

CASOS PARA EL DIAGNÓSTICO

Fístula cutánea submandibular

Submandibular Cutaneous Fistula

Historia clínica

Paciente de 84 años que consultó por una lesión supurativa crónica, asintomática, localizada en el arco submandibular izquierdo, de aproximadamente 6 meses de evolución. Como antecedentes personales de interés padecía hipertensión arterial, diabetes mellitus tipo 2, dislipidemia y osteoporosis, y estaba en tratamiento con nimodipino, metformina, fluvastatina y alendronato desde hacía 3 años. Asimismo refería extracciones dentales 2 años atrás.

Exploración física

La paciente mostraba una región perimandibular izquierda edematizada, eritematosa e indurada al tacto, con un área de retracción cutánea submandibular, ulcerada, fistulosa, por la que drenaba un exudado seropurulento, en cuyo interior presentaba una pápula carnosa excrecente (fig. 1).



Figura 1



Figura 2

La exploración de la cavidad oral reveló la existencia de piezas dentales en mal estado.

Histopatología

La tinción con hematoxilina-eosina objetivó un área de ulceración e inflamación aguda y la presencia de células gigantes multinucleadas sin signos histológicos de malignidad.

Pruebas complementarias

Se realizó una ortopantomografía, que demostró, en el arco mandibular izquierdo, una zona de osteolisis que llegaba a destruir la cortical ósea, así como otros focos radiolúcidos que indicaban una afectación mandibular generalizada (fig. 2)

¿Cuál es su diagnóstico?

Diagnóstico

Osteonecrosis mandibular por bifosfonatos.

Evolución y tratamiento

Se suspendió la toma de alendronato y tras realizar cultivo del exudado, positivo para *Staphylococcus aureus*, la paciente recibió tratamiento conservador antibiótico con ciprofloxacino 750 mg cada 12 h durante 3 semanas. La lesión cutánea mejoró significativamente con el cese del exudado seropurulento y de la inflamación, persistiendo la fístula (fig. 3).

Comentario

Los bifosfonatos son inhibidores potentes de la reabsorción ósea osteoclástica y de la angiogénesis, y se utilizan en el tratamiento de enfermedades como metástasis óseas líticas, hipercalcemia maligna, mieloma múltiple, osteoporosis y enfermedad de Paget¹⁻³. La osteonecrosis maxilar parece estar causada por la combinación de falta de aporte vascular y falta de remodelado y regeneración ósea⁴. Dicha entidad fue descrita por primera vez en 2003^{2,5}. La incidencia de dicho cuadro secundario a bifosfonatos orales se estima que está alrededor del 0,01-0,04%^{3,5}. La osteonecrosis maxilar se desarrolla tras una inflamación crónica en un ambiente con deficiente vascularización, causando alteraciones en la microestructura ósea que conlleva a su colapso². Es el resultado de la incapacidad del hueso para aumentar el recambio ante circunstancias como la masticación, la manipulación o las infecciones dentarias, que necesitan una mayor reserva funcional ósea⁵. El riesgo de dicha complicación aumenta cuando la duración del tratamiento supera los 3 años, y hasta el 70% de los casos son desencadenados por extracciones dentarias^{1,3,5}. Otros factores, como el uso de corticoides, diabetes, edad avanzada, higiene

bucal deficiente, tabaquismo o consumo excesivo de alcohol aumentan el riesgo y la progresión de la enfermedad^{3,5}. El 60% de los casos han sido descritos en mujeres³, y su acumulación en el hueso puede alcanzar una vida media de hasta 11 años².

Ante la presencia de una fístula mandibular hemos de hacer diagnóstico diferencial no solo con quistes odontogénicos, reacción por cuerpo extraño, granuloma piogénico, lesiones tumorales o procesos infecciosos, sino también con osteonecrosis maxilar por bifosfonatos en pacientes tratados con dichos fármacos, especialmente si las fístulas son múltiples.

El diagnóstico es eminentemente clínico, destacando como complementarias las pruebas de imagen, que nos permiten evaluar la gravedad y la extensión de la afectación mandibular⁵.

No se ha establecido un tratamiento efectivo, aunque el tratamiento conservador parece ser la conducta más recomendable, evitando desbridamientos agresivos debido a las recidivas y a las secuelas posteriores, ya que la afectación ósea es generalizada y se corre el riesgo de aumentar el tamaño de la lesión^{1,2}. Se recomienda la realización de cultivos de forma sistemática³. Las pautas fueron expuestas por Marx, y consisten en: higiene oral y colutorios con clorhexidina al 0,12%, tratamiento antibiótico a largo plazo de forma continua o intermitente y evitar la cirugía o el desbridamiento amplio⁶.

Bibliografía

1. Alonso Estellés R, Campo López C, Aguilar Jiménez J, Desco Agulló F. Fístulas mandibulares en una mujer de 75 años. *Rev Clin Esp.* 2008;208:165-7.
2. Joshi Otero J, Rollón Mayordomo A, Coello Suanzes J, Lledó Villar E, Lozano Rosado R, Sánchez Molini M, et al. Osteonecrosis de los maxilares asociada al uso de bifosfonatos: revisión de ocho casos. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac.* 2011;33:15-21.
3. Echeveste Inzagaray JM, Martínez Morentin M. Osteonecrosis mandibular relacionada con la toma de bifosfonatos por vía oral: a propósito de un caso. *Semergen.* 2011;37:430-2.
4. Truong SV, Chang LC, Berger TG. Bisphosphonate-related osteonecrosis of the jaw presenting as a cutaneous dental sinus tract: A case report and review of the literature. *J Am Acad Dermatol.* 2010;62:672-6.
5. Casal C, Someso E, Álvarez AM, Fariña J, Álvarez T. Osteonecrosis de maxilares relacionada con el uso de bifosfonatos. *FAP.* 2012;10:9-14.
6. Marx RE, Sawatari Y, Fortin M, Broumand V. Bisphosphonate-induced exposed bone (osteonecrosis/osteopetrosis) of the jaws: Risk factors, recognition, prevention, and treatment. *J Oral Maxillofac Surg.* 2005;63:1567-75.

C. Prada García* y M.Á. Rodríguez Prieto

Servicio de Dermatología, Complejo Asistencial Universitario de León, León, España

* Autor para correspondencia.
Correo electrónico: caminoprada@gmail.com
(C. Prada García).



Figura 3