



Asociación Mexicana de
Cirugía Bucal y Maxilofacial,
Colegio Mexicano de Cirugía
Bucal y Maxilofacial, A.C.

Vol. 11, Núm. 2 • Mayo-Agosto 2015 • pp. 48-52

Quiste odontogénico ortoqueratinizado. Reporte de un caso

Gerardo Romero Jasso,* Daniel Dillarza Andrade,** Doroteo Vargas López,***
Arturo Gómez Pedroso Balandrano****

RESUMEN

El quiste odontogénico ortoqueratinizado es un quiste poco común del desarrollo de los maxilares, descrito en 1956 por Philipsen como una variante del queratoquiste odontogénico (tumor odontogénico queratinizante) y posteriormente identificado por Wright como una entidad totalmente aparte, sigue siendo hoy en día un punto de controversia. Se reporta el caso de un paciente masculino de 15 años de edad que acude al Servicio de Cirugía Maxilofacial de nuestra institución, el cual es diagnosticado con un quiste odontogénico ortoqueratinizado. Tener una adecuada ruta clínica en cuanto al diagnóstico por imagen y sobre todo el resultado de la biopsia incisional es fundamental para poder diagnosticar y no sobretratar padecimientos que con procedimientos menos invasivos y agresivos tienen mejor pronóstico.

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

SUMMARY

The orthokeratinized odontogenic cyst is an unusual cyst development of the jaws, described in 1956 by Philipsen as a variant of odontogenickeratocyst (keratinizing odontogenic tumor) and later identified by Wright as an entirely separate entity which remains today a point of controversy. The case of a male patient aged 15 years, admitted to the Maxillofacial Surgery of our institution and diagnosed with an odontogenic orthokeratinized cyst is reported. To have an appropriate clinical route in terms of clinical diagnosis, imaging, and especially the result of the incisional biopsy is essential to diagnose and treat conditions that have a better prognosis with less invasive and aggressive procedures.

Key words: Odontogenic orthokeratinized cyst, odontogenic keratocyst, odontogenic keratinizing tumor.

* Residente de cuarto año del Servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital Regional «Licenciado Adolfo López Mateos», (HRLALM), ISSSTE.

** Cirujano Maxilofacial. Práctica privada.

*** Médico adscrito al Servicio de Cirugía Maxilofacial, HRLALM.

**** Jefe del Servicio de Cirugía Maxilofacial, HRLALM.

Correspondencia:

Gerardo Romero Jasso
Avenida Universidad Núm. 1321,
Colonia Florida, 01030,
Delegación Álvaro Obregón.
E-mail: gerojaroge861212@hotmail.com

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 7 casos, de los cuales 2 presentaban ortoqueratina en su lumen y al menos uno de los casos se encontraba revestido por un epitelio ortoqueratinizado, motivo por el cual los demás autores continuaron clasificándolo como un queratoquiste odontogénico. En 1981 Wright propone separar el QOO del queratoquiste odontogénico, haciéndolo una entidad diferente debido a las variantes histológicas y el comportamiento clínico que presenta.^{1,3,4}

Su incidencia es mayor 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 afectado 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

Radiográficamente se presenta como una imagen radiolúcida de bordes bien definidos, en su mayoría de los casos unilocular aunque puede presentarse 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 se encuentra el quiste dentígero, el queratoquiste odontogénico (tumor odontogénico queratinizante).^{4,8,9}

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.¹⁰

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 2-4% de las lesiones recurrentes, lo que lo hace menos recurrente 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 podido reportar la tasa de transformación maligna de este tipo de lesiones, ya que han sido pocos los casos en los que se ha observado este comportamiento y muy seguramente en estos casos el crecimiento tumoral solamente pudo haber sido observado histológicamente en la transición y cambios displásicos en la membrana quística.¹¹

En este artículo se reporta un caso de QOO tratado mediante enucleación, sin reportar recidiva alguna hasta el momento y que se encuentra en la región anterior mandibular.

REPORTE DE CASO

Se trata de paciente masculino de 15 años de edad, el cual acude al Hospital Regional «Licenciado Adolfo López Mateos» 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, normoinserción 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, ligero crépito y sintomatología dolorosa durante la palpación de la región. Durante el examen clínico intraoral presenta 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. Motivo por el cual se deci-

de solicitar al paciente ortopantomografía en la cual 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*). Resto de estructuras sin datos de importancia para el padecimiento actual. Se solicita estereolitografía de macizo superior e inferior en la que 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 BAAF de la lesión obteniendo un líquido amarillo, pastoso, espeso, coleccionando aproximadamente 4 cm³, el cual es colocado en laminillas realizando un frotis y para llevarlo a estudio citológico (*Figura 2*). Al conocer que se trataba de una lesión quística se toma la decisión de realizar



Figura 1. Ortopantomografía en la que se observa imagen radiolúcida de bordes bien delimitados que desplaza algunas raíces dentales, unilocular, desde la zona de premolares derechos al contralateral con inclusión dental de canino inferior izquierdo.



Figura 2. Punción. Obteniendo 4.5 mL de material color citrino, de consistencia espesa, de mal olor.

una biopsia teniendo como diagnósticos iniciales: tumor odontogénico queratoquístico versus quiste dentígero versus ameloblastoma uniuquístico. Se procede a realizar incisión lineal en la región vestibular mentoniana derecha para disecar subperióticamente hasta encontrar tejido óseo, el cual se encuentra adelgazado y crepitante durante la palpación. Se realiza osteotomía de la zona para tomar biopsia incisional de la cavidad quística, la cual presenta una consistencia firme de color blanco con zonas café claro fácilmente desprendible, se coloca la muestra en formaldehído al 10% para su estudio histopatológico y se sutura la zona con ácido poliglicólico 3-0, puntos simples y se cita para revisión (*Figura 3*). Posterior a 7 días la zona se encuentra adecuadamente cicatrizada con resultado citológico de «compatible con queratoquiste odontogénico» y resultado histopatológico de queratoquiste odontogénico por lo que se programa para realizar abordaje quirúrgico para 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 a que clínicamente se observaba muy debilitado (*Figura 4*).

El reporte histopatológico refiere presentar una cavidad quística formada por tejido fibroso laxo maduro bien vascularizado, con abundantes focos de infiltrado inflamatorio mixto y predominio

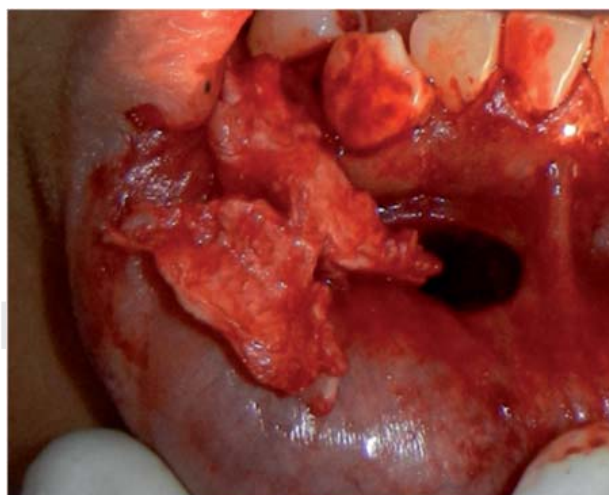


Figura 3. Biopsia incisional de la lesión, observando una cavidad quística revestida por una cápsula de color blanco, firme, fácil desprendible.

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 y con desprendimiento de queratina en láminas hacia la luz quística. En algunas zonas se aprecia ruptura del epitelio con reacción gigantomielocelular a cuerpo extraño. Se señala un diagnóstico compatible con quiste odontogénico ortoqueratinizado (*Figura 5*).

Se cita al paciente para revisión con ortopantomografía de control en la que se aprecia 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 el cual se obtiene nueva ortopantomografía observando condensación ósea y formación de nuevo tejido en la zona quística (*Figura 6*).

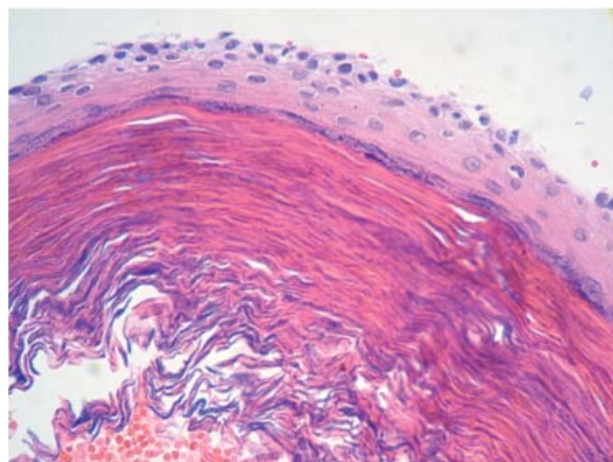


Figura 4. Fotografía macroscópica de la lesión, en la que se observa el órgano dental con asociación al quiste odontogénico ortoqueratinizado.



Figura 5. Imagen histológica del quiste odontogénico ortoqueratinizado.

DISCUSIÓN

El quiste odontogénico ortoqueratinizado es una variante poco común dentro de la patología intraoral que debe tenerse en cuenta ante la presencia de 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 paraqueratina que presenta cada uno de ellos, tal como lo ha establecido Villaroel et al, Li TJ et al, Aragaky T et al y Da Silva MJ et al.^{2,4,6,10,12} El quiste odontogénico ortoqueratinizado a diferencia del tumor odontogénico queratoquístico no presenta el hiperchromatismo y las células basales en empalizada. Se observa una superficie de queratina y un lumen de suficiente queratina.⁵ Las diferencias clínicas en cuanto a su recurrencia (4%) han hecho que las alternativas de tratamiento sean de tipo conservador. Han sido reportados 5 casos de transformación maligna a un carcinoma de células escamosas.² Existen pocos reportes en las publicaciones médicas de esta patología e incluso se ha llegado a describir la contraparte extraósea, tal como lo refiere Boffano P. (2012) y Chehade et al. (1994).^{13,14} Se ha reportado que los QOO se presentan en un patrón radiolúcido, 93% de tipo unilocular, 68% asociados a órganos dentales incluidos,⁷ son escasos los reportes de asociación de QOO a dientes supernumerarios premolares en pacientes no sindrómicos de manera bilateral.² Numerosos estudios continúan sin definir al QOO como una entidad aparte del TOQ.

El QOO es un quiste del desarrollo que no se asocia al síndrome névico basocelular (síndrome de Gorlin Goltz).^{2-4,7} En el caso que reportamos, al igual que la bibliografía médica, se presenta en un



Figura 6. Ortopantomografía postoperatoria y a un año de evolución del paciente.

paciente masculino, asintomático y con una imagen radiolúcida asociada a la corona de un órgano dental retenido, sin embargo, aparece en la región anterior mandibular, una zona poco referida para este quiste con un tamaño poco usual de 3.5 cm.

CONCLUSIONES

El quiste odontogénico ortoqueratinizado es una entidad poco descrita en las publicaciones médicas, 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 un buen diagnóstico por biopsia incisional antes de realizar cualquier procedimiento o sobretratar nuestra patología, mejorando así el pronóstico y recuperación de nuestros pacientes. A pesar de ser una entidad poco común es necesario que se lleven a cabo más reportes a largo plazo. 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 registrar una serie de casos en la bibliografía latinoamericana para poder valorar el comportamiento clínico en nuestras poblaciones con el objetivo de mejorar los tratamientos y ofrecer óptimos pronósticos a nuestros pacientes.

BIBLIOGRAFÍA

1. Chi AC, Neville BW. Odontogenic cyst and tumors. *Surgical Pathol Clinics*. 2011; 4: 1027-1091.
2. Kasat VO, Saluja H, Kalburge JV, Kini Y, Nikam A, Ladhha R. Multiple bilateral supernumerary mandibular premolars in a non-syndromic patient with associated orthokeratinised odontogenic cyst- A case report and review of literature. *Contemp Clin Dent*. 2012; 3 (2): S248-252.
3. Wright JM. The odontogenic keratocyst. Orthokeratinized variant. *Oral Surgery*. 1981; 51 (6): 609-618.
4. Pérez-González E, López-Labady J, Villarroel-Dorrego M. Quiste odontogénico ortoqueratinizado: una nueva entidad derivada del queratoquiste odontogénico. *Revisión de la literatura*. *Acta Odontológica Venezolana*. 2006; 44 (3): 419-423.
5. Barnes L. *Surgical pathology of the head and neck*. Vol. 2. 3a ed. NY, USA: Informa Healthcare; 2009: pp. 1168-1170.
6. Aragaki T, Michi Y, Katsube 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. Jankowski M. Systematic review orthokeratinized odontogenic cyst: a systematic review. *Dentomaxillofac Radiol*. 2010; 39: 455-467.
8. Carvalho CH, Aquino AR, Nonaka CF, Silva JS, Germano-Ada R, Pinto LP. Infected orthokeratinized odontogenic cyst: a rare cause of facial cellulitis. *Braz Dent J*. 2012; 23 (5): 612-616.
9. Ide F, Saito I, Horie N, Shimoyama T. Orthokeratinized odontogenic cyst of the mandible with heterotopic cartilage. *Head and Neck Pathol*. 2009; 3: 150-152.
10. Li TJ, Kitano M, Chen M, Itoh T, Kawashima K, Sugihara K, et al. Orthokeratinized odontogenic cyst: a clinicopathological and immunocytochemical study of 15 cases. *Histopathology*. 1998; 32: 242-251.
11. 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: 647-651.
12. Da Silva MJA, de Sousa SO, Correa L, Cavallhosa AA, de Araujo VC. Immunohistochemical study of the orthokeratinized odontogenic cyst: a comparison with the odontogenic keratocyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2002; 94: 732-737.
13. Boffano P, Gallesio C. Peculiar case of orthokeratinised odontogenic cyst: a peripheral counterpart of the intraosseous entity? *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2012; 50: e75-e77.
14. Chehade A, Daley TD, Wysocki GP, Miller AS. Peripheral odontogenic keratocyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1994; 77: 494-497. Citado en: Boffano P, Gallesio C. Peculiar case of orthokeratinised odontogenic cyst: a peripheral counterpart of the intraosseous entity? *BJOMS*. 2012; 50: e75-77.