

4. Kuwana M, Kaburaki J, Okazaki Y, Miyazaki H, Ikeda Y. Two types of autoantibody-mediated thrombocytopenia in patients with systemic lupus erythematosus. *Rheumatology*. 2006;45:851–4. <http://dx.doi.org/10.1093/rheumatology/ke1010>
5. Kuwana M, Okazaki Y, Kajihara M, Kaburaki J, Miyazaki H, Kawakami Y, et al. Autoantibody to c-Mpl (thrombopoietin receptor) in systemic lupus erythematosus: relationship to thrombocytopenia with megakaryocytic hypoplasia. *Arthritis Rheum*. 2002;46:2148–59. <http://dx.doi.org/10.1002/art.10420>
6. Nagasawa T, Sakurai T, Kashiwagi H, Abe T. Cell-mediated amegakaryocytic thrombocytopenia associated with systemic lupus erythematosus. *Blood*. 1986;67:479–83. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/3484642>
7. Griner PF, Hoyer LW. Amegakaryocytic thrombocytopenia in systemic lupus erythematosus. *Arch Intern Med*. 1970;125:328–32. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/5412024>
8. Chalayer E, Costedoat-Chalumeau N, Beyne-Rauzy O, Ninet J, Durupt S, Tebib J, et al. Bone marrow involvement in systemic lupus erythematosus. *QJM*. 2017. <http://dx.doi.org/10.1093/qjmed/hcx102>
9. Pereira RM, Velloso ER, Menezes Y, Gualandro S, Vassallo J, Yoshinari NH. Bone marrow findings in systemic lupus erythematosus patients with peripheral cytopenias. *Clin Rheumatol*. 1998;17:219–22. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9694056>
10. Chang H, Tang TC. Successful treatment of amegakaryocytic thrombocytopenia with azathioprine. *Acta Haematol*. 2011;126:135–7. <http://dx.doi.org/10.1159/000328031>

Latika Gupta^a, Vikas Gupta^{a,*}, Krushna Chandra Pani^b, Navkirti Mittal^c, Vikas Agarwal^a

^a Department of Clinical Immunology, Sanjay Gandhi Postgraduate Institute of Medical Sciences, Lucknow, Uttar Pradesh, India

^b Department of Pathology, Sanjay Gandhi Postgraduate Institute of Medical Sciences, Lucknow, Uttar Pradesh, India

^c Department of Hematology, Sanjay Gandhi Postgraduate Institute of Medical Sciences, Lucknow, Uttar Pradesh, India

* Corresponding author.

E-mail address: vikasgcapri@yahoo.co.in (V. Gupta).

<https://doi.org/10.1016/j.reuma.2018.03.005>

1699-258X/ © 2018 Sociedad Española de Reumatología y Colegio Mexicano de Reumatología. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Absceso cervical como forma de presentación excepcional de osteonecrosis mandibular avanzada inducida por bisfosfonatos. A propósito de un caso y revisión de la literatura



Cervical abscess as an exceptional presentation of advanced bisphosphonate-related osteonecrosis of the jaw: Case report and review of the literature

Sr. Editor:

Los bisfosfonatos (BFF) constituyen un grupo de medicamentos análogos sintéticos del pirofosfato inorgánico empleados vía intravenosa en el tratamiento de distintos procesos oncológicos y en metástasis óseas de tumores sólidos (mama, próstata y pulmón), que si bien no inducen un aumento en la supervivencia, han mostrado un incremento en la calidad de vida¹. Pese a ello, presentan el grave efecto secundario de inducir osteonecrosis maxilar (ONM).

Presentamos el caso de una mujer de raza caucásica de 65 años de edad sin hábitos tóxicos (tabaquismo) ni antecedentes médicos de interés (diabetes, ingesta crónica de corticoides...), con el factor de riesgo añadido de estado dental deficitario (múltiples restos radiculares) y enfermedad periodontal activa, diagnosticada en 2013 de carcinoma mamario avanzado EIV (CT4N2bMx) precisando intervención quirúrgica (tumorectomía y disección axilar), completándose el tratamiento con radioterapia (RT) y poliquimioterapia. Tras sucesivos controles, en 2014 se detecta mediante gammagrafía ósea (GAO) focos metastásicos en ala derecha de sacro y columna vertebral, con clínica de dolor severo iniciando tratamiento con BFF por vía intravenosa (Ac. zoledrónico, Zometa[®] 4 mg/3 semanas). La paciente es atendida en nuestra unidad en 2015 por presentar de forma espontánea absceso submandibular derecho (fig. 1) que fue drenado bajo anestesia local en primera instancia, obteniéndose 150 mL de material purulento y caseoso, positivo para *Actinomyces israelii*. Posteriormente fue ingresada para estudio y tratamiento con antibioterapia de amplio espectro y control del dolor. Pese a que el examen intraoral no mostró hallazgos de interés, el estudio radiográfico por tomografía axial computarizada (TAC) mostró la existencia de área extensa de osteonecrosis en región hemimandibular derecha (fig. 2). Tras mantener tratamiento médico durante una semana (amoxicilina 1 g/8 h y enjuagues diarios cada 8 h con clorhexidina al 2%), la paciente fue

intervenida con anestesia general, practicándose legrado extenso de la lesión. Se constató con posterioridad una evolución clínica muy favorable hasta su fallecimiento en febrero de 2017 por su proceso neoplásico de base.

La ONM inducida por BFF se encuentra ampliamente recogida en la literatura científica, pero a pesar de que hay numerosas publicaciones que tratan de explicar su etiopatología, su mecanismo etiopatogénico no se encuentra aun completamente definido². Actualmente se consideran 4 estadios para las clasificar la ONM según las normas establecidas por la American Association of Oral and Maxillofacial Surgeons, correspondiendo el caso presentado al estadio más avanzado (estadio 3)³. En el caso expuesto, el zoledronato (Zometa[®]), se considera el BFF de mayor potencia, 100 veces superior al pamidronato, habiéndose demostrado que con su empleo la aparición de ONM es superior y más precoz que con respecto a otros BFF, constituyendo la administración intravenosa de los mismos el principal factor de riesgo de aparición de ONM. La forma de presentación más habitual de la ONM es de forma progresiva, tanto clínica como radiográficamente, de ahí que el caso presentado sea excepcional, pese a ello, algunos autores como Kaehling et al.⁴ y Soda et al.⁵ han comunicado distintos casos de tromboembolismo de la vena yugular interna y posterior sepsis en el primer caso y absceso retrofaríngeo en el segundo, como forma de



Figura 1. Voluminoso absceso submandibular derecho (flecha blanca).

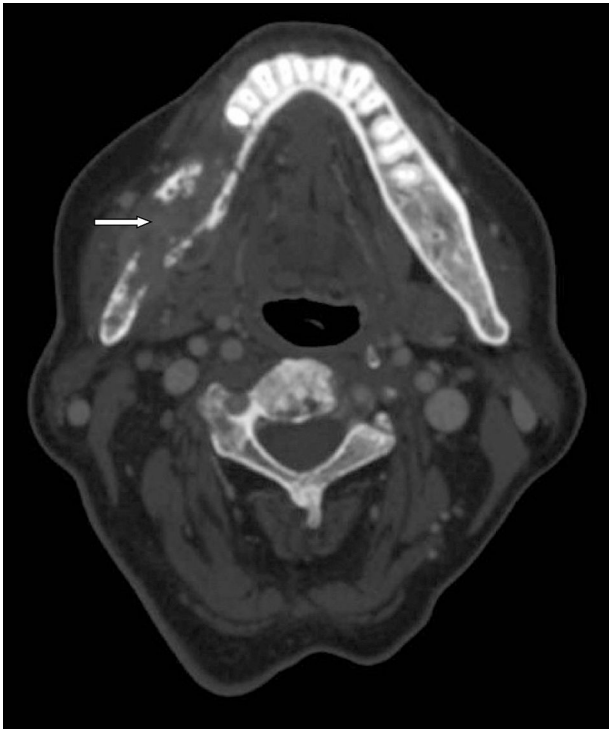


Figura 2. Extensa área de osteonecrosis en región hemimandibular derecha (flecha blanca).

presentación de la ONM. La explicación radicaría tanto en la sobreinfección ósea por distintos agentes patógenos, siendo el principal el *Actinomyces israelii*, como en la acción de los BFF sobre los tejidos blandos adyacentes.

En conclusión, la posibilidad de desarrollar una ONM ha de ser siempre contemplada en pacientes en riesgo (pacientes oncológicos que han sido sometidos previamente a tratamiento con RT), pese a su presentación inusual en forma de absceso, la aparición

del mismo constituye un dato relevante en la sospecha clínica de ONM, precisando de un tratamiento individualizado en función de los hallazgos clínicos y radiográficos del paciente.

Bibliografía

1. Schröder J, Fietz T, Köhler A, Petersen V, Tesch H, Spring L, et al. TMK-Group (Tumour Registry Breast Cancer). Treatment and pattern of bone metastases in 1094 patients with advanced breast cancer - Results from the prospective German Tumour Registry Breast Cancer cohort study. *Eur J Cancer*. 2017;79:139–48.
2. Khoo TK. Bisphosphonates and Osteonecrosis of the Jaw. *Mayo Clin Proc*. 2017;92:1166–7.
3. Ruggiero S, Dodson T, Fantasia J, Goodday R, Aghaloo T, Mehrotra B, et al. American Association of Oral and Maxillofacial Surgeons Position Paper on Medication-Related Osteonecrosis of the Jaw—2014 Update. *J Oral Maxillofac Surg*. 2014;72:1938–56.
4. Kaehling Ch, Streckbein P, Schmermund D, Henrich M, Burchert D, Gattenloehner S, et al. Lethal cervical abscess following bisphosphonate related osteonecrosis of the jaw. *J Craniomaxillofac Surg*. 2014;42:1203–6.
5. Soda T, Fukumoto R, Hayashi T, Oka D, Fujimoto N, Koide T. Case of prostate cancer associated with bisphosphonate-related osteonecrosis of the jaw followed by retropharyngeal abscess [Article in Japanese]. *Hinyokika Kyo*. 2013;59:587–91.

José Darío Sánchez López^{a,*}, Paolo Cariati^a, Ismael Rodríguez^b y Sebastián Carriel Araya^c

^a Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Complejo Hospitalario Universitario de Granada, Granada, España

^b Departamento de Cirugía Oral, Facultad de Odontología de la Universidad de Córdoba, Córdoba, Argentina

^c Departamento de Histología, Facultad de Medicina de Granada, Granada, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: josed.sanchez.sspa@juntadeandalucia.es (J.D. Sánchez López).

<https://doi.org/10.1016/j.reuma.2018.03.002>

1699-258X/ © 2018 Sociedad Española de Reumatología y Colegio Mexicano de Reumatología. y Elsevier España, S.L.U. All rights reserved. Todos los derechos reservados.