



Quiste odontogénico ortoqueratinizado

Alfredo Calderón Durán,* Jaime García Velasco,**
Víctor Daniel Cázarez Ríos,*** Irving Othón Alvarado García***

RESUMEN

El quiste odontogénico ortoqueratinizado es una entidad reconocida desde 1981; representa un grupo específico de quistes de origen odontogénico. En la actualidad se clasifica independientemente del tumor odontogénico queratoquístico. Es una lesión poco frecuente, asintomática, que por lo común se da en una edad promedio de 35.4 años; tiene predilección por el sexo masculino. Se presenta con mayor frecuencia en la mandíbula, en la región de los molares y la rama mandibular. No está asociado al síndrome de Gorlin-Goltz; sin embargo, se han reportado casos donde se ha evidenciado una transformación neoplásica en su capa epitelial. Radiográficamente, se observa imagen radiolúcida unilocular, no produce expansión de corticales óseas y por lo general está asociado con dientes impactados. Histológicamente, posee un epitelio ortoqueratinizado, un prominente estrato granuloso y células basales cúbicas con poca tendencia a tener núcleos polarizados. Inmunohistoquímicamente, demuestra que posee poco potencial de proliferación y actividad celular, lo que explica su poca recurrencia después de la cirugía, por lo que se sugieren alternativas de tratamiento conservadoras. Es una lesión quística no

SUMMARY

The orthokeratinized odontogenic cyst has been a recognized entity since 1981; it represents a specific group of cysts of odontogenic origin. It is now classified independently from the keratocystic odontogenic tumor. It is a rare, asymptomatic lesion that commonly occurs at an average age of 35.4 years and has a predilection for males. It occurs most frequently in the jaw, mandibular molar region and branch. It is not associated with Gorlin-Goltz syndrome; however, there have been cases where neoplastic transformation in its epithelial layer has been demonstrated. Radiographically, unilocular radiolucency can be observed, which produces an expansion of cortical bone and is generally associated with impacted teeth. Histologically, it has an orthokeratinized epithelium, a prominent granular layer, and cubic basal cells with little tendency to having polarized nuclei. Immunohistochemically, it has little potential for proliferation and cellular activity, which explains their low recurrence after surgery and suggests the use of an alternative conservative treatment. It is a non-aggressive cystic lesion with well-defined characteristics. Treating it early can improve

www.medigraphic.org.mx

* Cirujano Maxilofacial, profesor definitivo de asignatura «A» de la Carrera de Cirujano Dentista, FES Zaragoza, UNAM, y Jefe de Servicio de Cirugía Maxilofacial, Hospital Torre Médica Tepepan, SS del GDF.

** Cirujano Maxilofacial adscrito al Servicio de Cirugía Maxilofacial, Hospital Torre Médica Tepepan, SS del GDF.

*** Cirujano Dentista. Consultorio odontológico privado.

Correspondencia:
Alfredo Caderón Durán
E-mail: alfcald67@hotmail.com

agresiva con características bien definidas; si se trata a tiempo, puede mejorar el pronóstico del paciente. Se reporta un caso en una paciente de sexo femenino, de 11 años de edad, que al examen clínico y radiográfico presentó una lesión circunscrita en el maxilar izquierdo, radiolúcida, unilocular. Después de los exámenes clínicos, radiográficos e histopatológicos, se diagnosticó quiste odontogénico ortoqueratinizado. Se realizó tratamiento quirúrgico con resultados satisfactorios y sin señales clínicas ni radiográficas de recidiva hasta el momento.

Palabras clave: Ortoqueratinizado, odontogénico, quiste.

the patient's prognosis. This is a case report on an 11-year-old female patient, her clinical and radiographic examination showed a circumscribed unilocular, radiolucent lesion in the left maxillary. After clinical, radiographic and histopathological examinations, an orthokeratinized odontogenic cyst was diagnosed. Surgical treatment was performed with satisfactory results and there have been no clinical or radiographic signs of recurrence to date.

Key words: Orthokeratinized, odontogenic, cyst.

INTRODUCCIÓN

El quiste odontogénico ortoqueratinizado (QOO) se consideró como un tipo de queratoquiste odontogénico. Con el paso de los años, se ha observado que el QOO es menos agresivo en su comportamiento y tiene menor grado de recurrencia, así como características biológicas e histopatológicas diferentes, por lo que actualmente se considera una entidad diferente.¹⁻³

El QOO fue por primera vez descrito por Schultz en 1927 como un quiste dermoide, y en 1945 fue considerado por Philipsen como un tipo eventual de tumor odontogénico queratoquístico (TOQQ). El QOO fue primero identificado por Wright, en 1981, como una variante ortoqueratinizada del queratoquiste odontogénico debido a sus diferencias histopatológicas y la poca probabilidad de recurrencia. La edición del 2005 de la clasificación histológica de tumores reclasificó el tipo paraqueratinizado como un TOQQ y manifestó que las lesiones quísticas que tienen epitelio ortoqueratinizado no forman parte del TOQQ.⁴⁻¹⁰

Se sugiere que el QOO comparte el mismo origen que el TOQQ, ya que ambos se presentan como lesiones intraóseas de los maxilares que afectan con mayor frecuencia la región posterior de la mandíbula. Son múltiples los estudios que indican el desarrollo del QOO a partir de los restos de la lámina dental. Esta hipótesis se sustenta en la mayor incidencia de estas lesiones en la región de los molares y la rama ascendente de la mandíbula, donde el trayecto que sigue la lámina dental es más tortuoso, lo que origina en su desintegración mayor cantidad de islotes de restos epiteliales. Los restos de la lámina dental pueden quedar atrapados en tejido óseo y/o en los tejidos blandos. En los tejidos blandos involucionan a través de la formación de microquistes y su posterior fusión con el epitelio de la mucosa. En cambio, cuando estos restos quedan incluidos dentro del hueso, no puede llevarse a cabo esta involución.

Otras investigaciones enfatizan la probabilidad de que las células basales de la mucosa bucal pudieran originar estos quistes.

El QOO muestra una mayor incidencia en hombres que en mujeres, con una relación de 3.2:1. La edad de afectación se encuentra en un rango comprendido entre la segunda y cuarta década de la vida, con una edad promedio de 35.4 años. Se encontró que la mandíbula fue el hueso más afectado, teniendo mayor predominancia por el sector posterior.¹¹⁻¹⁴

El QOO está constituido por una pared tapizada por un epitelio escamoso estratificado delgado, uniforme, con un espesor promedio de cuatro a ocho células. La capa de células basales está mucho menos desarrollada que en el TOQQ, tienden a ser cuboidales y muestran poca o ninguna tendencia a ser polarizadas o hiper cromáticas. Da Silva sugiere que la expresión de fibronectina en TOQQ puede explicar la polarización del núcleo de las células basales y también el comportamiento más agresivo que poseen. Esta matriz de proteínas extracelulares fue, sin embargo, poco dispersada en casos de QOO. La capa espinosa está compuesta de células cuyas formas varían desde poliédricas a chatas, con citoplasma eosinófilo y puentes intercelulares prominentes. La capa granular está bien desarrollada y su superficie está cubierta por ortoqueratina. En general, se aprecia un proceso gradual y continuo de maduración epitelial desde la capa basal hacia la superficie ortoqueratinizada, mientras que en el TOQQ la transición de la capa basal a la superficie paraqueratinizada, en la mayoría de los casos, se presenta de manera abrupta. En el QOO, la interfase epitelio-conjuntivo también es llana, con una discreta membrana basal. El tejido que forma la cápsula del quiste está constituido por conjuntivo fibroso denso.¹⁵⁻¹⁷

Los diferentes estudios descritos en la literatura demuestran que el QOO presenta unas características inmunohistoquímicas bien definidas, compatibles

con su potencial de crecimiento limitado y su naturaleza quística.

El QOO tiene características clínicas muy similares al TOQQ, ameloblastoma poliquístico y quiste dentígero.

CASO CLÍNICO

Se trata de un paciente femenino de 11 años de edad que acude al Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial de la CUAS, FES Zaragoza, UNAM, referida por presentar infección asociada a una lesión difusa, originada por manipulación en el tratamiento quirúrgico-ortodóntico de un canino incluido en el maxilar superior del lado izquierdo. La paciente no presenta antecedentes personales de relevancia para el padecimiento.

A la exploración intraoral, presenta aumento de volumen en la región alveolar del maxilar del lado izquierdo, fístula con salida de secreción purulenta y herida con tejido de granulación. No presenta adenomegalias ni sintomatología sistémica agregada.

Al examen radiográfico y tomográfico, se observa una lesión radiolúcida unilocular asociada a órganos dentarios incluidos, abarcando la apófisis alveolar y palatina, pared anterior y seno maxilar (*Figuras 1 a 3*).



Figura 1. Ortopantomografía preoperatoria.



Figura 2. Tomografía preoperatoria.



Figura 3. Reconstrucción 3D.



Figura 4. Resección quirúrgica de la lesión.

Se decide control del proceso infeccioso y realizar biopsia incisional bajo anestesia local mediante bloqueo de los nervios infraorbitario izquierdo, nasopalatino y palatino anterior con lidocaína con epinefrina, abordaje con colgajo tipo envolvente, con una muestra de aproximadamente $21 \times 16 \times 3$ mm, cierre de la herida con puntos simples y colocación de la muestra en formaldehído al 10%.

El estudio histopatológico reporta fragmento de pared quística formada por tejido fibroso laxo maduro bien vascularizado, con abundantes focos de infiltrado inflamatorio tipo mixto y predominio linfoplasmocitario. La superficie se encuentra revestida con epitelio escamoso estratificado de seis a ocho capas de espesor, con capa basal poco aparente, libre de procesos interpapilares y superficie ortoqueratinizada y con desprendimiento de queratina en láminas hacia la luz quística. En algunas zonas se aprecia epitelio de revestimiento no queratinizado, con acantosis arcoial en zonas de mayor inflamación. Resultado: quiste odontogénico ortoqueratinizado.

Se decide realizar resección y enucleación de la lesión bajo anestesia general balanceada, intubación orotraqueal; se accede mediante incisión tipo semi-Newman, levantamiento de colgajo mucoperióstico con enucleación de la lesión y curetaje de la cavidad y de seno maxilar (Figura 4), además de extraer los órganos dentarios involucrados en la lesión quística; se coloca Penrose y se cierra la herida con ácido poliglicólico. La paciente cursa postoperatorio a corto y mediano plazo sin complicaciones.

Se obtuvo una lesión consistente de dos fragmentos, de $55 \times 33 \times 7$ mm y $21 \times 7 \times 3$ mm. Se confirma el resultado histopatológico con datos de áreas de hemorragia reciente y antigua, necrosis y abundantes espacios correspondientes a cristales de colesterol con reacción gigantocelular asociada. Los hallazgos son consistentes con quiste odontogénico ortoqueratinizado con proceso inflamatorio crónico y reacción a cuerpo extraño.

En el seguimiento a dos años (Figuras 5 y 6), en el control radiográfico se aprecia formación de proceso y aumento en la densidad ósea en el área intervenida, sin datos de recidiva. Se continúa el seguimiento clínico-radiográfico a largo plazo. Actualmente, la paciente está en tratamiento de ortodoncia.

DISCUSIÓN

El quiste odontogénico ortoqueratinizado se consideró durante mucho tiempo como una variante del tumor odontogénico queratoquístico, pero considerando factores como su comportamiento poco agre-

sivo, menor grado de recurrencia, y características histopatológicas propias, actualmente se entiende como una entidad diferente.

Clínicamente, las dos entidades suelen ser similares, aunque el quiste odontogénico ortoqueratinizado suele ser un encuentro aislado y no ocurrir en relación con el síndrome nevoide de células basales.

Radiográficamente, suelen ser lesiones radiolúcidas uniloculares y son asociadas frecuentemente con dientes impactados.

Adicionalmente a estos hallazgos, el presente caso también muestra cambios inflamatorios y presencia de necrosis y abundantes espacios correspondientes a cristales de colesterol con reacción gigantocelular asociada. Además, la lesión suele ser menos común en pacientes femeninos y con localización en la región anterior del maxilar.

CONCLUSIÓN

La baja agresividad de esta lesión sugiere que el tratamiento debe ser conservador, realizando su enucleación y un control clínico-radiográfico a corto, mediano y largo plazo, pues aunque se ha reportado



Figura 5. Ortopantomografía postquirúrgica a tres meses.



Figura 6. Ortopantomografía postquirúrgica a dos años.

baja tasa de recurrencia, la misma no se descarta. El estudio histopatológico de la lesión es de relevante importancia, pues de ella depende el correcto diagnóstico y el plan de tratamiento.

BIBLIOGRAFÍA

1. Jiménez NE, Aldape BC. Queratoquiste odontogénico (tumor odontogénico queratoquístico o tumor odontogénico queratinizante). *Revista Mexicana de Odontología Clínica*. 2008; 5: 4-5.
2. González SM, Alatorre PS, Flores AE, Angélica MS, Dueñas PG, Proa RM. Tumor odontogénico queratinizante en rama mandibular derecha; reporte de un caso clínico. *Rev Mex Cir Bucal Max*. 2011; 7 (2): 58-63.
3. Kotwane S, Shetty P. Orthokeratinized odontogenic cyst: a milder variant of an odontogenic keratocyst. *Univers Res J Dent*. 2013; 3: 101-103.
4. MacDonald-JanKowski. Orthokeratinized odontogenic cyst: a systematic review. *Dentomaxillofac Radiol*. 2010; 39: 455-467.
5. Byatnal A, Natarajan J, Narayanaswamy V, Radhakrishnan R. Orthokeratinized odontogenic cyst —critical appraisal of a distinct entity. *Braz J Oral Sci*. 2013; 12 (1): 71-75.
6. Pillai AK, Gupta MK, Mhaske SJ, Satpathy M, Singh SK. An aggressive orthokeratinized odontogenic cyst of the mandible: a case report. *IOSR-J Dent Med Sci*. 2013; 12 (1): 45-48.
7. MacDonald-Jankowski, Li TK. Orthokeratinized odontogenic cyst in a Hong Kong community: the clinical and radiological features. *Dentomaxillofac Radiol*. 2010; 39: 240-245.
8. TC Leite, VM Jr., Janini MR. Odontogenic keratocyst tumor: a clinical and histopathologic retrospective study based on the new WHO classification. *Int J Odontostomat*. 2011; 5 (3): 227-234.
9. Dong Q, Pan S, Sun LS, Li TJ. Orthokeratinized odontogenic cyst: a clinicopathologic study of 61 cases. *Arch Pathol Lab Med*. 2010; 134: 271-275.
10. Yanduri S, Veerendra KB, Shyamala K, Girisch RS. Orthokeratinized odontogenic cyst. *Indian J Dent Adv*. 2010; 2 (1): 149-152.
11. Sandhu SV, Rao SK, Brar RS, Kakkar T. Orthokeratinized odontogenic cyst of the mandible: a case report. *Int J Oral Maxillofac Pathol*. 2012; 3 (1): 69-73.
12. Pereira FC, Vidal MA, Campos PF, Neto AV, Andrade LS, Fernandes A, Santos JD. Orthokeratinized odontogenic cyst: a report of two cases in the mandible. *Rev Odonto Cienc*. 2012; 27 (2): 174-178.
13. 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.
14. Roy S, Garg V. Evaluation of stromal myofibroblasts expression in keratocyst odontogenic tumor and orthokeratinized odontogenic cyst: a comparative study. *J Oral Maxillofac Pathol*. 2013; 17 (2): 207-211.
15. Kulkarni M, Kheur S, Agrawal T, Ingle Y. Orthokeratinizing odontogenic cyst of maxilla with complex odontoma. *J Oral Maxillofac Pathol*. 2013; 17 (3): 480.
16. Khalam SA, Zacariah RK. Under diagnosis of an keratocyst —a controversial lesion. *IOSR JDMS*. 2012; 2 (5): 37-40.
17. Pereira CC, Luz AA, Weege NC, Pereira SJ, Rocha GA, Pereira PL. Infected orthokeratinized odontogenic cyst: a rare cause of facial cellulitis. *Braz Dent J*. 2012; 23 (5): 612-616.