

Tumor odontogénico epitelial calcificante (tumor de Pindborg). Informe de un caso y revisión de la literatura

RESUMEN

El tumor odontogénico epitelial calcificante, o tumor de Pindborg, es una neoplasia benigna odontogénica que afecta los maxilares de manera ocasional; una de sus manifestaciones clínicas es la expansión de las corticales y la asociación con dientes retenidos. Desde su descripción original en 1955 se han informado 200 casos en la literatura mundial. Revisamos las publicaciones y describimos el caso de un paciente con este tumor odontogénico en la mandíbula, quien recibió tratamiento con enucleación quirúrgica y evolucionó de forma satisfactoria.

SUMMARY

The calcifying epithelial odontogenic tumor known as Pindborg's tumor, is a rare odontogenic neoplasm of the jaws. One of their characteristics is the cortical expansion and the relationship with a non erupted tooth. Since the original description in 1955, only 200 cases approximately have been described in the world literature. This article reviews the literature and describes a case of patient who presented calcifying epithelial odontogenic tumor in the jaw undergoing surgical excision treatment with an evolution without complications.

¹Servicio de Cirugía
Maxilofacial

²Servicio de Patología

Hospital de
Especialidades, Centro
Médico Nacional
La Raza, Instituto
Mexicano del Seguro
Social, Distrito Federal,
México

Comunicación con:
Leandro Miguel
Peña-Torres.
Correo electrónico:
miguel.penat@hotmail.com;
drmiguelpt@yahoo.es

Introducción

El tumor odontogénico epitelial calcificante (antiguamente ameloblastoma inusual [Ivy, 1948] y posteriormente odontoma quístico [Soopack, 1957]) fue descrito por primera vez en 1955 por el patólogo oral Jens J. Pindborg.¹⁻³ Corresponde según la clasificación de la Organización Mundial de la Salud de 1992, a las neoplasias benignas y otros tumores relacionados con el aparato odontogénico, con epitelio odontogénico sin ectomesénquima odontogénico.² Posterior a su descripción original, aproximadamente solo 200 casos se han informado en la literatura; según Pflaumer y colaboradores corresponde a 1 % de los tumores odontogénicos.³

De acuerdo con la literatura mundial existe predilección por la región premolar-molar de la mandíbula, con un porcentaje de frecuencia de 2:1 en relación con el maxilar y con asociación de un órgano dentario retenido en 54 %; la mayoría de los casos se presenta entre la tercera y quinta décadas de la vida, sin tendencia por uno u otro sexo, con aumento de volumen intra o extraoral sin otros síntomas.^{4,5}

Según la revisión de Wertheimer y colaboradores (1977), también aparece de manera extraósea pero de forma inusitada; únicamente se han publicado nueve casos con esta presentación.⁶

La apariencia radiográfica puede variar desde una imagen radiolúcida pericoronar hasta una imagen mixta radiolúcida y radiopaca asociada con un órgano dentario retenido. Franklin y Pindborg identificaron que las dos imágenes más frecuentes eran las áreas radiolúcidas pericoronarias y las radiopacas difusas en un área radiolúcida.⁷

El patrón histológico es típico y bien definido, sin embargo, puede tener variantes relacionadas con el tejido amiloide y las calcificaciones. Ningún autor cree que el tumor odontogénico epitelial calcificante tenga un comportamiento biológico maligno.

El tumor odontogénico epitelial calcificante es una neoplasia localmente invasiva caracterizada por estructuras intraepiteliales probablemente de naturaleza amiloide, las cuales se pueden calcificar y ser liberadas una vez que las células se fragmentan.^{2,4,7} Si bien su origen es controversial ya que se ignora cuál es la célula específica de la que se deriva y cuál

Palabras clave

tumores odontogénicos
material amiloide

Key words

odontogenic tumors
amyloid-like material

es el estímulo para su crecimiento, se acepta que se deriva del epitelio oral, del epitelio reducido del esmalte o del estrato intermedio, debido a que más de la mitad de los casos se asocia con un órgano dentario retenido. Los estudios histoquímicos de Chaudry y colaboradores sustentan la teoría de que el tumor odontogénico epitelial calcificante se origina del estrato intermedio del órgano del esmalte.⁸

El tratamiento más aceptado es la resección quirúrgica con márgenes amplios, sin embargo, algunos casos han sido tratados con escisión quirúrgica simple. Sadeghi y Hoper creen que el tratamiento para el tumor odontogénico epitelial calcificante debe ser guiado de acuerdo con el tamaño de la lesión, su localización y el patrón histológico.^{6,9}

Caso clínico

Mujer de 38 años de edad que se presentó en el Servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital de Especialidades, Centro Médico Nacional La Raza, debido a odontalgia del segundo molar inferior del lado izquierdo y aumento de volumen local de cinco meses de evolución, que ocasionaba limitación de la apertura bucal y de los movimientos masticatorios. A la exploración física se observó aumento de volumen de la región maseterina del lado izquierdo, de aproximadamente 5 × 6 cm de diámetro mayor, sin cambios de coloración de los tegumentos, de consistencia indurada y sintomatología dolorosa a la palpación (figura 1); en la cavidad oral se apreciaba aumento de volumen en cuerpo mandibular izquierdo y pliegue mucogingival en la región retromolar, sin cambios de coloración de la mucosa suprayacente, con indentación sobre proceso alveolar por oclusión de molares superiores (figura 2).

En la radiografía se observaba una lesión de aspecto radiolúcido bien delimitada con áreas radiopacas centrales, expansión de las corticales desde el primer molar hasta la región retromolar con asociación del tercer molar inferior retenido (figura 3). En la tomografía axial computarizada del macizo facial corte axial en fase simple se evidenciaba en la rama ascendente y el cuerpo mandibular izquierdo, lesión lítica con adelgazamiento y expansión de las corticales, con coeficientes de atenuación de 195 y 13 UH en su interior, que correspondían a líquido y matriz cálcica. El tercer molar estaba contenido en la rama mandibular y los tejidos blandos adyacentes eran de morfología normal (figura 4).

La paciente fue programada para biopsia incisiva bajo anestesia local; el resultado histopatológico indicó tumor odontogénico epitelial calcificante del cuerpo mandibular del lado izquierdo. Posteriormente bajo anestesia general se realizó escisión intraoral de la lesión con enucleación, legrado óseo y decorticación del hueso adyacente; no existieron complicaciones trans y posoperatorias.

Macroscópicamente el espécimen quirúrgico medía aproximadamente 3 cm en su diámetro mayor, era de consistencia firme y de color amarillo pálido con calcificaciones al centro y órgano dentario retenido (figura 5). Microscópicamente se encontraron láminas de células epiteliales, grandes, poliédricas, claras, con notable pleomorfismo, formas binucleadas y trinucleadas, así como puentes intercelulares en un escaso estroma de tejido conectivo (figura 6). En otras áreas se apreciaron calcificaciones redondas que se fusionaban y formaban zonas extensas calcificadas que correspondían a la porción central de la pieza macroscópica (figura 7) y en pequeños sitios, material amiloide próximo al epitelio (figura 8).

Durante la evolución posoperatoria, la paciente cursó sin complicaciones; a cinco años de control, el lecho quirúrgico se encontraba con adecuada cicatrización y radiográficamente no se observaba recidiva.

Discusión

Diversos autores aceptan que el tumor odontogénico epitelial calcificante tiene su origen en el epitelio odontogénico. Pindborg creía que el origen de esta lesión era el epitelio del esmalte, debido a que numerosos casos se asociaban con un órgano dentario retenido.^{2,7} Las características clínicas y radiográficas del



Figura 1. Aumento de volumen en región maseterina izquierda sin cambios de coloración en tegumentos



Figura 2. Expansión de corticales vestibular y lingual; área indentada sobre proceso alveolar y desplazamiento de molares



Figura 3. Radiografía simple que muestra imagen radiolúcida bien circunscrita por halo radiopaco, con órgano dentario retenido y múltiples calcificaciones alrededor



Figura 4. Imagen hipodensa con expansión de corticales, principalmente la externa (vestibular) con pérdida de la misma, así como múltiples zonas hiperdensas centrales

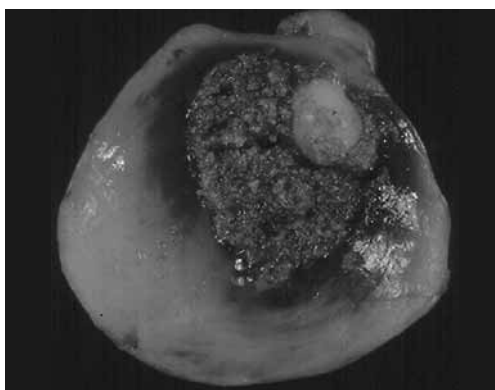


Figura 5. Tumor sólido con calcificaciones en el centro y órgano dentario incluido

tumor odontogénico epitelial calcificante son similares a las del ameloblastoma; debido a su poca frecuencia, en ocasiones es confundido y mal diagnosticado.^{2,8,10} Es importante tomar en cuenta las diferentes lesiones que desde el punto de vista radiográfico pueden presentar áreas calcificadas en una zona radiolúcida, como el ameloblastoma, fibroma cemento osificante, tumor odontogénico adenomatoide, odontoma ameloblástico, entre otras. Cada uno tiene características específicas que es importante analizar para disminuir la falla diagnóstica desde el punto de vista clinicorradiográfico. Existe cierto desacuerdo relacionado con la naturaleza del material homogéneo eosinofílico del tumor odontogénico epitelial calcificante, el cual ha recibido los siguientes sinónimos “licoproteína comparable”, “material amiloide”, “lámina basal”, “queratina”, “matriz del esmalte” o “preesmalte”.

Esta sustancia amiloide aparece en las formas extra e intracelular como resultado de productos celulares.¹⁰⁻¹³ Estudios recientes de bioquímica y microscopía electrónica han demostrado que esta sustancia se compone de fragmentos de moléculas de inmunoglobulina con una estructura fibrilar variada.¹⁴ Las principales características histológicas del tumor odontogénico epitelial calcificante son la presencia de células epiteliales poliédricas, sustancia eosinofílica homogénea, grandes cantidades de calcificaciones y la formación de anillos de Liesegang.¹⁵⁻¹⁷

En nuestro caso, el tumor se presentó en una paciente en la cuarta década de la vida, localizado en la región premolar-molar de la mandíbula, radiográficamente bien delimitado y la imagen lítica estaba asociada con un órgano dentario retenido y las calcificaciones distribuidas alrededor de la corona le conferían un patrón clásico a la lesión, lo

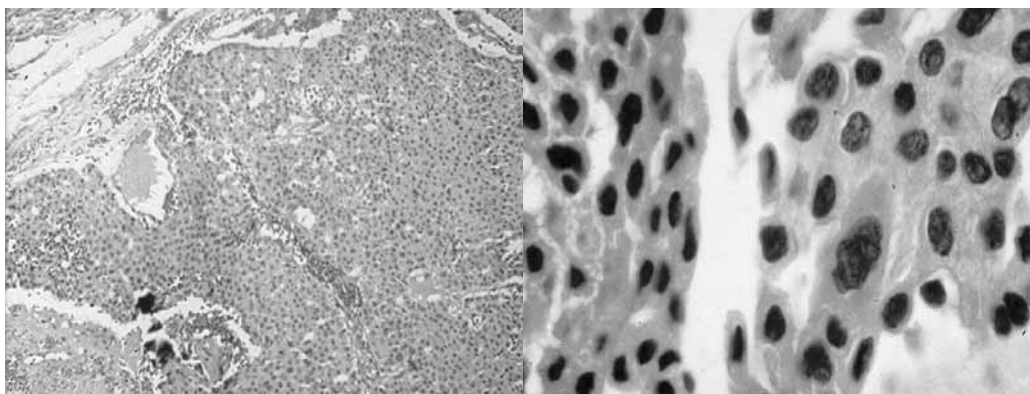


Figura 6. Panorámica de las células epiteliales y algunas calcificaciones. Apenas se distinguen puentes intercelulares y las células tienen citoplasma eosinófilo, núcleos hipercromáticos, algunos binucleados y atipias con núcleos grotescos

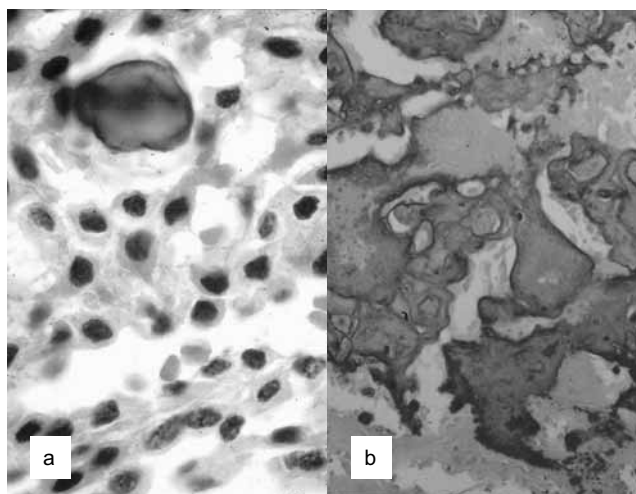


Figura 7. a) Células epiteliales con citoplasma eosinófilo, núcleos atípicos y calcificaciones redondas. b) Calcificaciones extensas y centrales en la pieza macroscópica

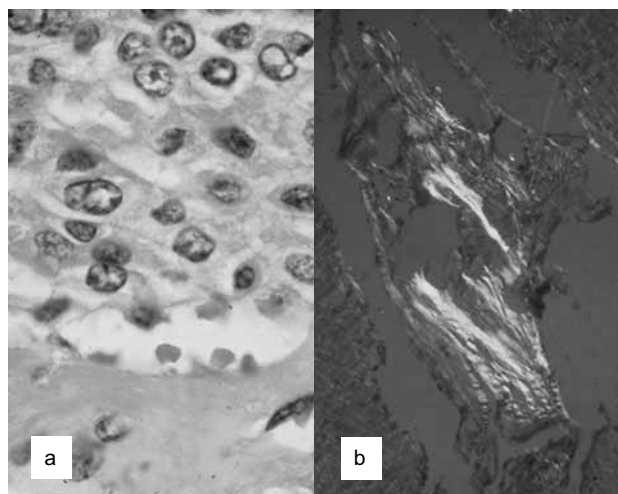


Figura 8. a) Abajo del epitelio existía material amiloide (hematoxilina-eosina). b) En la tinción con rojo congo, birrefringencia con luz polarizada

cual concuerda con lo informado en la literatura mundial, ya que según las estadísticas mundiales 54 % de los tumores odontogénicos epiteliales calcificantes presenta estas características.^{4,5,9-11}

La decisión de un tratamiento conservador derivó de las características mencionadas, además de que el sitio anatómico era accesible para la enucleación, como se recomienda en la literatura cuando existen márgenes macroscópicos de tejido sano en las lesiones que involucran la mandíbula.¹⁸

Tomando en cuenta el riesgo de recidiva de hasta 40 %, el tratamiento quirúrgico debe ser individualizado para cada lesión, debido a que las características radiográficas e histológicas pueden variar de una lesión a otra.

Referencias

1. Liu AR, Liu Z. Calcifying epithelial odontogenic tumors: a clinicopathologic study of nine cases. *J Oral Pathol* 1982;11:399-406.
2. Kramer IRH, Pinborg JJ. WHO histological typing of odontogenic tumours. Second edition. Berlin: Springer Verlag; 1992.
3. Pflaumer SM, Newell JO. Calcifying epithelial odontogenic tumor. *Pathol Case Rev* 1999;4:16-20.
4. Houston GD, Fowler CB. Extraosseous calcifying epithelial odontogenic tumor. Report of two cases and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Endod* 1997;83:577-583.
5. Solomon MP, Vuletin JC, Pertschuk LP, Gormley MB, Rosen Y. Calcifying epithelial odontogenic tumor. A histochemical and ultrastructural study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1975;40(4):522-530.
6. Sadegui EM, Hoper TL. Calcifying epithelial odontogenic tumor. *J Oral Maxillofac Surg* 1982;40:225-228.
7. Franklin CD, Pinborg JJ. The calcifying epithelial odontogenic tumor. A review and analysis of 113 cases. *Oral Surg* 1976;42:753-762.
8. Ficarra G, Hansen LS. Intramural calcifying epithelial odontogenic tumor. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1987;16:217-221.
9. Bouckaert MM, Raubenheimer EJ. Calcifying epithelial odontogenic tumor with intracranial extension: report of a case and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Endod* 2000; 90:656-662.
10. Liu AR, Liu Z. Calcifying epithelial odontogenic tumors: a clinicopathologic study of nine cases. *J Oral Pathol* 1982;11:399-406.
11. Ismail IM, Al-Talabani NG. Calcifying epithelial odontogenic tumour associated with dentigerous cyst. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1986;15:108-111.
12. Andrade M, Medeiros P. Calcifying epithelial odontogenic tumor (Pinborg tumor). Report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1992;50:1324-1326.
13. Chong HS, Kok HN. Combined calcifying epithelial odontogenic tumor and adenomatoid odontogenic tumor. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1987;16: 214-216.
14. Franklin CD, Martin MV. An investigation into the origin and nature of amyloid in a calcifying epithelial odontogenic tumour. *J Oral Pathol* 1981;10:417-429.
15. Samir K. El-Mofty. Seminars in diagnostic pathology. *Odontogenic Tumors* 1999;16(4):281-283.
16. Regezi JA, Sciubba JJ. Patología bucal. Correlaciones clinicopatológicas. Tercera edición. McGraw-Hill Interamericana; 1999; p. 339-340.
17. Sapp JP, Eversole LR. Patología oral y maxilofacial contemporánea. España: Hartcourt Brace; 1997. p. 134-13.
18. Reichart PA, Philipsen HP. *Odontogenic tumors and allied lesions*. London: Quintessence Publishing; 2004. p. 93-103.