



TUMOR MARROM BILATERAL DO HIPERPARATIROIDISMO PRIMÁRIO EM MANDÍBULA: relato de caso

Bilateral brown tumor of primary hyperparathyroidism in the mandible: case report

Ricardo Martins^[a], Ophir Ribeiro Junior^[b], Daniel Souza Curi^[c], Alexandre Meireles Borba^[d],
Carlos Augusto Ferreira Alves^[a], Jayro Guimarães Junior^[e]

^[a] MsC, Assistente de CTBMF da Divisão de Odontologia do Hospital Universitário da Universidade de São Paulo (USP), São Paulo, SP - Brasil.

^[b] MsC, Ex-Residente de CTBMF da Divisão de Odontologia do Hospital Universitário da Universidade de São Paulo (USP), São Paulo, SP - Brasil, e-mail: ophirrj@ig.com.br

^[c] CD, Ex-Residente do Serviço de CTBMF da Divisão de Odontologia do Hospital Universitário da Universidade de São Paulo (USP), São Paulo, SP - Brasil.

^[d] MsC, Ex-Residente do Serviço de CTBMF da Divisão de Odontologia do Hospital Universitário da Universidade de São Paulo (USP), São Paulo, SP - Brasil.

^[e] PhD, Professor, Disciplina de Estomatologia Clínica da Faculdade de Odontologia da Universidade de São Paulo (USP), São Paulo, SP - Brasil.

Resumo

OBJETIVOS: Apresentar um caso de envolvimento mandibular bilateral por tumor marrom do hiperparatireoidismo primário e discutir a diferenciação do tumor marrom do hiperparatireoidismo com a lesão central de células gigantes. **DISCUSSÃO E CONCLUSÃO:** A diferenciação é estabelecida pela confirmação do distúrbio endócrino, fator determinante no tratamento do tumor. O tratamento foi a resolução da endocrinopatia pela exérese de adenoma nas glândulas paratireoide.

Palavras-chave: Hiperparatireoidismo. Tumores de células gigantes. Lesão de células gigantes. Mandíbula.

Abstract

OBJECTIVES: To present a case of bilateral mandibular involvement by a brown tumor of hyperparathyroidism, in which the treatment consisted in resolution of the endocrinopathy by neoplasm exeresis from the parathyroid

glands. DISCUSSION AND CONCLUSION: The correct differentiation of the hyperparathyroidism brown tumor from the central giant cell lesion is an essential factor to avoid diagnostic errors and unnecessary treatments. This differentiation is established by the confirmation of endocrinal disturbance, a determinant factor in the treatment of the tumor.

Keywords: *Hyperparathyroidism. Giant cell tumors. Giant cell lesions. Mandible.*

INTRODUÇÃO

O hiperparatireoidismo é um distúrbio endócrino que altera o metabolismo do cálcio e do fósforo pela produção excessiva do hormônio paratireoidiano (PTH), gerando uma série de alterações sistêmicas, inclusive no tecido ósseo. A produção desse hormônio ocorre nas paratireoides, grupo de quatro pequenas glândulas adjacentes à tireoide na região cervical. O aumento do PTH pode ocorrer no hiperparatireoidismo primário, associado a adenomas ou hiperplasias da glândula, e no secundário, geralmente resposta à diminuição crônica nos níveis séricos de cálcio em pacientes portadores de insuficiência renal crônica.

Como o comprometimento ósseo é a última manifestação do hiperparatireoidismo, a detecção precoce e o tratamento hábil do distúrbio endócrino têm justificado a baixa ocorrência de alterações esqueléticas nos tempos atuais (1-3). Dentre essas, uma de grande responsabilidade do cirurgião dentista é o tumor marrom do hiperparatireoidismo. A lesão é histologicamente idêntica à lesão central de células gigantes dos maxilares que, apesar de benigna, é localmente agressiva. Portanto, um diagnóstico malsucedido pode gerar terapêuticas radicais desnecessárias e graves sequelas.

Esse trabalho tem por objetivo relatar um caso de envolvimento bilateral da mandíbula pelo tumor marrom do hiperparatireoidismo e discutir a importância do diagnóstico diferencial com a lesão central de células gigantes para a correta conduta terapêutica.

Relato do Caso

Paciente masculino, 50 anos, leucoderma, apresentou-se com aumento de volume progressivo em corpo mandibular direito, observado há quatro meses por causa da má adaptação da prótese e

consequente trauma local. Ao exame físico apresentou assimetria facial por abaulamento da cortical vestibular da mandíbula, com coloração azulada da mucosa de revestimento e ausência de dor à palpação (Figuras 1 e 2).



Figura 1 - Aspecto frontal, mostrando assimetria facial



Figura 2 - Aspecto intrabucal, mostrando abaulamento mandibular à direita e coloração azulada da mucosa de revestimento

O exame radiográfico mostrou o comprometimento bilateral, por imagens radiolúcidas multiloculares bem definidas (Figura 3).

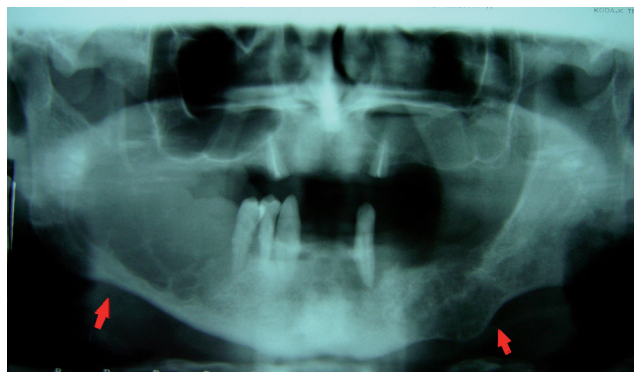


Figura 3 - Aspecto radiográfico. Comprometimento bilateral da mandíbula (setas)

A imagem correspondente à região da manifestação clínica sugeriu extensão aproximada de 40 mm no sentido ântero-posterior do corpo mandibular e envolvimento basilar. O achado radiográfico à esquerda caracterizou imagem semelhante, com proporções menores.

Todos os cistos e tumores maxilomandibulares foram incluídos no diagnóstico diferencial, em virtude da possibilidade de alteração sindrômica ou sistêmica. Foi realizada biopsia incisional de ambas as lesões, sob anestesia local e acesso cirúrgico intra-bucal. No transoperatório, observou-se que as lesões eram sólidas, de coloração escura, desprovidas de cápsula e bem vascularizadas.

O exame macroscópico mostrou fragmentos de tecido mole de consistência borrachoeira e cor enegrecida. O exame microscópico revelou tecido conjuntivo denso hiper celular, permeado por infiltrado inflamatório mononuclear. Inúmeras células gigantes multinucleadas mostraram-se presentes, bem como vasos congestionados e áreas de hemorragia. O quadro histológico foi completado por trabéculas ósseas maduras em íntimo contato com a lesão, com osteócitos no interior. O diagnóstico histopatológico foi lesão central de células gigantes.

Em função do aspecto histológico e do comportamento bilateral, o diagnóstico de tumor marrom do hiperparatireoidismo foi considerado. Realizou-se, então, investigação laboratorial de hiperparatireoidismo e mapeamento cintilográfico (Figura 4) investigando possível comprometimento de outros ossos.

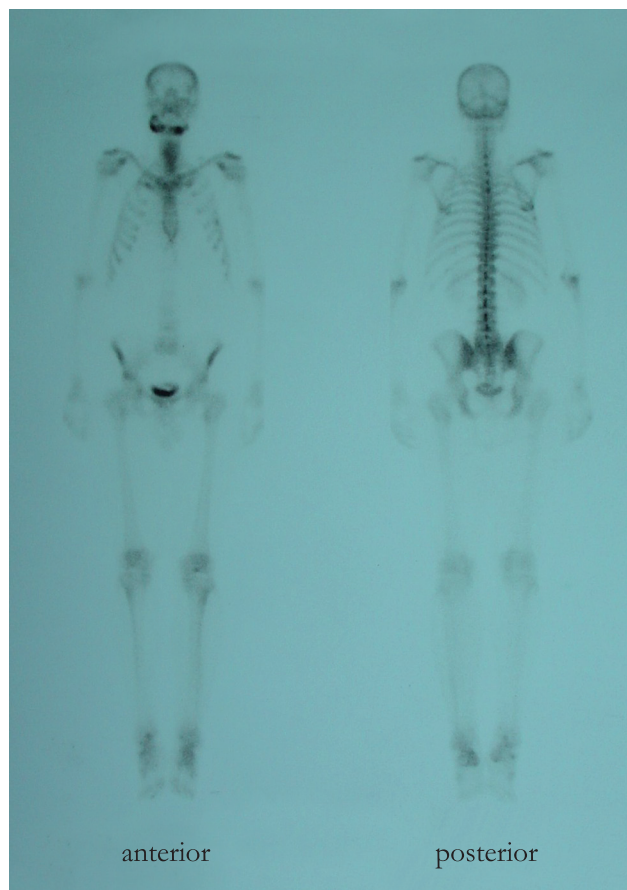


Figura 4 - Mapeamento cintilográfico. Não há comprometimento de outros ossos

Os exames hematológicos apresentaram elevados índices sanguíneos de PTH e cálcio que atingiram, respectivamente, 529 pg/ml (ref: 9-55pg/ml) e 18,2 mg/dl (ref: 8,5-10,5 mg/dl), e baixo nível de fósforo de 2.1 mg/ml (ref: 2,5-4,5 mg/dl).

Exames de cintilografia e ressonância magnética demonstraram, além das lesões mandibulares (Figuras 5 e 6), hipercaptação e aumento volumétrico na glândula paratireoide inferior direita compatíveis com processo neoplásico (Figuras 7 e 8).

Realizou-se paratireoidectomia, confirmando-se um adenoma da glândula no exame histológico. Após seis meses de controle ambulatorial, o paciente apresentou níveis séricos de PTH, cálcio e fósforo normais, com evidência radiográfica de neoformação óssea nas áreas previamente afetadas (Figura 9).

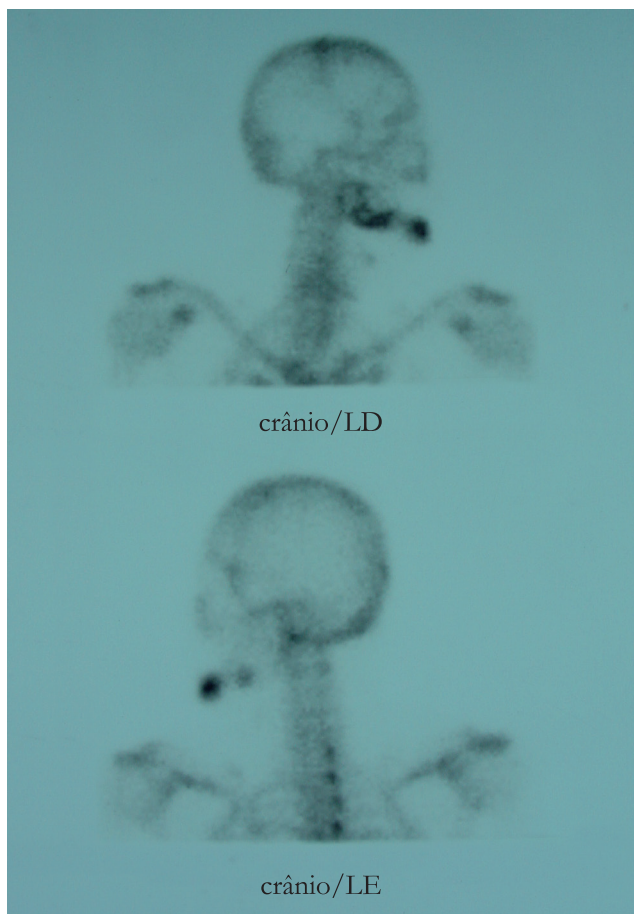


Figura 5 - Cintilografia óssea. Hiper captação nas lesões mandibulares

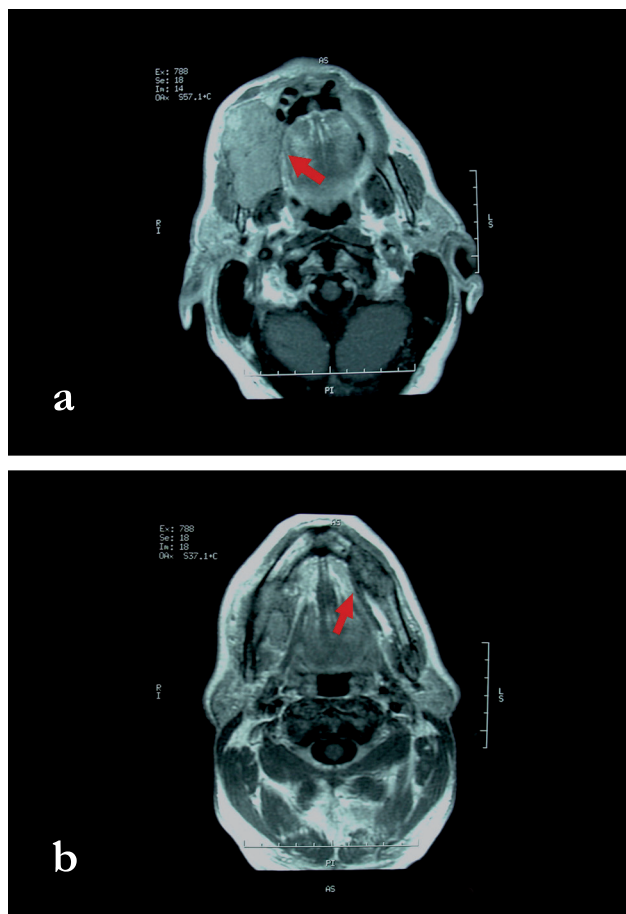


Figura 6 - Ressonância magnética em corte axial. Observa-se lesões mandibulares lados direito (a) e esquerdo (b)(setas)

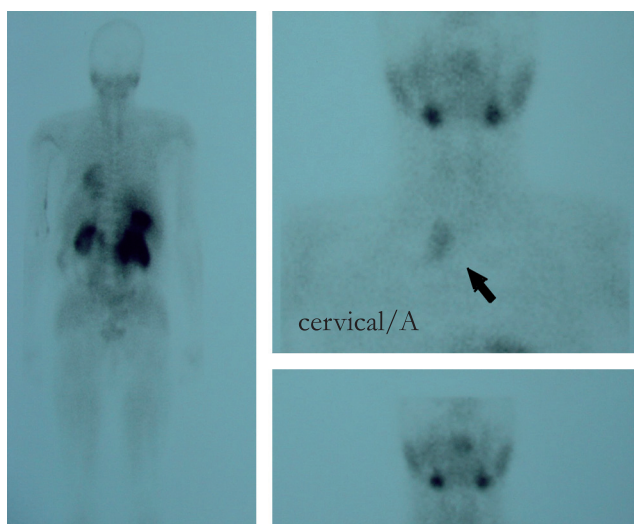


Figura 7 - Cintilografia dos tecidos moles. Hiper captação na região cervical à direita (seta)

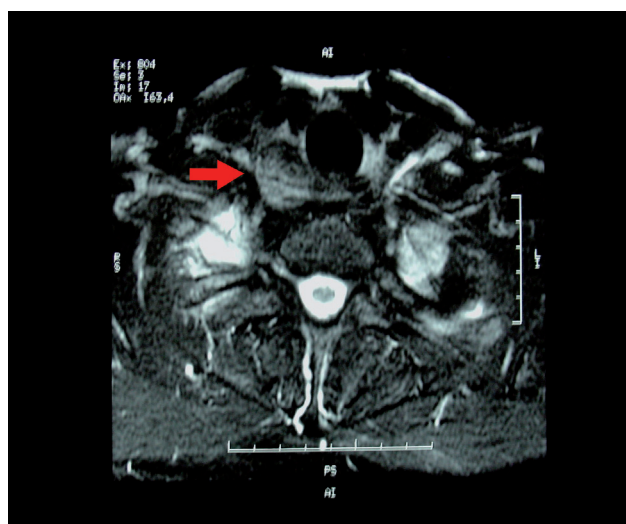


Figura 8 - Ressonância magnética, corte axial. Aumento de volume na glândula paratireoide inferior direita (seta)

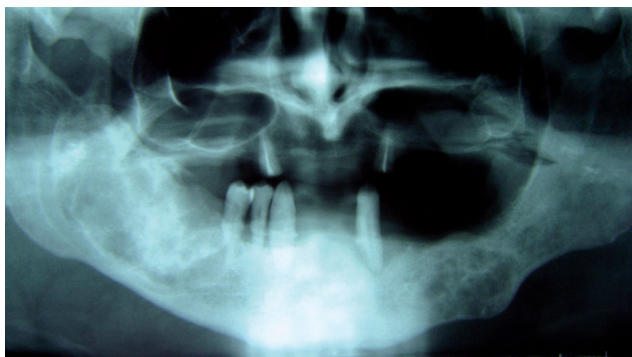


Figura 9 - Imagem radiográfica sugestiva de neoformação óssea nas áreas mandibulares previamente afetadas

DISCUSSÃO

O tumor marrom do hiperparatireoidismo é assim denominado por sua coloração característica, proveniente da hemorragia intralesional e do depósito de hemossiderina em seu interior (2,4,5). Clinicamente, apresenta-se como massa tecidual expansiva de crescimento lento, embora algumas lesões tenham comportamento destrutivo simulando tumores malignos (3). Pode localizar-se em costelas, clavículas, vértebras, quadril e fêmur, sendo menos frequente na maxila e na mandíbula (3).

A localização na região maxilomandibular pode gerar deformidade, ulceração secundária ao trauma mastigatório, sangramento, mobilidade dental e alterações funcionais como obstrução nasal, epífora e diplopia (1, 3). Apresenta-se radiograficamente como imagem radiolúcida uni ou multilocular, em geral sem halo radiopaco, à semelhança de outras lesões que podem acometer essa região (4).

Histologicamente, o tumor marrom do hiperparatireoidismo apresenta dois componentes celulares principais: células estromais mononucleadas e células gigantes multinucleadas. Tal padrão celular também é observado em entidades como querubismo, cisto ósseo aneurismático, tumor de células gigantes e lesão central de células gigantes, a mais frequente desse grupo (1, 4). Acredita-se que as células multinucleadas sejam verdadeiros osteoclastos, justificando as propriedades osteolíticas dessas doenças (2, 5). No tumor marrom do hiperparatireoidismo, a origem e a ativação dessas células é resultado do aumento do PTH endógeno (1, 6).

Por causa da semelhança histológica com a lesão central de células gigantes, os erros diagnósticos são possíveis e podem gerar tratamentos cirúrgicos mutiladores desnecessários. Por isso, a ocorrência de lesões osteolíticas maxilomandibulares, com aspecto histológico sugestivo de lesão central de células gigantes, torna imperativa a pesquisa do hiperparatireoidismo, mesmo nos casos unilaterais (5).

O hiperparatireoidismo manifesta-se por dores ósseas, perda de peso, fraqueza e cólicas renais crônicas, embora formas leves sejam totalmente assintomáticas (7). Os aspectos radiográficos dessa endocrinopatia incluem reabsorção subperiosteal das falanges, focos de desmineralização da calota craniana e osteoporose, além de perda da lâmina dura alveolar (3). Também deve ser pesquisada iconologicamente a presença de outras lesões osteolíticas no corpo, em função da característica multifocal do tumor marrom do hiperparatireoidismo.

O diagnóstico deve ser confirmado por meio de investigações laboratoriais, incluindo a dosagem de cálcio, fósforo, fosfatase alcalina e PTH. Aumento dos níveis de cálcio e PTH e diminuição de fósforo no sangue, associados ao aumento de cálcio e fósforo na urina, são indicativos de hiperparatireoidismo (1).

O tipo de hiperparatireoidismo deve ser determinado para orientar a modalidade de tratamento. O hiperparatireoidismo primário pode ser sugerido pelo aumento de volume de uma ou mais glândulas paratireoides, observado por meio de tomografia computadorizada ou ressonância magnética, ou ainda pela hipercaptação de radioisótopos na cintilografia (1, 2). O tipo secundário está relacionado à insuficiência renal crônica, que ocasiona hipoprodução de vitamina D e conseqüente diminuição na absorção do cálcio no intestino (7). No primeiro tipo a terapêutica é cirúrgica e visa à remoção da glândula afetada, enquanto no segundo, o tratamento visa à resolução da insuficiência renal.

Após o diagnóstico do tumor marrom do hiperparatireoidismo, a necessidade de tratamento da disfunção endócrina é indiscutível (1, 3, 6). Contudo, opiniões em relação ao tratamento das lesões ósseas são bastante divididas. Alguns autores acreditam na regressão das lesões após a terapêutica do hiperparatireoidismo e compensação dos níveis do PTH (3, 8). Outros preconizam a remoção cirúrgica das lesões, simultaneamente ou posteriormente à paratireoidectomia quando se trata de hiperparatireoidismo primário (1, 2, 6).

O tratamento cirúrgico do tumor marrom do hiperparatireoidismo pode ocasionar perda de segmentos ósseos e dentes, lesões de nervos periféricos e outras alterações estético-funcionais. No caso relatado, a remoção da lesão que envolvia o corpo mandibular direito seria possível, apenas, por ressecção segmentar. Além das sequelas mencionadas, enxerto ósseo seria necessário na reconstrução do defeito, com morbidade na área doadora. Pela possibilidade de resolução das lesões após a terapêutica do hiperparatireoidismo, o tratamento conservador foi optado.

Justifica-se a exérese do tumor marrom do hiperparatireoidismo nas seguintes situações:

- 1) progressão da lesão após o tratamento inicial do hiperparatireoidismo (9);
- 2) comprometimento funcional importante, pois que a regressão das lesões varia de meses a anos (1, 3).

Lesões extensas podem sofrer mineralização sem diminuição do abaulamento ósseo, necessitando de cirurgia cosmética para melhora do contorno facial e resolução de possíveis alterações funcionais (8).

CONCLUSÕES

O hiperparatireoidismo deve ser considerado e pesquisado diante do diagnóstico anatomopatológico de lesão central de células gigantes. A conduta conservadora do tumor marrom do hiperparatireoidismo com o tratamento primário da endocrinopatia deve ser tentada, desde que não haja indicações estritas para sua remoção cirúrgica.

CONFLITO DE INTERESSES

Os autores declaram formalmente que não há conflito de interesses no presente manuscrito.

DECLARAÇÃO DE CONSENTIMENTO

O paciente assinou declaração de consentimento, a qual está nos registros arquivados no Instituto.

REFERÊNCIAS

1. Daniels JSM. Primary hyperparathyroidism presenting as a palatal Brown tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2004;98(4):409-13.
2. Guney E, Yigitbasi OG, Bayram F, Ozer V, Canoz O. Brown tumor of the maxilla associated with primary hyperparathyroidism. *Auris Nasus Larynx.* 2001;28(4):369-72.
3. Merz MN, Massich DD, Marsh W, Schuller DE. Hyperparathyroidism presenting as brown tumor of the maxilla. *Am J Otolaryngol.* 2002;23(3):173-6.
4. Ganesan J, Spanier S, Bridge J. Cytogenetic findings in a case of brown tumor associated with hyperparathyroidism. *Cancer Genet Cytogenet.* 2000;119(2):165-6.
5. Guimarães Jr J, Silva SS. Semiologia das doenças ósseas do complexo maxilo-mandibular. In: Kignel S, editor. *Diagnóstico bucal.* São Paulo: Santos; 1997. p. 237-90.
6. Okada H, Davies JE, Yamamoto H. Brown tumor of the maxilla in patient with secondary hyperparathyroidism: A case study involving immunohistochemistry and electron microscopy. *J Oral Maxillofac Surg.* 2000;58(2):233-8.
7. Sonis ST, Fazio RC, Fang L. Doenças ósseas. In: Sonis ST, Fazio RC, Fang L, editores. *Princípios e prática de medicina oral.* 2a ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan; 1996. p. 401-8.
8. Smith BR, Fowler CB, Svane TJ. Primary hyperparathyroidism presenting as a "peripheral" giant cell granuloma. *J Oral Maxillofac Surg.* 1988;46(1):65-9.
9. Yamazaki H, Ota Y, Aoki, Karakida K. Brown tumor of the maxilla and mandible: progressive mandibular brown tumour after removal of parathyroid adenoma. *J Oral Maxillofac Surg.* 2003;61(6):719-22.

Recebido: 15/09/2009
Received: 09/15/2009

Aceito: 26/01/2010
Accepted: 01/26/2010