

Quiste odontogénico ortoqueratinizado. Reporte de un caso.

Orthokeratinized odontogenic cyst. A case report.

Gerardo Romero Jasso,* Doroteo Vargas López**

RESUMEN

El quiste odontogénico ortoqueratinizado es un quiste de desarrollo poco común de los maxilares. Describo en 1956 por Philipsen como una variante del queratoquiste odontogénico (tumor odontogénico queratinizante) y posteriormente identificado como una entidad totalmente aparte por Wright, sigue siendo hoy en día una lesión en controversia. En este trabajo se reporta el caso de un paciente masculino de 15 años de edad que acude al Servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital Regional «Lic. Adolfo López Mateos», ISSSTE, el cual es diagnosticado como un quiste odontogénico ortoqueratinizado. Tener una adecuada ruta clínica para el diagnóstico clínico, complementado por imagen, y sobre todo contar con el resultado de la biopsia incisional son pasos fundamentales para poder diagnosticar y no sobretratar padecimientos que, con procedimientos menos invasivos y agresivos, tienen mejor pronóstico.

Palabras clave: Quiste odontogénico ortoqueratinizado, odontogénico, queratoquiste odontogénico, tumor odontogénico queratinizante.

ABSTRACT

The orthokeratinized odontogenic cyst is a developmental cyst that is rarely found in the jawbones. It was first described by Philipsen in 1956 as a variant of the odontogenic keratocyst (keratocystic odontogenic tumor) and subsequently identified as having a totally different pathology by Wright. The lesion remains a subject of debate to this day. We report the case of a 15-year-old male patient who came to the oral and maxillofacial surgery service of the Institute for Social Security and Services for State Workers' «Lic. Adolfo López Mateos» Regional Hospital, where he was diagnosed with an orthokeratinized odontogenic cyst. A suitable course of clinical diagnosis coupled with the use of images and, most importantly, the result of an incisional biopsy are essential if we are to be able to diagnose and avoid over-treating conditions which, by using less invasive and less aggressive procedures, have a better prognosis.

Key words: Orthokeratinized odontogenic cyst, odontogenic, odontogenic keratocyst, keratinized odontogenic tumor.

INTRODUCCIÓN

El quiste odontogénico ortoqueratinizado (QOO) es una variante poco común de los quistes del desarrollo dental.^{1,2} Philipsen (1956) introdujo el término queratoquiste odontogénico reportando siete casos, de los cuales dos presentaban ortoqueratina en su lumen y al menos uno de los casos se encontraba revestido por un epitelio ortoqueratinizado, motivo por el cual se siguió clasificando por los demás autores como un queratoquiste odontogénico. En 1981 Wright propone separar el QOO del queratoquiste odontogénico, reportándolo

una entidad diferente debido a las variantes histológicas y al comportamiento clínico que presenta.^{1,3,4}

Presenta mayor incidencia en hombres que en mujeres (3.2:1), con una edad de afectación entre la segunda y cuarta década de la vida, en promedio 35.4 años. Tiene predilección por la región molar, siendo la localización mandibular la más habitual (1.9:1).⁴ Dos terceras partes de los QOO ocurren en asociación con un órgano dental impactado por lo que semejan un quiste dentígero.⁵

El origen de esta lesión ha sido un tema de discusión, ya que muchos estudios reflejan que el QOO y el tumor odontogénico ortoqueratinizado provienen de restos de la lámina dental. Esta hipótesis sustenta la mayor incidencia de estas lesiones en la región de molares y rama ascendente mandibular, zonas donde la tortuosidad y desintegración de los restos epiteliales es mayor. Sin embargo, existe otra corriente que debido a la expresión de citoqueratinas refieren tener un origen de tipo epidérmico, mismo que refleja su baja agresividad.⁶

* Residente del tercer año de la Especialidad de Cirugía Oral y Maxilofacial.

** Médico adscrito al Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial.

Hospital Regional «Lic. Adolfo López Mateos», ISSSTE. Ciudad de México, México.

Recibido: Diciembre 2014. Aceptado para publicación: Diciembre 2015.

Radiográficamente se presenta como una imagen radiolúcida de bordes bien definidos, en la mayoría de los casos unilocular aunque puede presentarse de forma multilocular. Entre las características macroscópicas presenta un lumen lleno de un material grueso o cremoso, mismo que corresponde a queratina.⁷ Microscópicamente es una cavidad quística revestida por un epitelio escamoso estratificado que produce cantidades variables de ortoqueratina en su superficie, junto con una capa granular prominente, la membrana basal es discreta y muy delgada.⁵

Entre los diagnósticos diferenciales siempre debe considerarse el quiste dentígero, y el queratoquiste odontogénico (tumor odontogénico queratinizante).⁴

Las pruebas de inmunohistoquímica han demostrado diferencias notorias entre ambos, mismas que han llevado a descifrar el origen de su comportamiento menos agresivo; presenta expresión de citoqueratinas 5, 14, y 15 de manera basal y 1, 2, 10, mismo que coincide con la expresión de citoqueratinas de la epidermis, quistes dermoides y epidermoides.⁶ La expresión de Ki53 y p53 en el QOO es muy pobre, lo que habla de una maduración y proliferación limitada.⁸

El tratamiento de elección de este tipo de lesión es la enucleación, aunque se han descrito la enucleación con curetaje y con osteotomía periférica.⁴ Se reporta que de 2 a 4% de las lesiones recurren, lo que lo hace menos reincidente que su contraparte el queratoquiste odontogénico (25-30%), además el QOO no tiene relación alguna con el síndrome névico basocelular.^{2-5,7}

No se ha reportado la tasa de transformación maligna de este tipo de lesiones, ya que han sido pocos los casos donde se ha observado este comportamiento y en ellos el crecimiento tumoral solamente pudo haber sido observado histológicamente en la transición y cambios displásicos en la membrana quística.⁹

En este artículo se reporta un caso de QOO tratado mediante enucleación, sin que se presentara recidiva, localizado en la región anterior mandibular.

REPORTE DE UN CASO

Paciente masculino de 15 años de edad, el cual acude al Hospital Regional «Lic. Adolfo López Mateos» del ISSSTE, en la Ciudad de México, enviado de su clínica familiar por presentar retención de órganos dentales de la primera dentición. A la exploración clínica, se observa paciente masculino de edad aparente a la cronológica, con cráneo normocéfalo, sin hundimientos ni exostosis palpables, normo inserción de piel cabelluda, rebordes orbitarios

íntegros, con adecuada población de ceja, pirámide nasal central y simétrica con narinas permeables, reborde maxilar íntegro, ligera asimetría a expensas de aumento de volumen en la región mentoniana, sobre todo del lado derecho. Presentaba ligero crépito y sintomatología dolorosa durante la palpación de la región. Al examen clínico intraoral se observa dentición permanente incompleta, con malposición dental y presencia de canino inferior derecho deciduo, adecuada coloración e hidratación de las mucosas orales, discreto aumento de volumen en vestíbulo de la región mentoniana, con sintomatología dolorosa durante la palpación del mismo, de bordes mal definidos que van desde la zona de canino inferior derecho hasta el contralateral. Movimientos linguales conservados, dorso y piso de boca sin alteraciones, al igual que paladar duro, blando y orofaringe.

Se solicita al paciente ortopantomografía en donde se observa una imagen radiolúcida de bordes bien delimitados, unilocular, misma que rodea a un órgano dental incluido correspondiente a canino inferior izquierdo permanente, presenta desplazamiento radicular de canino inferior derecho, borde mandibular íntegro (Figura 1).

El resto de estructuras no presentan datos de importancia para el padecimiento actual. Se solicita este-reolitografía de macizo superior e inferior en donde se observa la cavidad quística con perforación de la cortical vestibular, con bordes regulares y bien delimitados, misma en donde se planea la cirugía. Se decide realizar biopsia por aspiración con aguja fina de la lesión, obteniendo un líquido amarillo, pastoso, espeso, coleccionando aproximadamente 4 cm³ del mismo, el cual es colocado en laminillas realizando un frotis y llevándolo a estudio citológico (Figura 2). Al conocer que se trataba de una



Figura 1. Ortopantomografía donde se observa imagen radiolúcida unilocular, de bordes bien definidos, que desplaza algunas raíces dentales. Se presenta desde la zona de premolares derechos a la zona de premolares contralaterales, con inclusión dental de canino inferior izquierdo.

lesión quística, se decide realizar la biopsia de la lesión, teniendo como diagnósticos iniciales: a) tumor odontogénico queratoquístico, b) quiste dentígero y c) ameloblastoma uniquístico.

Se procede a realizar incisión lineal en la región vestibular mentoniana derecha, para disecar subperióticamente hasta encontrar tejido óseo, mismo que se encuentra adelgazado y crepitante durante la palpación. Se realiza osteotomía de la zona para tomar biopsia incisional de la lesión quística, misma que presenta una consistencia firme, de color blanco con zonas café claro, y fácilmente desprendible. Se coloca la muestra en formaldehido al 10% para su estudio histopatológico y se sutura la zona con ácido poliglicólico 3-0, puntos simples, citándose para revisión (*Figura 3*).

Después de siete días la zona se encuentra adecuadamente cicatrizada con resultado citológico de «compatible con queratoquiste odontogénico» y diagnóstico histopatológico de queratoquiste odontogénico, por lo cual se programa al paciente para realizar marsupialización; sin embargo, durante el abordaje quirúrgico la lesión presenta características macroscópicas diferentes a un tumor odontogénico queratinizante, y debido a su fácil desprendimiento de la cavidad, se decide enuclearlo y enviar la pieza a estudio histopatológico final. Se coloca una placa de reconstrucción en el borde basal debido que clínicamente se observaba muy debilitado.

El reporte histopatológico describe una cavidad quística formada por tejido fibroso laxo maduro bien vascularizado, con abundantes focos de infiltrado inflamatorio mixto y predominio linfoplasmocitario. La superficie se encuentra revestida por epitelio escamoso estratificado de grosor más o menos uniforme, de 6-8 capas de espesor, con capa basal poco aparente, libre de procesos interpapilares, capa granular prominente y superficie ortoqueratinizada, con desprendimiento de queratina en láminas hacia la luz quística. En algunas zonas se aprecia ruptura del epitelio con reacción gigantocelular a cuerpo extraño. Se señala un diagnóstico compatible con quiste odontogénico ortoqueratinizado (*Figura 4*).

Se cita al paciente para revisión con ortopantomografía de control, en donde se observa la presencia de la placa de reconstrucción en adecuada posición en el borde inferior mandibular, así como la ausencia del órgano dental retenido. El paciente presenta un año de evolución, tras lo cual se obtiene nueva ortopantomografía observando condensación ósea y formación de nuevo tejido en la zona quística (*Figura 5*).



Figura 2. Contenido quístico obtenido por punción.

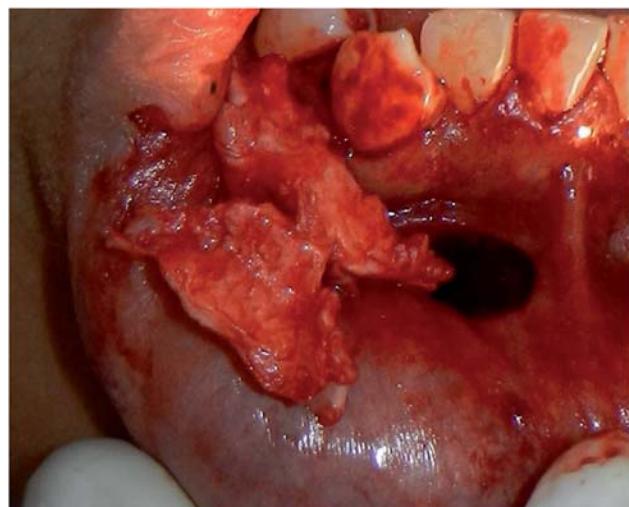


Figura 3. Toma de la biopsia incisional de la lesión, observándose una cavidad quística revestida por una cápsula de color blanco, firme, fácilmente desprendible.

DISCUSIÓN

El quiste odontogénico ortoqueratinizado es una variante poco común dentro de la patología intraoral, que debe tenerse en cuenta al observar lesiones quísticas de los maxilares. A pesar de ser considerado en algún tiempo como una variante del queratoquiste odontogénico, son múltiples los estudios e investigaciones que reflejan las diferencias clínicas, inmunohistoquímicas e histológicas entre la ortoqueratina y la parakeratina que presenta

cada uno de ellos, tal como lo ha establecido Villaroel et al., Li et al., Aragaky et al. y Da Silva et al.^{4,6,8,10} El quiste odontogénico ortoqueratinizado, a diferencia del tumor odontogénico queratoquístico, no muestra el hiperchromatismo y las células basales en empalizada. Presenta una superficie de queratina y un lumen de suficiente quera-

tina.¹¹ Las diferencias clínicas en cuanto a su recurrencia (4%) han hecho que las alternativas de tratamiento sean de tipo conservador. Han sido reportados cinco casos de transformación maligna hacia un carcinoma de células escamosas.⁸ Existen pocos reportes en la literatura de esta patología e incluso se ha descrito la contraparte extraósea, tal como lo refieren Boffano P (2012) y Chehade et al. (1994).^{12,13} Se ha reportado que los QOO se presentan en un patrón radiolúcido, 93% de tipo unilocular, 68% asociados a órganos dentales incluidos,³ existen reportes de asociación de QOO con premolares supernumerarios en pacientes, no sindrómicos, de manera bilateral.² Muchos reportes siguen sin definir al QOO como una entidad a parte del TOQ.

El QOO es un quiste del desarrollo que no se asocia al síndrome névico basocelular (síndrome de Gorlin Goltz).^{2-4,7} El caso que reportamos, al igual que lo descrito en la literatura, se presenta en un individuo masculino, asintomático y con una imagen radiolúcida asociada a la corona de un órgano dental retenido; sin embargo, se presenta en la región anterior mandibular, una zona poco referida para este quiste, presentando un tamaño poco usual, de 3.5 cm.

CONCLUSIONES

El quiste odontogénico ortoqueratinizado es una entidad poco descrita en la literatura; sin embargo, debemos considerarla como diagnóstico diferencial de lesiones como el quiste dentígero y el tumor odontogénico queratinizante, ya que las características clínicas y sobre todo radiológicas son muy similares. Es imprescindible tener el diagnóstico histopatológico antes de realizar cualquier procedimiento para evitar sobretratar esta lesión, mejorando así el pronóstico y recuperación de los pacientes.

Los diferentes estudios realizados reflejan que las características histológicas, patogénesis y el comportamiento clínico es muy diferente respecto al tumor odontogénico queratinizante, por lo que reportarlo ayudaría a tener una serie de casos en la literatura latinoamericana, para poder valorar el comportamiento clínico en nuestras poblaciones, con el objetivo de mejorar tratamientos y dar mejores pronósticos a nuestros pacientes.

BIBLIOGRAFÍA

- Chi AC, Neville BW. Odontogenic cyst and tumors. *Surgical Pathol Clinics*. 2011; 4: 1027-1091.
- Kasat VO, Saluja H, Kalburge JV, Kini Y, Nikam A, Ladha R. Multiple bilateral supernumerary mandibular premolars in a non-syndromic patient with associated orthokeratized odontogenic cyst- A case

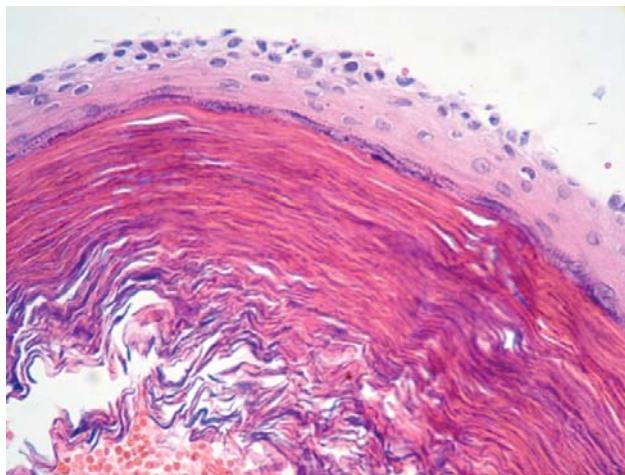


Figura 4. Imagen histológica del quiste odontogénico ortoqueratinizado.

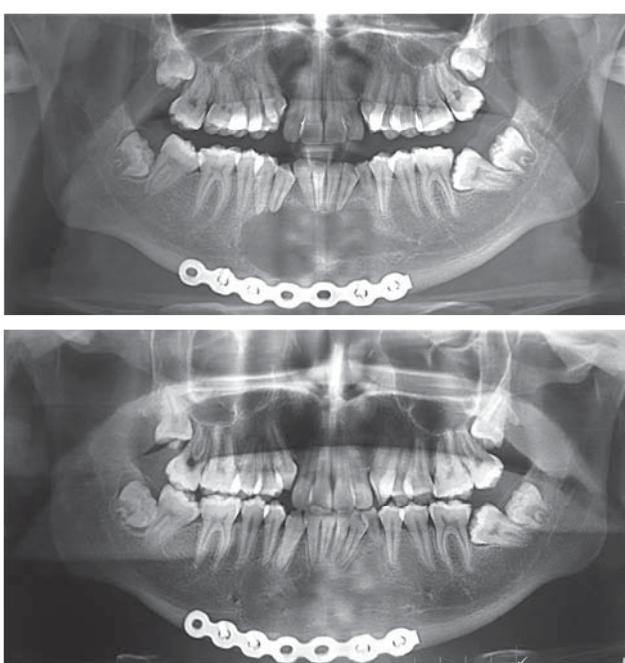


Figura 5. Ortopantomografía postoperatoria y a un año de evolución del paciente.

- report and review of literature. *Contemp Clin Dent.* 2012; 3 (2): S248-252.
3. Wright JM. The odontogenic keratocyst: orthokeratinized variant. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1981; 51 (6): 609-618.
 4. Perez GE, López LJ, Villarroel DM. Quiste odontogénico ortoqueratinizado: Una nueva entidad derivada del queratoquiste odontogénico. Revisión de la literatura. *Acta Odontológica Venezolana.* 2006; 44 (3).
 5. Barnes L. Surgical pathology of the head and neck. Vol. 2. 3a ed. New York, Informa Healthcare. 2009: pp. 1168-1170.
 6. Aragaki T, Michi Y, Katsume K, Uzawa N, Okada N, Akashi T et al. Comprehensive keratin profiling reveals different histopathogenesis of keratocyst odontogenic tumor and orthokeratinized odontogenic cyst. *Human Pathol.* 2010; 41: 1718-1725.
 7. Macdonald-Jankowski DS. Orthokeratinized odontogenic cyst: a systematic review. *Dentomaxillofac Radiol.* 2010; 39 (8): 455-467.
 8. Li TJ, Kitano M, Chen XM, Itoh T, Kawashima K, Sugihara K et al. Orthokeratinized odontogenic cyst: a clinicopathological and immunocytochemical study of 15 cases. *Histopathology.* 1998; 32 (3): 242-251.
 9. Yoshida H, Onizawa K, Yusa H. Squamous cell carcinoma arising in association with an orthokeratinized odontogenic keratocyst. Report of a case. *J Oral Maxillofac Surg.* 1996; 54 (5): 647-651.
 10. Da Silva MJ, de Sousa SO, Corrêa L, Cavalhosa AA, de Araujo VC. Immunohistochemical study of the orthokeratinized odontogenic cyst: A comparison with the odontogenic keratocyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol O Radiol Endod.* 2002; 94 (6): 732-737.
 11. Carvalho CH, Aquino AR, Nonaka CF, Silva JS, Germano AR, Pinto LP. Infected orthokeratinized odontogenic cyst: a rare cause of facial cellulitis. *Braz Dent J.* 2012; 23 (5): 612-616.
 12. Boffano P, Gallesio C. Peculiar case of orthokeratinised odontogenic cyst: a peripheral counterpart of the intraosseous entity? *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2012; 50 (5): e75-e77.
 13. Ide F, Saito I, Horie N, Shimoyama T. Orthokeratinized odontogenic cyst of the mandible with heterotopic cartilage. *Head Neck Pathol.* 2009; 3 (2): 150-152.

Correspondencia:

Dr. Gerardo Romero Jasso

Av. Universidad Núm. 1321,
Col. Florida,
Del. Álvaro Obregón, C.P. 01030, México, D.F.
E-mail: gerojaroge861212@hotmail.com