

Odontoameloblastoma: reporte de caso

Odontoameloblastoma: case report

Bachur RO¹, Bachur N¹, Díaz A¹, Battisti ME¹

¹Universidad Nacional de Córdoba, Facultad Odontología, Cátedra de Cirugía III

Abstract

Odontoameloblastoma (OA) is an odontogenic mixed tumor very slightly frequent, of benign character formed by odontogenic epithelium with odontogenic ectomesenchyma, with or without formation of hard tissues. It is a locally aggressive injury, with behavior and forecast similar to the conventional ameloblastoma. The surgical technic for this pathology is the extirpation of this tumor in the total split of the pathology with safety margins. Realizing then distant controls per years. The aim of this work is to present a case of odontoameloblastoma in a 5-year-old patient. In first instance a biopsy by incision was made, the retired and analyzed fragments were compatible with ameloblastoma. In consequence it was decided to extirpate the complete pathology (hemimaxilectomy) with safety margin. The results thrown by the second biopsy correspond to an odontoameloblastoma. After 12 months there were no signs of recurrence of pathology in clinical and radiographic controls.

KEY WORDS: *Odontoameloblastoma, ameloblastoma, total split, biopsy*

Resumen

El odontoameloblastoma (OA) es un tumor odontogénico mixto muy poco frecuente, de carácter benigno, formado por epitelio odontogénico con ectomesénquima odontogénico, con o sin formación de tejidos duros. Es una lesión localmente agresiva, con comportamiento y pronóstico similar al ameloblastoma convencional. La técnica quirúrgica empleada para la extirpación de este tumor es la escisión total de la patología con margen de seguridad. Realizando luego controles a distancia por años. En este trabajo se presenta un caso de odontoameloblastoma en un paciente de 5 años de edad. En una primera instancia se realizó biopsia por incisión, los fragmentos retirados y analizados fueron compatibles con ameloblastoma. Por tal motivo se decidió extirpar de forma completa la patología (hemimaxilectomía) con margen de seguridad. Los resultados arrojados por la segunda biopsia reflejaron que la misma correspondía a un odontoameloblastoma. Después de los controles clínicos y radiográficos a los 12 meses no se evidenció signos de recidiva de la patología.

PALABRAS CLAVES: *Odontoameloblastoma, ameloblastoma, escisión total, biopsia*

Introducción

La Organización Mundial de la Salud (OMS) cita la clasificación del odontoameloblastoma como un tumor odontogénico benigno formado por epitelio odontogénico con ectomesénquima odontogénico, con o sin formación de tejidos duros. Combina características del ameloblastoma con algunas del odontoma.

Los sinónimos con los que puede ser encontrado en la literatura son Odontoma Ameloblástico y Odontoblastoma. La denominación de Odontoameloblastoma fue incluido por OMS en su clasificación de 1971, y la misma se ajusta más a las características de la lesión ya que su comportamiento clínico semeja más al de un ameloblastoma que al de un odontoma¹⁻³.

Afecta tanto mandíbula como maxilar superior y la mayoría de los casos se presentan por detrás de los caninos. Es rara la aparición de esta neoplasia y la mayoría se diagnostican durante las primeras tres décadas de vida. Clínicamente, puede presentar expansión ósea, reabsorción de las raíces de los dientes vecinos y/o desplazamiento de los mismos, y ocasionalmente dolor. Son tumores no encapsulados, de crecimiento lento y con posibilidad de residivas¹⁻³.

Radiográficamente se observa como una lesión radiolúcida unilocular o multilocular. Dentro de la misma pueden identificarse zonas radioopacas y en muchas oportunidades pueden identificarse elementos dentarios retenidos y desplazados¹⁻³. El odontoameloblastoma es una lesión localmente agresiva, con comportamiento y pronóstico similar al ameloblastoma convencional, por esta razón ambos deben ser tratados de la misma manera, realizando una escisión amplia, con margen de seguridad y un seguimiento de cerca por 5 años luego de la cirugía¹⁻³.

El propósito de este artículo es reportar un caso de odontoameloblastoma, como así también valorar los hallazgos clínicos y microscópicos, y poder compararlos con los casos publicados anteriormente de este tipo de tumor.

Aspectos éticos

El paciente y su responsable adulto han firmado el consentimiento y asentimiento informado. En este estudio se han contemplado los delineamientos de la declaración médica de Helsinki y Nüremberg. Para esta investigación no se realizaron

experimentos con seres humanos ni animales. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de los pacientes.

Presentación del caso

Paciente de sexo masculino, de 5 años de edad, atendido en el Servicio de Odontología del Hospital de Niños de La Santísima Trinidad de la Ciudad de Córdoba, República Argentina.

Durante la inspección extra-oral presentaba asimetría facial dada por una zona de tumefacción del lado izquierdo, tumoración redondeada de 9-10cm de diámetro, que desplazaba los cornetes, obstruyendo la fosa nasal izquierda. Los tejidos blandos se observaban normales en cuanto a coloración y textura.

A la inspección intra-oral se observó abombamiento del reborde alveolar del maxilar superior, que involucraba la porción vestibular y palatina, evidenciándose claramente por distal del elemento 63 y se extendía hasta la zona de la tuberosidad del maxilar del lado izquierdo. La mucosa se observó eritematosa. Se palpó una masa redondeada, firme, no móvil, ni dolorosa. La madre del paciente relató que el tiempo de evolución de la tumoración era de 2 años y que presentaba dolor espontáneo.

La radiografía panorámica reveló una extensa zona radiolúcida multilocular izquierda que involucró desde el canino hasta la tuberosidad. Se observó abundantes zonas radioopacas irregulares rodeadas de zonas radiolúcidas asociadas con reabsorción radicular (Fig. 1).

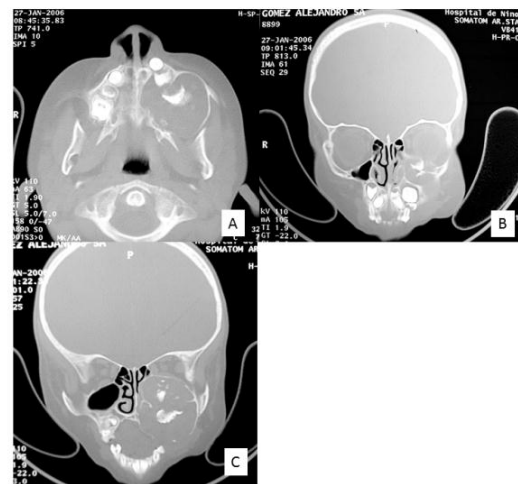


Figura 1. A- TAC corte axial donde se observa la lisis ósea causada por la patología. B-TAC corte coronal. Se observa la patología que avanza sobre fosa nasal izq. C- TAC corte

coronal. Se observa la dimensión del proceso, imágenes RL que corresponden a tejido dentario amorfo.

Al examen físico se observaron parámetros normales. La historia médica familiar no proporcionaba ningún dato que afectara al tratamiento a aplicar, por lo que se indicó la toma de material para estudio anatomopatológico.

Diagnóstico y Tratamiento

Se realizó la biopsia por incisión bajo anestesia general. Se tomaron cinco fragmentos de tejido de la tumoración revestidos de mucosa de color pardo y lisa. El tejido subyacente fue blanquecino, irregular y firme. (Fig. 2), que fue enviado a diagnóstico anatómo-patológico. Los cortes mostraron un tumor constituido por nidos y cordones que se entremezclaban, revestidos por células cúbicas y en ocasiones cilíndricas, rodeados por estroma fibromixoide. Hubo además mucosa tapizada por epitelio plano estratificado con acantosis irregular. El estroma presentó infiltrado mixto, edema y vasocongestión.

Estos hallazgos fueron compatibles con ameloblastoma, por lo que se decidió realizar la exéresis completa de la lesión con margen de seguridad por el comportamiento agresivo del tumor.

La cirugía (Hemimaxilectomia izquierda) fue realizada bajo anestesia general, previa medicación: Diclofenac 0.08mg/Kg./hora, Nalbufina 0.1mg/Kg./dosis cada 4 hs por vía endovenosa y Ranitidina 5 mg/Kg./día cada 8 hs por vía endovenosa. Vías aéreas superiores en tratamiento con Decidex, sin estado febril.

Se realizó la incisión con electrobisturí desde la zona interincisiva y se extendió por vestibular hasta el segundo molar en sentido anteroposterior, completando la misma por palatino desde la papila interincisiva, siguiendo el rafe medio hacia la tuberosidad delimitando así el hemimaxilar izquierdo. Se desarticuló el maxilar superior izquierdo en su zona media. Por vestibular, el hueso se encontraba papiráceo en algunas zonas, y ausente en otras. Se realizó margen de seguridad dado por el curetaje, el cual se extendía por zona de fosa nasal izquierda y piso de orbita. Se hizo hemostasia del lecho con electrobisturí, y se protegió la cavidad con gasa yodoformada para lograr una cicatrización por segunda intención.

Se continuó con la medicación anteriormente mencionada y se le indicó Dexametasona 0.6

mg/Kg./día, Ampicilina 100mg/Kg./día y hielo local intermitente. Se mantuvo sedado al paciente. Se envió a anatomía patológica fragmentos del tejido retirado en el momento de la cirugía, incluyendo tres piezas dentarias (61, 62 y 63), y parte de maxilar y paladar.

Los cortes mostraron un tumor constituido por células epiteliales que se disponen en cordones anastomosados con patrón plexiforme, formando brotes y estructuras foliculares en las cuales el centro consiste en tejido conectivo laxo. En algunas secciones se reconoció dentina y en ocasiones también esmalte rodeado de epitelio ameloblástico. En la zona periférica, tejido fibroso que rodea los cordones. El diagnóstico patológico fue compatible con Odontoameloblastoma (Odontoma Ameloblástico) (Fig. 2).

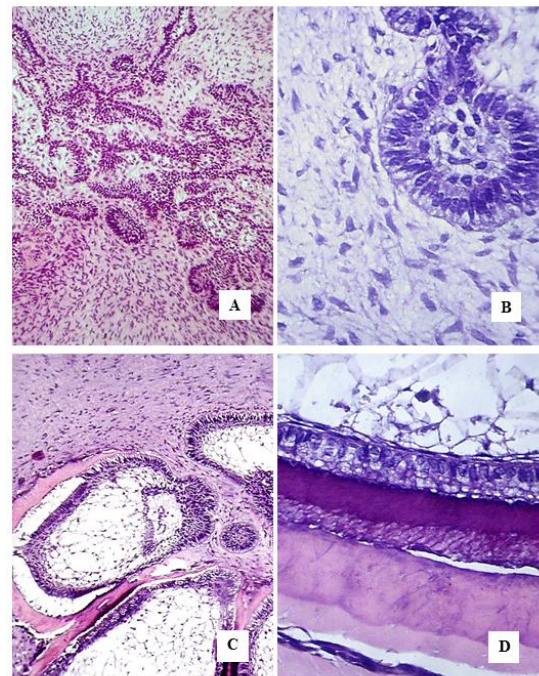


Figura 2. A. Cordones epiteliales interpuestos con estroma fibroso. 10x. B. En el interior de los nidos hay células estrelladas que formarían la papila dentaria. 40x. C. Esmalte y dentina con coloración eosina/hematoxilina 5x. D. Esmalte y dentina. Cordón de células odontoblasticas. 40x

Se realizó la cirugía y controles postoperatorios a los 5 meses se le indicó una TAC donde mostró la presencia de un tejido reaccional inflamatorio propio del organismo, sin signos de recidiva. A los 12 meses se lo controló nuevamente y no se evidenció recidiva de la patología. Se realizó un control a los 3 y 5 años de la cirugía, sin evidencias de recidiva (Fig. 3).

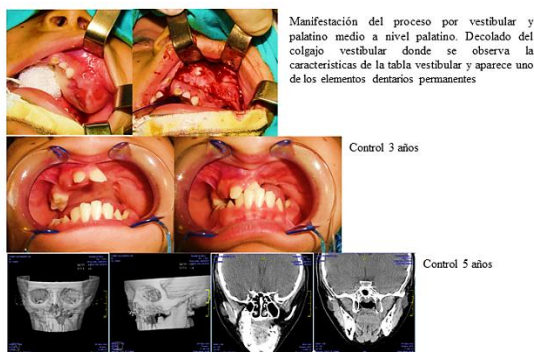


Figura 3. Cirugía (superior) y seguimiento del caso a los 3 años (medio) y 5 años (inferior)

Discusión

Como anteriormente se describió en la Introducción, el OA es una neoplasia odontogénica mixta de rara aparición, frecuente recidiva, caracterizándose por tener simultáneamente similitud histológica con el ameloblastoma y el odontoma complejo o compuesto.

El marcado polimorfismo histológico hace dificultoso el diagnóstico final por lo que se debe basar tanto en las características clínicas, radiográficas e histopatológicas¹⁻³

El diagnóstico diferencial de esta patología debe realizarse con el ameloblastoma, el odontoma, el fibro-odontoma ameloblástico y el tumor odontogénico epitelial calcificante, por tener características similares al OA; haciendo que muchos casos el diagnóstico no sea el correcto.⁴⁻⁹

Las características principales a tener en cuenta del OA son, primero que ocurre con igual frecuencia en la mandíbula y en el maxilar, no así con las demás entidades que poseen localizaciones más específicas.

Segundo, el OA produce la expansión de hueso en la mayoría de los casos, contrario al odontoma que produce la inflamación de la zona afectada.⁷

Tercero, el OA se da con mayor frecuencia en las dos primeras décadas de vida, diferente al ameloblastoma y al fibro-odontoma ameloblástico, que lo hacen en la cuarta década.

Cuarto, radiográficamente produce reabsorción y desplazamiento de los elementos dentarios vecinos, en comparación con las demás patologías, como en el caso del odontoma que solo los desplaza.

Y finalmente, pero no menos importante, los rasgos histopatológicos del OA, nos llevan al diagnóstico certero.

Se debe valorar la conducta del cirujano al decidir la técnica quirúrgica a emplear por posibles recidivas del tumor y la importancia en instruir a los pacientes sobre los controles post quirúrgicos a lo largo del tiempo.

La patogénesis del OA es desconocida. Una posible explicación es que el tejido dental mineralizado se forme como una proliferación hamartosa en respuesta a un estímulo producido por la proliferación del epitelio sobre el tejido mesenquimático^{4,5}.

Otra posibilidad es que ambos, el ameloblastoma y el odontoma, colisionen y formen un tumor. Esta posibilidad es menos probable por la diferencia de edad y localización en las que se dan estas patologías con respecto al OA¹⁰⁻¹².

Conclusión

El estudio del OA muestra que el mismo debe ser claramente reconocido y diferenciado de los demás tumores odontogénicos mixtos. A pesar de tener tendencia a ocurrir a edades más tempranas que el ameloblastoma, tiene prácticamente el mismo potencial de producir expansión del hueso, reabsorción de raíces y recidivas. Por esta razón el OA debe ser tratado con un amplio margen de seguridad y un control clínico y de imágenes radiográficas del paciente por lo menos por 5 años luego del procedimiento quirúrgico.

Referencias

1. Wright JM, Vered M. Update from the 4th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours: Odontogenic and Maxillofacial Bone Tumors. *Head Neck Pathol.* 2017;11(1):68-77. doi: 10.1007/s12105-017-0794-1.
2. Barnes L., Everson J.W., Reichart P., Sidronsky D., Pathology and genetics of head and neck tumours. France. Ed. Lion, 2005, pp 312.
3. Speight PM, Takata T. New tumour entities in the 4th edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck tumours: odontogenic and maxillofacial bone tumours. *Virchows Arch.* 2018; 472(3):331-339. doi: 10.1007/s00428-017-2182-3.
4. Taylor A.M., Bregni R.C., Ramirez-Amador V., Palma-Guzman J.M., Esquivel-Bonilla D., Hernández-Rojas L.A., Odontoameloblastoma. Clinico-pathologic study of three cases and critical review of the literature. *Oral Oncology.* 2002. pp 800-805.
5. Gupta D.S., Gupta M.K., Odontoameloblastoma. *J. Oral Maxillofacial Surgery.* 1986. pp 146-148.
6. Martín-Granizo-López R., López-García-Asenjo J., De Pedro-Marina M., Domínguez-Cuadrado L.,

- Odontoameloblastoma: A case report and a review of the literature. *Med Oral*. 2004. pp 340-4.
7. Goh BT, Teh LY., Odontoameloblastoma: report of a case. *Ann Acad Med Singapore*. 1999 Sep. pp 749-52
 8. Slabbert H, Altini M, Crooks J, Uys P., Ameloblastoma with dentinoid induction: dentinoameloblastoma. *J Oral Pathol Med*. 1992 Jan. pp 46-8.
 9. Wächter R, Remagen W, Stoll P., [Is it possible to differentiate between odontoameloblastoma and fibro-odontoma? Critical position on basis of 18 cases in Dosak list]. German. *Dtsch Zahnarzl Z*. 1991 Jan. pp 74-7.
 10. Curioni C., [A rare tumor of odontogenic tissues: odontoameloblastoma.]. Italian. *G Veneto Sci Med*. 1964 Nov-Dec. pp 483-98.
 11. LaBbiola JD, Steiner M, Bernstein ML, Verdi GD, Stannard PF., Odontoameloblastoma. *J Oral Surg*. 1980 Feb. pp 139-43.
 12. OMS. Clasificación de tumores Odontogénicos. 2005

Correspondencia a /Corresponding to:

Dr. Ricardo Bachur

*Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Córdoba
Haya de La Torre s/n, Pabellón Argentina, Ciudad Universitaria, CP
5000, Córdoba-Argentina.*

Correo electrónico (e-mail): ricardo.bachur@unc.edu.ar