

Tumor odontogénico adenomatoide extrafolicular: reporte de caso

Extrafollicular odontogenic adenomatoid tumor: a case report

Martín Alexander Queija Saldaña ^{1,a}, Marcelo Vinicius de Oliveira ^{1,b}, Valber Barbosa Martins ^{1,c}, Gustavo Cavalcanti de Albuquerque ^{1,c}, Joel Motta Júnior ^{1,b}

¹ Universidade do Estado do Amazonas, Escola Superior de Ciências da Saúde – Curso de Odontologia, Manaus, Brasil.

^a Cirujano Dentista.

^b Doctor en Clínica Odontológica, área de concentración Cirugía Bucomaxilofacial.

^c Magister en Cirugía Bucomaxilofacial.

Correspondencia:

Martín Alexander Queija Saldaña:

martin_queija_4@hotmail.com

Rua Goias Nº 28, The Club Residence, Torre Seul, Ap. 503-B, CEP 69058-411, Bairro Flores. Manaus, Amazonas, Brasil.

ORCID: 0000-0002-2909-0404

Coautores:

Marcelo Vinicius de Oliveira

mvolaser@hotmail.com

Valber Barbosa Martins

valbermartins@hotmail.com

Gustavo Cavalcanti de Albuquerque

gusal.buco@gmail.com

Joel Motta Júnior

joelmottajunior@yahoo.com.br

Editora:

Rosse Mary Falcón-Antenucci

Universidad Inca Garcilaso de la Vega, Perú.

Conflicto de intereses: los autores declaran no tener conflictos de interés.

Fuente de financiamiento: autofinanciado.

Recibido: 22/08/19

Aceptado: 20/11/19

Publicado: 24/02/20

Resumen

El Tumor odontogénico adenomatoide (TOA), es un tumor poco común, benigno, no invasivo, que representa el 3% de todos los tumores odontogénicos y presenta las siguientes variantes: folicular, extrafolicular y periférica, siendo la más común la folicular asociada a un diente incluido. El objetivo de este artículo es presentar un caso de TOA extrafolicular en paciente femenino de 13 años de edad, localizado a nivel de la región del canino superior izquierdo. Al examen extraoral se observó tumefacción leve, ocasionando pérdida de definición del pliegue nasolabial izquierdo; a la evaluación intraoral, se observó tumefacción a nivel de los elementos dentarios 2.2 y 2.3 con desplazamiento de los mismos, ocasionando diastema; en el examen tomográfico se identificó una imagen hipodensa con bordes hiperdensos bien definidos, con calcificaciones internas. Se realizó biopsia incisional, que resultó como diagnóstico TOA extrafolicular y se procedió a la enucleación del tumor. En un seguimiento de 24 meses, fue posible observar regeneración ósea sin señales de recidiva.

Palabras clave: Tumores odontogénicos; Hamartoma; Cirugía bucal; Patología bucal (fuente: DeCS BIREME).

Abstract

Odontogenic adenomatoid tumor (OAT), is a rare, benign, non-invasive, represents 3% of all odontogenic tumors. It presents follicular, extrafollicular and peripheral variants, the follicular variant with an included tooth is the most common. The objective of this article is to present a case of TOA in a 13-year-old female patient, located in the upper left canine region. After extrabuccal examination, slight swelling was observed, causing loss of definition of the left nasolabial fold, on intrabuccal examination, swelling of the vestibular bone table was observed between elements 2.2 and 2.3 with dislocation of the same, causing diastema, the tomographic examination identifies hypodense image with well-defined hyperdense borders, with internal calcifications. Incisional biopsy was

performed, which resulted as diagnosis an extrafollicular TOA. The enucleation of the tumor was proceeded. In a 24-month follow-up, it is possible to observe bone regeneration without signs of recurrence.

Keywords: Odontogenic tumors; Hamartoma; Oral surgery; Oral pathology (source: MeSH NLM).

Introducción

El tumor odontogénico adenomatoide (TOA) es un tumor poco común, benigno, no invasivo, de crecimiento lento y progresivo, que representa el 3% de los tumores odontogénicos. Debido a la naturaleza de crecimiento lento y asintomático del tumor, puede presentar aumento de volumen hasta producir deformidades faciales visibles¹⁻⁶, ocasionando muchas veces desplazamiento dentario, y en algunos casos reabsorción radicular^{7,8}.

Steensald fue el primero en describir el TOA en 1905^{2,4}, sin embargo, fueron Philipsen y Birn quienes introdujeron el término TOA en 1969 el mismo que fue adoptado por la Organización Mundial de la Salud (OMS) en 1971^{1-4,9}. Usualmente afecta a pacientes jóvenes, durante la segunda década de vida, principalmente a las mujeres, siendo la proporción hombre/mujer de 1:2¹⁻¹⁰. Es conocido como tumor de los dos tercios, porque 2/3 ocurren en la maxila, 2/3 en mujeres jóvenes, 2/3 están asociados a un diente incluido y 2/3 de los dientes afectados son los caninos^{1,4,10}.

Basado en los hallazgos clínicos y radiográficos, el TOA puede ser subdividido en dos variantes y dos tipos en la variante central: (A) Variante central (intraóseo) que se divide en: tipo folicular (dentígero), en el cual el tumor está asociado a la corona de un diente incluido^{1,2,4,6-10}, generalmente el canino^{3-6,8,10} y extremadamente raro en dientes deciduos⁵, además puede ser confundido con un quiste dentígero³; y el tipo extrafollicular, en el cual el tumor no está asociado con un diente incluido y puede ser confundido con un quiste globulomaxilar o un quiste periodontal lateral, dependiendo de la localización de la lesión^{3,9,10}. (B) Variante periférica (extraósea) que puede ser confundida con un fibroma gingival^{3,7}.

Las variantes folicular y extrafollicular son lesiones intraóseas y representan alrededor de 96% de todos los TOAs, de los cuales 71% son de la variante folicular^{1,2,4,5,7-10}, siendo la variante periférica la más rara de las tres, constituyendo el 3% de todos los TOAs^{1,2,4,7}. Radiográficamente, el tumor aparece como una radiolucencia unilocular bien circunscrita^{1,2,4-7}, que puede estar asociada a un diente no erupcionado, frecuentemente un canino^{1,3-6,8}, pudiendo presentar focos radiopacos en su interior, compatibles con zonas de calcificación^{1-3,5,7}.

Histológicamente, el patrón más marcante es la presencia de nódulos sólidos de tamaño variable de células epiteliales cuboidales o columnares que forman nidos o estructuras semejantes a rosetas con tejido conjuntivo estromal mínimo. Dentro de las áreas celulares son encontradas estructuras de apariencia tubular o de ducto que en realidad no son ductos verdaderos y por eso se denominan pseudoductos, que pueden contener

calcificaciones^{1-3,5,8,10}. Todas las variantes tienen características histológicas idénticas^{2,4,10}.

El tratamiento preconizado después de la confirmación del diagnóstico histopatológico es la enucleación de la lesión, debido a que cuenta con una cápsula espesa que permite la remoción de la lesión sin ser damnificada^{1,2,4-7,10}. En casos de defectos intraóseos causados por el TOA, se sugiere el uso de regeneración ósea guiada con injerto óseo y membrana, después de la remoción total del tumor^{1,6}. La patogénesis del TOA no es bien definida y genera controversias, la mayor parte de los autores concuerdan que es de origen odontogénica, siendo la teoría más aceptada que es originada de la lámina dental^{2,3,5,6,9}.

De todos los casos reportados, 45,5% fueron de países asiáticos, mayoritariamente de Japón, Malasia y China⁴. La recidiva del TOA es excepcionalmente rara^{2,4-7,10}, solamente tres casos en pacientes japoneses fueron reportados hasta el momento, siendo el pronóstico considerado como excelente⁶.

De esta manera, el objetivo de este artículo es relatar el caso de un TOA extrafollicular situado en la región anterior de la maxila de una paciente joven.

Reporte del caso

Paciente de sexo femenino de 14 años de edad acompañada de su madre, al servicio de la Residencia en Cirugía y Traumatología Bucomaxilofacial de la Universidad del Estado de Amazonas (Brasil) y relató como queja principal: "Mi rostro está hinchado".

La paciente identificó una tumefacción de crecimiento lento en la región del elemento dentario 2.3 con un año de evolución, sin episodios álgicos. Al examen extraoral se observó aumento de volumen en la región del espacio canino izquierdo, que ocasionaba la pérdida de definición del pliegue nasolabial (Figura 1A) y discreta elevación del labio superior (Figura 1B). Al examen intraoral, presentó tumefacción con extensión desde la cara distal del elemento dentario 2.1 hasta la cara mesial del 2.4, con desplazamiento de los elementos dentarios 2.2 y 2.3, causando diastema entre ellos (Figura 1D). A la palpación, la lesión se presentó endurecida, indolora y con mucosa de aspecto saludable.

En la tomografía, se observó una imagen hipodensa con bordes hiperdensos bien definidos de aproximadamente: 21,5 mm (alto) x 18,7 mm (ancho) x 19,8 mm (espesor) (Figura 1C, E), con focos hiperdensos en el interior de la lesión, en la región correspondiente a las raíces de los elementos dentarios 2.2 y 2.3, los mismos que se encontraron desplazados, ocasionando un diastema entre ellos y sin la presencia de reabsorción radicular (Figura 1E).

Frente a los hallazgos clínicos e imagenológicos, se sugirió como hipótesis diagnóstica: quiste odontogénico calcificante, tumor odontogénico epitelial calcificante y quiste periodontal lateral^{1,6}, para finalmente establecer un diagnóstico presuntivo de tumor odontogénico adenomatoide. Por lo que, bajo anestesia local fue realizada la aspiración exploratoria de la lesión, la cual confirmó la presencia de una cavidad y positivo para líquido de color amarillo, seguido de contenido sanguinolento, los cuales son datos sugestivos de una lesión quística. En seguida, se realizó una incisión circunvestibular en la región entre los elementos dentarios 2.2 y 2.3, levantamiento del colgajo mucoperiosteal, remoción de parte de la cortical ósea vestibular para tener acceso a la cápsula de la lesión y coleccionar un fragmento de la misma, de aproximadamente 5 mm. La pieza quirúrgica fue enviada para análisis histopatológico, confirmando el diagnóstico presuntivo de tumor odontogénico adenomatoide extrafolicular (TOA extrafolicular).

En un segundo tiempo quirúrgico, bajo anestesia local, se realizó una incisión linear en la región vestibular entre los elementos dentarios 2.1 y 2.4, levantamiento del colgajo mucoperiosteal (Figura 2A), eliminación de la cortical ósea para el acceso a la cápsula (Figura 2B), remoción de la cápsula con cureta de Lucas (Figura 2C) lo que permitió una remoción completa de la lesión de aproximadamente 20x20x20 mm (Figura 2E). Fue realizada una radiografía periapical (Figura 2F) de la lesión en la cual se pudo observar los focos radiopacos en su interior, inmediatamente después la misma fue incisa para visualizar el contenido que era firme al tacto (Figura 2G), la lesión fue enviada para un nuevo examen histopatológico, que confirmó el diagnóstico obtenido con la biopsia incisional.

El examen histopatológico evidenció lesión neoplásica de origen odontogénica benigna, donde se observó proliferación de células altas, semejantes a ameloblastos, que forman nidos o estructuras semejantes a rosetas, además se observaron estructuras ductiformes y material amorfo eosinofílico. Se notan áreas globulares de sustancia calcificada. Completando el cuadro, se observaron grandes áreas de hemorragia.

Durante 24 meses se controló de forma regular, y se observó la ausencia de tumefacción lo que permitió la definición del pliegue nasolabial izquierdo (Figura 3A, B), al examen intraoral se evaluó la cicatriz del acceso quirúrgico y ausencia de tumefacción, además de una migración dentaria de los elementos dentarios 2.2 y 2.3 para el cierre del diastema (Figura 3D). La tomografía post-operatoria mostró una remodelación ósea satisfactoria del defecto, lo que ocasionó el alineamiento dentario, hasta el momento no se observaron señales de recidiva (Figura 3C, E).

Discusión

El TOA es una lesión tumoral benigna que puede ser diagnosticada de forma adecuada después del estudio histopatológico¹⁻¹⁰, cuando es analizada clínica e imagenológicamente, podemos tener hipótesis diagnósticas que pueden inducir a la realización de un tratamiento inadecuado.

Batra *et al.*³ mencionan que generalmente el tumor no excede de 1-3 cm en su mayor diámetro, sin embargo, pueden existir tumores de mayores dimensiones como el que ellos reportaron³. La lesión es totalmente asintomática y el tamaño va a ocasionar un defecto estético, lo que puede conllevar a que el paciente no busque un tratamiento.

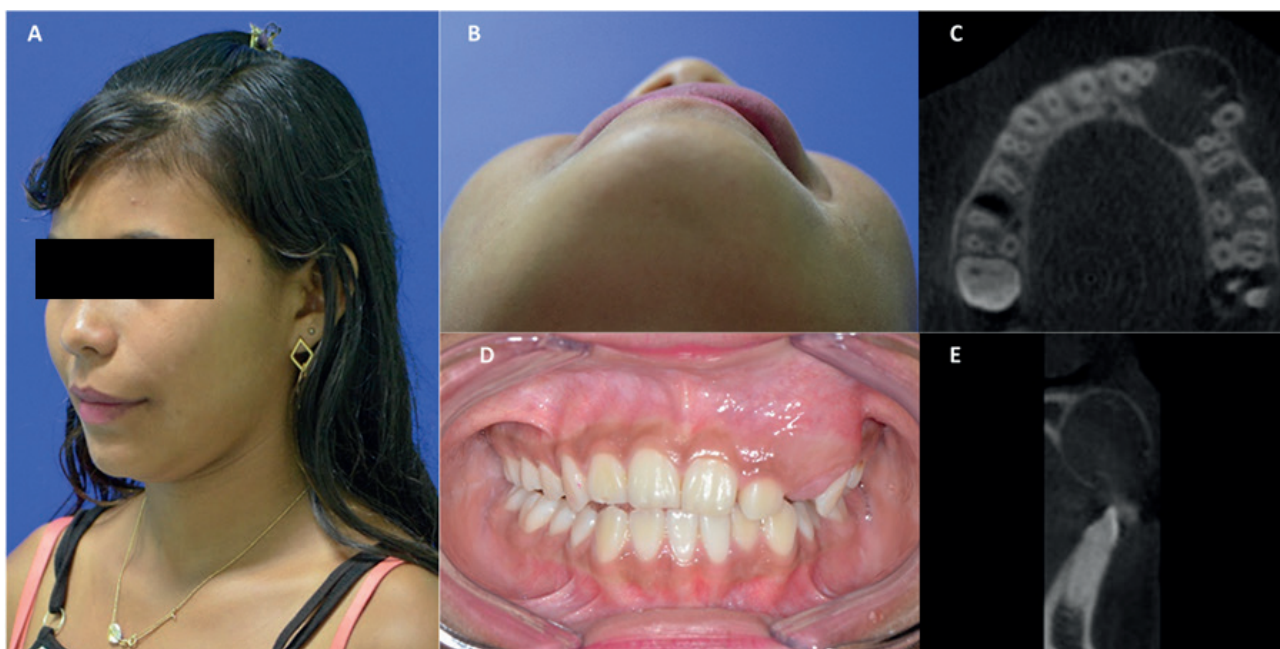


Figura 1. Preoperatorio. A. Vista extrabucal oblicua izquierda. B. Vista Infero-Superior. C. Corte tomográfico axial. D. Vista intrabucal frontal. E. Corte tomográfico parasagital en el elemento 2.2

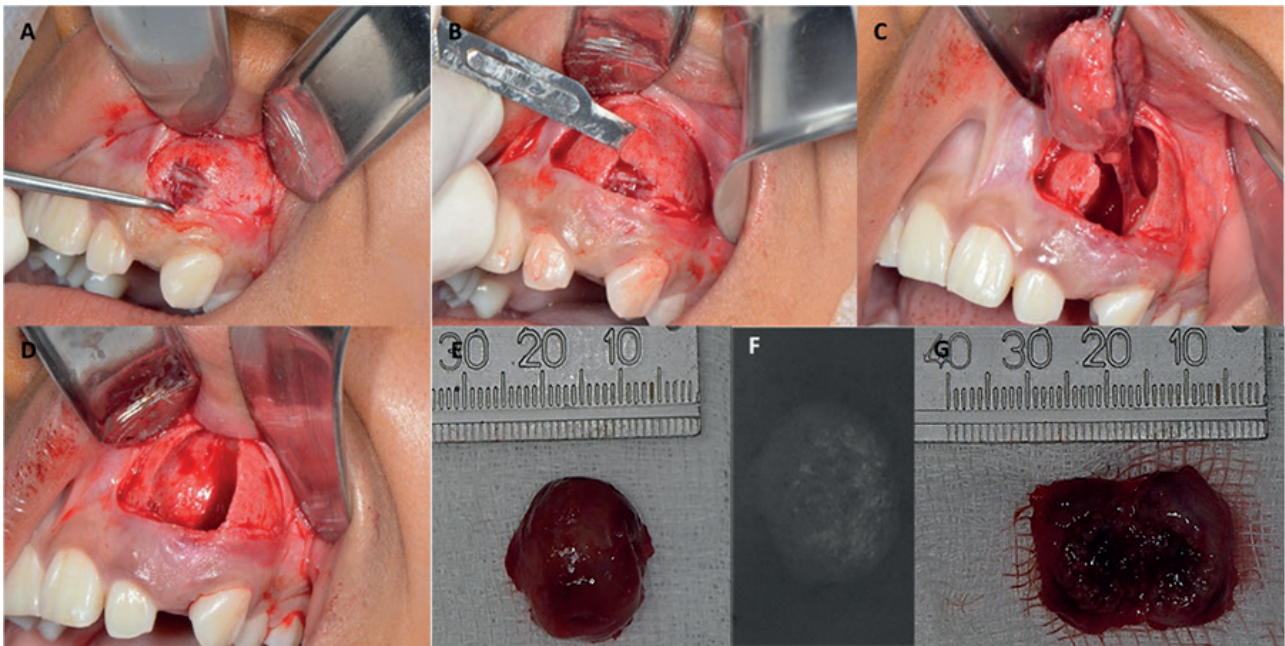


Figura 2. Enucleación. **A.** Incisión lineal y levantamiento mucoperióstico. **B.** Remoción de la cortical ósea vestibular. **C.** Remoción de la lesión. **D.** Lecho quirúrgico. **E.** Pieza quirúrgica obtenida. **F.** Radiografía periapical mostrando el tumor y las calcificaciones internas. **G.** Lesión incisada mostrando el contenido calcificado

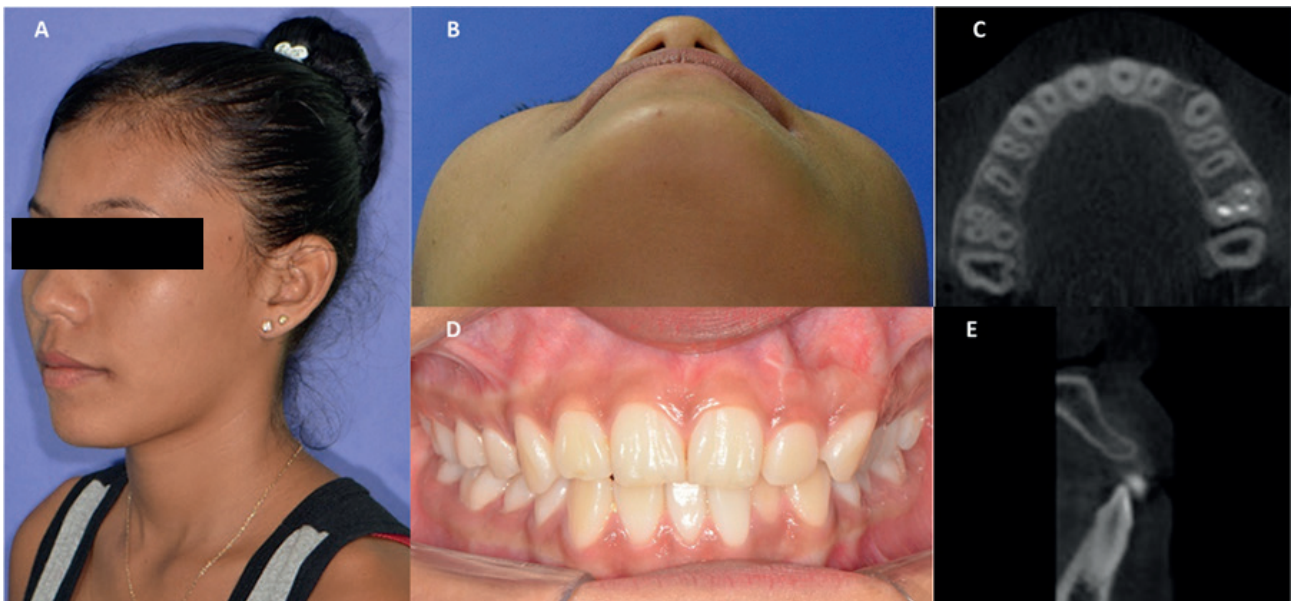


Figura 3. Control postoperatorio de 24 meses. **A.** Vista lateral izquierda. **B.** Vista Ínfero-Superior. **C.** Corte tomográfico axial. **D.** Vista frontal intrabucal. **E.** Corte tomográfico parasagital en el elemento dentario 2.2

Defectos intraóseos son ocasionados después de la enucleación de la lesión, para evitar ese tipo de defectos, Reddy Kundoor *et al.*¹ y Prakasam, *et al.*⁶ recomiendan el uso de injertos ósea y membranas reabsorbibles para regeneración ósea guiada del defecto^{1,6}, debido a que el TOA presenta una cápsula espesa y su tasa de recidiva es baja¹⁻¹⁰.

Con el tratamiento propuesto en la literatura el TOA puede ser tratado definitivamente y presenta una baja tasa de recidiva¹⁻¹⁰, como en el caso presentado, que después de 24 meses de seguimiento, se observó una sa-

tisfatoria regeneración ósea en el área que correspondía a la lesión y sin signos de recidiva.

Agradecimiento

Universidade do Estado do Amazonas, Prof. Joel Motta Júnior.

Referencias bibliográficas

1. Reddy Kundoor VK, Maloth KN, Guguloth NN, Kesidi S. Extrafollicular adenomatoid odontogenic tumor: An unusual case presentation. *J Dent (Shiraz)*. 2016;17(4):370-4.

2. Shivali V, Pandey A, Khanna VD, Khanna P, Singh A, Ahuja T. A rare case of extrafollicular adenomatoid odontogenic tumour in the posterior region of the mandible: misdiagnosed as residual cyst. *J Int Oral Health*. 2013;5(5):124-8.
3. Batra P, Prasad S, Parkash H. Adenomatoid odontogenic tumour: review and case report. *J Can Dent Assoc*. 2005;71(4):250-3.
4. Kumar R, Singh RK, Pandey RK, Mohammad S. Peripheral adenomatoid odontogenic tumor: report of a rare case. *J Oral Biolog Craniofac Res*. 2012;2(1):57-60.
5. Bonardi JP, da Costa FH, Matheus RA, Ito FA, Pereira-Stabile CL. Rare presentation of adenomatoid odontogenic tumor in a pediatric patient: a case report. *Oral Maxillofac Surg*. 2016;20(2):215-7.
6. Prakasam M, Tiwari S, Satpathy M, Banda VR. Adenomatoid odontogenic tumour. *BMJ Case Rep*. 2013. pii: bcr2013010212. DOI: 10.1136/bcr-2013-010212.
7. Mosavat F, Rashtchian R, Zeini N, Goodarzi Pour D, Mohammed Charlie S, Mahdavi N. An extrafollicular adenomatoid odontogenic tumor mimicking a periapical cyst. *Case Rep Radiol*. 2018. <https://doi.org/10.1155/2018/6987050>.
8. Bhandari N, Kothari M. Adenomatoid odontogenic tumour mimicking a periapical cyst in pregnant woman. *Singapore Dent J*. 2010;31(1):26-9.
9. Philipsen HP, Srisuwan T, Reichart PA. Adenomatoid odontogenic tumor mimicking a periapical (radicular) cyst: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2002;94(2):246-8.
10. Philipsen HP, Reichart PA, Zhang KH, Nikai H, Yu QX. Adenomatoid odontogenic tumor: biologic profile based on 499 cases. *J Oral Pathol Med*. 1991;20(4):149-58.

