

Quiste óseo aneurismático mandibular

Aneurysmal mandibular bone cyst

Dra. Denia Morales Navarro, ^I Carlos Guillermo Camacho Olguín ^{II}

^I Facultad de Estomatología. La Habana, Cuba.

^{II} Hospital Universitario "General Calixto García". La Habana, Cuba.

RESUMEN

El quiste óseo aneurismático es definido como una lesión osteolítica expansiva que consiste en espacios llenos de sangre y canales divididos por tabiques de tejido conectivo, los cuales contienen tejido osteoide y células gigantes multinucleadas. El objetivo es presentar un caso clínico poco común de un quiste óseo aneurismático de la región del cuerpo mandibular. Se trata de una paciente femenina de 39 años de edad que acudió a consulta externa del Servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital Universitario "General Calixto García" por aumento de volumen en región mandibular derecha y dolor intenso de 1 mes de evolución. Radiográficamente se detectó un área radiolúcida unilocular de bordes bien definidos; se realizó curetaje de la cavidad, y estudio histopatológico de la lesión que informó la presencia de un quiste óseo aneurismático. Se concluye que el quiste óseo aneurismático es más común en los huesos largos y en la región del ángulo mandibular en el esqueleto facial, por lo que la presentación de este en el cuerpo mandibular resulta de interés.

Palabras clave: quistes óseos; mandíbula; radiografía; biopsia.

ABSTRACT

The aneurysmal bone cyst is defined as an expansive osteolytic lesion consisting of blood-filled spaces and divided by partitions of connective tissue, which contain bone tissue and giant cells channels. The objective is to present a rare case of an aneurysmal bone cyst in the region of the mandibular body. This is a case of a 39-year-old female who attended the outpatient Maxillofacial Surgery Service of General Calixto Garcia University Hospital due to an increased volume in right mandibular region and intense pain of a month, both in evolution. Radiographically, a unilocular radiolucent area with well-defined edges was detected; curettage of the cavity and histopathological examination of the lesion were performed, which reported the presence of an aneurysmal bone cyst. It is concluded that the aneurysmal bone cyst is most commonly presented in the long bones and in the region of the mandibular angle in the facial skeleton, so the presentation of this in the mandibular body is of interest.

Key words: bone cysts; mandible; bone scan; biopsy.

INTRODUCCIÓN

El quiste óseo aneurismático es una rara lesión osteolítica, la cual se encuentra principalmente en los huesos largos. Solamente el 2 % ocurre en el esqueleto facial, y la región posterior mandibular resulta el sitio más comúnmente diagnosticado.¹ Según *Motamedi*,² esta lesión fue reconocida primeramente por *Jaffe y Lichtenstein* en 1942; y 16 años después se reportó el primer caso en la mandíbula por *Bernier y Bhaskar*. Desde entonces, muchos debates y confusiones se han creado en torno a la naturaleza y patogenia de esta lesión. La asociación mundial de la salud define al quiste óseo aneurismático como una lesión osteolítica expansiva que consiste de espacios llenos de sangre y canales divididos por tabiques de tejido conectivo que contienen tejido osteoide y células gigantes multinucleadas.³

Radiográficamente esta lesión en la mandíbula se encuentra de forma variada que va desde una radiolucencia unilocular hasta una radiolucencia multilocular en forma de panal de abeja o en pompas de jabón. Uno de los temas más controversiales de esta entidad es si tiene un origen primario, cuando no hay otra entidad histopatológica preexistente identificada; o secundario, cuando otro tipo de lesión ha ocurrido conjuntamente con el quiste óseo aneurismático.⁴

Existen dos teorías acerca de la patogénesis de esta lesión. La primera, considera que es una malformación vascular en respuesta a un evento traumático. La segunda, soporta que hay una predisposición genética a neoplasias óseas ya que se han identificado marcadores genéticos en estas lesiones.⁵

Por lo infrecuente de esta entidad en localización de cabeza y cuello nos sentimos motivados a la realización de este artículo y nos planteamos como objetivo presentar un caso clínico poco común de un quiste óseo aneurismático de la región del cuerpo mandibular.

CASO CLÍNICO

Se trata de una paciente femenina de 39 años de edad con antecedentes de salud aparente, quien acudió a consulta externa del servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital Universitario "General Calixto García" por presentar aumento de volumen facial de 1 mes de evolución que fue interpretado como un proceso infeccioso odontógeno y tratado como tal, pero sin observar mejoría del cuadro clínico. Al interrogatorio refiere que 2 años atrás fue intervenida quirúrgicamente por un quiste inflamatorio radicular en la misma área, pero que presenta dolor intenso e inflamación que le dificulta la masticación. Encontramos al examen físico regional asimetría facial y cervical dada por aumento de volumen de la región geniana baja y submandibular derechas de consistencia duro pétreo, normocoloreado, de bordes imprecisos. Al examen bucal se trataba de una paciente dentada total, con buena higiene, que presentaba expansión de las corticales vestibular y lingual en la región de los órganos dentales 43-47, con borramiento del surco vestibular en el área.

A los medios auxiliares de diagnóstico imaginológicos de tipo radiográficos encontramos la presencia de un área radiolúcida unilocular de bordes bien definidos y con halo radiopaco periférico, de forma oval desde del órgano dental 43 al 47, incluyendo las raíces dentarias de la zona.

Se decide realizar abordaje quirúrgico intrabucal del área bajo anestesia local lográndose la exposición amplia de la zona y confirmándose la presencia de expansión cortical ([Fig. 1](#)).



Fig. 1. Vista transquirúrgica del hueso mandibular. Obsérvese la presencia de expansión cortical con perforación en algunos sitios.

Se logra la entrada a la cavidad donde se observa un hueso irregular, escaso contenido hemático, con evidencia de tabiques óseos y cavidades con sangre entre las raíces de los dientes involucrados (Fig. 2); se realiza curetaje y eliminación de los órganos dentarios de la zona (Fig. 3). Se solicita análisis histopatológico de la muestra obtenida, y se informa el diagnóstico de quiste óseo aneurismático.

La paciente presentó una evolución posoperatoria favorable y actualmente se mantiene bajo seguimiento por consulta externa. Refirió la desaparición del dolor, que fue un motivo de consulta inicial, inmediatamente después de ser intervenida quirúrgicamente.

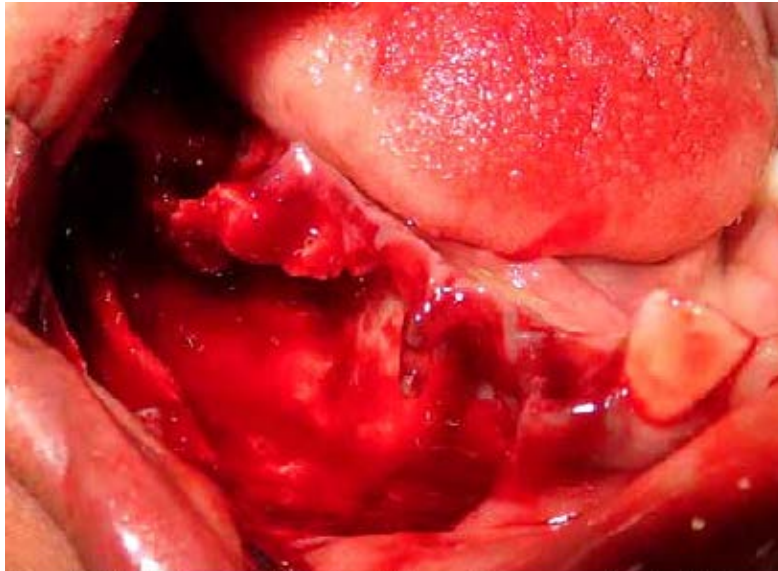


Fig. 2. Vista transquirúrgica. Nótase la presencia de tabiques óseos y cavidades con sangre entre las raíces de los dientes involucrados.



Fig. 3. Vista transquirúrgica donde se aprecia la cavidad resultante del curetaje de la zona afectada.

DISCUSIÓN

El término quiste óseo aneurismático fue acuñado para describir la apariencia clínica abalonada de la cortical ósea en la radiografía.⁶ Esta lesión no es un verdadero quiste debido a que no posee un revestimiento epitelial y es clasificado en 3 tipos: sólido, vascular y mixto.⁷ La etiología de esta lesión poco común es desconocida, y parece ser más común en los huesos largos y vértebras. El quiste óseo aneurismático ocurre con mayor prevalencia en la segunda década de vida, sin predilección de sexo, pero con una ligera inclinación al sexo masculino.⁸ Sin embargo, en el caso presentado se detectó en la cuarta década de la vida y en el sexo femenino. Esta lesión es común en la parte del esqueleto donde existe una presión venosa alta y un alto contenido medular (huesos largos). Los huesos del cráneo tienen una presión venosa baja, por lo que es raro en esta área. Sin embargo, cuando se presenta, la mandíbula resulta el sitio más comúnmente afectado (relación 3:1 mandíbula-maxilar),⁹ lo cual concuerda con el hueso donde se localizó la entidad patológica del caso presentado.

El quiste óseo aneurismático tiene una variedad de características clínicas, que van desde lesiones asintomáticas ocasionalmente descubiertas por radiografías de rutina, a lesiones expansivas con patrones destructivos. El mayor de los síntomas de acuerdo con los datos publicados, y que coincide con el caso presentado, es la inflamación dolorosa.¹⁰ Si la lesión se expande al cóndilo mandibular, el paciente puede presentar diferentes grados de limitación de la apertura bucal. Otros síntomas son la pérdida de dientes, parestesia labial u obstrucción nasal. Cuando afecta otros huesos del cráneo como el temporal puede producir vértigo, tinitus, disfagia y parálisis facial.¹¹ La fractura patológica mandibular, aunque rara, puede presentarse.¹² La auscultación de sonidos no pulsátiles puede ser detectada sobre el área expandida. La aspiración puede mostrar sangre venosa, y entonces este deberá ser diferenciado de un hemangioma o lesión arteriovenosa.¹³

Kumar y otros¹⁴ consideran que radiográficamente puede presentarse como una radiolucencia multilocular y se puede observar desplazamiento dental o reabsorción radicular, además de reportar, en un caso clínico, el desplazamiento de un molar dentro del seno etmoidal; todo lo cual no concuerda con lo detectado en nuestra paciente.

Histopatológicamente, el quiste óseo aneurismático es clasificado en primario y secundario, en dependencia de la presencia o ausencia de otra lesión preexistente. *Sun* y otros.¹⁵ han confirmado que el fibroma osificante es una lesión preexistente común del quiste óseo aneurismático mandibular. Frecuentemente consiste en una masa de tejido blando multiquístico, como una esponja rellena con una cantidad considerable de sangre venosa oscura;¹⁶ sin embargo, la apariencia en nuestro caso clínico era cavernosa con escaso contenido hemático y con pequeñas cavidades con sangre entre las raíces de los órganos dentales. En raros casos el quiste óseo aneurismático puede exhibir una arquitectura sólida que es imposible de diferenciar de una neoplasia ósea como el osteosarcoma, consistiendo histopatológicamente de elementos aislados osteoclastos, osteoblastos y fibromixoides, sin un componente de canales cavernosos.¹⁷

Según *Bhandari*,¹⁸ la patogénesis del quiste óseo aneurismático continua siendo controversial, con teorías que van desde lo postraumático, malformaciones vasculares reactivas a predisposición genética a neoplasias óseas. Destaca que *Jaffe* y *Liechtenstein* defendieron la teoría de que esta lesión se origina de una

lesión ósea preexistente y *Hillerup y Hjorting-Hansen* en 1978 propusieron la teoría de que el quiste óseo simple, el aneurismático y el granuloma central de células gigantes se originan de un defecto vascular y que un trauma o alguna forma de aneurisma llevaban a la formación de un hematoma intramedular. Cuando este hematoma entraba en contacto directo con los grandes vasos, se llenaba por la presión sanguínea y surgía un quiste óseo aneurismático.

*Bhavani*¹⁹ expone que *Panoutsakopoulos* y otros demostraron que el quiste óseo aneurismático exhibía una transacción cromosómica t(16;17)(q22;p13) como una anomalía recurrente citogénica. Otros han mostrado que el t(16;17)(q22;p13) fusiona la región promotora del gen *caderin 11* del osteoblasto en el cromosoma 16q22 para el código completo de la secuencia del gen *USP6* ubiquitin proteasa (conocido como TRE2 o TRE17) en el cromosoma 17p13, y sugieren que la patogénesis del quiste óseo primario involucra la sub regulación del *USP6* conducida por el promotor altamente activo *CDH11*.²⁰ En nuestro caso clínico no pudo realizarse ningún estudio que brindara este tipo de información, pero al existir el precedente, referido por la paciente, de una cirugía anterior en el área por un quiste inflamatorio, consideramos que este pudo ser el detonante para la aparición de la lesión.

El manejo quirúrgico elegido fue conservador con enucleación y curetaje amplio de la cavidad. Sin embargo, el curetaje simple ha sido asociado con una alta tasa de recurrencia entre el 21 y 50 %.²¹ Debido a que el objetivo de la terapéutica deberá ser la eliminación del aneurisma con ligadura de los vasos distales y proximales y esto es técnicamente difícil, la alta tasa de recurrencia puede ser esperada con el curetaje simple. En un estudio realizado por *Keçeci* y otros²² compararon la tasa de recurrencia del quiste óseo aneurismático tratado solo con curetaje agresivo, curetaje agresivo y uso de cemento quirúrgico como agente terapéutico adjunto y material de relleno y curetaje agresivo con el uso del nitrógeno líquido, lo que reveló que no existe diferencia estadísticamente significativa en los 3 grupos. El uso de radioterapia como alternativa ha mostrado eficacia en algunos casos, pero es ignorado el riesgo de desarrollo de un fibrosarcoma.²³ Según *Wang*,²⁴ *Aegerter* y *Kirkpatrick* observaron que el quiste óseo aneurismático tenía frecuentemente sobreañadido un osteosarcoma por las repetidas intervenciones quirúrgicas necesarias para su control en muchos de los casos. La embolización de los campos venosos ha mostrado ser efectiva como procedimiento preoperatorio para disminuir el sangrado operatorio y la recurrencia.²⁵

De acuerdo con algunos autores el quiste óseo aneurismático tiene una alta tasa de recurrencia y es más difícil de erradicar que el granuloma central de células gigantes.²⁶ Usualmente recurre en los primeros años después del tratamiento inicial, por lo que el tratamiento con resección y reconstrucción puede ser la modalidad ideal para este tipo de lesión. La criocirugía y la escleroterapia han sido recomendadas como tratamiento adjunto.²⁷ La curopsia (biopsia con intención de cura) es una novedosa técnica útil para tratar este tipo de lesiones, como lo reportan *Reddy* y otros.²⁸ La curopsia es un curetaje percutáneo limitado, que se realiza en el momento de la toma de biopsia, en la que se obtiene la membrana de revestimiento de varios cuadrantes del quiste. Este proceder estimula la reparación ósea, sin embargo, se aplica usualmente en huesos largos y no en el esqueleto craneofacial.

El quiste óseo aneurismático es más comúnmente detectado en los huesos largos y en la región del ángulo mandibular en el esqueleto facial, por lo que la presentación de este en el cuerpo mandibular, en el caso presentado, resulta de interés para su presentación.

Conflictos de intereses

Los autores declaran que no existen conflictos de intereses.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. de Santana Santos T, de Carvalho Raimundo R, Martins-Filho PR. Destructive aneurysmal bone cyst of the mandible. *J Craniofac Surg.* 2013;24:e123.
2. Motamedi MH, Behroozian A, Azizi T, Nazhvani AD, Motahary P, Lotfi A. Assessment of 120 maxillofacial aneurysmal bone cysts: a nationwide quest to understand this enigma. *J Oral Maxillofac Surg.* 2014;72(8):1523-30.
3. Urs AB, Augustine J, Chawla H. Aneurysmal Bone Cyst of the Jaws: Clinicopathological Study. *J Maxillofac Oral Surg.* 2014;13(4):458-63.
4. Crowe MM, Houdek MT, Moran SL, Kakar S. Aneurysmal Bone Cysts of the Hand, Wrist, and Forearm. *J Hand Surg Am.* 2015;40(10):2052-7. doi: 10.1016/j.jhsa.2015.06.108.
5. Bharadwaj G, Singh N, Gupta A, Sajjan AK. Giant aneurysmal bone cyst of the mandible: A case report and review of literatura. *Natl J Maxillofac Surg.* 2013;4(1):107-10.
6. Erol B, Topkar MO, Caliskan E, Erbolukbas R. Surgical treatment of active or aggressive aneurysmal bone cysts in children. *J Pediatr Orthop B.* 2015 Sep;24(5):461-8.
7. Bahk WJ, Mirra JM. Differential diagnostic value of "blue reticulated chondroid-like material" in aneurysmal bone cysts: a classic histopathologic analysis of 215 cases. *Am J Clin Pathol.* 2015;143(6):823-9.
8. Ibrahim T, Howard AW, Murnaghan L, Hopyan S. Percutaneous curettage and suction for pediatric extremity aneurysmal bone cysts: is it adequate. *J Pediatr Orthop.* 2012;32:842-7.
9. Neuschl M, Reinert S, Gülicher D, Neuschl J, Hoffmann J. Aneurysmal bone cyst of the ascending ramus mandible. A case report. *J Craniomaxillofac Surg.* 2014;42(3):e36-8.
10. Ziang Z, Chi Y, Minjie C, Yating Q, Xieyi C. Complete resection and immediate reconstruction with costochondral graft for recurrent aneurysmal bone cyst of the mandibular condyle. *J Craniofac Surg.* 2013;24(6):e567-70.
11. Kletke SN, Popovic S, Algird A, Alobaid A, Reddy K. Aneurysmal Bone Cyst of the Temporal Bone Presenting with Headache and Partial Facial Palsy. *J Neurol Surg Rep.* 2015;76(1):e18-e22.

12. Choi B, Chui S, Kwon YD. Aneurysmal Bone Cyst Causing a Patologic Fracture of the Mandibular Condyle. *J Oral Maxillofac Surg.* 2011;69:2995-3000.
13. Lee JY, Ko YI, Kwon H, Jung SN. Aneurysmal bone cyst of the zygomatic bone. *J Craniofac Surg.* 2014;25(2):e148-9.
14. Kumar R, Kumar R, Bal A, Naresh KP. Aneurysmal Bone Cyst of Maxilla with Ectopic Molar Tooth -A Case Report. *OtolaryngologiaPolske.*2013;67(6):302-7.
15. Sun ZJ, Zhao YF, Yang RL, Zwahle R. Aneurysmal Bone Cysts of the Jaws: Analysis of 17 Case. *J Oral Maxillofac Surg.* 2010;68:2122-8.
16. Nestler U, Wagner HJ, Schaenzer A, Preuss M. Solid variant of aneurysmal bone cyst of the left parietal bone without preceding trauma. *J Neurol Surg A Cent Eur Neurosurg.* 2013;74(1):e70-5.
17. Savardekar AR, Patra D, Chatterjee D, Ahuja CK, Salunke P. Solid variant of aneurysmal bone cyst presenting as a giant cervical mass: A clinical, radiological, histopathological dilemma. *Surg Neurol Int.* 2015;6(4):S182-5.
18. Bhandari A1, Sharma R, Muralidharan CG. Sagittal split ramus osteotomy for aneurysmal bone cyst of the mandibular condyle. *J Craniofac Surg.* 2015;26(1):e38-9.
19. Bhavani SN, Rajesh A, Narendranatha R, Kamal F. Mandibular Aneurysmal Bone Cyst Associated with Cemento- ossifying Fibroma. *J Clin Diagn Res.* 2013;7(12):3092-3.
20. Arora SS, Paul S, Arora S, Kapoor V. Secondary jaw aneurysmal bone cyst (JABC)- a possible misnomer? A review of literature on secondary JABCs, their pathogenesis and oncogenesis. *J Oral Pathol Med.* 2014;43(9):647-51.
21. Wang EH, Marfori ML, Serrano MV, Rubio DA. Is curettage and high-speed burring sufficient treatment for aneurysmal bone cysts? *Clin Orthop Relat Res.* 2014;472(11):3483-8.
22. Keçeci B, Küçük L, Isayev A, Sabah D. Effect of adjuvant therapies on recurrence in aneurysmal bone cysts. 2014 *Acta Orthop Traumatol Turc.* 2014;48(5):500-6.
23. Zhu S, Hitchcock KE, Mendenhall WM. Radiation Therapy for Aneurysmal Bone Cysts. *Am J Clin Oncol.* 2015;9. doi: 10.1097/COC.000000000000208
24. Wang JC, Zhang M, Zhao XX. Aneurysmal Bone Cyst of the Orbit. *Chin Med J.* 2015;128:562-3.
25. Griauzde J, Gemmete JJ, Farley F. Successful treatment of a musculoskeletal tumor society grade 3 aneurysmal bone cyst with N-butyl cyanoacrylate embolization and percutaneous cryoablation. *J Vasc Interv Radiol.* 2015;26(6):905-9
26. Brosjö O, Tsagozis P. Treatment of an aggressive aneurysmal bone cyst with percutaneous injection of polidocanol: a case report. *J Med Case Rep.* 2014;8:450.

27. Han YF, Fan XD, Su LX. Percutaneous sclerotherapy with absolute alcohol to treat aneurysmal bone cyst of the frontal bone. *J Craniofac Surg.* 2015;26(2):456-8.

28. Reddy KI, Sinnaeve F, Gaston CL, Grimer RJ, Carter SR. Aneurysmal bone cysts: do simple treatments work? *Clin Orthop Relat Res.* 2014;472(6):1901-10.

Recibido: 9 de septiembre de 2015.

Aprobado: 19 de abril de 2016.

Denia Morales Navarro. Facultad de Estomatología. La Habana, Cuba. Correo electrónico: deniamorales@infomed.sld.cu