

Tumor odontogénico adenomatoideo. Reporte de un caso.

Adenomatoid odontogenic tumor. Report of a case.

Sebastián Bressan,* Analia Contreras Lafuente,** Bertha Valdovinos Zaputovich,*** María Susana Briend,+
Sássari Sandoval,++ Liset Eliana Osnaghi Díaz Colodrero+++

RESUMEN

El tumor odontogénico adenomatoide (TOA) es una lesión benigna, infrecuente, clasificada por la OMS dentro de los tumores odontogénicos con participación del ectomesénquima que muestra una morfología histológica muy peculiar. Esta entidad patológica es de baja prevalencia, representa 0.1% de los tumores y quistes de los maxilares con raras recidivas. Su frecuencia de aparición es más común en pacientes jóvenes, generalmente mujeres, de mayor aparición en maxilar superior, asintomático, asociado a dientes sin erupcionar (principalmente caninos) que plantea diagnósticos diferenciales entre otras lesiones de mayor agresividad como el quiste dentífero y el ameloblastoma. Se presenta el caso de una paciente de nueve años de edad con lesión tumoral en el sector del maxilar superior izquierdo de 40 días de evolución. Clínicamente hay ausencia del órgano dentario número 23. Se indica la realización de una radiografía panorámica, en la cual se observa la presencia del órgano dental 23 en el piso de órbita del maxilar superior izquierdo. Se procede a la remoción quirúrgica con diagnóstico presuntivo de quiste dentífero, se biopsia el total de la lesión, con diagnóstico definitivo por histopatología de TOA con buena evolución clínica odontológica.

Palabras clave: Pediatría, neoplasia epitelial, tumor odontogénico, adenomatoide.

ABSTRACT

The adenomatoid odontogenic tumor (TOA) is a rare, uncommon, WHO-classified lesion in odontogenic tumors with ectomesenchyma, which shows a very peculiar histological morphology. This pathological entity is of low prevalence representing 0.1% of the tumors and cysts of the jaws with rare recurrences. Its frequency of appearance is more common in young patients, generally females, of greater presentation in the upper jaw, asymptomatic, associated with unerupted teeth (mainly canines) that presents differential diagnoses among other more aggressive lesions such as dentigerous cyst and ameloblastoma. We present the case of a nine-year-old patient with tumor lesion in the left upper jaw of 40 days of evolution. Clinically there is absence of the tooth 23. A panoramic radiograph is indicated, in which the presence of the tooth 23 is observed in the orbital floor of the upper left jaw. Surgical removal is performed with a presumptive diagnosis of dentigerous cyst; the total of the lesion was biopsied, with definitive diagnosis by histopathology of TOA with good odontological clinical evolution.

Key words: Pediatrics, epithelial neoplasia, odontogenic tumor, adenomatoid.

* Odontólogo Especialista. Auxiliar docente de Primera Categoría en la Cátedra de Cirugía I, Universidad Nacional del Nordeste (UNNCA). Servicio de Cirugía y Traumatología Buco-Maxilofacial del Hospital Juan Pablo II.

** Odontólogo Especialista. Servicio de Cirugía y Traumatología Buco-Maxilofacial del Hospital Juan Pablo II.

*** Médica Especialista en Anatomía Patológica, Mgter. en Oncología Molecular, Jefa del Servicio de Anatomía Patológica del Hospital Juan Pablo II, Profesor Titular de la Cátedra de Anatomía Patológica, Facultad de Medicina, Profesor Titular de la Cátedra de Histología, Facultad de Odontología, UNNCA.

+ Médico Especialista en Anatomía Patológica, Mgter. en Oncología Molecular, Jefa del Servicio de Anatomía Patológica, Profesor Titular de la Cátedra de Anatomía Patológica, Facultad de Odontología, UNNCA.

++ Médico Especialista en Anatomía Patológica, Jefa del Servicio de Anatomía Patológica del Hospital Juan Pablo II.

+++ Becaria de Investigación de Postgrado, Secretaria General de Ciencia y Técnica, Docente adscripta de la Cátedra de Anatomía Patológica, Facultad de Odontología, UNNCA.

Corrientes, Argentina.

INTRODUCCIÓN

El tumor odontogénico adenomatoide representa de 3 a 7% del total de los tumores odontogénicos y sólo cerca de 750 casos se han reportado en la literatura. A pesar de la evidencia de que las células tumorales son derivadas del epitelio del órgano del esmalte, se ha sugerido que la lesión se origina de los remanentes de la lámina dental. Los tumores odontogénicos adenomatoideos se limitan a pacientes jóvenes y dos tercios de todos los casos son diagnosticados en pacientes de 10 a 19 años de edad. Tienden a aparecer en la porción anterior de la mandíbula y maxilar y están relacionados con el canino no erupcionado. Los pacientes femeninos son afectados dos veces más que los masculinos.¹

Descrito por primera vez en 1907 por Dreiblat como adenoameloblastoma,² fue también denominado como tumor adenomatoide ameloblástico, si bien Philipsen y Birn³ propusieron en 1969 el término TOA (tumor odontogénico adenomatoideo) indicando que no se trataba de una variedad de ameloblastoma, esta denominación fue aceptada en la primera clasificación de tumores odontogénicos de la OMS establecida en 1971.⁴

El término TOA es sin duda más idóneo, puesto que estos tumores son claramente benignos, a diferencia de los ameloblastomas, con muy baja tendencia a la recidiva tumoral, lo que hace innecesario realizar tratamientos quirúrgicos amplios o agresivos y sólo está indicado un curetaje simple tumoral en conjunto con la extirpación del diente asociado.

Se han descrito tres formas o subvariedades clínicas teniendo en cuenta su ubicación, todas con histología similar: la forma folicular (que representa 73% de los TOA) con una localización central intraósea que se muestra como un área quística unilocular de carácter radiolúcido en relación con un diente no erupcionado o impactado (generalmente el canino), simulando la imagen de un quiste dentífero; la forma extrafolicular (24%) de localización central, pero sin relación con una estructura dentaria y que puede confundirse con quistes periapicales u otras lesiones quísticas y tumorales de los maxilares y por último la forma periférica, la más infrecuente (3%) que afecta la mucosa gingival y que a menudo es calificada preoperatoriamente como «épusis fibroso» o fibroma gingival.⁵

Su aspecto histológico es peculiar y característico, presenta varios patrones celulares, se observan células basofílicas de núcleos elongados o fusiformes que forman nódulos arremolinados. En otras circunstancias muestra células cilíndricas con núcleos polarizados, conformando estructuras pseudoductales o glanduliformes con secre-

ción eosinófila en su interior que le dan su denominación. Entre las células epiteliales es frecuente detectar cantidades variables de material eosinófilo amorfo, referido por algunos autores como «gotas eosinófilas». De forma ocasional pueden aparecer calcificaciones esféricas interpretadas como formación de esmalte abortivo, que explican las imágenes radiológicas de tipo mixto en esta clase de tumores, así como la presencia de grupos celulares que recuerdan la estructura del tumor odontogénico epitelial calcificante, en los que puede llegar a formarse un material extracelular eosinófilo de aspecto amiloideo.⁶ Se ha descrito pigmentación de melanina en células odontógenas y en el estroma.

CASO CLÍNICO

Se presenta a la guardia del Hospital Pediátrico Juan Pablo II una paciente de nueve años de edad sin antecedentes clínicos de interés, oriunda de la ciudad de Paso de los Libres. El motivo de la consulta radicaba en una asimetría facial producto de una tumoración en la zona superior izquierda del maxilar (*Figura 1*).

En la inspección clínica se aprecia el aumento de volumen de esta zona del maxilar con sintomatología dolorosa a la palpación y zonas crepitantes.

En la radiografía panorámica se observa el canino superior izquierdo (diente 23) retenido a nivel del piso orbitario rodeado de una zona radiolúcida, por lo cual se indica realización de tomografía computarizada (TC). En la TC se evidencia una zona radiolúcida bien circunscripta que contiene al canino superior retenido en la cercanía del piso orbitario y zonas con finas calcificaciones adyacentes (*Figura 2*).

La paciente es derivada a la Unidad de Cirugía Maxilofacial Infantil para su intervención quirúrgica con diagnóstico preoperatorio de quiste dentífero. El tratamiento quirúrgico consistió en la extirpación del quiste, desbridamiento de la cavidad ósea y extracción del canino incluido bajo anestesia general. Se procedió a incisión intraoral de longitud suficiente para exponer toda la zona involucrada, seguida de la disección subperióstica y el acceso dentro del seno maxilar. Se utilizó el tipo de acceso Caldwell-Luc, se hizo enucleación mediante odontectomía incluyendo la cápsula quística. Posteriormente se rellenó la cavidad con hueso bovino (Bio-Oss), siendo la evolución postquirúrgica satisfactoria. El material extraído fue enviado para análisis anatomopatológico con el protocolo correspondiente (*Figura 3*).

La pieza quirúrgica obtenida a través del desbridamiento comprendía varios fragmentos irregulares de co-



Figura 1.

Se observa aumento de volumen en región geniana izquierda indurada y asintomática.

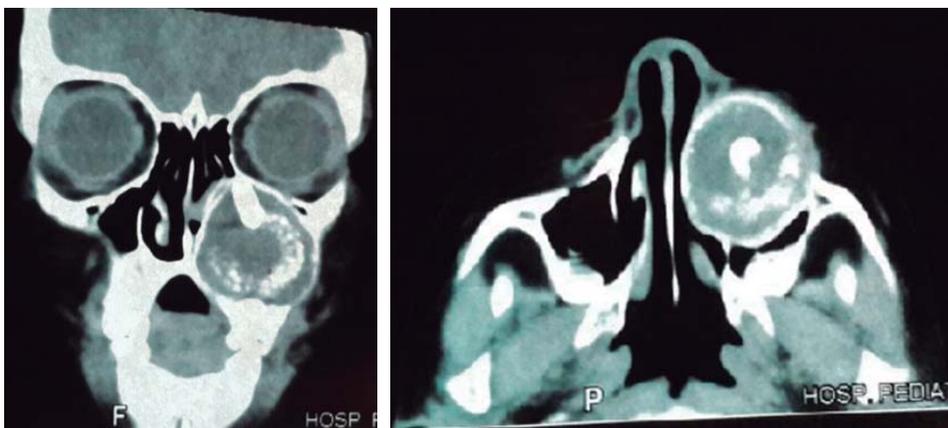


Figura 2.

En la TC se evidencia una zona radiolúcida bien circunscrita, en la que el canino superior retenido se presenta en cercanía del piso de la órbita y con zonas finas de calcificaciones adyacentes.

loración grisácea de consistencia blanda, que agrupados medían 0.8 x 0.7 cm y un canino (0.9 x 0.5 cm) producto de la exodoncia. El estudio histológico mostró una estructura dentaria sin alteraciones, acompañada de fragmentos de tejido fibroso correspondientes a la cápsula, en cuyo interior se apreciaban numerosos nidos sólidos de elementos epiteliales de aspecto odontogénico dispuestos en formaciones nodulares sólidas con una disposición celular arremolinada. Los elementos que conformaban estas estructuras eran de morfología basaloide con núcleos monomorfos, ovales o fusiformes, algo hiper cromáticos, aunque sin evidencia de atipias ni actividad mitótica. Mezclados con estas estructuras, aparecían formaciones pseudoglandulares, algunas de aspecto tubular con un

revestimiento de células cilíndricas, homogéneas y de núcleos con frecuencia polarizados hacia su base. A nivel intercelular y de forma dispersa aparecían pequeñas esferulas basofílicas calcificadas así como áreas de contorno irregular de depósitos amorfos e hialinos (Figura 4). El diagnóstico fue tumor odontogénico adenomatoide de tipo folicular asociado a la retención del diente canino.

DISCUSIÓN

El TOA es un tumor benigno raro en los maxilares, de origen odontogénico, a menudo se confunde clínicamente con otras entidades como el quiste dentífero, debido a la asociación de ambos a la corona de un diente retenido.^{7,8}

A. Central (intraóseo)

- Folicular: (dentígero) cuando el tumor está asociado a la corona de un diente retenido, fundamentalmente con el canino superior; representa 70% de los casos. El diagnóstico presuntivo más común es de quiste dentígero
- Extrafolicular: cuando el tumor no está relacionado con la corona de un diente retenido. El diagnóstico presuntivo más frecuente se hace con quiste residual, glóbulo maxilar o periodóntico lateral, en dependencia de la localización intraósea de la lesión

B. Periférico (extraóseo)

- En esta variante a menudo se encuentra un diagnóstico clínico presuntivo de fibroma periférico, granuloma periférico de células gigantes o granuloma piógeno

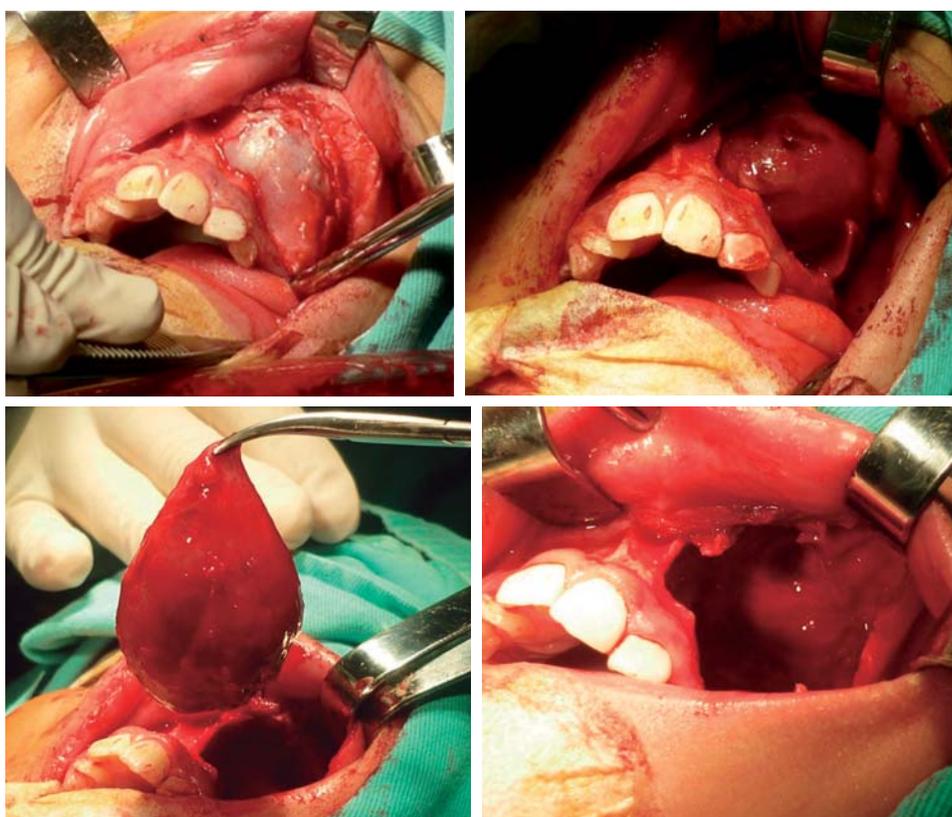


Figura 3.

Dissección subperióstica y acceso dentro del seno maxilar. Acceso utilizado tipo Caldwell-Luc, enucleación mediante odontectomía incluyendo la cápsula quística.

En el año 1991 Philipsen et al.⁹ realizaron una clasificación del TOA en tres variantes de acuerdo con los hallazgos clínicos y radiográficos de la lesión:

De acuerdo con Philipsen el tipo extrafolicular del TOA puede ubicarse en cuatro diferentes lugares: intraóseo sin relación con órgano dentario retenido, intrarradi-

cular, periapical y en tercio medio radicular; las variantes folicular y extrafolicular ocurren en 97% de todos los TOA y de éstos 73% son de tipo folicular.^{10,11}

La valoración clínica completa de los pacientes, así como la incidencia, su relación con los órganos dentarios no erupcionados, principalmente el canino maxilar, el crecimiento lento, asintomático, sin antecedentes trau-

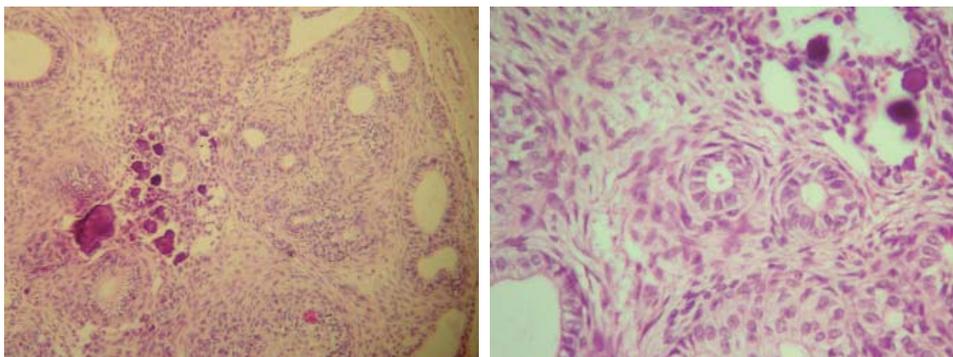


Figura 4.

Microfotografía H&E, 100x, lesión bien circunscrita por una cápsula constituida por proliferación epitelial que forma estructuras sólidas y de aspecto tubular con zonas calcificadas.



Figura 5.

Evolución de la paciente a los 12 meses de tratamiento.

máticos o infecciosos en el área afectada al igual que su tamaño, el cual generalmente no excede de 3 cm proporcionan una ayuda importante para complementar su diagnóstico diferencial.^{12,13}

Este tumor es conocido como el tumor de los «dos tercios», pues aparece con mayor frecuencia en la segunda y tercera décadas de la vida, 2/3 de los casos se presentan en la zona anterior del maxilar, 2/3 ocurre en el sexo femenino y 2/3 está asociado a un diente retenido, usualmente el canino. Todo esto similar a lo observado en el caso que presentamos.

Aunque es común en la zona anterior del maxilar superior, se han reportado casos de TOA localizado en la mandíbula entre las raíces del canino y el primer premolar. Desde el punto de vista histológico en ocasiones puede mostrar áreas del tumor odontogénico epitelial calcificante, rasgo no evidente en este caso.^{5,14}

El tratamiento de elección es la cirugía conservadora, debido a que el TOA es una lesión benigna, bien encapsulada y poco agresiva.

La recurrencia es rara.¹⁴ En estos casos de defectos postquirúrgicos en la integridad ósea pueden combinarse con materiales biocompatibles como hidroxiapatita, hueso liofilizado o regeneración tisular guiada. En el caso presentado se eligió un xenoinjerto para el relleno óseo debido a la ubicación y tamaño del defecto óseo consecuente.

CONCLUSIÓN

Se presentó un caso de una paciente con un tumor odontogénico adenomatoide, lesión poco frecuente. Se analizaron los estudios anatomopatológicos que confirmaron el diagnóstico de tumor odontogénico adenomatoide, el cual es importante diferenciar de un quiste dentígero o de un ameloblastoma unikuístico, sobre todo en cuanto a su tratamiento y pronóstico. La evolución clínica e imagenológica de la paciente fue muy buena, lo que sugiere la acertada terapéutica de la resección tumoral conservadora (Figura 5).

BIBLIOGRAFÍA

1. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Oral and maxillofacial pathology. 3rd edition. Saunders Elsevier; 2009. pp. 713-715.
2. Lucas RB. Pathology of tumors of the oral tissues. Edinburgh: Scotland Churschill-Livingstone; 1984. p. 66.
3. Philipsen HP, Birn H. The adenomatoid odontogenic tumour. Ameloblastic adenomatoid tumour or adeno-ameloblastoma. Acta Pathol Microbiol Scand. 1969; 75 (3): 375-398.
4. Pindborg JJ, Kramer IRH. WHO histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts and allied lesions. Geneva: 1971.
5. Philipsen HP, Reichart PA, Zhang KH, Nikai H, Yu QX. Adenomatoid odontogenic tumor: biologic profile based on 499 cases. J Oral Pathol Med. 1991; 20 (4): 149-158.
6. Leon JE, Mata GM, Fregnani ER, Carlos-Bregni R, de Almeida OP, Mosqueda-Taylor A et al. Clinicopathological and immunohistochemical study of 39 cases of adenomatoid odontogenic tumour: a multicentric study. Oral Oncol. 2005; 41 (8): 835-842.
7. el-Labban NG. The nature of the eosinophilic and laminated masses in the adenomatoid odontogenic tumor: a histochemical and ultrastructural study. J Oral Pathol Med. 1992; 21 (2): 75-81.
8. Poulson TC, Greer RO Jr. Adenomatoid odontogenic tumor: clinicopathologic and ultrastructural concepts. J Oral Maxillofac Surg. 1983; 41 (12): 818-824.
9. Philipsen HP, Samman N, Ormiston IW, Wu PC, Reichart PA. Variants of the adenomatoid odontogenic tumor with a note on tumor origin. J Oral Pathol Med. 1992; 21 (8): 348-352.
10. Philipsen HP, Srisuwan T, Reichart PA. Adenomatoid odontogenic tumor mimicking a periapical (radicular) cyst: a case report. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 2002; 94 (2): 246-248.
11. Philipsen HP, Reichart PA, Nikai H. The adenomatoid odontogenic tumor (TOA): an update. Oral Med Pathol. 1998; 2: 55-60. INSS 1342-0984.
12. Bartake AR, Punnya VA, Sudeendra P, Rekha K. Two adenomatoid odontogenic tumours of the maxilla: a case report. Br J Oral Maxillofac Surg. 2009; 47 (8): 638-640.
13. Handschel JG, Depprich RA, Zimmermann AC, Braunstein S, Kübler NR. Adenomatoid odontogenic tumor of the mandible: review of the literature and report of a rare case. Head Face Med. 2005; 1: 3.
14. Tsaknis PJ, Carpenter WM, Shade NL. Odontogenic adenomatoid tumor: report of case and review of the literature. J Oral Surg. 1977; 35 (2): 146-149.

Correspondencia:

Dra. Liset Eliana Osnaghi Díaz Colodrero

E-mail: lisetosnaghi@hotmail.com