



PATOLOGÍA Y MEDICINA BUCAL

Lesión central de células gigantes en un paciente pediátrico en área del conducto nasopalatino: reporte de caso



Guillermo Martínez Mata^{a,*}, Rosaura Pacheco Santiesteban^a,
José de Jesús Barrera Arellano^b, Selene Sandoval Peñuelas^a,
Perla Reyes García^a y Humberto Monreal Romero^a

^a Facultad de Odontología, Universidad Autónoma de Chihuahua, Chihuahua, México

^b Centro de Implantología Maxilofacial, Chihuahua, México

Recibido el 14 de noviembre de 2015; aceptado el 29 de diciembre de 2015

Disponible en Internet el 30 de marzo de 2016

PALABRAS CLAVE

Células gigantes;
Nasopalatino;
Paciente pediátrico;
Quiste;
Tomografía

Resumen La lesión central de células gigantes es una lesión benigna de los maxilares de etiología desconocida, cuya aparición es frecuente antes de la tercera década de la vida, predominando en el sexo femenino. Puede ser un hallazgo radiográfico (11% de los casos), observándose como una zona radiolúcida uni- o multilocular, con márgenes bien definidos, aunque eventualmente pueden observarse pequeñas estructuras radioopacas dentro de la lesión. El tratamiento convencional consiste en la remoción quirúrgica completa de la lesión, siendo necesaria en algunos casos la resección ósea en bloque aunque existen tratamientos alternativos menos invasivos como son el uso de corticosteroides intralesionales, calcitonina, o α -interferón. En el presente trabajo se reporta el caso de un paciente masculino de 9 años de edad, quien presentó una lesión central de células gigantes que semejava un quiste del conducto nasopalatino, además de que se resalta la importancia de la integración de los hallazgos clínicos, radiográficos e histopatológicos y la participación de un grupo interdisciplinario de especialistas para el diagnóstico y tratamiento de este tipo de lesiones.

© 2016 Universidad Autónoma Metropolitana. Publicado por Masson Doyma México S.A. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

KEYWORDS

Cyst;
Giant cells;
Nasopalatine;

Central giant cell lesion in the nasopalatine duct of a paediatric patient: a case report

Abstract Central giant cell lesion is a benign lesion of the jaws of unknown aetiology, which is more frequent before the third decade of life and is slightly more common in females. It can be seen either as a uni- or multilocular radiolucent lesion, with well-defined margins and that can

* Autor para correspondencia. Facultad de Odontología, Universidad Autónoma de Chihuahua, Campus Universitario 1, CP 31000, Chihuahua- México, Teléfono: +52 614 4391834.

Correo electrónico: gmmata2001@yahoo.com.mx (G. Martínez Mata).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.cc.2016.02.001>

1665-1383/© 2016 Universidad Autónoma Metropolitana. Publicado por Masson Doyma México S.A. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Pediatric patient;
Tomography

eventually present as small radiopaque structures within the lesion; 11% of cases are discovered incidentally. Conventional treatment consists of complete surgical removal of the lesion, with block resection being necessary in some cases. However, there are less invasive alternative treatments, such as the use of intra-lesional corticosteroids, calcitonin or α -interferon. In this article, we report the case of a 9-year-old male patient, who presented with a central giant cell lesion resembling a nasopalatine duct cyst. It also highlights the importance of the integration of clinical data, radiography findings and histopathological information, as well as the participation of a multidisciplinary team for the diagnosis and treatment of this type of lesion.

© 2016 Universidad Autónoma Metropolitana. Published by Masson Doyma México S.A. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

La lesión central de células gigantes (LCCG) es una lesión benigna de los maxilares de etiología desconocida, descrita por primera vez por Jaffe en 1953, la cual comprende entre 7 y 10% de todos los tumores benignos de la cavidad oral¹⁻³. Puede presentarse de forma indistinta en maxilar o mandíbula, sin embargo su localización más común suele ser en la zona anterior del cuerpo mandibular²⁻⁵. Se observa clínicamente como un aumento de volumen que en etapas iniciales aparece como una lesión pequeña y asintomática que puede alcanzar dimensiones variables, y cuando alcanza gran tamaño puede perforar la cortical⁴. Las LCCG presentan una marcada predilección por el sexo femenino (relación hombre: mujer de 1:2) y generalmente se presentan antes de la 3.ª década de vida^{2,4}. Los hallazgos radiográficos incluyen una zona radiolúcida uni- o multilocular, con márgenes bien definidos, de tamaño variable, aunque eventualmente puede observarse como una lesión extensa poco definida, dificultando el diagnóstico e incluso pudiendo confundirse con lesiones de origen odontogénico e incluso con alguna neoplasia maligna^{3,5}. Este proceso patológico durante la infancia se comporta de forma más agresiva que en otros grupos etarios, lo cual ha sido atribuido a un diagnóstico tardío, debido a la superposición de estructuras anatómicas propias de la dentición mixta, dificultando el correcto análisis radiográfico y por ende el diagnóstico precoz y certero⁶⁻⁸. Histológicamente la lesión está constituida por una proliferación de células mononucleares (histiocitos) las cuales presentan una tendencia a la formación de células gigantes multinucleadas con actividad osteoclástica, así como proliferación de tejido fibroso, miofibroblastos y angiogénesis, extravasación de eritrocitos, depósitos de hemosiderina y ocasionalmente formación de una matriz osteoide, causando desplazamiento de los dientes adyacentes a la lesión, reabsorción radicular y expansión o destrucción del hueso cortical^{3,5,7-9}. Se ha sugerido que esta característica de destrucción y velocidad de crecimiento relativamente rápido puede permitir diferenciar a las lesiones agresivas de las no agresivas, y estas últimas suelen estar caracterizadas por una radiolucidez bien circunscrita, unilocular, que no involucra órganos dentarios ni produce expansión de las corticales, mientras que la variante agresiva es más frecuentemente multilocular, de gran tamaño y genera expansión de las corticales, y hasta en un 40% de los casos ocasiona reabsorción radicular⁴.

A lo largo del tiempo se han propuesto diversos métodos para el manejo de las LCCG, los cuales van desde procedimientos quirúrgicos invasivos como son la remoción de la lesión y/o curetaje hasta la resección ósea en bloque en los casos más severos⁹. Por otro lado, algunos autores recomiendan el tratamiento conservador que consiste en la aplicación intralesional de corticosteroides y moduladores de la respuesta inmune, con el propósito de reducir o evitar los tratamientos mutiladores con sus consecuentes secuelas funcionales y compromiso estético⁹.

Reporte de caso

Se trata de un paciente masculino de 9 años de edad, quien acudió a la Facultad de Odontología de la Universidad Autónoma de Chihuahua, México por presentar maloclusión dental. Al examen intraoral se observó un aumento de volumen asintomático de aproximadamente 2 cm de diámetro, localizado en la región anterior del maxilar superior, originando malposición de los incisivos centrales (fig. 1). En las radiografías periapical y panorámica (fig. 2 a y b) así como en la tomografía computarizada (TC) se encontró una lesión osteolítica ubicada entre los incisivos centrales superiores, extendiéndose hacia la línea media del paladar duro provocando desplazamiento dental (fig. 3 a y d). Con base en las características clínicas se consideraron los siguientes diagnósticos clínicos diferenciales: quiste del conducto nasopalatino, lesión central de células gigantes y tumores benignos de origen odontogénico (fibroma ameloblástico,



Figura 1 Vista intraoral. Nótese aumento de volumen a nivel de los incisivos centrales superiores con mesioangulación de las coronas.



Figura 2 Radiografías oclusal y panorámica (a y b, respectivamente) en donde se observa una zona radiolúcida multiloculada que va desde la línea media anterior al paladar duro con evidente desplazamiento dental con preservación de la espina nasal anterior

tumor odontogénico adenomatoide). En los estudios de laboratorio no se encontraron alteraciones en los niveles de la hormona paratiroidea, calcio, fósforo o fosfatasa alcalina en sangre. Bajo anestesia local se realizó la enucleación completa de la lesión, la cual se envió al Laboratorio de Patología

de la Facultad de Odontología de la Universidad Autónoma de Chihuahua, donde se confirmó el diagnóstico de LCCG. Después de 18 meses de seguimiento se observa adecuada reparación y no se ha presentado recurrencia de la lesión (fig. 4).

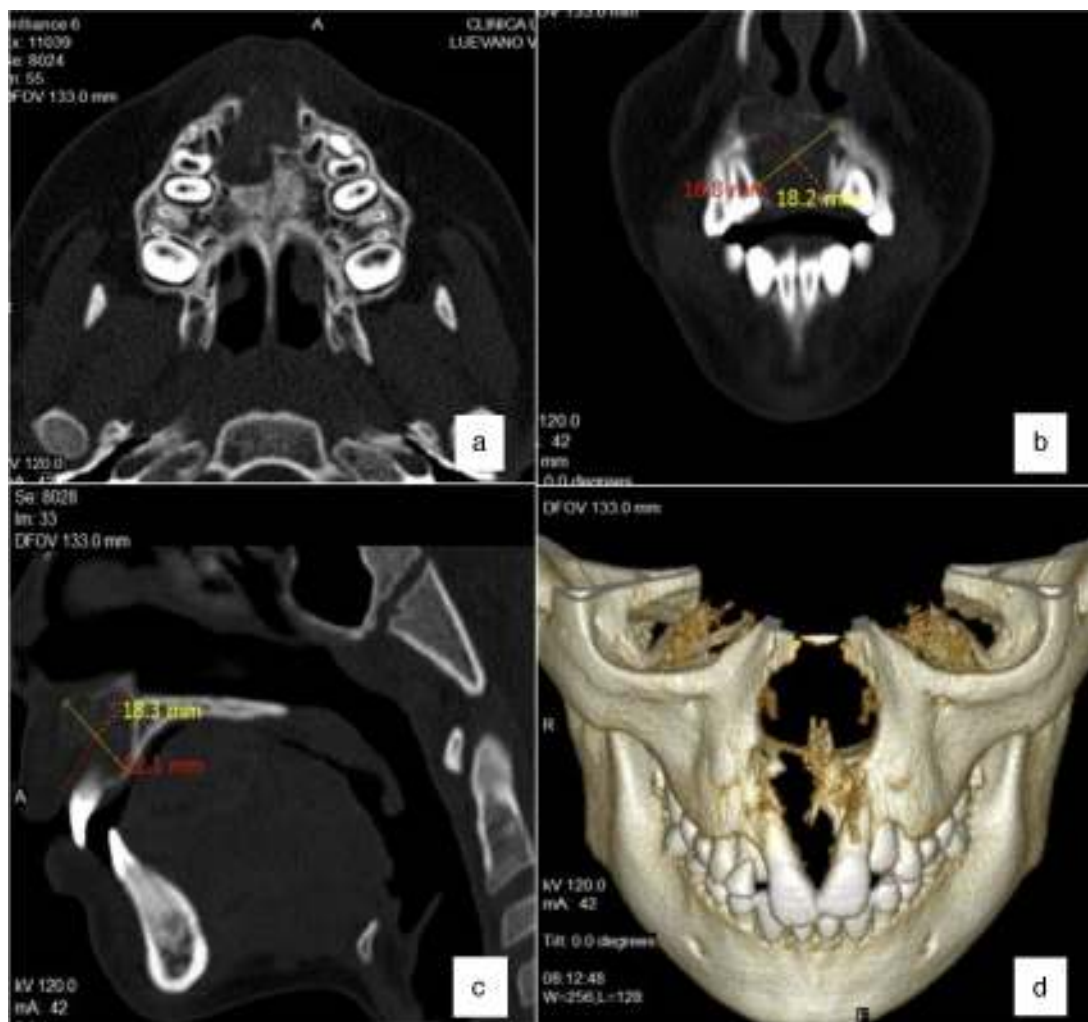


Figura 3 a) b) y c) TC que muestra un proceso osteolítico localizado en el segmento anterosuperior. d) Reconstrucción en 3D que permite valorar la extensión de la lesión.



Figura 4 Imagen postoperatoria (18 meses) donde se observa el alineamiento dental y disminución del aumento de volumen.

Discusión

La LCCG es una lesión de etiología desconocida, más comúnmente observada en mujeres entre la segunda y tercera décadas de la vida, y con mayor incidencia en la región mandibular⁴, aunque puede presentarse también, pero con menor frecuencia durante la infancia y en el segmento anterior del maxilar superior, como el caso que se presenta en este trabajo^{2,9}. De acuerdo a la revisión de la literatura, las características clínicas de la LCCG varían desde una pequeña radiolucidez asintomática hasta una lesión osteolítica extensa que puede desplazar o no a los órganos dentales adyacentes, con una subsecuente deformación del hueso cortical que eventualmente puede conducir a una asimetría facial de considerables dimensiones⁴. En este caso la principal manifestación clínica de la LCCG fue el desplazamiento de los incisivos superiores, así como el aumento de volumen en la zona palatina anterior. Las características radiográficas de la LCCG pueden presentarse de una forma variable, siendo lesiones uni/multiloculares con actividad osteolítica, lo que hace difícil diferenciarlos de otros tumores odontogénicos benignos (ameloblastoma, queratoquiste odontogénico y fibroma odontogénico), así como de lesiones quísticas (odontogénicas y no odontogénicas), como en el presente caso, en donde las características clínicas y radiográficas, así como la localización en la región central maxilar sugirieron la posibilidad de un quiste del conducto nasopalatino (QCNP), el cual fue descartado por algunos aspectos: 1) el QCNP afecta principalmente a pacientes entre 30-60 años de edad y pocos casos han sido reportados en pacientes pediátricos como en el presente caso; 2) las LCCG pueden presentar pérdida parcial o total de la definición de bordes, mientras que en el QCNP se observan bordes definidos escleróticos y 3) en el QCNP no es frecuente que exista reabsorción de la espina nasal anterior lo que produce una imagen radiográfica en forma de «corazón» la cual estuvo ausente en este caso que presentó una imagen multiloculada osteolítica^{4,6,7,10,11}. De acuerdo a lo anterior, en casos de LCCG la TC y la reconstrucción en tercera dimensión son herramientas útiles para determinar la extensión de la lesión, además de que permiten observar las estructuras anatómicas involucradas; en el presente caso al igual

que lo reportado en la literatura, los estudios radiográficos facilitaron el diagnóstico así como el plan de tratamiento enfocado principalmente a la excisión quirúrgica completa de la lesión^{4,8}.

Las características histológicas de las LCCG incluyen la presencia de una proliferación de células gigantes multinucleadas de tipo osteoclasto y células mononucleares de aspecto histiocítico asociadas a un estroma fusocelular vascularizado, depósitos de hemosiderina y neoformación de hueso, todos ellos hallazgos microscópicos encontrados en nuestro caso^{2,3}. Es importante recordar que los hallazgos microscópicos en LCCG eventualmente pueden ser similares a los que se observan en otras entidades patológicas, tales como el quiste óseo aneurismático, querubismo, tumor pardo del hiperparatiroidismo y osteosarcoma rico en células gigantes^{2,3,5-8}. En este punto, la integración de los hallazgos clínicos, radiográficos, microscópicos y los análisis de laboratorio, permitieron descartar el tumor pardo del hipertiroidismo, ya que las concentraciones de la hormona paratiroidea, calcio y fosfatasa alcalina no mostraron alteraciones en los parámetros considerados como normales, y asimismo se descartaron clínicamente las lesiones antes mencionadas tanto benignas como malignas⁵⁻⁹.

El tratamiento de LCCG varía desde la intervención quirúrgica (curetaje o resección en bloque) hasta las terapias farmacológicas (corticosteroides intralesionales, calcitonina, y α -interferón); sin embargo, el tratamiento adecuado debe ser planificado cuidadosamente por parte de un equipo interdisciplinario de trabajo (Odontopediatría, Ortopedia Dentofacial, Cirugía Maxilofacial y Patología) basándose en las características clínicas y radiográficas, así como en los hallazgos histopatológicos para un tratamiento exitoso de la lesión que permitan minimizar posibles secuelas que pudieran presentarse²⁻⁹. La recurrencia de LCCG ha sido reportada entre un 4 al 20%, pero cabe señalar que no ha habido recurrencia en el caso aquí presentado después de 18 meses de seguimiento, además de que clínicamente los incisivos centrales superiores se alinearon por sí solos en forma posterior al retiro de la lesión, sin necesidad de tratamiento ortodóncico^{3,4,6}.

En resumen, presentamos el caso de una LCCG en un paciente pediátrico, en donde resaltamos que su diagnóstico requiere de la integración de la información clínica con el análisis de los estudios auxiliares, tales como radiografías panorámicas y TC, además de los parámetros histológicos, con objeto de poder determinar el tratamiento que mejor preserve la estética y la función de los pacientes así como prevenir posibles secuelas estéticas y funcionales.

Conflicto de intereses

No existe algún tipo de interés financiero o de otro tipo que pueda generar conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Jaffe HL. Giant-cell reparative granuloma, traumatic bone cyst, and fibrous (fibro-osseous) dysplasia of the jawbones. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1953;6:159-75.
2. Faverani LP, Ferreira S, Ferreira GR, Coléte JZ, Aranega AM, Garcia Júnior IR. Central giant cell granuloma in pediatric

- maxilla: surgical management. *J Craniofac Surg.* 2014;25:e344–6.
3. Padmavathi Devi C, Swaroopkanth T, Sudhakar G, Kiranmai D, Sasank R, Sridharreddy D. Central giant cell granuloma of maxilla: a case report. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2013;65 Suppl 1:192–4.
 4. De Lange J, van den Akker HP. Clinical and radiological features of central giant-cell lesions of the jaw. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2005;99:464–70.
 5. Yadav S, Singh A, Kumar P, Tyagi S. Recurrent case of central giant cell granuloma with multiple soft tissue involvement. *Natl J Maxillofac Surg.* 2014;5:60–6.
 6. Gupta M, Gupta M, Singh S, Kaur R. Central giant cell granuloma of the maxilla. *BMJ Case Rep.* 2013;7:2013, pii: bcr2013009102.
 7. Ebrahimi H, Yazdani J, Pourshahidi S, Esmaeli F, Zenouz AT, Mehdipour M. Central giant cell granuloma of the posterior maxilla: a case report. *J Dent Res Dent Clin Dent Prospects.* 2008;2:71–5.
 8. Pinheiro LR, Pinheiro JJ, Júnior SA, Guerreiro N, Cavalcanti MG. Clinical and imagiological findings of central giant cell lesion and cherubism. *Braz Dent J.* 2013;24:74–9.
 9. De Lange J, van den Akker HP, van den Berg H. Central giant cell granuloma of the jaw: a review of the literature with emphasis on therapy options. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2007;104:603–15.
 10. Shylaja S, Balaji K, Krishna A. Nasopalatine duct cyst: report of a case with review of literature. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2013;65:385–8.
 11. Francoli JS, Marques NA, Aytis LB, Escoda CG. Nasopalatine duct: report of 22 cases and review of literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2008;13:E438–43.