



Revista Española de Cirugía Oral y Maxilofacial

Publicación Oficial de la SECOM CyC Sociedad Española de Cirugía Oral y Maxilofacial y de Cabeza y Cuello

Artículo Aceptado para su pre-publicación / Article Accepted for pre-publication

Título / Title:

Coristoma óseo lingual. Nuevo caso de una entidad extremadamente infrecuente. / Lingual osseous choristoma. New case of an extremely uncommon entity.

Autores / Authors:

Patricia Martínez Artal, Laura Villanueva-Alcojol, David González Ballester, Claudia Fernández Sánchez-Arévalo

DOI: [10.20986/recom.2022.1383/2022](https://doi.org/10.20986/recom.2022.1383/2022)

Instrucciones de citación para el artículo / Citation instructions for the article:

Martínez Artal Patricia, Villanueva-Alcojol Laura, González Ballester David, Fernández Sánchez-Arévalo Claudia. Coristoma óseo lingual. Nuevo caso de una entidad extremadamente infrecuente. / Lingual osseous choristoma. New case of an extremely uncommon entity.. j.maxilo 2022. doi: 10.20986/recom.2022.1383/2022.



Este es un archivo PDF de un manuscrito inédito que ha sido aceptado para su publicación en la *Revista Española de Cirugía Oral y Maxilofacial*. Como un servicio a nuestros clientes estamos proporcionando esta primera versión del manuscrito en estado de prepublicación. El manuscrito será sometido a la corrección de estilo final, composición y revisión de la prueba resultante antes de que se publique en su forma final. Tenga en cuenta que durante el proceso de producción se pueden dar errores, lo que podría afectar el contenido final. El copyright y todos los derechos legales que se aplican al artículo pertenecen a la *Revista Española de Cirugía Oral y Maxilofacial*.

CORISTOMA ÓSEO LINGUAL. NUEVO CASO DE UNA ENTIDAD EXTREMADAMENTE INFRECIENTE

LINGUAL OSSEOUS CHORISTOMA. NEW CASE OF AN EXTREMELY UNCOMMON ENTITY

Patricia Martínez Artal¹, Laura Villanueva Alcojol¹, David González Ballester¹ y Claudia Fernández Sánchez-Arévalo²

¹Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial. Complejo Hospitalario Universitario de Badajoz. Badajoz, España. ²Servicio de Anatomía Patológica. Complejo Hospitalario Universitario de Badajoz. Badajoz, España

CORRESPONDENCIA:

Patricia Martínez Artal

pmartinezartal@gmail.com

Recibido: 10-07-2022

Aceptado: 054-10-2022

Ha sido presentado en formato Póster en el XVIII Congreso Nacional de Cirugía oral e Implantología de Almería de 2022.

RESUMEN

Los osteomas constituyen un grupo de tumores óseos benignos que se localizan habitualmente en el cráneo y los huesos de la región facial, siendo rara su presencia en los tejidos blandos de la cavidad oral. También se les conoce como coristomas óseos, ya que están compuestos por tejido óseo maduro de aspecto normal. En la cavidad oral, la localización más frecuente es el tercio posterior de la lengua y suele aparecer en mujeres con edades comprendidas entre la segunda y tercera década de vida. A pesar de que la mayoría de los pacientes presentan un curso asintomático, no es

infrecuente que su motivo de consulta sea la sensación de cuerpo extraño y disfagia. Afortunadamente, los osteomas linguales tienen buen pronóstico, ya que una vez realizada la extirpación no hay descritos casos de recurrencia. Debido a su insólita presentación, con menos de 100 casos publicados en la literatura, se decide presentar este caso clínico.

Palabras clave: Osteoma, osteoma lingual, coristoma óseo.

ABSTRACT

Osteomas are rare benign tumors that can be located on the craniomaxillofacial skeleton, being unusual its presence in the soft tissues of the oral cavity. They are also known as osseous choristomas, as they consist of normal matured bone tissue. Osteomas of the tongue occur more frequently in women in their second or third decade and the most frequent location in the oral cavity is the posterior third of the tongue. Most patients are asymptomatic, though other forms of presentation could be complaining of the sensation of having a foreign body or, even, dysphagia. The fact that less than 100 cases have been reported in the literature, has motivated the presentation of this clinical case.

Keywords: Lingual osteoma, osseus choristoma, tongue base osteoma.

INTRODUCCIÓN

Los osteomas son tumores óseos benignos que se pueden encontrar en el esqueleto craneofacial, siendo raro su hallazgo en los tejidos blandos de la cavidad oral. Fueron descritos por primera vez en 1913 por Monserrat¹. Posteriormente, en 1971, Krolls y cols. sugerían el término coristoma óseo lingual, que por definición se trata de una tumoración compuesta por tejido óseo normal en una localización atípica².

Si bien su etiología es incierta, se han propuesto varias hipótesis sobre el origen de los osteomas linguales. Es bien conocido que, durante el desarrollo embriológico, el

primer y tercer arco branquial van a dar lugar a los dos tercios anteriores y al tercio posterior de la lengua respectivamente, fusionándose a nivel del foramen ciego. Por tanto, la persistencia de estos arcos branquiales podría justificar el origen de los coristomas óseos linguales³. En segundo lugar, hay autores que sugieren su formación a partir de la osificación del remanente tiroideo lingual⁴. No obstante, en la actualidad se ha descrito otra teoría que basa su origen en una reacción postraumática o irritación crónica a ese nivel, que podría dar lugar a un depósito de calcio progresivo⁵. Los osteomas linguales aparecen predominantemente en mujeres (ratio mujer:hombre de 16:44). El intervalo de edad de aparición oscila entre los 5 y los 89 años, aunque se diagnostican frecuentemente entre la segunda y tercera década de vida. La localización más frecuente a nivel intraoral es el tercio posterior del dorso de la lengua, en proximidad al foramen ciego y a las papilas circunvaladas⁵. A pesar de que la mayoría de estos pacientes permanecen asintomáticos, el motivo de consulta puede ser la sensación de cuerpo extraño, náuseas, disfagia o irritación⁶. Existen menos de 100 casos de osteomas linguales publicados mundialmente, lo que ha motivado la presentación de este hallazgo inusual y una revisión de la literatura existente.

CASO CLÍNICO

Se presenta el caso clínico de una paciente de 11 años sin antecedentes de interés, cuyo motivo de consulta era un fibroma presente en la mucosa vestibular labial inferior desde hacía varios meses. Al realizar la exploración física se constató la presencia adicional de una tumoración exofítica en el tercio posterior de la lengua, próxima al foramen ciego, de 8 x 6 mm de tamaño. A la palpación tenía consistencia dura, estaba bien delimitada y recubierta de mucosa oral normal. Dicha lesión llevaba presente desde el nacimiento, según informó el familiar (Figura 1). Con la sospecha clínica de fibroma oral, y dada la ausencia de criterios de alarma y la cronicidad de la lesión, se decidió realizar la exéresis de ambas lesiones bajo anestesia general. Al realizar el estudio histológico de la pieza, se observaba la presencia de osteoblastos y fibroblastos en el estroma intratrabecular junto con láminas densas y canales

haversianos organizados, con el diagnóstico de coristoma óseo u osteoma lingual (Figura 2). La paciente ha presentado una buena evolución postoperatoria sin signos de recurrencia durante los 14 meses de seguimiento en la consulta.

DISCUSIÓN

Los osteomas linguales son una entidad benigna de rara aparición, de la cual existen menos de cien casos publicados en la literatura científica.

La localización más frecuente de los osteomas en la cavidad oral es el tercio posterior de la lengua, en la proximidad al foramen ciego y a las papilas circunvaladas, tal y como sucede en nuestro caso clínico. En la revisión de la literatura, Gorini y cols. presentan una revisión sistemática de 67 pacientes en la que el 78 % de los osteomas aparecen en la lengua, el 15 % en la mucosa bucal, el 3 % en la región submandibular, el 2 % en la mucosa alveolar, el 1 % en el masetero y el 1 % restante en el paladar duro⁷. En esta línea, Shareef y cols. han publicado recientemente una revisión sistemática en la que el 59 % de los coristomas aparecen en el tercio posterior de la lengua, en comparación con el 41 % de los casos que se localizan en los dos tercios anteriores⁸.

En relación a la forma de presentación clínica, la paciente estaba asintomática, como sucede en la mayoría de casos publicados. No obstante, otra sintomatología acompañante puede ser la sensación de cuerpo extraño (26 %), náuseas (8 %), disfagia (7 %) e irritación (3,4 %)⁶. Por el contrario, Shareef destaca en su revisión que la mayoría de los pacientes presentan síntomas al inicio (55 %), siendo el motivo de consulta más frecuente las náuseas, la sensación de cuerpo extraño o la disfagia⁸.

Tal y como sostiene la literatura científica, existe predilección por el sexo femenino (70 %), coincidiendo con el caso que describimos⁸. Habitualmente, el tamaño de la lesión puede variar entre los 3 y los 50 mm. La forma de presentación del osteoma lingual de nuestra paciente era una tumoración pediculada en la base lingual, al igual que sucede en la mayoría de los casos de la revisión⁹.

En cuanto al diagnóstico de los coristomas óseos linguales, es suficiente con una exploración clínica exhaustiva para definir la actitud terapéutica. Por ello, en nuestro

caso clínico, las características de benignidad junto a la cronicidad de la lesión apoyaron la exéresis quirúrgica, sin necesidad de solicitar otras pruebas complementarias. De la misma forma, según los 69 casos revisados por Shareef y cols., solamente se realizó diagnóstico por prueba de imagen en el 14 % del total⁸. A pesar de ello, hay autores que describen el uso del fibroscopio, la resonancia magnética y la tomografía computerizada para completar el estudio previo a la intervención¹⁰. Recientemente, Yoshimura y cols. describen el uso del dermatoscopio como un método diagnóstico no invasivo de los osteomas linguales, al permitir la valoración *in vivo* de ciertas características morfológicas invisibles para el ojo humano⁹.

No obstante, el diagnóstico de certeza va de la mano del estudio anatomopatológico de la lesión. A nivel histológico, tal y como se observa en nuestra pieza quirúrgica, los osteomas linguales consisten en una masa de bordes bien definidos de hueso circunscrito, lamelar, con canales haversianos organizados y rodeada de un epitelio escamoso bien estratificado. En las lagunas óseas se pueden observar la presencia de osteocitos que, ocasionalmente, pueden contener vasos sanguíneos en su interior con células similares a los osteoclastos².

Dada la heterogeneidad de patologías que asientan en la cavidad oral, es fundamental realizar un amplio diagnóstico diferencial que permita orientar la sospecha clínica. Este dependerá, fundamentalmente, de la localización de la lesión. En el tercio posterior de la lengua, puede tener su origen un quiste del conducto tirogloso, un mucocele, un fibroma o un granuloma piógeno. Por otro lado, una lesión ubicada en el tercio anterior lingual puede tratarse también de un mucocele, o de otras entidades como un coristoma cartilaginoso o un granuloma piógeno. Asimismo, las lesiones localizadas en el borde lateral de la lengua incluyen el neuroma traumático, el neurofibroma, el schwannoma, el fibroma y el coristoma cartilaginoso, entre otros. Por último, ante el hallazgo de tejido calcificado y consistencia ósea, el diagnóstico diferencial deberá incluir entidades como el teratoma, el hamartoma óseo, un nódulo linfático calcificado y el osteolipoma. Sin embargo, la característica diferencial fundamental para establecer el diagnóstico definitivo del coristoma óseo se obtiene al observar tejido óseo maduro de aspecto normal en el análisis histológico⁷.

Finalmente, el tratamiento de elección de los osteomas linguales consiste en la exéresis quirúrgica. Además, se puede afirmar que son lesiones con buen pronóstico, dado que no se han descrito casos de recurrencia en la lengua^{3,8}.

En conclusión, se presenta un nuevo caso de coristoma óseo lingual, entidad extremadamente infrecuente, en una paciente mujer en edad pediátrica. Se refieren sus características clínicas e histológicas, así como el diagnóstico diferencial con las principales entidades tumorales de consistencia ósea que se presentan en tejidos blandos.

ASPECTOS ÉTICOS

Este trabajo fue aprobado por el Comité Ético del Hospital Universitario de Badajoz. Los autores confirman que han cumplido las normas éticas relevantes y que cuentan con el consentimiento informado de los pacientes.

CONFLICTO DE INTERESES

No hay conflicto de intereses.

BIBLIOGRAFÍA

1. Monserrat M. Osteome de la langue. *Bul Soc Annat.* 1913;88:282.
2. Krolls SO, Jacoway JR, Alexander WN. Osseous choristomas (osteomas) of intraoral soft tissues. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1971;32(4):588-95. DOI: 10.1016/0030-4220(71)90324-0.
3. Vered M, Lustig JP, Buchner A. Lingual osteoma: a debatable entity. *J Oral Maxillofac Surg.* 1998;56(1):9-13; discussion 14. DOI: 10.1016/S0278-2391(98)90906-5.
4. Adhikari BR, Sato J, Morikawa T, Obara-Itoh J, Utsunomiya M, Harada F, et al. Osseous choristoma of the tongue: two case reports. *J Med Case Rep.* 2016;10(1):59. DOI: 10.1186/s13256-016-0840-8.

5. Supiyaphun P, Sampatanakul P, Kerekhanjanarong V, Chawa- kitchareon P, Sastarasadhit V. Lingual osseous choristoma: a study of eight cases and review of the literature. *Ear Nose Throat J.* 1998;77(4):316-25. DOI: 10.1177/014556139807700414.
6. Sun HA, Lee WT, Hsu HJ. Lingual Osteoma-A Case Report and Literature Review. *Ear Nose Throat J.* 2020:145561320977469. DOI: 10.1177/0145561320977469.
7. Gorini E, Mullace M, Migliorini L, Mevio E. Osseous choristoma of the tongue: a review of etiopathogenesis. *Case Rep Otolaryngol.* 2014;2014:373104. DOI: 10.1155/2014/373104.
8. Shareef ZJ, Shareef SJ, Kerndt CC, Aughenbaugh A, Di Ponio A. Lingual Osseous Choristoma: A Systematic Review of Lesion Presentation, Histology, and Morphology. *SMRJ.* 2020;5(2):17543. DOI: 10.51894/001c.17543.
9. Yoshimura H, Ohba S, Imamura Y, Sano K. Osseous choristoma of the tongue: A case report with dermoscopic study. *Mol Clin Oncol.* 2018;8(2):242-5.
10. Lee DL, Wong KT, Mak SM, Soo G, Tong MC. Lingual osteoma: case report and literature review. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2009;135(3):308-10. DOI: 10.1001/archoto.2008.553.

Figura 1. Caso clínico: lesión pediculada de bordes bien definidos localizada en tercio posterior de la lengua.



Figura 2. Estudio histológico de la pieza quirúrgica (tinción con hematoxilina-eosina): presencia de osteoblastos y fibroblastos con canales haversianos organizados.

