

Cavidad de Stafne de localización inusual en el sector anterior mandibular A Stafne's cavity with unusual location in the mandibular anterior area

Rodolfo Belmonte Caro ⁽¹⁾, María José Vélez Gutiérrez ⁽²⁾, Francisco Javier García De La Vega Sosa ⁽³⁾, Alberto García-Perla García ⁽⁴⁾, Pedro A. Infante Cossío ⁽⁵⁾, José María Díaz Fernández ⁽⁶⁾, Eusebio Torres Carranza ⁽⁶⁾

(1) Cirujano Oral y Maxilofacial. Médico Adjunto Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial HH.UU. "Virgen del Rocío" de Sevilla. Médico Estomatólogo

(2) Odontólogo. Master en Cirugía Bucal, Universidad de Sevilla

(3) Odontólogo. Práctica privada

(4) Cirujano Oral y Maxilofacial. Médico Adjunto Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial HH.UU. "Virgen del Rocío" de Sevilla

(5) Cirujano Oral y Maxilofacial. Médico Adjunto Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial HH.UU. "Virgen del Rocío" de Sevilla. Médico Estomatólogo. Prof. Asociado de Cirugía Bucal, Facultad Odontología de Sevilla

(6) Médico Interno Residente. Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial HH.UU. "Virgen del Rocío" de Sevilla. España

Correspondencia / Address:

Dr. Rodolfo Belmonte Caro

Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial. HH.UU. "Virgen del Rocío".

Avda Manuel Siurot s/n. Sevilla 41013. Tfno: 955012608

Teléfono personal: 954577836

E-mail: rbelmonte@interbook.net

Recibido / Received: 24-12-2003 Aceptado / Accepted: 9-05-2004

Indexed in:

-Index Medicus / MEDLINE / PubMed
-EMBASE, Excerpta Medica
-Indice Médico Español
-IBECs

Belmonte-Caro R, Vélez-Gutiérrez MJ, García De La Vega-Sosa FJ, García-Perla-García A, Infante-Cossío PA, Díaz-Fernández JM, Torres-Carranza E. A Stafne's cavity with unusual location in the mandibular anterior area. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2005;10:173-9.

© Medicina Oral S. L. C.I.F. B 96689336 - ISSN 1698-4447

RESUMEN

La típica cavidad de Stafne, localizada en el sector posterior de la mandíbula, es una entidad relativamente poco frecuente, pero cuando el defecto se sitúa en la región anterior mandibular, es bastante raro, habiéndose descrito hasta ahora sólo 36 casos en la literatura científica. La mayoría de estos defectos aparecen entre la quinta y la sexta décadas de la vida, están localizados en el área de caninos y premolares, y muestran también una predilección por el sexo masculino. El canal dentario inferior, uno de los hitos anatómico-radiológicos principales que ayudan al diagnóstico de la cavidad de Stafne en la zona posterior, raramente está presente anteriormente al agujero mentoniano. Por ello, por su apariencia radiográfica más variable que en el defecto posterior, por soler encontrarse superpuesta a los ápices de los dientes, y por la rareza de presentación en el sector anterior mandibular, es mucho más difícil establecer un diagnóstico definitivo de cavidad de Stafne en esta localización, y por tanto es más fácil que pueda haber un error en el diagnóstico, sobre todo inicialmente. Presentamos un nuevo caso, en un varón de 68 años, en el que el diagnóstico fue fortuito, y revisamos especialmente sus aspectos etiopatogénicos, clínicos, y de diagnóstico diferencial.

Palabras clave: Stafne, defecto glandular salival mandibular lingual anterior.

ABSTRACT

The typical Stafne's cavity, located on the posterior portion of the mandible, is a relatively uncommon entity. However, when the defect is located in the anterior region of the mandible, it is quite rare, having thus far been described in only 36 cases in the scientific literature. Most of these defects appear in the fifth and sixth decades of life, are localized to the area of the canines and premolars, and have a predilection for males. The inferior dental canal, one of the anatomical-radiographic landmarks that aid in the diagnosis of Stafne's cavity in the posterior region, is rarely present anterior the mental foramen. For this reason, because of its more variable radiographic appearance compared to the posterior defect, its tendency to be superimposed over the apices of the teeth, and the rarity of its localisation to the anterior mandible, it is much more difficult to establish a definitive diagnosis of a Stafne's cavity in this location. It is therefore more likely that a diagnostic error can occur, especially early on. We present a new case in a 68-year-old male in which the diagnosis was serendipitous, and we review in particular the aetiology and pathogenesis, clinical aspects, and differential diagnoses for this condition.

Key words: Stafne, anterior lingual mandibular salivary gland defect.

INTRODUCCION

Desde el estudio original de Stafne en 1942 (1), se han usado muy diversos términos para describir esta entidad, cuyo rasgo en común es su característica radiolucidez bien circunscrita en la zona del ángulo mandibular, por debajo del canal dentario inferior. Entre ellos, se han empleado como más comunes los de *cavidad* (o *defecto*) *ósea estática* o *latente*, el epónimo "*cavidad de Stafne*", y los términos *defecto aberrante de la glándula salival*, e *inclusión de la glándula salival en la mandíbula*. Entre sus denominaciones, la de *quiste de Stafne* es incorrecta, pues no se trata de un verdadero quiste, al carecer de revestimiento epitelial, prefiriéndose utilizar el término "cavidad" o "defecto" como más adecuados (2). En 1957, Richard and Ziskind (3) fueron los primeros en describir la aparición de una cavidad de Stafne en la región anterior de la mandíbula, asociándose con ella la presencia de la glándula sublingual; a esta cavidad la denominaron *tejido glandular salival aberrante en la mandíbula*. Más tarde, Buchner et al (4) prefirieron llamar a la cavidad de Stafne en el sector anterior "*defecto glandular salival mandibular lingual anterior*" (DGSMLA).

Nosotros sólo hemos encontrado hasta ahora 36 casos de DGSMLA descritos en la literatura científica (5,6). El propósito de este artículo es describir un nuevo caso, y resaltar su presentación radiográfica como un quiste radicular y sus peculiaridades respecto al diagnóstico de la entidad.

CASO CLINICO

Se trata un varón de 68 años, sin antecedentes médicos relevantes, que era revisado en nuestras consultas por una lesión radiolúcida paramandibular izquierda desde hacía unos 5-6 años, descubierta en una radiografía rutinaria y remitida por su dentista, que la había etiquetado de quiste radicular, en aparente relación con patología apical de los dientes adyacentes (dientes 33 y 34). Nosotros vimos que la lesión estaba en relación con los ápices dentarios, aunque éstos estaban levemente separados del borde ligeramente esclerótico de la lesión, y dado que era asintomática y no había variado de tamaño desde su diagnóstico inicial, decidimos revisarla anualmente. Debido a la pequeña imagen apical del 34 endodonciado (fig. 1) y a un crecimiento leve de la lesión tras la última revisión, y aunque seguía asintomática, se pensó más en que se trataba de un quiste radicular y se decidió realizar una quistectomía bajo anestesia local. Tras un abordaje vestibular y levantamiento de un colgajo mucoperiostico, se expuso la cortical externa mandibular y se abrió una ventana en ella, apareciendo inmediatamente la lesión, apreciándose entonces que ésta no tenía el aspecto quístico de sospecha diagnóstica inicial, sino un aspecto blando pero firme, y de color marrón-rojizo, pensando en este momento que podría corresponder a una tumoración con componente vascular (quiste óseo aneurismático, hemangioma, angioma cavernoso) o glandular salival. Durante la disección de la tumoración, comprobamos su aspecto glandular salival, viendo que estaba en continuidad con la glándula sublingual; se ligaron algunos vasos importantes perilesionales, y traccionando de la tumoración hacia el exterior, se expuso ésta en su profundidad (fig. 2), comprobándose que faltaba la cortical interna mandibular en unos

INTRODUCTION

Since the time of the original study by Stafne in 1942 (1), a wide variety of terms have been used to describe this disease entity, whose common sign is a characteristic well-circumscribed radiolucency in the area of the angle of the mandible below the inferior dental canal. Of these terms, some of the more common are *static* or *latent osseous cavity* (or *defect*), the eponym "*Stafne's cavity*," and the terms *aberrant defect of the salivary gland*, and *mandibular salivary gland inclusion*. Of its denominations, *Stafne's cyst* is incorrect since it is not a true cyst because it lacks epithelial lining, and the term "cavity" or "defect" is preferred and considered more appropriate (2). In 1957, Richard and Ziskind (3) were the first to describe the occurrence of a Stafne's cavity in the anterior region of the mandible, which was associated with the presence of the sublingual gland. They called this cavity *aberrant salivary gland tissue in the mandible*. Later, Buchner et al (4) opted to call Stafne's cavity in the anterior region an "*anterior lingual mandibular salivary gland defect*" (ALMSGD).

To this point, we have only found 36 cases of ALMSGD described in the scientific literature (5,6). The purpose of this paper is to describe a new case and point out its radiographic presentation as a radicular cyst and its peculiarities with respect to diagnosis.

CLINICAL CASE

This case involves a 68-year-old male with no relevant medical history, who was examined in our centre for a left paramandibular radiolucent lesion of 5-6 years duration, which was discovered on routine radiography and referred by his dentist, who had designated it a radicular cyst, with an apparent relationship to apical pathology of the adjacent teeth (teeth 33 and 34). We saw that the lesion was associated with the apices of the teeth, though the latter were slightly separated from the somewhat sclerotic border of the lesion. Since it was asymptomatic and had not changed in size since the initial diagnosis, we decided to examine it annually. Due to the small apical image of the endodontically treated 34 (fig. 1) and a slight growth of the lesion since the last examination, and even though it was still asymptomatic, it was believed to be a radicular cyst, and it was decided to perform cystectomy under local anaesthesia. Using a vestibular approach and elevation of a mucoperiosteal flap, the external mandibular cortex was exposed, and a window was opened in it. The lesion was immediately visible at this time, and it could be observed that it did not appear cystic as initially suspected. Rather, it appeared smooth but firm and reddish-brown, and at this time it was believed that it could be a tumour with a vascular (aneurismal bone cyst, hemangioma, cavernous angioma) or salivary gland component. While dissecting the tumour, we confirmed its salivary gland character, noting that it was continuous with the sublingual salivary gland. Some important perilesional vessels were ligated, and the tumour was pulled outward, being fully exposed (fig. 2), and it was observed that the internal mandibular cortex was lacking in an area of about 2x2cm. Having been completely exposed, the lesion was then clamped at its base and transected, with immediate ligation.

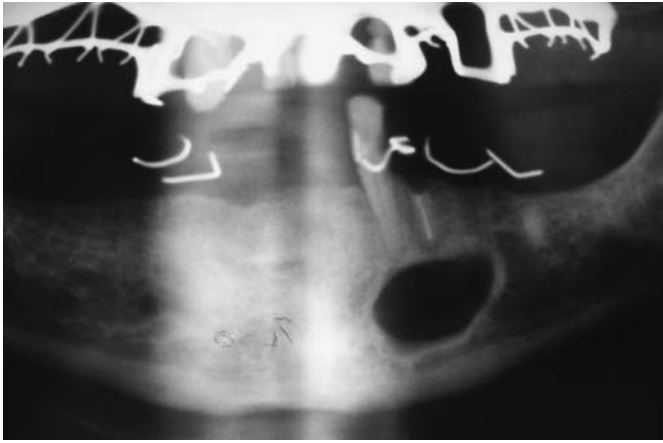


Fig. 1. Imagen radiolúcida en la radiografía panorámica, en la que se aprecian los bordes ligeramente escleróticos de la lesión, en relación con los ápices dentarios pero levemente separada de éstos, y especialmente con una imagen periapical del 34 endodonciado.
Radiolucent image on the panoramic radiograph, in which the slightly sclerotic borders of the lesion can be seen in relation with, though slightly separated from, the dental apices, and especially with a periapical image of the endodontically treated 34.

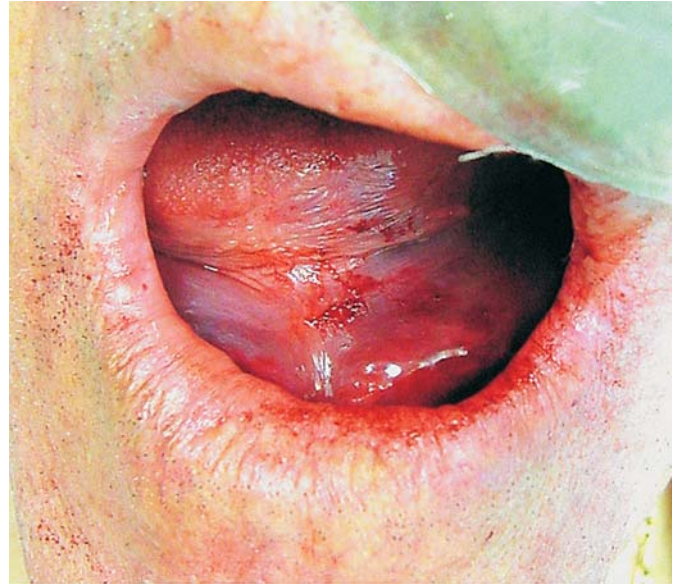


Fig. 3. Paciente con mascarilla de oxígeno. Se ve el gran hematoma del suelo de la boca que se produjo inmediatamente tras la extirpación de la lesión, y que levantó la lengua hasta hacerla tocar el paladar duro.
The patient with an oxygen mask. The large haematoma is visible on the floor of the mouth, which occurred immediately following excision of the lesion and elevated the tongue causing it to contact the hard palate.

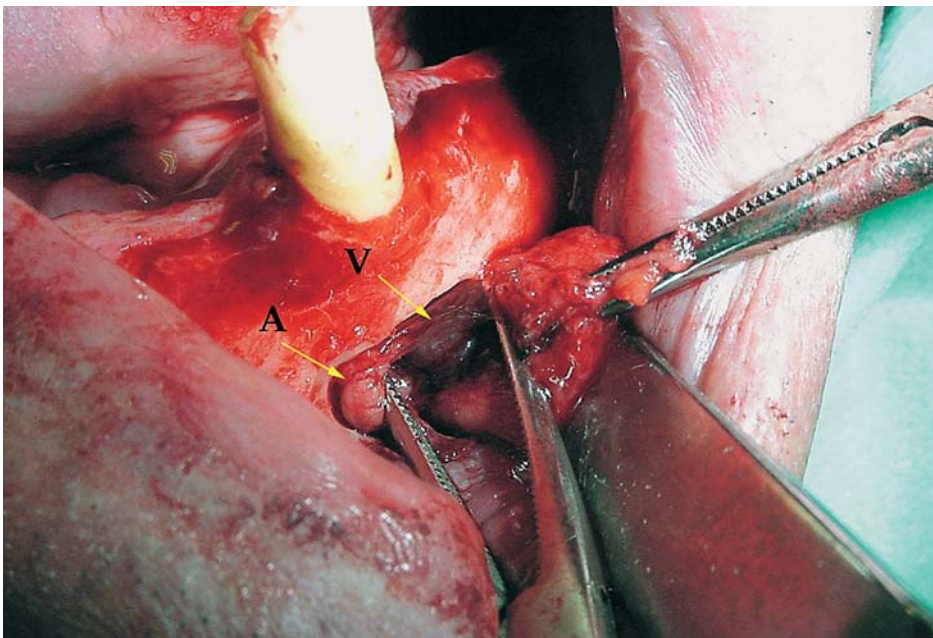


Fig. 2. Traccionando de la lesión, se está realizando su disección; a la izquierda de la ventana ósea, se aprecian como vasos perilesionales de grueso tamaño una arteria (A) y vena (V), vasos que hubo que ligar.
Applying traction to dissect the lesion; to the left of the osseous window, large perilesional vessels, an artery (A) and a vein (V), are visible. These vessels required ligation.

2 x 2 cm. Expuesta ya la lesión en su totalidad, para extirparla se procedió a clamparla en su base y a seccionarla, ligándola seguidamente, pero inmediatamente después, a pesar de haber realizado la ligadura, aconteció una hemorragia cataclísmica, que le produjo al paciente un cuadro vaso-vagal y un hematoma

However, immediately following this, in spite of the ligation, severe haemorrhage ensued, which caused a vasovagal reaction in the patient and resulted in a significant haematoma in the floor of the mouth and the neck at the submental level (fig. 3). The haemorrhage was contained by means of compression and

importante del suelo de la boca y del cuello a nivel submental (fig. 3). La hemorragia logró contenerse mediante compresión y taponamiento con Surgicel® (Ethicon Sarl, Neuchâtel, Suiza), pero hizo que el paciente debiera ingresarse hospitalariamente para su control y observación hasta el día siguiente. Resuelto este episodio, la curación cursó sin incidencias, siendo satisfactorio el control clínico del paciente al año de la intervención. El análisis histológico de la pieza extirpada mostró tejido glandular salival, por lo que el caso se trataba de una verdadera impronta de la glándula sublingual en la cortical interna mandibular, con reabsorción de ésta.

DISCUSION

La cavidad de Stafne en la zona posterior mandibular presenta una localización y aspecto radiográfico característicos, que la hacen fácilmente diagnosticable, apareciendo típicamente como una lesión radiolúcida unilocular, redondeada o elíptica, bien delimitada por una línea de hueso escleroso, y localizada entre el primer molar inferior y el ángulo mandibular, por debajo del canal dentario inferior (1). Raramente el defecto lingual puede ser palpado, y en ocasiones puede ser útil en el diagnóstico la sialografía de la glándula submandibular, al mostrar la distribución del contraste en la zona radiolúcida, ocupada habitualmente por tejido glandular submandibular (7). Estos defectos son generalmente asintomáticos y no progresivos, y por ello su tratamiento quirúrgico no está indicado de entrada, pero sí se recomienda su seguimiento radiográfico.

La mayoría de los DGSMLA se localizaron en la región premolar y canina, siempre anteriormente al primer molar, afectando muy pocos casos al área incisal. Los DGSMLA, a pesar de que algunos de los casos publicados afectaban a la región molar y tenían relación con el canal mandibular, se consideran una entidad bastante rara. Como en los defectos posteriores, su mayor incidencia se da entre la quinta y la sexta décadas de la vida (60%), con más del 80% de los casos en varones (5), son más frecuentemente unilaterales, y usualmente fueron descubiertos de forma casual, durante la realización de una radiografía rutinaria (intraoral o panorámica, y a veces una tomografía computarizada –TC- o un Dentascan), pues generalmente fueron asintomáticos, salvo en algunos casos en los que los pacientes presentaron un ligero dolor en la zona (8). En nuestro conocimiento, nuestro caso es el que ha sido diagnosticado en un paciente de mayor edad.

Radiográficamente, los DGSMLA aparecieron como una imagen radiolúcida circunscrita, ovoide o circular, y unilocular, aunque en algún caso fue de aspecto multilocular (9), localizados generalmente por debajo de los ápices dentarios radiculares o parcialmente superpuestos a ellos, semejando una lesión quística o un tumor odontogénico; sus bordes suelen estar bien definidos y ligeramente escleróticos, pero a veces fueron muy escleróticos o no bien definidos (4,5,8). El tamaño de las lesiones habitualmente varió entre 0,5 y 2 cm de diámetro mayor, habiéndose descrito sólo un defecto muy grande, de 9 cm (9). Ocasionalmente, estos defectos contactaban con las raíces adyacentes, semejando una lesión periapical (10), realizándose a menudo entonces tratamientos endodónticos de esos dientes, que fracasaron y llevaron a realizar un tratamiento quirúrgico. Y en

plugging with Surgicel® (Ethicon Sarl, Neuchâtel, Switzerland). However, this made it necessary for the patient to be admitted to the hospital for monitoring and observation until the following day. After this episode was resolved, healing occurred without complications, and clinical examination of the patient one year after intervention was satisfactory. Histologic analysis of the excised mass revealed salivary gland tissue. This was therefore a true case of imprinting of the sublingual salivary gland in the internal mandibular cortex, with resorption of the same.

DISCUSSION

Stafne's cavity in the posterior region of the mandible presents with a characteristic localisation and radiographic appearance, facilitating the diagnosis. It typically appears as a unilocular radiolucent rounded or elliptical lesion, which is well demarcated by a line of sclerotic bone and localises between the first lower molar and the angle of the mandible below the inferior dental canal (1). The lingual defect can rarely be palpated, and on occasions sialography of the submandibular salivary gland can be useful in diagnosis as it shows the distribution of contrast in the radiolucent zone, which tends to be occupied by submandibular salivary gland tissue (7). These defects are generally asymptomatic and non-progressive. For this reason, immediate surgical treatment is not indicated. Rather, radiographic monitoring is recommended.

Most cases of ALMSGD localized to the premolar and canine region, always anterior to the first molar, with very few cases affecting the incisors. ALMSGD is considered to be quite rare, in spite of cases that have been published of lesions affecting the molar region associated with the mandibular canal. As with posterior defects, the highest incidence occurs in the fifth and sixth decades of life (60%), with greater than 80% of cases in males (5). They are most commonly unilateral and were usually found serendipitously during routine radiography (intraoral or panoramic, and sometimes computed tomography (CT) or a Dentascan), as they were generally asymptomatic except in a few cases in which the patients presented with mild pain in the region (8). To our knowledge, our case was diagnosed in the oldest patient yet.

Radiographically, ALMSGD have appeared as a unilocular, ovoid or circular, and circumscribed radiolucent image, though in one case it appeared multilocular (9). They have generally localised to below the radicular apices of the teeth or partially superimposed on them, appearing similar to a cystic lesion or an odontogenic tumour. The borders tended to be well defined and slightly sclerotic, though some have been very sclerotic and poorly defined (4,5,8). The size of the lesions has generally varied between 0.5 and 2cm at the greatest diameter, with only one very large defect of 9cm being described (9). These defects have occasionally contacted the adjacent roots, similar to a periapical lesion (10), and endodontic treatments were often performed on these teeth, which failed, thus leading to surgical treatment. In a few cases, the defects localised to an edentulous area, where tooth extraction had been performed previously, and appeared similar to a residual cyst (5).

Three types of Stafne's bone cavities have been described (11),

algunos casos, los defectos se localizaban en un área edéntula, donde previamente se había realizado una exodoncia, semejando un quiste residual (5).

Se han descrito tres tipos de cavidad ósea de Stafne (11), según la relación con la cortical bucal radiológicamente. En el tipo I, la cavidad no alcanza la cortical bucal. En el tipo II, la alcanza pero sin expandirla. Y en el tipo III, expande la cortical ósea bucal. Se ha propuesto también otra clasificación en tres categorías, según el valor densitométrico de su contenido (11): la categoría F indica densidad grasa; la categoría S, densidad de tejido de partes blandas; y la categoría G, de tejido glandular en su interior. Nuestro paciente correspondería por tanto a un tipo II y categoría G.

En el examen histopatológico la inmensa mayoría de estos defectos contenía tejido glandular salival normal o inflamado probablemente procedente de la glándula sublingual, pues en la mayoría de los casos, como el nuestro, la cavidad estaba en conexión con la glándula salival adyacente, implicando un defecto más o menos amplio en la cortical lingual mandibular (5); pero en algunos casos el defecto contenía tejido conectivo adiposo o fibroso, tejido linfóide, tejido muscular o vascular, e incluso se ha encontrado vacío (4,8,12).

La patogénesis de este defecto óseo lingual sigue sin estar totalmente aclarada. Son dos las hipótesis más aceptadas: A) Stafne (1) y otros autores (7,12,13) pensaron que podría tratarse de un defecto congénito, por un atrapamiento de una porción glandular durante el desarrollo y osificación mandibular. Seward (7) consideró que la constancia en la posición, la uniformidad en la apariencia, la aparición ocasional bilateral, y el poco cambio que presenta con el tiempo sustentan esta hipótesis. La principal objeción a esta teoría, basándose en casos con radiografías previas normales, es que el defecto es mucho más frecuente en adultos que en niños, lo que sugiere que su desarrollo es más tardío, tras la osificación de la mandíbula (14). A favor de la teoría, en cambio, hay casos en los que se ha visto que dichos defectos se habían desarrollado lentamente. B) Otra hipótesis es que el defecto óseo se desarrolla más tardíamente, como resultado de una presión crónica ejercida localmente por la glándula submandibular en los defectos posteriores y por la sublingual en los anteriores (13), que produciría una erosión y reabsorción. Esto se fundamentaría en la tardía aparición radiográfica y la detección del defecto en la edad media de la vida. Algunos autores piensan que se produciría una hipertrofia glandular compensadora causada por una infiltración linfocítica y una reducida eficiencia secretora, las cuales aumentan con la edad; otros piensan que se produciría un crecimiento glandular formando parte del crecimiento somático general (8,14).

Al contrario que el defecto posterior, el DGSMMLA presenta mayor dificultad en su diagnóstico, especialmente por tener una apariencia radiográfica mucho más variable y porque el canal dentario inferior no está presente en la zona anterior mandibular, pudiendo confundirse por ello más fácilmente con otras lesiones radiolúcidas uniloculares, especialmente con la patología quística.

Cuando se sospecha este DGSMMLA, han de realizarse exámenes adicionales para confirmar el diagnóstico, que sólo puede ser de certeza histológicamente. Normalmente no se recomienda

according to the radiographic relationship with the buccal cortex. In type I, the cavity does not reach the buccal cortex. In type II, it reaches it without expanding it. In type III, the buccal osseous cortex is expanded. Another classification in three categories has also been proposed based on the density value of its contents (11): category F indicates fat density, category S soft tissue density, and category G glandular tissue on the inside. Our patient would correspond to type II and category G.

On histopathologic examination, the vast majority of these defects contained normal or inflamed salivary gland tissue, which probably corresponded to the sublingual salivary gland, since in most cases, such as ours, the cavity was connected to the adjacent salivary gland, resulting in a rather large defect in the mandibular lingual cortex (5). However, in some cases the defect contained adipose or fibrous connective tissue, muscular or vascular tissue, or has even been found to be empty (4,8,12).

The pathogenesis of this lingual osseous defect is not yet fully understood. Two hypotheses are most commonly accepted: A) Stafne (1) and other authors (7,12,13) believed that it could be related to a congenital defect due to entrapment of a portion of the glandular tissue during mandibular development and ossification. Seward (7) believed that the consistency in location, uniformity in appearance, occasional bilateral occurrence, and the small amount of change with time support this hypothesis. The main objection to this theory, based on cases with previous normal radiographs, is that the defect is much more common in adults than in children, which suggests that it develops later in life, after ossification of the mandible (14). On the other hand, the theory is supported by the fact that there are cases in which the defects have been seen to develop slowly. B) Another hypothesis is that the osseous defect develops more slowly as a result of locally exerted chronic pressure from the submandibular gland in posterior defects and from the sublingual gland in anterior defects (13), which would result in erosion and resorption. This would be based on the delayed radiographic appearance and the detection of the defect in middle-aged individuals. Some authors believe that a compensatory glandular hypertrophy would occur as a result of lymphocytic infiltration and reduced secretory efficiency, which both increase with age. Others believe glandular growth would occur as a part of general somatic growth (8,14).

Unlike the posterior defect, ALMSGD is more difficult to diagnose, especially because of its much more variable radiographic appearance and because the inferior dental canal is not present in this portion of the mandible. This makes it easier to confuse this lesion with other unilocular radiolucent lesions, particularly those with cystic pathology.

When ALMSGD is suspected, additional examinations should be done to confirm the diagnosis, which can only be definitively confirmed histologically. Sialography is not normally recommended since it provides little information on the sublingual gland (8). CT (11) or magnetic resonance imaging (MRI) are preferred since axial radiographic sections can aid in diagnosis and planning of a surgical approach (9). The Dentascan CT, which is easy to perform, is suggested as the most appropriate non-invasive diagnostic and monitoring modality, especially when image reconstruction is performed (10). MRI does not

realizar una sialografía, pues aportaría pocos datos en la glándula sublingual (8). Se prefieren la tomografía computerizada –TC- (11) o la resonancia magnética –RM-, pudiendo ayudar al diagnóstico y al planteamiento del abordaje quirúrgico la realización de cortes radiográficos axiales (9). El Denta-scan TC, de fácil realización, se sugiere como la modalidad de diagnóstico y seguimiento no invasivo más adecuado, especialmente cuando se realiza reconstrucción de imágenes (10). La RM no expone al paciente a radiaciones ionizantes, y puede evitar el uso de material de contraste o la incomodidad de la sialografía, pero es más costosa y se producen artefactos por la presencia de metales (2).

En el diagnóstico diferencial podemos incluir como entidades más significativas (4,8,10,15) el quiste radicular, el quiste residual, el quiste odontogénico no inflamatorio, el quiste lateral periodontal, y el queratoquiste odontogénico, sin olvidar otras muchas lesiones, como el ameloblastoma y otros tumores odontogénicos, algunos tumores benignos, e incluso metástasis óseas. También cabe diferenciar los DGSMMLA de las concavidades óseas labiales, presentes usualmente en las regiones anteriores de los maxilares y en las que el hueso está adelgazado y aparece más radiolúcido, pero estas últimas son fácilmente palpables. Establecido ya el diagnóstico de sospecha, se admite que no es necesario ningún tratamiento quirúrgico para la cavidad de Stafne, sino sólo un seguimiento radiográfico, tanto en la variante posterior como en la anterior; y se admite que la exploración quirúrgica y la biopsia deberían ser realizadas sólo cuando el diagnóstico es incierto o cuando excepcionalmente se sospeche una patología más grave en los casos atípicos. Pero la confusión diagnóstica inicial puede hacer que se realicen tratamientos innecesarios, como tratamiento endodóntico, trefinado óseo, y exploración ósea (10). Si se trata quirúrgicamente, se aconseja emplear un abordaje de la lesión levantando un colgajo mucoperiostico lingual, que mejora el acceso a la región, reduce el trauma operatorio y evita muchas veces actuar inútilmente sobre la cortical vestibular. Con el propósito de restablecer el defecto óseo, algunos autores sugieren aplicar técnicas de regeneración ósea guiada (8). En nuestro paciente, el control radiológico postoperatorio al año mostró una menor radiotransparencia a nivel de la lesión, lo que nos hace pensar que se trate probablemente de hueso neoformado; pero debido a que el paciente rechazó una reentrada quirúrgica, no tenemos evidencia histológica de ello.

Nuestro caso se presentó fortuitamente. Al pensar inicialmente que se trataba de un quiste radicular, no se dispuso preoperatoriamente de un estudio radiológico más amplio (especialmente cortes de TC) que mostrara el defecto cortical lingual mandibular. El hecho de haber podido acceder bien a la lesión a través del abordaje vestibular, como ha ocurrido en otros casos descritos (5), y el no tener un diagnóstico de certeza de que se trataba de tejido glandular, hizo que no realizásemos además un abordaje lingual mandibular, que hubiera ofrecido mejores campo visual y control del proceso. Hay que remarcar, como otros autores (6), la necesidad de realizar ante radiolucencias mandibulares una minuciosa historia y examen clínico al paciente, y si se sospecha la lesión, las pruebas complementarias adecuadas, pues su abordaje puede entrañar un riesgo importante si no se ha sido

expose the patient to ionising radiation and avoids the use of contrast material and the discomfort of sialography. However, it is more expensive and artefacts result from the presence of metals (2).

The most important differential diagnoses that we can consider (4,8,10,15) include radicular cyst, residual cyst, non-inflammatory odontogenic cyst, lateral periodontal cyst, and odontogenic keratocyst. Additionally, many other lesions should not be forgotten such as ameloblastoma and other odontogenic tumours, some benign tumours, and even osseous metastasis. ALMSGD should also be differentiated from labial osseous concavities, which are usually present in the anterior region of the maxilla, are characterised by thinning of the bone, appear more radiolucent, and are easily palpable.

Once a suspected diagnosis is established, surgical treatment is not necessary for Stafne's cavity. Rather, radiographic monitoring is indicated for both the posterior and the anterior forms. Surgical exploration and biopsy should only be performed when the diagnosis is uncertain or in exceptional cases when an unusually severe pathology is suspected. Initial diagnostic confusion can result in unnecessary treatment such as endodontic treatment, osseous trephination, and osseous exploration (10). If treated surgically, it is recommended to make the approach to the lesion by elevating a lingual mucoperiosteal flap, which provides better access to the region, reduces surgical trauma, and often avoids unnecessary manipulating of the vestibular cortex. In order to re-establish the osseous defect, some authors suggest using guided osseous regeneration techniques (8). In our patient, postoperative radiographic follow up at one year revealed less radiolucency at the level of the lesion, which we believe is due to newly-formed bone. However, because the patient declined further surgical intervention, we do not have histologic evidence of this.

Our case presented serendipitously. It was initially believed to be a case of a radicular cyst, so further radiographic examination was not performed preoperatively (particularly CT sections) to show the mandibular lingual cortical defect. Because adequate access to the lesion was possible through the vestibular approach, as has been described in other cases (5), and because we did not have a definitive diagnosis of glandular tissue involvement, we did not perform a mandibular lingual approach, which would have offered a better visual field and control of the process. It is important to emphasise, as other authors have (6), the need to obtain a thorough history and clinical examination of the patient in cases of mandibular radiolucencies. Furthermore, when such a lesion is suspected, appropriate complementary testing should be performed, since the approach to this lesion can carry a significant risk if sufficient caution is not exercised. This was the situation in our case in which profuse haemorrhage occurred, though it was subsequently controlled without extending the initial surgical incision.

Although ALMSGD are rare in the literature, we believe, as do other authors (8), that this condition is probably much more common in part because many of these lesions are merely normal anatomic variants and are only observed radiographically when the defect is extensive. Moreover, since this lesion is not generally considered, many would make a chance diagnosis

suficientemente precavido, como sucedió en nuestro caso al presentarse una hemorragia profusa, aunque finalmente logró controlarse sin ampliar el abordaje quirúrgico inicial.

Aunque los DGSMMLA son raros en la literatura, pensamos, como otros autores (8), que probablemente sean mucho más frecuentes, por una parte porque muchos de ellos no sean más que una variante anatómica normal y sólo se observen radiológicamente cuando el defecto es extenso; y por otra parte, porque al no pensarse habitualmente en ellos, muchos se diagnosticarían de modo casual al examinar al paciente o incluso al intervenirlos quirúrgicamente, como ha sucedido también con otros casos publicados (5), y no se publicarían por no disponer de la documentación necesaria debido a su presentación inesperada.

upon examination of the patient or even during surgery, as has occurred in some published cases (5), and would not publish the finding due to a lack of the necessary documentation because of the unexpected presentation.

BIBLIOGRAFIA/REFERENCES

1. Stafne EC. Bone cavities situated near the angle of the mandible. *J Am Dent Assoc* 1942;29:1969-72.
2. Branstetter BF, Weissman JL, Sheldon BK. Imaging of a Stafne bone cavity: what MR adds and why a new name is needed. *Am J Neuroradiol* 1999; 20:587-9.
3. Richard EL, Ziskind J. Aberrant salivary gland tissue in mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1957;10:1086-90.
4. Buchner A, Carpenter WM, Merrell PW, Leider AS. Anterior lingual mandibular salivary gland defect. Evaluation of twenty-four cases. *Oral Surg Oral Med Oral Patol* 1991;71:131-6.
5. de Courten A, Kuffer R, Samson J, Lombardi T. Anterior lingual mandibular salivary gland defect (Stafne defect) presenting as a residual cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Patol Oral Radiol Endod* 2002;94:460-4.
6. Dorman M, Pierse D. Ectopic salivary gland tissue in the anterior mandible: a case report. *Br Dent J* 2002;193:571-2.
7. Seward GR. Salivary gland inclusions in the mandible. *Br Dent J* 1960; 108:321-5.
8. Apruzzese D, Longoni S. Stafne cyst in an anterior location. *J Oral Maxillofac Surg* 1999; 57:333-8.
9. Hayashi Y, Kimura Y, Nagumo M. Anterior lingual mandibular bone concavity. Report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1984;57:139-42.
10. Katz J, Chaushu G, Rotstein I. Stafne's bone cavity in the anterior mandible: a possible diagnostic challenge. *J Endod* 2001;27:304-7.
11. Ariji E, Fujiwara N, Tabata O, Nakayama E, Kanda S, Shiratsuchi Y, et al. Classification based on outline and content determined by computed tomography. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1993;76:375-80.
12. Salman L, Leffler M, Reddi T, Yamane G, Chaudry A. Stafne's bone (defect) simulating dentigerous cyst of the mandible. *J Oral Med* 1986;41:239-41.
13. D'Eramo EM, Poidmore JS. Developmental submandibular gland defect of the mandible. Review of the literature and report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1975;39:14-9.
14. Sandy JR, Williams DM. Anterior salivary gland inclusion in the mandible: pathological entity or anatomical variant ?. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1981; 19:223-9.
15. Wood NK, Goaz PW. Solitary cystlike radiolucencies not necessarily contacting teeth. In: Wood NK, Goaz PW, eds. *Differential diagnosis of oral and maxillofacial lesions*. 5th ed. St. Louis: Mosby-Year Book, Inc; 1997. p. 318.