

Tumor Odontogénico Adenomatóide: Reporte de dos casos de localización mandibular

Oriana-Valenzuela- Rivera¹

María Angélica- Vila- Valenzuela²

Resumen

El Tumor Odontogénico Adenomatóide (TOA) es una neoplasia benigna que constituye entre el 3 al 7% de todos los tumores odontogénicos. Se asocian generalmente a dientes incluidos, afectando mayoritariamente al maxilar superior en el sector anterior, caracterizándose por su crecimiento lento, indoloro y asintomático. Se

presentan dos casos de pacientes jóvenes de 13 y 11 años de sexo masculino y femenino respectivamente con Tumor Odontogénico Adenomatóide, ambos ubicados en el sector posterior de la mandíbula y asociados a dientes incluidos. El estudio inmunohistoquímico de uno de los dos casos presentados demostró positividad para Ki-67 de un 12-20% patrón nuclear.

Relato de caso

Tumor Odontogénico Adenomatóide: Relato de dois casos de localização mandibular

Resumo

O Tumor Odontogénico Adenomatóide (TOA) é uma neoplasia benigna que atinge de 3 a 7% de todos os tumores odontogénicos. Associam-se geralmente a dentes inclusos, afetando majoritariamente o maxilar superior na região anterior, caracterizando-se por crescimento lento, indolor e assintomático. São apresentados dois ca-

sos de pacientes jovens de 13 e 11 anos, do sexo masculino e feminino, respectivamente, com Tumor Odontogénico Adenomatóide, ambos localizados em região posterior da mandíbula e associados a dentes inclusos. A análise imunohistoquímica de um dos dois casos apresentados demonstrou positividade para Ki-67 de um 12-20% padrão nuclear.

¹ Dpto. de Odontología – Facultad de Medicina y Odontología Universidad de Antofagasta

² Servicio Dental, Hospital Regional Antofagasta. draoriana@gmail.com

Case report

Adenomatoid Odontogenic Tumor: Report of two cases of mandibular location

Abstract

Adenomatoid Odontogenic Tumor (AOT) is a neoplasia which is between 3 to 7% of all odontogenic tumors. Teeth are usually associated included, affecting mostly the upper jaw in the anterior, characterized by slow growth, painless and asymptomatic. We present two cases of young patients of 13 and 11 years male and female respectively Adenomatoid Odontogenic Tumor, both located in the posterior region of the mandible and associated teeth included.

Immunohistochemical study of one of the two cases presented showed positivity for Ki-67 of a 12-20% nuclear pattern.

Keywords: Adenomatoid odontogenic tumor, dentigerous cyst.

Introducción

El Tumor Odontogénico Adenomatoido (T.O.A.) es una neoplasia epitelial benigna de origen odontogénico, relativamente poco frecuente, representa alrededor del 3 al 7% (1)(33) de todos los tumores odontogénicos, su ubicación más frecuente es en relación a la corona de caninos superiores incluidos(3)(5)(31). Aproximadamente el 75% de los casos se presentan en la región anterior de los maxilares y un 65% de los casos en el maxilar superior.(33) Se presenta con mayor frecuencia en mujeres que varones, en una relación 2:1, más de un tercio son diagnosticados en la segunda década de la vida, manifes-

tándose como aumento de volumen indoloro de crecimiento lento (2)(4)(3)(1)(30)(8), no exceden a 3 mm. de diámetro (1)(2)(33).

Se reportan casos de tumores odontogénicos en niños y adolescentes en Nigeria, del total de 78 casos estudiados un 9% correspondió a TOA(35), un estudio retrospectivo de 349 de tumores odontogénicos en México, dio como resultado de un 7,1% del total de los casos (36).

En el pasado esta lesión fué descrita como una variedad del ameloblastoma, siendo denominada adenoameloblastoma, posteriormente se reconoce como una entidad patológica diferente de acuerdo a su naturaleza, comportamiento e histología(5)(30)(3). Algunos autores postulan que de acuerdo al patrón de crecimiento y lo circunscrita de la lesión puede ser considerada o clasificada como hamartoma más que una verdadera neoplasia (21)(31).

Las células tumorales del T.O.A. derivan del epitelio reducido del órgano del esmalte de la fase postsecretora del desarrollo del órgano del esmalte (6)(30), del estrato intermedio, otros investigadores sugieren que la lesión deriva de remanentes de la lámina dental (1) (30).

Existen tres subvariedades clínicas las cuales comparten la misma histología: la forma folicular que representa el 73% de los T.O.A. de localización central, asociado a diente impactado; la forma extrafolicular de localización central, que no se asocia a estructura dentaria representa el 24% y la forma periférica que afecta la mucosa

gingival que representa al 3% de los T.O.A. (2)(7)(13).

Desde el punto de vista histopatológico el T.O.A. presenta una cápsula externa de tejido conjuntivo fibroso que rodea una formación nodular de células epiteliales, esta característica le confiere un carácter no invasivo.(34). El resto del tejido puede ser sólido o contener áreas quísticas focales, los nódulos están constituidos por células epiteliales fusiformes las que se disponen en forma arremolinada, en roseta, con mínima cantidad de tejido conjuntivo del estroma(24,2). Dispersas en la lesión se encuentran células cilíndricas que conforman estructuras pseudoductales, entre las células epiteliales es frecuente encontrar material eosinófilo amorfo (4)(7)(6)(2), que algunos autores denominan “gotas eosinófilas” (2), ocasionalmente pueden aparecer calcificaciones esféricas interpretadas como formación de esmalte abortivo (2)(24)(31).

Estudios inmunohistoquímicos de Ki-67 indican baja actividad proliferativa de la lesión lo que explicaría la no recurrencia de la lesión (2)(29).

Radiográficamente los T.O.A. foliculares se presentan como lesiones radiolúcidas uniloculares circunscritas que rodean la corona dentaria de

un diente no erupcionado, similar al quiste dentígero(3)(5)(28), la lesión puede expandir tablas, se extiende apicalmente a lo largo de la raíz bajo la unión cemento – esmalte, hallazgo que permite realizar el diagnóstico diferencial con Quiste dentígero (1)(4).

Se presentan dos casos clínicos de Tumor Odontogénico Adenomatoide de pacientes atendidos en el Servicio Dental del Hospital Regional de Antofagasta; ambos de localización poco frecuente, de variedad folicular que comprometen mandíbula y están asociados a dientes 4.4 y 3.7 intraóseos respectivamente.

Caso 1

Paciente varón de trece años de edad, sin antecedentes mórbidos de importancia, derivado por cirujano-maxilofacial para estudio imagenológico, con diagnóstico de aumento de volumen vestibular en relación a diente 4.4, persistencia de diente 8.4. Asintomático.

Al exámen intraoral se observa aumento de volumen a expensas de la tabla vestibular del cuerpo mandibular derecho, en relación a diente 4.4; la mucosa se presenta de aspecto normal.



Figura 1 a y b.

Imagenología: A la tomografía computarizada se observa lesión expansiva, hipodensa, redondeada corticalizada, asociada a diente 4.4, bira-diculado e incluido, que se encuentra en posi-ción oblicua con la corona hacia distal, la pieza dentaria se encuentra desplazado hacia basilar, la cortical distal se presenta adelgazada. **Fig. 1a, 1b.** Rodeando la corona se observan pequeñas calcificaciones periféricas. **Fig. 2.** La lesión rodea toda la pieza dentaria, expande tablas óseas, observándose exteriorización de la lesión hacia vestibular. **Fig. 3.**

Las raíz del diente 4.5 se encuentra ligeramente desplazada a distal.

El tamaño de la lesión es de 26.1 mm. en sentido mesio – distal y de 24.3 mm. en sentido vestíbu-

lo – lingual y se encuentra en relación a conduc-to dentario.

Se miden densidades alcanzando valores de 100.8, 96.3 y 77.3 U.H. respectivamente.

El diente 3.7 se encuentra semi – incluido y en mesioversion.

Histopatología: La muestra comprende tejido compuesto por epitelio odontogénico que se dispone en acúmulos sólidos, arremolinados, con estructuras pseudocanaliculares y pequeños quistes o estructuras tubulares. El tejido presenta calcificaciones y acúmulo de material eosinó-filo con aspecto de dentina displásica. **Fig. 4 a, b.**

Diagnóstico Histopatológico: Tumor Odonto-génico Adenomatoido.

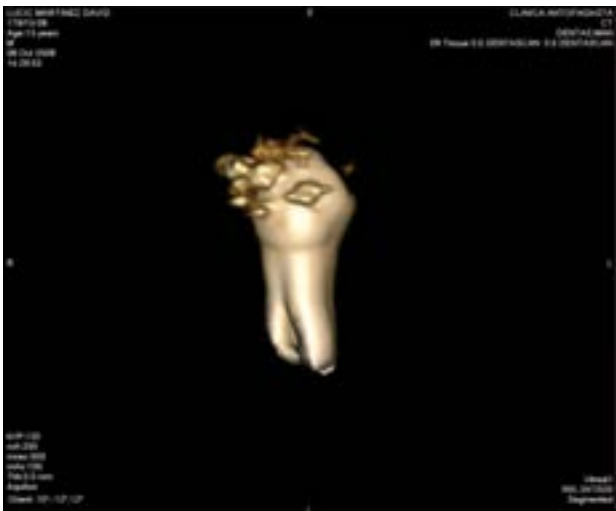


Figura 2.

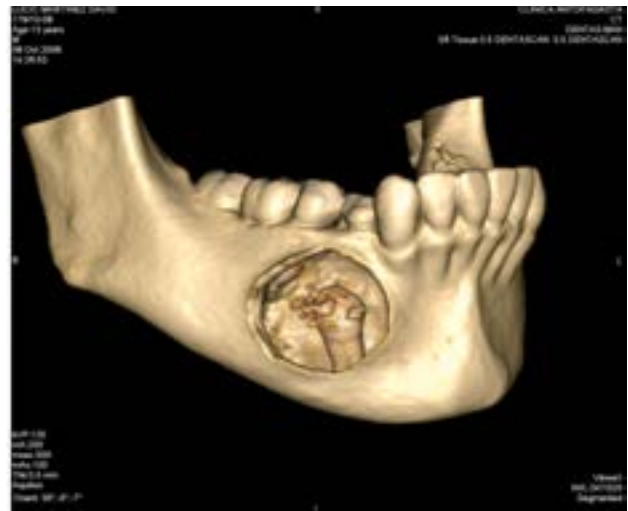


Figura 3.

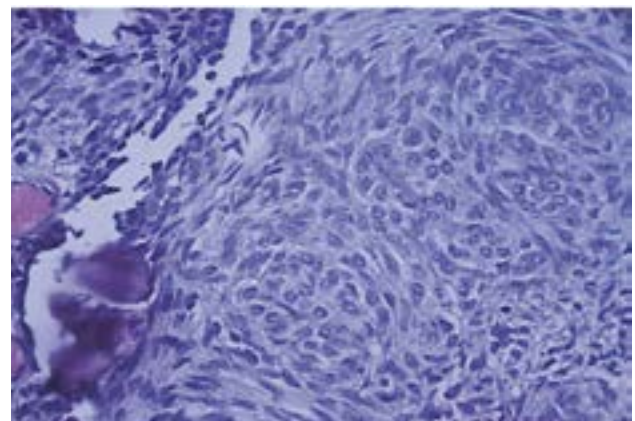
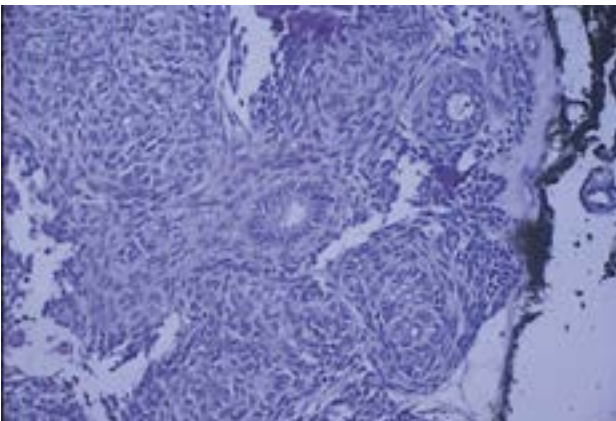


Figura 4 a y b.



Figura 5.



Figura 6.



Figura 7 a y b.

Caso 2

El presente caso corresponde a un hallazgo radiográfico en un paciente sexo femenino de 11 años, sin antecedentes mórbidos de importancia, derivada de la Especialidad de Ortodoncia para estudio radiográfico previo a tratamiento de Ortodoncia.

Al examen clínico extraoral se observa discreta asimetría facial con ligero aumento de volumen región facial izquierda. **Fig. 5.**

Al examen clínico intraoral la mucosa se observa de características normales, en el fondo de vestíbulo distal a diente 3.6 se observa lesión ulcerada. **Fig. 6.**

A la palpación en la zona retromolar se observa abombamiento de las tablas vestibular y lingual.

Imagenología: En la tomografía computarizada, distal a diente 3.7, el que se encuentra intraóseo con desarrollo de 2/3 radiculares, desplazado hacia lingual. **Fig. 7 a, b.** Se observa una lesión



Figura 8 a y b.

radiolúcida unilobulada con una extensión de 16.76 mm. en sentido vestibulo-lingual y de 30.07 mm. en sentido mesio-distal. La lesión se extiende desde la zona coronaradicular mesial de diente 3.7 hacia distal, desplazando a diente 3.8 hacia la rama mandibular, el diente 3.8 se encuentra con 2/3 coronarios calcificados, la lesión se observa adelgazada hacia lingual y en íntima relación con el conducto alveolar inferior. **Fig. 8 a, b.**

Histopatología: formación quística revestida parcialmente por epitelio escamoso y con estroma edematoso fibrovascular y neoplasia sólida de estirpe epitelial con células fusadas de distribución nodular con escaso componente estromal.

Estudio inmunohistoquímico:

- Citoqueratina (AE1 – AE3) POSITIVO difuso en células neoplásicas, patrón citoplasmático. **Fig. 9.**

- S-100 POSITIVO en una proporción de células neoplásicas, patrón nuclear y citoplasmático. **Fig. 10.**
- Ki67 POSITIVO alrededor del 12 – 20% de células neoplásicas patrón nuclear. **Fig. 11.**

Diagnóstico Histopatológico: Tumor odontogénico adenomatoide con componente predominantemente fusocelular.

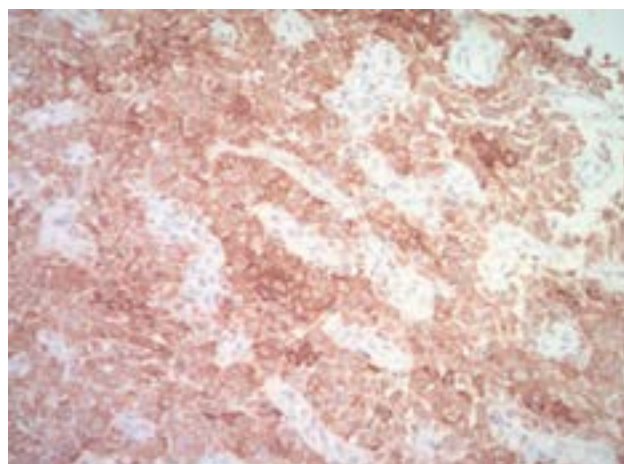


Figura 9. Citoqueratina.

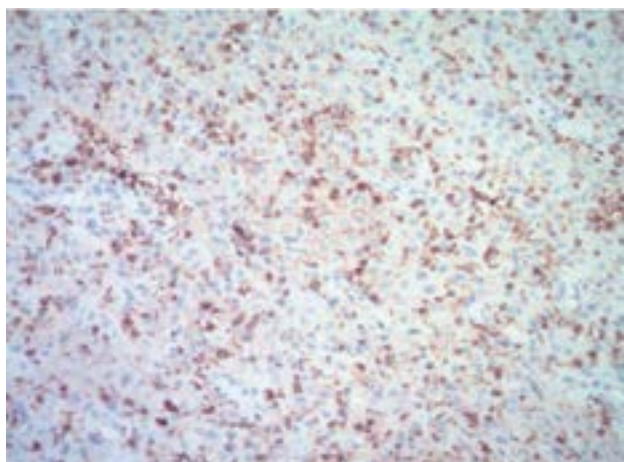


Figura 10. S-100.

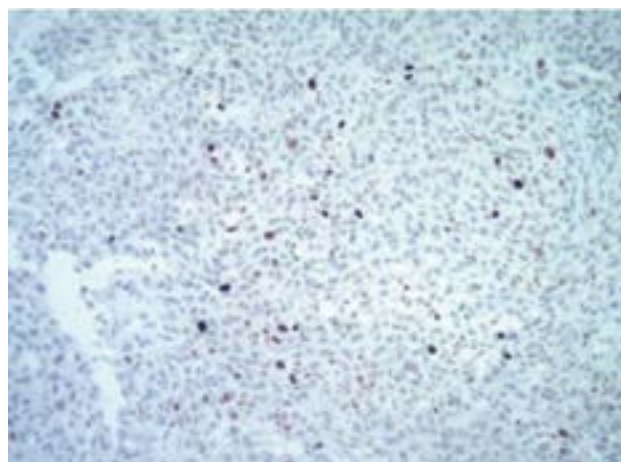


Figura 11. Ki67.

Discusión

El TOA antes de ser clasificado como una neoplasia verdadera, algunos autores lo consideraron una lesión hamartomatosa (21)(31) sin embargo en la nueva clasificación de Tumores Odontogénicos del año 2005 el TOA es definido como una neoplasia benigna de crecimiento lento y progresivo (9).

Se postula que el origen del TOA es a partir del epitelio odontogénico del órgano del esmalte (22) o de remanentes de la lámina dental (17), la calificación de adenomatoide está dada por el patrón histológico con presencia de estructuras pseudoductales (30,1, 31,10,11,12).

Los casos presentados corresponden a la variante central intraósea folicular de acuerdo a la reclasificación del TOA de Philipsen et al. realizada en el año 1991 (15) El TOA presenta un crecimiento lento, generalmente asintomático, característica observada en los dos casos expuestos, éstos difieren a lo encontrado en la literatura respecto a la localización ya que ambos comprometían a la mandíbula; el momento del diagnóstico fue en la segunda década de vida. Estudios indican que mayoritariamente (65%)

los TOA son diagnosticados en la segunda década y que comprometen el maxilar, en una relación de 2:1 respecto a la mandíbula. (33,26)

Los TOA aquí presentados se encuentran dentro del tamaño promedio descrito en la literatura de 1,5 a 3 cm de diámetro (21) (27). La manifestación a nivel mandibular es poco frecuente, sin embargo se han descrito otros casos en localización anteroinferior (19)(20)(25). El aumento de volumen mandibular a expensas de la tabla vestibular, la persistencia del diente 8.4 asociado a la alteración de la cronología de erupción del diente 4.4 en el caso 1 orientan a la presencia de un proceso patológico a evaluar, el que se evidencia al examen imagenológico. El segundo caso presentado correspondió a un hallazgo radiográfico en un examen imagenológico de rutina previo a tratamiento de Ortodoncia, que luego al examen clínico intraoral se pudo observar una lesión de la mucosa de aspecto ulcerado en relación directa con la lesión ósea, que compromete al diente 3.7 el que se encuentra retenido y que además desplazaba a diente 3.8 hacia la rama mandibular, característica de desplazamiento dentario similar a otros casos reportados en la literatura (13). En ambos casos se observan

piezas dentarias retenidas imagen frecuente de esta lesión (31, 1,30,32) (13) la mayoría de los casos que se reportan están asociados a caninos maxilares en un porcentaje entre un 40 a un 70% (14,15), los dos casos presentados están asociados a premolar y molar mandibular respectivamente, ubicación menos frecuente de esta patología, como casos reportados por Layton (16) y Philipsen 1992 (17).

En uno de los casos presentados se observó la presencia de calcificaciones orbitando la corona dentaria, patrón que permite realizar diagnóstico diferencial con quiste dentígero, además de la extensión de la lesión involucrando la raíz en el caso del TOA. (18,5,6,23)

En ambos casos el tratamiento realizado fue la enucleación de la lesión, se ha realizado seguimiento de los pacientes, no presentando recidiva a la fecha, lo cual concuerda con Giansanti et al. (14) quien reporta seguimientos de casos

durante 10 años sin observar recurrencia. La recidiva de estas lesiones estaría asociada a la baja positividad a Ki-67 en estudios de inmunohistoquímica, se podría traducir como baja actividad proliferativa del tumor (2). En el caso 2 la positividad a Ki-67 resultó de un 12-20% patrón nuclear, valor que supera lo reportado en la literatura de un 2-3% de positividad (2) resultado que debemos considerar para el seguimiento estricto de este caso en particular, ya que aunque poco frecuente se ha descrito recurrencia (4).

El TOA constituye un tumor odontogénico que se presenta con poca frecuencia, los casos aquí presentados corresponden a la variante intraósea central folicular asociados a dientes retenidos en región premolar y molar mandibular. Los análisis histopatológicos confirmaron el diagnóstico de TOA y a la fecha mediante controles imagenológicos post-quirúrgicos no se ha demostrado recidiva.

Referencias

1. Neville B, Damm D, Allen C, Bouquot J. Oral & Maxillofacial Pathology. W.B. Saunders Company 2009;713-715.
2. Neville B, Damm D, White D. Atlas Colorido de Patología Oral Clínica. Distúrbios do osso. Segunda Edición. 2001;406-407.
3. Som P, Curtin H. Radiología de cabeza y cuello. Mosby 4ª Edición 2004;1:952-53.
4. Freitas A, Rosa J, Farías e Souza I. Radiología Odontológica. Artes Médicas Latinoamericana. 1ª Edición 2002;477.
5. Soames JV, Southam JC. Oral Pathology. Odontomes and Odontogenic tumours. Oxford 4ª Edición 2005-2006;232-233.
6. Vera FJ, Artes MJ, Vera B & Bonet J. Tumor odontogénico adenomatoide folicular: Estudio inmunohistoquímico. Med. Oral patol. Oral cir. Bucal 2006;11:4.
7. Chuan-Xiang Z, Gan G. Adenomatoide tumor odontogénico: a propósito de un caso poco frecuente, con recurrencia. J Med Oral Pathol 2007;36(7):440-3.
8. Sciubba JJ, Fantasia JE, Kahn L. Atlas of Tumor Pathology. Tumors and Cysts of the Jaw. Benign Odontogenic Tumors 2001; 90-95.
9. Philipsen HP, Nikai H. Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours. Chapter 6. Odontogenic Tumours 2005;304-305.
10. Adebayo ET, Ajike SO, Adekeye EO. Odontogenic tumours in children and adolescents: a study of 78 Nigerian cases. J Craniomaxillofac Surg 2002;30(5):267-72.
11. Mosqueda-Taylor A, Ledsma Montes C, Cabllero-Sandoval S, Portilla-Robertson J, Ruiz-Godoy Rivera LM, Meneses-García A. Odontogenic tumors in Mexico: a collaborative retrospective study of 349 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 1977;84(6):672-5.
12. Philipsen HP, Reichart PA. Adenomatoid odontogenic tumor: facts and figures. Oral Oncol 1998;35:125-31.

13. Saap JP, Eversole LR, Wysocki GP. Patología Oral y Maxilofacial Contemporánea. Harcourt Brace. 1998;136-38.
14. Philipsen HP, Reichart PA, Siar CH, Ng KH, Lau SH, Zhang X, Dhanuthai K, Swasdison S, Jankittivong A, Meer S, Jivan V, Altini M, Hazarey V, Ogawa I, Takata T, Taylor AA, Godoy H, Delgado WA, Carlos-Bregni R, Macías JF, Matsuzaka K, Sato D, Vargas PA, Adebayo ET. An updated clinical and epidemiological profile of the adenomatoid odontogenic tumor: a collaborative retrospective study. *J. Oral Pathol Med* 2007;36:383-93.
15. Velasco, I, Aguilar L. & Venables C. Adenomatoide odontogénico tumor in maxilla: a report case and review of the literature. *Int. J. Odontostomat* 2011;5(1):65-69.
16. Boraks, S. Diagnóstico Bucal. Semiología y alteraciones de los huesos maxilares. *Artes Médicas Latinoamérica* 2004;283.
17. Escalante M, Rebolledo M. Concepto actual, diagnóstico y tratamiento del tumor odontogénico adenomatoide. Reporte de un caso. *Saud Uninorte. Barranquilla (Col.)* 2012;28(3):432-437.
18. León JE, Mata GM, Fregnani ER, Carlos-Bregni R, de Almeida Op, Mosqueda-Taylor A, Vargas PA. Clinicopathological and Immunohistochemical study of 39 cases of Adenomatoide Odontogénico Tumor: a multicentric study. *Oral Oncol.* 2005;41(8): 835-42.
19. Ortiz E, Liceaga C, Mosqueda A, Liceaga R. Tumor odontogénico adenomatoide: presentación de un caso de tamaño inusual y revisión de literatura. *Rev Hosp Jua Mex* 2006;73(2):60-63.
20. Barnes L, Eveson J.W., Reichart P & Sidransky D. World Health Organization classification of tumors. Pathology and genetics of head and neck tumors. Lyon, IARC, 2005.
21. Schlosnagle DC, Someren A. The ultrastructure of the adenomatoid odontogenic tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1981;52:154-60.
22. Philipsen HP, Samman N, Ormiston IW, Wu PC, and Reichart PA. Variants of the adenomatoid odontogenic tumor with a note on tumor origin. *J Oral Pathol Med* 1992;21:348-52.
23. Bascones A, Llanes F. Medicina Bucal. Segunda Edición. Tomo II Ediciones Avances Medico-Dentales, S.L. 1991;527-528.
24. Goaz & White. Oral Radiology. Principles and Interpretation. Tercera Edición 1995;87-95.
25. Langlais R, Langland O, Nortjé Ch. Diagnostic Imaging of the Jaws. Williams & Wilkins. 1995;312-315.
26. Philipsen HP, Reichart PA, Zhang KH, Nikai H, Yuq X. Adenomatoide Odontogénico Tumor: Biologic profile based on 499 cases. *J Oral Pathol Med* 1991;20(4):149-158.
27. Briones D, Basili A, Castellón L, Montero S. Tumor Odontogénico Adenomatoide: Reporte de Caso y Revisión Bibliográfica. *Revista Dental de Chile* 2005;96(2):14-16.
28. Lee JK, Lee KB, Hwang BN. Adenomatoide Odontogénico Tumor: A Case Report. *J Oral Maxillofac Surg* 2000;58:1161-1164.
29. Sanchez E, Vila D, Garmendia A, Serra A, Torres A. Tumor odontogénico adenomatoide en region mandibular. *Revista Cubana de Estomatología* 2010; 47(4):447-454.
30. Montilla G., Rivera H. Tumor odontogénico adenomatoide. Reporte de un caso en Mandíbula-Revisión bibliográfica. *Acta Odontológica Venezolana* 1997;35:3.
31. de Almeida R, Carneiro B, Costa L, Silveira de Castro C. Tumor odontogénico adenomatoide en mandíbula. *Revista Cubana de Estomatología* 2011;48(2):172-180.
32. Regezi JA, Sciubba JJ, Jordan R. Oral Pathology. Clinical Pathologic Correlations. Chapter 11. Odontogenic Tumors 2003; 276-277.
33. Giansanti JS, Somers A, Waldron CA. Odontogenic adenomatoid tumor (adenoameloblastoma). *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1970;30:69.
34. Layton SA. Adenomatoide odontogénico Tumor: report of an unusual lesion in the posterior maxilla. *Dentomaxillofac Radiol* 1992;21(1): 50-52.
35. Dare, A., Yamaguchi, A., Yoshiki, S. & Okano, T. Limitation of panoramic radiography in diagnosing adenomatoid odontogenic tumors. *Oral Surg. Oral ME. Oral Pathol* 1994;77(6):662-8.
36. Alfaro L, Martínez B. Atlas de Patología de los maxilares. 1ª Edición (Madrid); Ripano S.A. 2011;150-54.

Revisión y traducción de portugués: Fabián Calixto Fraiz

Recibido: 26-06-13

Aceptado: 03-07-13

Correspondencia: draoriana@gmail.com