

Revista Española de
**Cirugía Oral y
 Maxilofacial**

www.elsevier.es/recom



Caso clínico

Ameloblastoma unicístico, bases del tratamiento conservador. Presentación de caso clínico y actualización de la bibliografía

Juan Argandoña Pozo^a y Jorge Espinoza Yañez^{b,*}

^aCirugía Máxilo-Facial, Hospital Clínico San Borja-Arriarán, Santiago de Chile
 Área de Cirugía, Facultad de Odontología, Universidad Finis Terrae, Chile

^bHospital Clínico San Borja-Arriarán, Departamento de Cirugía, Facultad de Odontología, Universidad de Chile, Chile

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 27 de octubre de 2010

Aceptado el 7 de enero de 2011

Palabras clave:

Ameloblastoma unicístico;

Descompresión;

Enucleación

Keywords:

Unicystic ameloblastoma;

Decompression;

Enucleation

R E S U M E N

El ameloblastoma se define como un tumor localmente agresivo e infiltrante, con alta capacidad de recidiva. Este comportamiento agresivo e infiltrante plantea el problema de una opción conservadora o radical de tratamiento, con las alteraciones funcionales, estéticas y psicológicas que ello implica.

El ameloblastoma unicístico se describe como una lesión con cuadros morfológicos particulares, comportamiento biológico menos agresivo que el ameloblastoma común, así como también una recurrencia menor frente al tratamiento conservador.

Se presenta un caso clínico con el diagnóstico de ameloblastoma unicístico tratado de forma conservadora mediante descompresión y posterior enucleación. Se actualiza la información sobre su tratamiento.

© 2011 SECOM. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Conservative treatment of unicystic ameloblastoma. Case report and literature review

A B S T R A C T

Ameloblastoma is defined as a locally aggressive, infiltrating tumor with high recurrence capacity. This aggressive and infiltrating behavior conditions the choice of conservative or radical therapy and the functional, cosmetic and psychological consequences of this choice.

Unicystic ameloblastoma is described as a lesion with specific morphological pictures, less aggressive biological behavior than common ameloblastoma and less recurrence with conservative therapy.

A case of unicystic ameloblastoma treated conservatively by decompression and enucleation is reported. The therapeutic options are reviewed.

© 2011 SECOM. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: jorgeantoespino@gmail.com (J. Espinoza Yañez).

Introducción

El ameloblastoma es un tumor odontogénico, de comportamiento agresivo e infiltrante, con una alta capacidad de recidiva. En relación con su histología, es una neoplasia benigna polimórfica, constituida por proliferación de un epitelio odontogénico localizado en un estroma fibroso. En contraste a su comportamiento benigno, presenta una gran tendencia a la recurrencia, como también un mínimo, pero existente, potencial de transformación maligna y de metástasis¹⁻⁴.

En cuanto a la patogenia del tumor, en la bibliografía se indica que podría originarse a partir de células residuales del órgano del esmalte, del órgano del esmalte en desarrollo, del linaje epitelial de un quiste odontogénico o de la capa basal de la mucosa oral^{5,6}.

En cuanto a su prevalencia, constituye el 1% de todos los tumores y quistes maxilares y el 11% de los tumores odontogénicos mandibulares^{1,2,7}.

El tumor crece de un modo lento y silente, sin originar signos ni síntomas en sus estadios más tempranos. En estados de evolución avanzados, puede provocar migración, desviación y movilidad de piezas dentarias, así como también reabsorción radicular y parestesia. Puede expandir corticales, aunque habitualmente las erosiona invadiendo el tejido blando⁶.

Radiográficamente los ameloblastomas se presentan como procesos osteolíticos con aspecto unilocular o multilocular, y en general presenta bordes bien definidos y esclerosados, a excepción del subtipo desmoplástico⁷.

En una revisión de 3.677 casos, Reichart et al¹⁰ mencionan que el subtipo uniuístico generalmente tiene una edad de aparición más temprana en relación con los demás, y los casos se concentran entre la segunda y tercera décadas.

En cuanto a la localización de los ameloblastomas, en un estudio de Hong et al⁵ se muestra que de un total de 239 casos, el 88% de éstos eran mandibulares, y la localización prevalente era la región de la rama mandibular (fig. 1).

Respecto a la patogenia de este subtipo, no se ha podido determinar si la lesión representa la transformación de un revestimiento quístico normal o surge de novo a partir de residuos epiteliales odontogénicos preexistentes. Es importante mencionar que un gran número de estas lesiones presenta un molar incluido intralesional, con características radiográficas que hacen pensar que esta lesión podría origi-

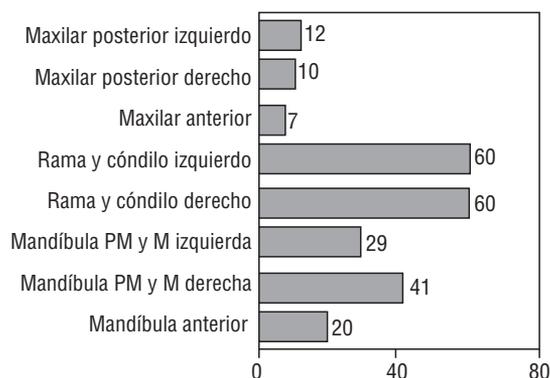


Figura 1 – Localización de ameloblastomas en los maxilares (n = 239).

narse de un quiste dentígero, el cual, bajo algún estímulo, experimenta una transformación hacia un linaje ameloblástico^{11,12}. Publicaciones como la de Bhaskar⁸ indican que en un 5-6% de las paredes de los quistes dentígeros se presenta epitelio odontogénico en el interior del conectivo, lo que eventualmente podría ser el precursor del ameloblastoma.

En contrapartida hay otros autores que defienden la hipótesis de que se desarrollan de novo, como Ackerman et al⁹, los cuales en un estudio de 57 casos de ameloblastomas uniuísticos no pudieron confirmar la presencia de un quiste preexistente, lo cual favorece el concepto de que estas lesiones son neoplasmas quísticos de novo.

Clínicamente este tipo de ameloblastomas se presenta con más frecuencia en pacientes jóvenes. En una revisión de 193 casos, Philipsen y Reichart¹³ encuentran una edad media de aparición de 26 años, y rara vez estas lesiones se presentan en la cuarta década. La presencia de un molar incluido intralesional permite diferenciar 2 variantes de este tipo de ameloblastoma: dentígero y no dentígero.

Respecto a la localización, presenta una clara predilección por la mandíbula, con una prevalencia de un 95%, y dentro de ella, la región del tercer molar y rama mandibular, la zona más frecuente, con un 86% de los casos¹⁵.

Dentro de la semiología de esta lesión, Li et al¹⁵, en su estudio de 33 pacientes, encuentran que un 12% de los pacientes describe dolor, un 18% presenta Vincent(+) y un 9% muestra signos de infección (supuración). Los síntomas y los signos mencionados se presentan en lesiones generalmente de gran extensión.

Radiográficamente el ameloblastoma uniuístico se presenta como imagen osteolítica característica de las cavidades quísticas, y puede ser multilocular o unilocular, en las que la variante unilocular tiene una edad media de presentación de 22 años, y el tipo multilocular, de 33 años¹³.

La reabsorción de las piezas dentarias relacionadas es un elemento característico que lo diferencia de simples lesiones quísticas¹³.

Histopatológicamente, según Robinson y Martínez⁷, para el diagnóstico de ameloblastoma uniuístico deben estar presentes algunas de las características siguientes en el espesor de las lesiones quísticas:

1. El epitelio del quiste es homogéneamente ameloblástico, en mayor o menor grado.
2. Un nódulo ameloblástico o más se proyectan en el lumen quístico (aspecto descrito como luminal o intraluminal), sin evidencia de infiltración de la pared fibrosa del quiste por epitelio odontogénico.
3. Uno o más proyecciones epiteliales ameloblásticas proliferan en el espesor de la pared conectiva, ya sea del tipo folicular o plexiforme, el cual puede estar o no conectado a la cubierta epitelial del quiste.
4. Islas de tejido ameloblástico están presentes en el interior de la pared conectiva en contacto directo con el epitelio de un quiste aparentemente no neoplásico.

Ackerman et al⁹ indican el reconocimiento de 4 subtipos histológicos: AU I, AU II, AU IIIa y AU IIIb, de acuerdo con las características presentes en el epitelio de la lesión.



Figura 2 - Imagen de la lesión.

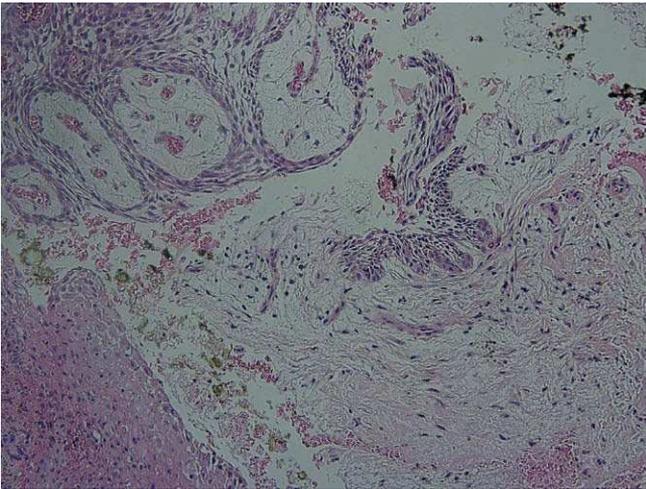


Figura 3 - Histología de la lesión.

Caso clínico

Mujer de 19 años de edad que consulta por dolor leve recurrente a nivel de la hemimandíbula izquierda, asociado a una parestesia de la zona mencionada, especialmente a nivel del labio inferior. Además, describe un leve dolor al masticar en molares y premolares del lado afectado.

Al examen físico se observa leve asimetría facial por un aumento de volumen ubicado en la zona más posterior del cuerpo mandibular y rama ascendente izquierda. El aumento de volumen es indoloro. Intrabucalmente se observa tabla ósea externa abombada a nivel de la zona del segundo molar. Situación similar, pero con expansión de ambas tablas, se pesquiza a la palpación de la rama ascendente mandibular. Tercer molar ausente clínicamente.

Con la hipótesis diagnóstica de quiste mandibular odontogénico o tumor odontogénico, se solicita estudio imagenológico previo a biopsia. La radiografía panorámica revela una extensa lesión radiolúcida de límites netos, uniloculada y que afecta a la totalidad de la rama ascendente mandibular. Asociada a la lesión, se observa el tercer molar incluido en posición baja y en distoversión (figs. 2 y 3).

Se programa una biopsia incisional, durante la cual, y de acuerdo a las características clínicas de la lesión, se instala una cánula de descompresión. El informe histopatológico

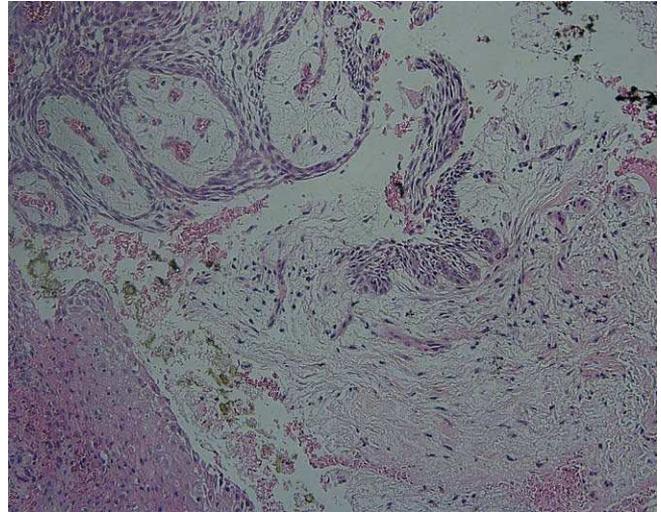


Figura 4 - Ameloblastoma uniuquístico tipo IIIa de Ackerman.

(figs. 4 y 5) informa ameloblastoma uniuquístico de crecimiento intramural tipo IIIa de Ackerman⁹ (fig. 6).

Después de 10 meses de seguimiento clínico-radiográfico, con la presencia de una cánula de descompresión cuya longitud se reduce de forma gradual, se constata reducción casi total de la lesión quística ameloblástica, por lo que se efectúa cirugía de enucleación y curetaje de la cavidad residual, además de exodoncia del tercer molar involucrado.

Discusión

Según Philipsen y Reichart¹³, los factores que deben considerarse en la elección del tratamiento de un ameloblastoma uniuquístico son:

1. Tamaño y localización.
2. Características clínicas, tasa de crecimiento, relación con estructuras vecinas.
3. Histología.
4. Presentación clínica de la recurrencia.
5. Edad del paciente y condiciones generales.

De acuerdo con las características histológicas de esta lesión, debería haberse efectuado un tratamiento más radical; sin embargo, dada su extensión, un tratamiento resectivo inicial implicaba necesariamente secuelas funcionales y estéticas de envergadura. Tomando en cuenta la edad y las condiciones sistémicas de la paciente, se decidió efectuar un tratamiento conservador a partir de una descompresión de ella. Al comprobarse una buena respuesta a este tratamiento, se decidió continuar con la descompresión y proceder al tratamiento quirúrgico resectivo en una segunda etapa y frente a una lesión de menor tamaño, lo que evitó secuelas.

Después de 10 meses de seguimiento clínico-radiográfico, se constata la reducción de la mayor parte de la lesión, por

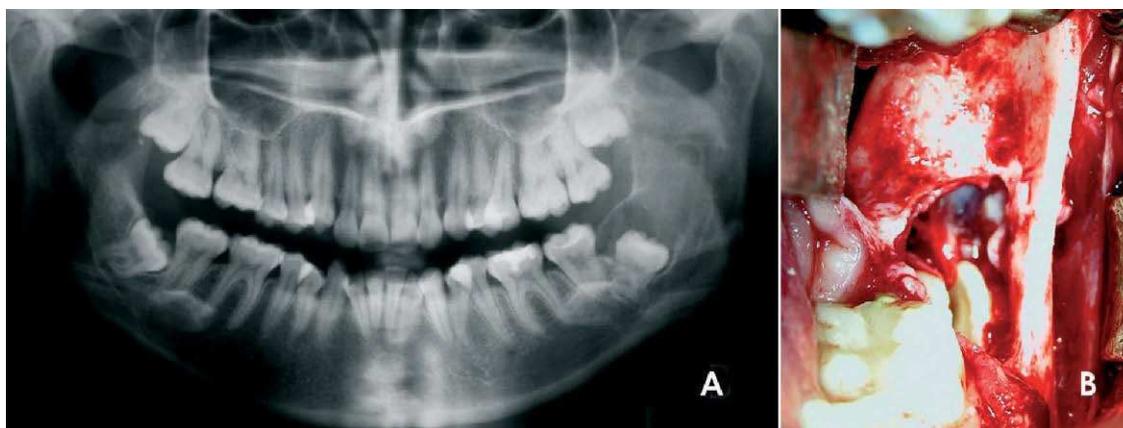


Figura 5 – A) Control radiográfico a los 6 meses con cánula de descompresión. B) Cirugía de enucleación de la lesión y exodoncia del tercer molar.

lo que, según los parámetros de Nakamura¹⁴, el tratamiento descompresivo puede considerarse como muy efectivo. Según menciona el autor, la mayoría de las veces esta efectividad se constata en pacientes jóvenes, en la región molar y rama mandibular, características presentes en el caso descrito.

Otro punto a considerar es la relación de la lesión con el nervio dentario inferior. Si bien la paciente en un principio presentaba semiología compatible con una afectación de este nervio, estos fueron decreciendo de modo gradual hasta desaparecer completamente a los 3 meses después de iniciar la descompresión.

Los patrones histopatológicos sustentan la marcada diferencia en cuanto a tasas de recurrencia frente a un tratamiento conservador. En este contexto, los subtipos uniuquísticos de crecimiento intramural (subtipos IIIa y IIIb de Ackermann) presentan tasas de recurrencia de hasta un 35,7% frente a sólo un 6,7% de los otros tipos de ameloblastomas uniuquísticos (subtipos I y II de Ackermann)⁹.

El caso clínico expuesto presentaba el subtipo histopatológico de crecimiento intramural, subtipo IIIa de Ackerman, que invadía la cápsula y el tejido óseo subyacente. De acuerdo con la bibliografía, el tratamiento adecuado para este tipo de lesiones es el tratamiento radical.

Una vez efectuado el tratamiento descompresivo, se realizó la exéresis de la lesión residual, curetaje óseo y la exodoncia del tercer molar incluido intralesional. Se ha mantenido a la paciente bajo un estricto seguimiento clínico-radiográfico cada 2 meses, y actualmente se encuentra sin signos clínicos ni radiográficos de recurrencia. De acuerdo con las características del ameloblastoma uniuquístico intramural, la bibliografía recomienda un seguimiento cada 3 meses por un período mínimo de 5 años, por lo que es fundamental informar y motivar al paciente para que sea consciente de su responsabilidad en el éxito.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.



Figura 6 – Control a los 10 meses postexodoncia del tercer molar y enucleación de la lesión más curetaje óseo.

BIBLIOGRAFÍA

1. Junquera L, Ascani G, Vicente JC, García-Consuegra L, Roig P. Ameloblastoma revisited. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2003;112:1034-9.
2. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. *Histological typing of odontogenic tumours.* 2nd ed. Berlin, Germany: Springer-Verlag; 1992. p. 11-4. [WHO. World Health Organization. International histological classification of tumours; Sobin LH, ed.]
3. Laughlin EH. Metastasizing ameloblastoma. *Cancer.* 1989;64:776-80.
4. Slootweg PJ, Müller H. Malignant ameloblastoma or ameloblastic carcinoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1984;57:168-76.
5. Hong J, Yun PY, Chung IH, Myoung H, Suh JD, Seo BM, et al. Long-term follow up on recurrence of 305 ameloblastoma cases. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2007;36:283-8.
6. Nastri AL, Wiesenfeld D, Radden BG, Eveson J, Scully C. Maxillary ameloblastoma: a retrospective study of 13 cases. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 1995;33:28-32.
7. Robinson L, Martinez MG. Unicystic ameloblastoma: a prognostically distinct entity. *Cancer.* 1977;40:2278-85.
8. Bhaskar SN. *Synopsis of Oral Pathology.* St. Louis: The C.V. Mosby Company; 1968.
9. Ackermann GL, Altini M, Shear M. The unicystic ameloblastoma: a clinicopathological study of 57 cases. *J Oral Pathol.* 1988;17:541-6.

10. Reichart PA, Philipsen HP, Sonner S. Ameloblastoma: biological prole of 3677 cases. *Oral Oncol Eur J Cancer*. 1995;31B: 86-99.
11. Mc Millan MD, Smillie AC. Ameloblastomas associated with dentigerous cysts. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1981;51: 489-96.
12. Leider AS, Eversole LR, Barkin ME. Cyst ameloblastoma: a clinicopathologic analysis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1985;60:624-30.
13. Philipsen HP, Reichart PA. Unicystic ameloblastoma. A review of 193 cases from the literature. *Oral Oncol*. 1998;34:317-25
14. Nakamura M, Higuchi Y, Tachiro H, Ohishi M. Marsupialization of cystic ameloblastoma: a clinical and histo-pathologic study of growth characteristics before and after marsupialization. *J Oral Maxilofac Surg*. 1996;53:748-54.
15. Li TJ, Wu YT, Yu SF, Yu GY. Unicystic ameloblastoma: a clinicopathologic study of 33 Chinese patients. *Am J Surg Pathol*. 2000;24:1385-92.