CASO CLÍNICO / CLINIC CASE

Concepto actual, diagnóstico y tratamiento del tumor odontogénico adenomatoide. Reporte de un caso

Current concept, diagnosis and treatment of adenomatoid odontogenic tumor. A case report

Manuel Escalante Fontalvo¹, Martha Rebolledo Cobos²

Resumen

El tumor odontogénico adenomatoide (TOA) es una lesión clasificada por la Organización Mundial de la Salud (OMS) dentro de los tumores odontogénicos con participación del ectomesénquima, ya que puede contener, además del epitelio, tejido calcificado en su interior, que muestra una morfología histológica muy peculiar. Es un tumor benigno de baja prevalencia que compromete solo el 0,1% de los tumores y quistes de los maxilares, con una muy baja tendencia a la recidiva; es común en pacientes jóvenes, generalmente mujeres, de mayor presentación en el maxilar superior, asintomático, de crecimiento lento y poco invasivo; el cual se puede semejarse a otras lesiones odontogénicas de mayor agresividad como el quiste dentígero y el ameloblastoma, entre otros benignos como el odontoma complejo y adenomas pleomórficos. A menudo se observa como una lesión radiolúcida de aspecto quístico unilocular, asociada a órganos dentales incluidos, usualmente dientes caninos. Su localización clásica nos orienta al diagnóstico y su patrón histológico ductiforme (apariencia basaloide con estructuras glanduliformes, calcificaciones esferulares y presencia de abundante material amiloide que facilitan su reconocimiento microscópico) es muy propio de esta lesión tumoral.

Se presenta un caso de un paciente de 12 años de edad, asintomática y asimétrica facial, de sexo femenino, con un diagnóstico definitivo por biopsia de TOA en la región anterior del maxilar superior asociado a un órgano dental 23 incluido; intervenido quirúrgicamente, colocando material de injerto como sustituto óseo, teniendo en cuenta estado general del paciente, diagnósticos diferenciales, características radiográficas, tomográficas y clínicas.

Palabras clave: Neoplasia, epitelial, tumor, odontogénico, tumores odontogénicos.

Fecha de recepción: 30 de abril de 2012 Fecha de aceptación: 8 de agosto de 2012

Correspondencia: Manuel Escalante Fontalvo manuelescalante12@hotmail.com. Martha Rebolledo Cobos. Fundación Universitaria San Martín, km 8, vía Puerto Colombia, Barranquilla (Colombia). malereco18@hotmail.com



¹ Estomatólogo y cirujano oral. Docente Fundación Universitaria San Martín y Universidad Metropoli-

² Estomatóloga y cirujana oral. Docente Fundación Universitaria San Martín y Universidad del Magdalena.

Abstract

Adenomatoid odontogenic tumor (AOT) is an injury classified by the World Health Organization, in odontogenic tumors involving the ectomesenchyme, as it may contain, in addition to the epithelium, calcified tissue inside, showing a histologic morphology peculiar. It is a benign tumor of low prevalence committing only 0.1% of tumors and cysts of the jaws, with a very low rate of recurrence, has a predilection for young patients, usually women, higher presentation in the maxilla, asymptomatic, slow growing and less invasive, which can mimic other more aggressive odontogenic lesions such as dentigerous cyst and ameloblastoma, including benign and complex odontoma and pleomorphic adenomas. Often seen as a radiolucent lesion of cystic unilocular organs associated with dental included, usually canines. Its classic location directs us to the diagnosis and histological pattern ductiforme (basaloid appearance with glandular structures, and presence of calcifications esferulares abundant amyloid material) that facilitate microscopic recognition is very typical of this tumor lesion.

Here we present a case of a 12-year-old asymptomatic and asymmetric facial female with a definitive diagnosis by biopsy (ATO) in the anterior maxillary dental associated with a body 23 including, underwent surgery placing graft material as a bone substitute, taking into account the patient's general condition, differential diagnosis, radiographic, tomographic and clinics.

Keywords: Tumor, adenomatoid, odontogenic, neoplasm, odontogenic tumors.

INTRODUCCIÓN

El tumor odontogénico adenomatoide (TOA) fue evidenciado por primera vez como una entidad histológica distinta en 1948 por Stafne. Inicialmente se pensó que podría tratarse de una variedad de ameloblastoma, y por lo tanto se denominó como tumor "adenomatoídeo ameloblástico" o "adenoameloblastoma" por su contenido glandular, tamaño y agresividad. En 1969 Phillipsen y Birn sugirieron el término TOA, siendo este el más aceptado hoy en día (1).

El TOA es una neoplasia epitelial benigna de origen odontogénico infrecuente, que se desarrolla a partir del órgano del esmalte, la lámina dura, epitelio reducido del esmalte o sus restos, retículo estrellado, entre otras estructuras embrionarias del germen dental, y en algunos casos es atribuible a desórdenes congénitos del proceso embrionario de formación facial (1-3). Tiene una alta predilección en la región anterior del maxilar superior, en segunda instancia en la mandíbula, con más incidencia en el sexo femenino, encontrándose dos mujeres por cada hombre, y se manifiesta con mayor prevalencia en la segunda década de vida en un 85% de los casos (4 - 6).

Existen tres variantes de TOA según las características clínicas y radiográficas: el tipo folicular (que representan el 70 a 80% de los casos), en el cual se observa una lesión central asociada a un diente incluido que con frecuencia es el canino superior en el 40% (7); el tipo extrafolicular (26,9% de los casos), que presenta una lesión central y no hay conexión con ningún órgano dental; finalmente, el tipo periférico (2,3% de los casos), el cual es más exofítico y puede ser visible de forma clínica (1); radiográficamente se presenta como una lesión unilocular que suele rodear un diente no erupcionado y es visto como radiolucidez cortical con peque-

ñas radiopacidades, o apariencia radiomixta, pero hay casos en que la lesión no posee ningún componente radiopaco y puede mostrar el aspecto de otro tipo de lesión, o producir desplazamiento de otras estructuras (8, 9).

La lesión que con mayor frecuencia puede confundirse con este tumor es el quiste dentígero, debido a la asociación de ambos a la corona de un diente retenido. Sin embargo, un dato radiográfico que puede ser útil para diferenciarlos es la presencia de material calcificado dentro del tumor, aunque no todos los casos de TOA presentan esta característica. En otras ocasiones, el aspecto macroscópico del espécimen permite identificar en el interior de la cavidad al tumor en forma de proyecciones papilares o sólidas de color blanco-amarillento bien delimitadas por una gruesa cápsula de tejido fibroso (9).

Aunque no es frecuente, existen reportes de que el TOA se puede presentar con semejanzas radiográficas a un quiste radicular inflamatorio o paradental (quiste periapical).

En los casos en que se presentan calcificaciones dentro del tumor en lesiones pericoronales o extrafoliculares es obligado considerar el quiste odontógeno calcificante (COC) y el tumor odontogénico epitelial calcificante (TOEC) como diagnósticos diferenciales (10).

Las características histopatologías de todas las variantes de TOA son idénticas y muestran una notable coherencia. A bajo aumento, el patrón más llamativo es de diferentes tamaños de nódulos sólidos en las células epiteliales que forman nidos o estructuras de tipo roseta con un mínimo de tejido conectivo del estroma de sostén del tumor. Debido que el tumor está bien encapsulado y muestra un comportamiento benigno, la enucleación quirúrgica, junto con el diente afectado, produce resultados excelentes sin recurrencia; en la mayoría de circunstancias es necesario la colocación de un sustituto óseo para cubrir el defecto, debido al amplio tamaño que estos tumores pueden presentar (10,11).

El tratamiento de elección para este tipo de lesión con calcificaciones y/o fibrosis es la enucleación sin margen, dado que se encuentra encapsulado y no presenta tendencia a recurrir. El defecto óseo resultante puede ser dejado para que cicatrice por primera intención en algunas ocasiones, sin embargo, estudios histológicos en humanos han mostrado migración epitelial comprometiendo la regeneración. El uso de una terapia combinada de hueso seco congelado/ regeneración tisular guiada ha reportado un aumento de reparación posterior a la remoción del TOA, e inclusive el uso de injerto óseo en bloque también es de utilidad y provee excelentes resultados (11).

Caso clínico

Paciente femenina de 12 años de edad, quien acude con sus padres a consulta al servicio de Estomatología y Cirugía Bucal de un instituto onco - hematológico de la ciudad de Barranquilla (Colombia) por presentar cancerofobia por lesión tumoral en la zona del maxilar superior derecho de más de cuatro meses de evolución, asintomática sin ningún tratamiento previo. Al examen clínico intraoral se observa lesión tumoral a nivel entre órganos dentales 22 y 24 con un diámetro de 5 cm con pérdida de la tabla ósea vestíbular izquierda en zona del órgano dental 23, el cual se encuentra ausente

clínicamente. Al examen radiográfico se evidenció lesión radio-mixta de aproximadamente 5 cm de diámetro que se extienda desde órganos dentales 22 a 24 y hasta piso de fosa nasal izquierda con desplazamiento de las raíces de dientes vecinos, los cuales responden de forma positiva a las pruebas de vitalidad, e implicando piso seno maxilar izquierdo se evidencia de forma transversa órgano dental 23 incluido dentro de lesión (figura 1).

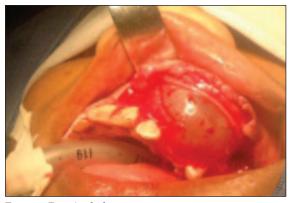


Fuente: Propia de los autores.

Figura 1. Se observa en radiografía panorámica lesión radiolucida circunscrita a nivel de órganos dentales 22 hasta el 24 con inclusión en el cuerpo de la lesión de diente 23.

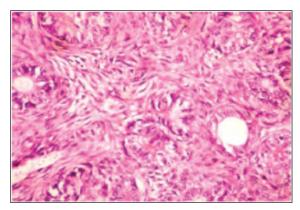
Al evaluar la condición clínica y radiográfica de la paciente, previa a la firma de un consentimiento informado por parte de sus padres y completados todos los estudios prequirúrgicos, se decide la realización de un procedimiento quirúrgico bajo anestesia general, resecando la lesión tumoral, incluyendo el órgano dental incluido, con la inmediata colocación de un injerto heterólogo de hueso particulado para evitar un defecto óseo. Inicia el procedimiento realizando una incisión intraoral, intracrevicular, levantando un colgajo de espesor total tipo

Newman desde órgano dental 11 hasta el 25, disecando y resecando por completo la lesión (figura 2). A continuación se realizó la extracción del órgano dental 23; seguidamente se efectuó curetaje de la zona operada realizando lavado y preparación del lecho quirúrgico con solución salina para la colocación de 5 g de hueso heterólogo particulado; seguidamente se reposicionó colgajo y se suturó con punto simple utilizando vicryl 3-0; finalmente, la muestra obtenida del tumor se envió a estudio histopatológico. El paciente es hospitalizado hasta el día siguiente con la administración de analgésicos, antiinflamatorios y antibióticos. El reporte de patología evidenció lesión tumoral benigna, constituida por área quística y zonas sólidas, constituidas por numerosas estructuras ductales revestidas de células cuboidales, algunas con material hialino. No se reconocen figuras de mitosis ni malignidad en el material enviado. Resultando como diagnóstico definitivo: tumor odontogénico adenomatoide (figura 3).



Fuente: Propia de los autores.

Figura 2. Evidencia clínica intraoperatoria de TOA.



Fuente: Propia de los autores.

Figura 3. Imagen microscópica que muestra área quística y zonas solidas constituidas por numerosas estructuras ductales revestidas de células cuboidales, con inclusión de material hialino.

La paciente se somete a controles periódicos, para evolución de la cicatrización de tejidos blandos y tejidos duros y control de secuelas físicas provocadas por la extensión del tumor. Se plantea la posibilidad de la colocación de implantes óseos a futuro con el fin de reemplazar el órgano dental perdido por la lesión.

DISCUSIÓN

El tumor odontogénico adenomatoide constituye el 3% de los tumores odontogénicos. Es una neoplasia benigna de crecimiento lento, no agresiva, que rara vez sobrepasa 1,5 cm en su mayor dimensión, 1,2. Sin embargo, en algunos casos, como el aquí presentado, es capaz de alcanzar gran tamaño, producir una marcada expansión de las corticales, desplazamiento dental, e incluso rizoclasia, por lo importantes para su pronóstico es un correcto diagnóstico y tratamiento (12).

Las características clínicas y radiográficas del TOA son muy típicas, destacando la

presentación en mujeres en la segunda década de vida, con localización frecuente en el área de caninos superiores.

El paciente tratado es del sexo femenino, y se encuentra en la segunda década de vida, coincidiendo con la prevalencia tanto en edad, sexo y sitio de presentación con la mayoría de estudios evidenciados (12, 13).

En cuanto al tratamiento, se acepta que la actitud más indicada es la conservadora, extirpando la lesión y el diente incluido, con curetaje del hueso circundante de la lesión y con colocación de injerto óseo para evitar un defecto óseo muy grande y la aparición de atrofias y asimetrías faciales.

En cuanto al caso descrito, una vez obtenido el diagnóstico anatomopatológico, no se consideró necesario realizar un seguimiento a corto plazo, ya que las recidivas son de muy baja presentación. La evolución y pronóstico son muy favorables debido a la benignidad de la enfermedad (11,15).

En conclusión, todas las lesiones de la cavidad oral deben ser estudiadas con detalles, sin confiar en la aparente benignidad de estas, integrando los datos clínicos, radiológicos e histológicos para adecuar el protocolo terapéutico y clínico.

Financiación: Universidad San Martín (Colombia).

Conflicto de interés: ninguno

REFERENCIAS

(1) Sandhu SV, Narang RS, Jawanda M, Rai S. Adenomatoid odontogenic tumor associated with dentigerous cyst of the maxillary antrum: A rare entity. *J Oral Maxillofac Pathol* 2010 Jan; 14 (1): 24-8.

- (2) Robledo J, Mazock JB. Oral and maxillofacial pathology case of the month. Adenomatoid odontogenic tumor. *Tex Dent J* 2011 Mar;128 (3): 308-9, 14-5.
- (3) Olgac V, Koseoglu BG, Kasapoglu C. Adenomatoid odontogenic tumor: a report of an unusual maxillary lesion. *Quintessence Int* [Case Reports] 2003 Oct; 34 (9): 686-8.
- (4) Varkhede A, Tupkari JV, Sardar M. Odontogenic tumors: A study of 120 cases in an Indian teaching hospital. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2011; 16 (7): e895-9.
- (5) Mohamed A, Singh AS, Raubenheimer EJ, Bouckaert MM. Adenomatoid odontogenic tumour: review of the literature and an analysis of 33 cases from South Africa. *Int J Oral Maxillofac Surg* [Review] 2010 Sep; 39 (9): 843-6.
- (6) Yilmaz N, Acikgoz A, Celebi N, Zengin AZ, Gunhan O. Extrafollicular adenomatoid odontogenic tumor of the mandible: report of a case. *Eur J Dent* 2009 Jan; 3 (1): 71-4.
- (7) John JB, John RR. Adenomatoid odontogenic tumor associated with dentigerous cyst in posterior maxilla: A case report and review of literature. J Oral Maxillofac Pathol 2010 Jul; 14 (2): 59-62.
- (8) Vasconcelos BC, Frota R, Cardoso AB, Porto GG, Carneiro SC. Adenomatoid odontogenic tumor. *Braz J Otorhinolaryngol* [Case Reports] 2008 Mar-Apr; 74 (2): 315.
- (9) Philipsen HP, Reichart PA, Zhang KH, Nikai H, Yu QX. Adenomatoid odontogenic tumor: biologic profile based on 499 cases. *J Oral Pathol Med* [Review] 1991 Apr; 20 (4): 149-58.
- (10) Bhullar RP, Brar RS, Sandhu SV, Bansal H, Bhandari R. Mandibular adenomatoid odontogenic tumor: A report of an unusual case. *Contemp Clin Dent* 2011 Jul; 2 (3): 230-3.
- (11) Durrani F, Singh R. Intraosseous follicular adenomatoid odontogenic tumour-a case report. *Int J Dent* 2009; 2009: 597483.

- (12) Swasdison S, Dhanuthai K, Jainkittivong A, Philipsen HP. Adenomatoid odontogenic tumors: an analysis of 67 cases in a Thai population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2008 Feb; 105 (2): 210-5.
- (13) McGuff HS, Alderson GL, Jones AC, Edgin WA. Oral and maxillofacial pathology case of the month. Adenomatoid odontogenic tumor. *Tex Dent J* [Case Reports] 2008 Dec; 125 (12): 1192-5.
- (14). Bulut E, Tasar F, Akkocaoglu M, Ruacan S. An adenomatoid odontogenic tumor with unusual clinical features. *J Oral Sci* [Case Reports] 2001 Dec; 43 (4): 283-6.
- (15) Arotiba GT, Arotiba JT, Olaitan AA, Ajayi OF. The adenomatoid odontogenic tumor: an analysis of 57 cases in a black African population. *J Oral Maxillofac Surg* 1997 Feb; 55 (2): 146-8; discussion 9-50.
- (16) Blumenthal NM, Mostofi R. Repair of an intrabony defect from an adenomatoid odontogenic tumor. *J Periodontol* [Case Reports Review] 2000 Oct; 71 (10): 1637-40.
- (17) Miyake M, Nagahata S, Nishihara J, Ohbayashi Y. Combined adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor: report of case and ultrastructural study. J Oral Maxillofac Surg [Case Reports] 1996 Jun; 54 (6): 788-93.