación con la calcitonina, ella tiene efecto inhibitorio angioblástico y fibroblástico, pero ese tratamiento puede llevar un largo tiempo con respuesta imprevisible.¹ Algunos autores¹⁷ refirieron que la cirugía puede complicarse con una hemorragia masiva y necesitar una ligadura de la arteria carótida externa, o la ligadura preventiva o embolización previa. Otros^{12,18} han recomendado la reconstitución inmediata del defecto causado por la remoción de la lesión, con injerto autógeno en casos de deformidad en la estética, y en casos con alto riesgo de fracturas y pérdida de la continuidad ósea.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Se presentó un caso de una paciente femenina de 17 años de edad que acudió al Servicio de Cirugía y Traumatología Buco maxilofacial del Hospital São Vicente de Paulo, de Passo Fundo, Brasil, que presentaba dolor y aumento de volumen en la mandíbula. Informó que alrededor de un año atrás había empezado a sentir malestar en la región y que hacía seis meses percibió la tumefacción junto al ángulo mandibular derecho que crecía progresivamente.

Al examen clínico extrabucal se observó un aumento de volumen en la región del ángulo mandibular derecho, de consistencia dura y dolorosa a la palpación. En el examen intrabucal se observó borramiento del fondo del surco vestibular inferior derecho próximo a la región de molares inferiores y área retromolar, provocado por expansión de la tabla cortical vestibular. El examen radiográfico reveló un área radiolúcida multilocular como pompas de jabón junto a la basilar de la mandíbula, en la región del ángulo izquierdo con una medida cerca de 4 cm en su mayor diámetro. Las corticales se presentaban preservadas pero expandidas en el sentido linguovestibular (Figs. 1 y 2).

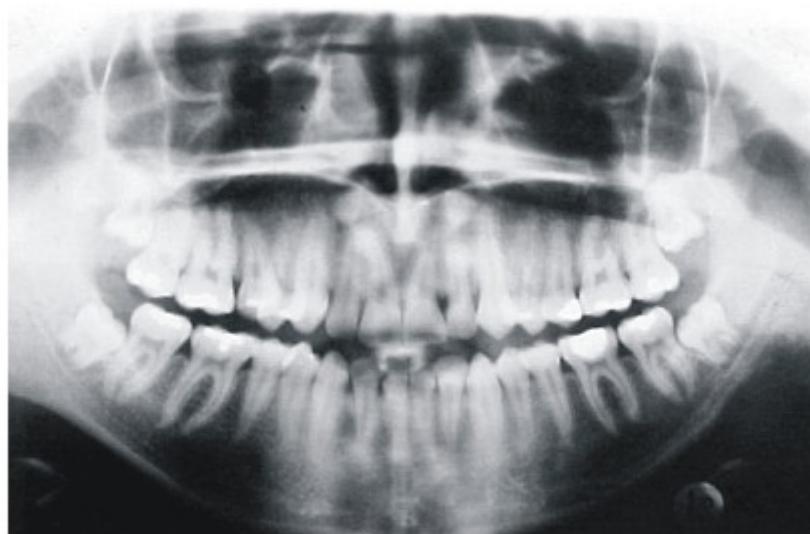


Fig. 1. Examen radiográfico demostrando área radiolúcida multilocular, en bollas de jabón, junto a la basilar de la mandíbula, en la región del ángulo izquierdo.

El tratamiento quirúrgico fue realizado en un ambiente hospitalario, bajo anestesia general e intubación nasotraqueal. Se mantuvo la asepsia y la antisepsia, se colocaron los paños de campo y se realizó una incisión extrabucal cerca de 1 cm por debajo del borde inferior del cuerpo mandibular, exactamente debajo de la localización de la lesión y se buscó preservar el máximo de la integridad de los tejidos adyacentes. Tras la confirmación de la ausencia de malignidad por medio de una biopsia por congelación, fue realizada la enucleación de la lesión (Fig. 3) seguida de un legrado de la cavidad ósea. El control del sangrado regional fue realizado con anestesia local con un vasoconstrictor asociado a hipotensión controlada, aplicada a la paciente por el médico anestesista.

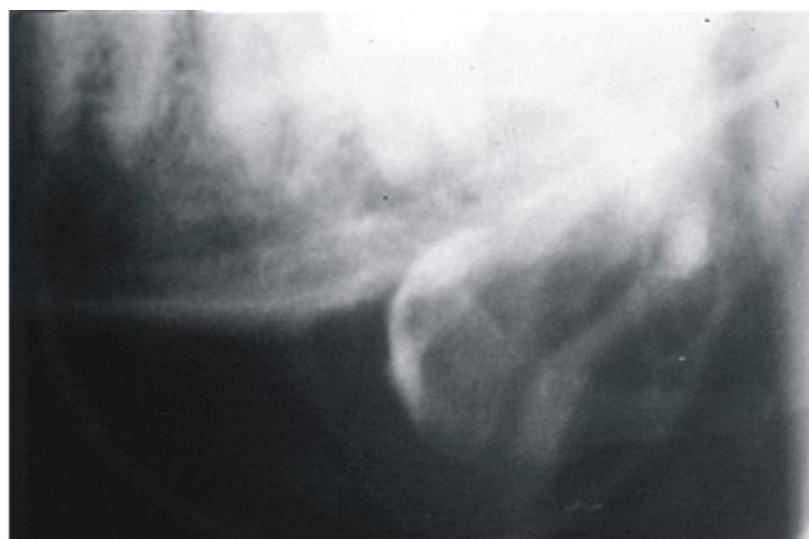


Fig. 2. La lesión presentaba cerca de 4 cm de diámetro. Se observa que las corticales se presentaban preservadas. El acto quirúrgico reveló expansión en el sentido línguovestibular.

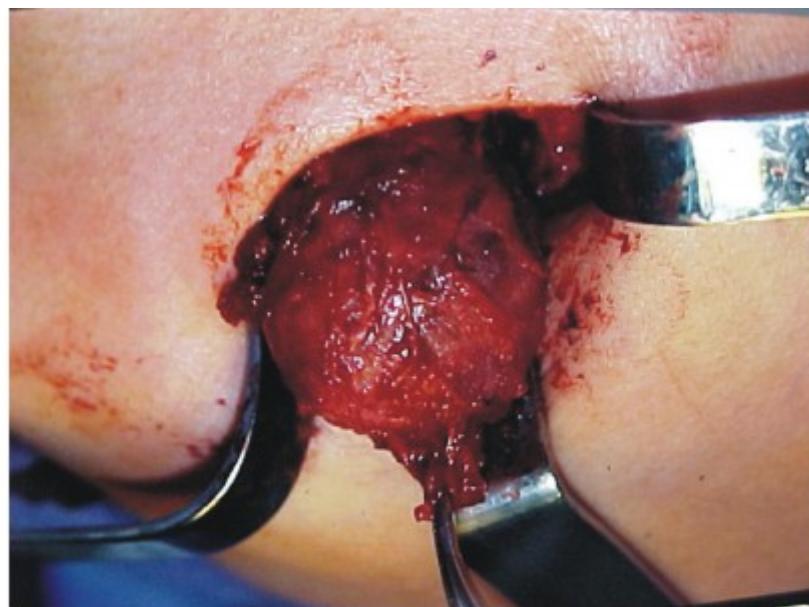


Fig. 3. Aspecto de la lesión en el momento de la retirada de su lecho.

El espécimen removido fue enviado al Laboratorio de Histopatología de la Facultad de Odontología de la Universidad. El examen microscópico informó un estroma de tejido conjuntivo fibroso con numerosos fibroblastos jóvenes y células gigantes multinucleadas, presencia de numerosos espacios sinusoidales parcialmente llenados por fibrinas y grandes áreas hemorrágicas (Fig. 4), áreas de osteoide y

formación de tejido óseo en toda la lesión y focos de hemosiderina. El diagnóstico histopatológico fue de quiste óseo aneurismático. (HE: hematoxilina-eosina).

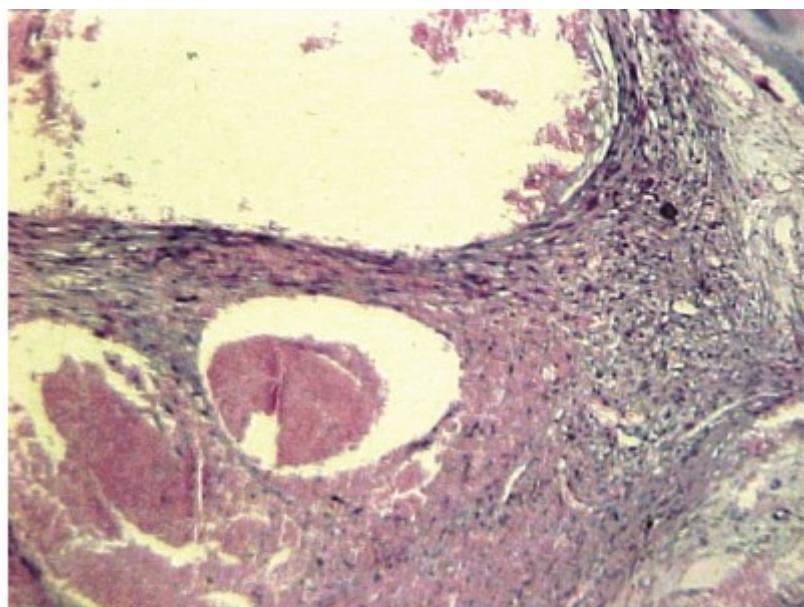


Fig. 4. Fotomicrografía 3. Tejido conjuntivo fibroso que contiene espacios cavernosos llenos de sangre. Tinción con hematoxilina/eosina (100x).

En el control posoperatorio se pudo observar una buena respuesta de los tejidos, con buena cicatrización y disminución del edema. En la reparación ósea observada a través del examen radiográfico panorámico realizado con 1, 4, 6, 12 y 24 meses, no se evidenció ninguna señal de recidiva en este periodo (Fig. 5).

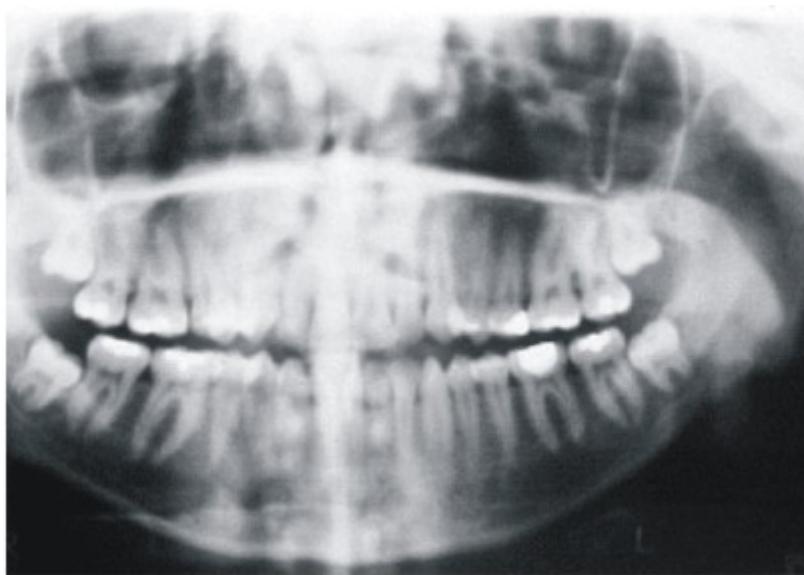


Fig. 5. Control a los 18 meses después de la cirugía sin evidencia de recidiva de la lesión.

Como en el caso presentado la manifestación clínica más común del QOA es el abombamiento facial que normalmente se desarrolla rápidamente. También puede observarse en algunas ocasiones mala oclusión, movilidad, migración o reabsorción de los dientes involucrados y en el maxilar la lesión frecuentemente se extiende al seno maxilar adyacente.

Como las características radiográficas de esta lesión presentan variaciones, la confirmación histopatológica es fundamental para el diagnóstico definitivo, en especial en la diferenciación de tumores malignos. Además, la escisión quirúrgica seguida de legrado óseo mostró ser un buen tratamiento de elección para esta afección y ofreció un favorable pronóstico, así como un satisfactorio reparo óseo sin recidiva.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Kumar VV, Malik NA, Kumar DB. Treatment of large recurrent aneurismal bone cysts of mandible: transosseous intralesional embolization as an adjunct to resection. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2009;38(6):671-6.
2. 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):1996-2004.
3. Rosenberg AE, Nielsen GP, Fletcher JA. Aneurysmal bone cyst. In: Fletcher CDM, Unni KK, Mertens F. WHO Classification of tumors: pathology and genetics of tumors of soft tissue and bone. Lyon: IARC; 2005. p. 338-9.
4. Jundt G. Aneurysmal bone cyst. In: Barnes L, Eveson JW, Reichart P. WHO Classification of tumors: pathology and genetics of head and neck tumors. Lyon: IARC; 2005. p. 326.
5. López-Arcas JM, Cebrián L, González J, Burgueño M. Aneurysmal bone cyst of the mandible: case presentation and review of the literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2007;12:401-3.
6. Motamedi MH. Destructive aneurysmal bone cyst of the mandibular condyle: report of a case and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 2002;60:1357-61.
7. Perrotti V, Rubini C, Fioroni M, Piattelli A. Solid aneurysmal bone cyst of the mandible. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2004;68:1339-44.
8. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Patología Oral e Maxilofacial. 3. ed. Rio de Janeiro: Ed. Elsevier; 2009. 972 pg.
9. Motamedi MH, Navi F, Eshkevari PS, Jafari SM, Shams MG, Taheri M. Variable presentations of aneurysmal bone cysts of the jaws: 51 cases treated during a 30-year period. *J Oral Maxillofac Surg.* 2008;66:2098-103.
10. Mendenhall WM, Zlotecki RA, Gibbs CP, Reith JD, Scarborought MT, Mendenhall NP. Aneurysmal bone cyst. *Am J Clin Oncol.* 2006;29:311.
11. 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;72:977-83.

12. Sun ZJ, Zhao YF, Yang RL, Zwahlen RA. Aneurysmal bone cysts of the jaws: analysis of 17 cases. *J Oral Maxillofac Surg.* 2010;68(9):2122-8.
13. Cottalorda J, Bourelle S. Modern concepts of primary aneurysmal bone cyst. *Arch Orthop Trauma Surg.* 2007;127:105.
14. Lekka JA, Gavresea TV, Stanc-Giannakopoulos GA, Demertzis NS. Solid variant of aneurismal bone cyst of the heel: a case report. *Journal of Medical Case Reports.* 2011;5:145-50.
15. Breuer C, Paul H, Zimmermann A, Braunstein S, Schaper J, Mayatepek E. Mandibular aneurysmal bone cyst in a child misdiagnosed as acute osteomyelitis: a case report and a review of the literature. *Eur J Pediatr.* 2010;1138-2.
16. Ettl T, Ständer K, Schwarz S, Reichert TE, Driemel O. Recurrent aneurysmal bone cyst of the mandibular condyle with soft tissue extension. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2009;38:699-703.
17. Fennessy BG, Vargas SO, Silvera MV, Ohlms LA, McGill TJ, Healy GB, et al. Paediatric aneurysmal bone cysts of the head and neck. *J Laryngol Otol.* 2009;123:635-41.
18. Capote-Moreno A, Acero J, García-Recuero I, Ruiz J, Serrano R, de Paz V. Giant aneurysmal bone cyst of the mandible with unusual presentation. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2009;114(3):137-40.

Recibido 5 de julio de 2011.

Aprobado 22 de noviembre de 2011.

Ferdinando de Conto. Faculdade de Odontologia. Universidade de Passo Fundo-RS, Brasil. Correo electrónico: ferdi@upf.br