

Caso Clínico

Osteosarcoma Yuxtacortical Parostal: Reporte de un Caso



Dr. Claudio Catalán P.¹, Prof. Dr. Milton Ramos M.², Guillermo Quezada R.³
Cristian Núñez⁴, Iris Espinoza S.⁵, Dra. Ana Richard¹.

¹Estudiante de Radiología Máxilo-Facial, Facultad de Odontología, Universidad de Chile.

²Radiólogo Máxilo-Facial, Hospital Barros Luco. Profesor área de Radiología, Facultad de Odontología, Universidad de Chile.

³Cirujano Máxilo-Facial, Hospital Barros Luco. Profesor área de Cirugía, Facultad de Odontología, Universidad de Chile.

⁴Cirujano Máxilo-Facial, Hospital Barros Luco. Profesor área de Cirugía, Facultad de Odontología, Universidad de Chile.

⁵Patóloga Buco-Máxilo-Facial, Profesora área Patología, Facultad de Odontología, Universidad de Chile.

Abstract

Osteosarcoma is a rare malignancy of the bone that usually arises in the long bones. Involvement of the oral cavity is rare. They present various clinical and histological aspects, as well as variable disease progression and outcome. This article shows a case report of a 29-year-old male who presented swelling near the right maxillary incisor in a year. The periapical radiographic view showed a slight circular radioopacity relative to the middle third of the roots of teeth 1.1 and 2.2 In Computed Tomography was seen one single pedunculated lesion with internal calcification and a slight mark on the vestibular cortex. The Photomicrograph show osteoid matrix separated by a matrix of irregular spindle and angular shaped cells. All of this is suggesting the diagnosis of osteosarcoma parostal. The treatment comprised partial maxillectomy and reconstruction of the area, using bone of Tibia with the help of a biomodel. After the surgery, he will have radiotherapy and the following controls.

Resumen

El osteosarcoma es un tumor maligno raro del hueso que se presenta generalmente en los huesos largos. Raramente involucra la cavidad oral. Éste, presenta diversos aspectos clínicos e histológicos, así como la progresión de la enfermedad y el desenlace. En este artículo se muestra el reporte de caso de un hombre de 29 años de edad que presentó inflamación cerca del incisivo superior derecho de un año de evolución. En la radiografía periapical mostró una leve radioopacidad circular en relación con el tercio medio de las raíces de los dientes 1.1 y 2.2 En la tomografía computarizada se observó una lesión pedunculada con calcificación interna y una ligera huella en la cortical vestibular. La microfotografía muestra una matriz osteoide separadas por una matriz de células irregulares fusiformes y anguladas. Todo esto es lo que sugiere el diagnóstico de Osteosarcoma Parostal. El tratamiento incluye una maxilectomía parcial y reconstrucción de la zona, utilizando hueso de Tibia con la ayuda de un biomodelo. Después de la cirugía, tendrá la radioterapia y los siguientes controles.

Introducción

El osteosarcoma es la neoplasia maligna más común de células mesenquimales, después de las hematopoyéticas; la cual tiene la habilidad de deformar hueso inmaduro y osteoide. Se produce principalmente en los huesos largos. Siendo aproximadamente el 40% a 60% de los tumores de hueso malignos primarios. Su incidencia anual es relativamente rara, cerca de 2/1.000.000 personas. Típicamente se producen en las extremidades y en la pelvis. Cerca del 10% de los osteosarcomas ocurren en la región de cabeza y cuello. Raramente ocurre en hueso etmoides y esfenoides^{1,5,6}. La prevalencia en maxilares es de 6-8%, donde la mandíbula es más frecuente^{2,4,5,6,7}.

El osteosarcoma en cabeza y cuello se han visto casos de 8 a 81 años con un promedio de 35 años. Existe una pequeña predilección en hombres^{1,7}.

La Organización Mundial de la Salud ha dividido a los osteosarcomas en 8 categorías incluyendo: Convencional, Secundaria, Telagectásico, Células pequeñas, central de bajo grado, Parostal, Periostal y de alto grado superficial³. Esta clasificación involucra el grado de diferenciación, componente celular, relación con otras alteraciones (Síndrome de Paget, Irradiación Previa) y la ubicación. Ésta última comprende el Convencional (Intramedular), el Extraexqueletal y Yuxtacortical, que a su vez, éste último, se subdivide en Parostal y Periostal.

La más frecuente apariencia clínica puede ser una hinchazón indolora como primer signo, entre el 85% al 95,5% de los casos¹.

Los hallazgos radiográficos varían desde una esclerosis densa, una esclerosis mixta y una lesión radiolúcida.

Caso Clínico

Paciente de género masculino 29 años de edad, llega al servicio de cirugía del Complejo Asistencial Barros Luco, consulta por un aumento de volumen en zona vestibular de diente antero superior.

En la anamnesis el paciente relata un año de evolución de la lesión, asintomática. No presenta antecedentes sistémicos y es fumador de 10 cigarrillos por semana.

En la figura 1 se aprecia una lesión tumoral (aumento de volumen) única, localizada en zona vestibular de diente 1.1 y 1.2, firme a la palpación, pedunculada y bien circunscrita. No se encuentra a la palpación de linfadenopatía cervical.



Figura 1.
Imagen
clínica inicial

En la figura 2 se observa una leve radioopacidad de forma circular en relación al tercio medio de las raíces de los dientes 1.1 y 2.2.

En la figura 3 los cortes para-sagitales se observa una lesión pedunculada, única, con calcificaciones internas y una leve impronta en la cortical vestibular. No se observa reacción del periostio con formación de hueso.



Figura 2.
Radiografía
periapical inicial

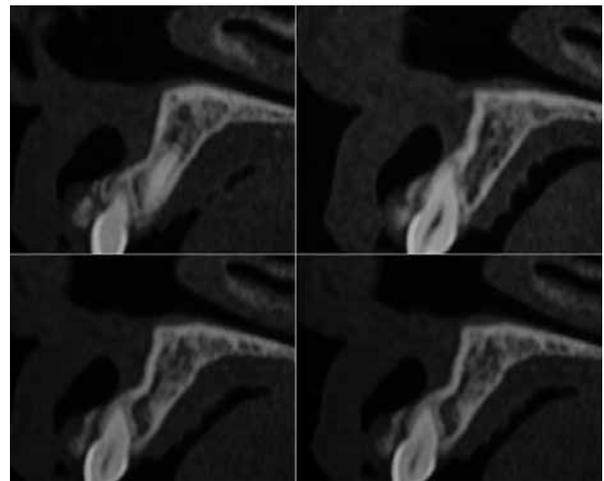


Figura 3. Tomografía computada de la zona de estudio.

En la figura 4 se realiza la biopsia excisional de lesión y se envía la muestra al estudio histopatológico.

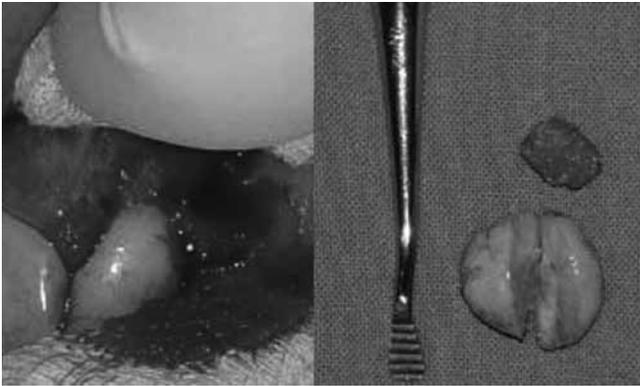


Figura 4. Biopsia excisional

En la figura 5 se observa un corte histológico en donde se aprecia un epitelio estratificado plano paraqueratinizado, atrófico y bien delimitado suprayacente a tejido conjuntivo denso, predominantemente regular y comprimido por proliferación delimitada compuesta células fusadas relacionan estrechamente con finas fibras de colágenos, tienden a agruparse y hacia el centro de la muestra, se relacionan con tejido condroide morfológicamente mal constituido, con tendencia a la formación de grupos isógenos. Mientras el otro grupo celular está compuesto por células pequeñas, hiper cromáticas, polimorfas y asociadas a osteoide inmaduro. Hacia la base de la lesión se detecta hueso laminillar con abundantes líneas de reservas y áreas múltiples de calcificación.

En base a la clínica, la imagenología y la histología se llega al diagnóstico de osteosarcoma Yuxtacortical Parostal. Por lo que informa al paciente de la necesidad de una cirugía con márgenes de seguridad.

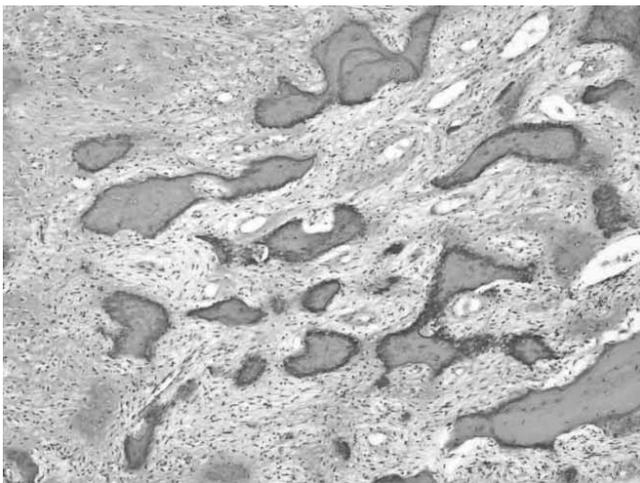


Figura 5. Corte histológico

En la figura 6, luego de 9 meses, se logra realizar la cirugía resectiva de la lesión con margen de seguridad, en donde podemos ver una recidiva en la misma zona, generando desplazamiento dentarios.



Figura 6. Cirugía resectiva

En la figura 8 se aprecia la confección de un biomodelo para la planificación de la cirugía reconstructiva. Mientras en la figura 7 se aprecia la tomografía computada de la rehabilitación.

En la figura 9 vemos el control al mes post cirugía reconstructiva en donde vemos una comunicación buco nasal, la cual se manejó con un obturador acrílico que vemos en la figura 10.

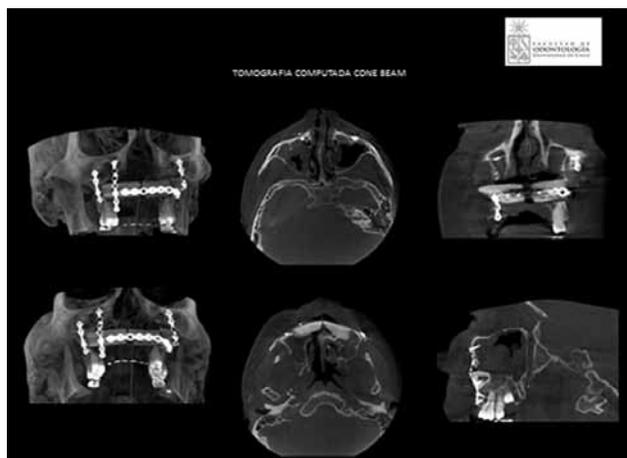


Figura 7. Tomografía computada de la cirugía reconstructiva.



Figura 8



Figura 9



Figura 10

Discusión

El osteosarcoma oral preferentemente involucra adultos entre la tercera y cuarta década de vida, con leve predilección por los hombres². En nuestro caso se trata de una persona de sexo masculino con 29 años de edad. De

acuerdo a Slootweg and Muller (1985)⁷, la edad puede ser un factor importante en la diferenciación de un osteosarcoma en distintas regiones anatómicas y en la estimación del pronóstico.

Según un estudio realizado por Shirazian S (2014), las principales quejas de los pacientes son aumento de volumen solo (60,8%), aumento de volumen y dolor (15,7%), aumento de volumen y movilidad dentaria (9,8%), aumento de volumen y pérdida de sensación (7,8%), displasia fibrosa previa (3,9%), y movilidad dentaria y pérdida de sensación (2%). Lo cual es consistente con otros reportes que consideran que la más frecuente apariencia clínica puede ser un aumento de volumen indoloro como primer signo, entre el 85% al 95,5% de los casos¹. Lo cual coincide con nuestro caso en donde sólo encontramos un aumento de volumen indoloro.

El osteosarcoma de tipo Yuxtacortical parostal es muy raro, frecuentemente en la literatura existe una confusión con el tipo Periostal como una única entidad Yuxtacortical⁷.

Por un lado, el osteosarcoma Yuxtacortical Periostales de grado intermedio de diferenciación controblástico, representa menos del 2% de los osteosarcomas^{3,4}, es una lesión sésil que surge entre la cortical y eleva el periostio, lo cual produce una producción una significativa formación periférica periostal, de hueso nuevo². Es visto predominantemente en la diáfisis de los huesos largos³. Tiene un peak de edad a los 20 años, con predilección masculina (2:1)⁵. Los cambios óseos en este tipo puede producir el triángulo de Codman y la apariencia de rayos de sol producida por la reacción Periostal. Posee mejor pronóstico que convencional, pero peor que Parostal³. además, se han reportado metástasis^{4,5,10}.

Mientras que el osteosarcoma Parostal es de bajo grado de diferenciación, con una incidencia de cerca del 4% de todos los osteosarcomas^{4,6}, siendo preferentemente mujeres (3:2) en los huesos largos, mientras que en el osteosarcoma oral son los hombres⁵. Es un nódulo lobulado unido a la corteza por un pequeño tallo. No existe elevación del periostio ni reacción periférica Periostal^{2,6,10}. Fig. 11. Generalmente vemos una masa homogénea similar a tejido compacto unido a la corteza por una fina capa de tejido hipodense^{4,5}.

Osteosarcoma de los maxilares posee una considerable variabilidad en su histopatología. El criterio esencial es una producción directa de osteoide por células mesenquimáticas malignas. Además de osteoide, las células del tumor pueden producir material condroide y tejido conectivo fibroso.

Osteosarcomas de bajo grado, bien diferenciados, como el caso expuesto, pueden mostrar sólo una mínima atipia de

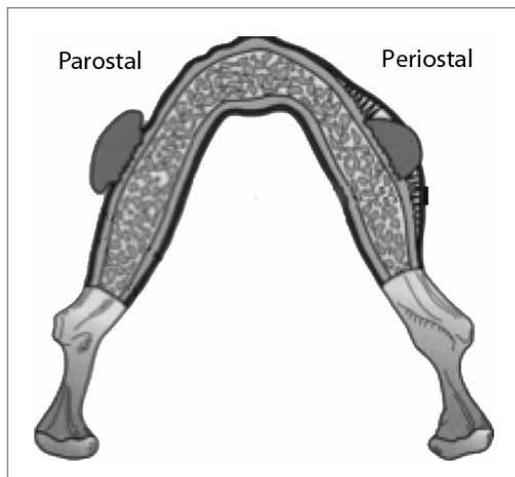


Figura 11. Osteosarcoma Yuxtacortical: Periostal y Parostal.

las células de la lesión y abundante formación de hueso. En el microscopio, estas lesiones pueden ser difíciles de diferenciar de lesiones benignas de hueso, como la displasia fibrosa o el fibroma osificante². Por otro lado clínica y radiográficamente, debido a la no agresividad e invasividad del osteosarcoma Parostal, éste debe ser diferenciado de otras lesiones benignas como osteoma o torus, especialmente si ocurre unilateralmente. A menudo el correcto diagnóstico es solo hecho con un cuidadoso examen de la histopatología⁶.

El plan de tratamiento más común en casos previamente reportados ha sido la cirugía solamente. En un 36,7% de los casos. Existe una diferencia significativa entre la locación

de la lesión y varios planes de tratamiento^{1,7}. En el caso del paciente se realizó una cirugía con márgenes de seguridad y se iniciará la quimioterapia en los próximos días.

Muchos investigadores de ayer y hoy, creen que el osteosarcoma de los maxilares es menos agresivo que aquellos que ocurren en los huesos largos. La mayoría de los osteosarcomas Gnatícos son de bajo grado, y la metástasis es vista menos frecuentemente. A pesar de esos hallazgos, muchos estudios clínico-patológicos sostienen que el osteosarcoma de los maxilares es una neoplasia maligna y que en el territorio oral la mortalidad es debida mayormente a un compromiso local, más que la metástasis².

Conclusión

El osteosarcoma es el tumor maligno primario más común en hueso, aproximadamente 20% de los sarcomas, pero sólo el 5% están presente en los maxilares. Se trata de una entidad rara, en la cual existen diferentes patrones histológicos, radiológicos y clínicos. Así, son requeridas definiciones más precisas de su comportamiento biológico en nuestro territorio máxilo facial para lograr un régimen terapéutico efectivo que logre dar una mejor sobrevida a los pacientes. Considerando cuán raras son este tipo de enfermedades y particularmente tomando en cuenta su rápida progresión y agresividad de los casos, queda claro que la presentación de casos clínicos representan la mayor contribución para un mejor entendimiento de los osteosarcomas, especialmente en el territorio máxilo facial.

Bibliografía

- Shirazian S, Agha-Hosseini F. Oral Osteosarcoma: A Case Report and Analysis of Previously Reported Cases. *NYS Dent J.* (2014); March, 50-54.
- Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. *Oral and Maxillofacial Pathology 3ed*, Saunders Elsevier. (2013) 660 – 664.
- Green JT, Mills AM. Osteogenic Tumors of Bone. *Seminars in Diagnostic Pathology* 31(2014) 21 – 29
- Guo Dong Wang, MD, Yun Fu Zhao, MD, Yuan Liu, MD, Lei Jiang, MD, and Xiao Zhong Jiang, MD. Periosteal Osteosarcoma of the Mandible: Case Report and Review of the Literature. *J Oral Maxillofac Surg* (2011) 69:1831-1835
- Deepti Simon, BDS, MDS, DNB, Shiney Dominic, BDS, MDS K. George Varghese, BDS, MDS, DSS (Vienna) Juxtacortical Osteogenic Sarcoma of the Jaws: Case Report and Review of the Literature *J Oral Maxillofac Surg* (2011) 69:527-531
- TC Huang,* PA Monsour,* CD Chahoud, Parosteal osteosarcoma: report of a case and review of the literature *Australian Dental Journal* (2010) ; 55: 86–91.
- osilene C. Soares, Andréa F. Soares, Lélia B. Souza, Aldo L. V. dos Santos, Leão P. Pinto. Osteosarcoma of mandible initially resembling lesion of dental periapex: a case report. (2005) *Rev Bras Otorrinolaringol.* V.71, n.2, 242-5, mar./apr.
- Jung Hoon Yoon, DDS, PhD, Jong In Yook, DDS, PhD, Hyung Jun Kim, DDS, PhD, In Ho Cha, DDS, PhD, and Jin Kim, DDS, PhD, Periosteal Osteosarcoma of the Mandible. (2005) *J Oral Maxillofac Surg* 63:699-703.
- Peter MNthumba, Osteosarcoma of the jaws: a review of literature and a case report on synchronous multicentric osteosarcomas. *World Journal of Surgical Oncology* (2012) , 10:240
- Sushrut B. Vaidya, Srivalli Nadarajan, Jyotsna S. Galinde, Alok S. Bhardwaj Juxtacortical osteosarcoma of mandible *Ann Maxillofac Surg.* (2011) 1(2): 172-175
- F.M. Kim, C. Hayes, P.L. Williams, G.M. Whitford, K.J. Joshipura, R.N. Hoover, C.W. Douglass and the National Osteosarcoma Etiology Group. An Assessment of Bone Fluoride and Osteosarcoma. *J Dent Res* (2011) 90(10):1171-1176,