

Tumor odontogénico adenomatoide. Reporte de un caso clínico

Adenomatoid odontogenic tumor. Clinical case report

Resumen

El Tumor Odontogénico Adenomatoide (TOA) es una neoplasia benigna poco común, caracterizada por un crecimiento lento y progresivo, en la mayoría de los casos asintomático. Es una patología intraósea, que puede ser folicular o extrafolicular, siendo el tipo folicular el más común. Se presenta en hombres y mujeres, con predilección por el sexo femenino. Histológicamente está compuesto por epitelio odontogénico organizado en distintos patrones histoarquitectónicos, incrustado en un estroma de tejido fibroconectivo maduro. Se describe el caso clínico de una paciente femenina de 25 años, con aumento de volumen en la región maxilar anterior izquierda, que se extiende a la base de la nariz, produce desvío de la línea media a la derecha y tiene un año de evolución.

Palabras clave: Neoplasias Maxilares; epitelio; crecimiento; Neoplasias Maxilomandibulares. (fuente: DeCS BIREME).

Abstract

The Adenomatoid Odontogenic Tumor (AOT) is an uncommon benign neoplasm, characterized by slow and progressive growth, in most cases asymptomatic. It is an intraosseous pathology, which can be follicular or extrafollicular, with the follicular type being the most common. It occurs in both men and women, with a predilection for the female sex. Histologically, it is composed of odontogenic epithelium organized in different histoarchitectonic patterns, embedded in a stroma of mature fibroconnective tissue. We describe the clinical case of a 25-year-old female patient with increased volume in the left anterior maxillary region, extending to the base of the nose, causing deviation of the midline to the right and having one year of evolution.

Keywords: Maxillary Neoplasms; epithelium; growth; Jaw Neoplasms. (source: DeCS BIREME).

Alondra Rosso Guerrero¹, Luis Ricardo Rojas Carrete², Víctor Hiram Barajas Pérez¹, Gamaliel Ortiz Sarabia¹, Omar Alejandro Tremillo Maldonado¹, Luis Javier Solís Martínez¹, Oscar Eduardo Almeda Ojeda¹

¹ Universidad Juárez del Estado de Durango, Facultad de Odontología. Durango, México.

² Cirugía Maxilofacial Durango, Durango, México.

Correspondencia:

Oscar Eduardo Almeda Ojeda: oscar.almeda@ujed.mx
Universidad Juárez del Estado de Durango, Facultad de Odontología, Predio canoas s/n, Durango. México.
ORCID: 0000-0001-9885-1644

Coautores:

Alondra Rosso Guerrero: alorosso@hotmail.com
ORCID: 0000-0003-0331-1085
Luis Ricardo Rojas Carrete: drojas.carrete@gmail.com
ORCID: 0000-0002-0950-0939
Víctor Hiram Barajas Pérez: hiram.perez@ujed.mx
ORCID: 0000-0002-7182-7393
Gamaliel Ortiz Sarabia: gamaliel.ortiz@ujed.mx
ORCID: 0000-0002-3962-5070
Omar Alejandro Tremillo Maldonado: omar.tremillo@ujed.mx
ORCID: 0000-0002-2798-1596
Luis Javier Solís Martínez: javier.solis@ujed.mx
ORCID: 0000-0001-7088-3062

Conflictos de intereses: Los autores declaran no tener ningún conflicto de interés.

Fuente de financiamiento: Autofinanciado.

Recibido: 29/08/2023

Aceptado: 14/02/2024

Publicado: 28/03/2024

Introducción

Los tumores odontogénicos son patologías raras que se originan de tejidos odontogénicos o de los restos que resultan del proceso de la odontogénesis. Se encuentran dentro del tejido óseo del maxilar o la mandíbula y en los tejidos blandos adyacentes. El TOA tiene un aspecto histológico similar al órgano del esmalte, a la papila dental o a un folículo dental^{1,2} y según la clasificación de tumores y quistes odontogénicos de la Organización Mundial de la Salud (OMS 2022), hace parte del grupo de tumores odontogénicos epiteliales benignos^{3,4}. Tiene crecimiento lento, está compuesto por epitelio odontogénico con varios patrones histoarquitectónicos, se origina en el proceso de odontogénesis, de los restos de la lámina dental, sobre un estroma de tejido fibroconectivo maduro⁵.

Dicha patología representa 2.2 a 7.1% de todos los tumores odontogénicos⁶, se observa con mayor frecuencia durante las primeras décadas de vida, tiene predilección por el género femenino⁵. Ocurre en proporción de 2:1 (maxilar/mandíbula), principalmente en la región anterior y aproximadamente, 60% de los casos se ven asociados a caninos no erupcionados^{5,6,7}.

El TOA también es llamado “el tumor de los dos tercios”, ya que dos tercios ocurren en mujeres jóvenes, dos tercios en el maxilar, dos tercios están asociados a dientes no erupcionados y dos tercios, a caninos no erupcionados⁶.

En lo que respecta al comportamiento biológico, el TOA es considerado un hamartoma, es asintomático, de crecimiento limitado y puede presentar expansión ósea⁵. Existen casos en los que las lesiones pueden producir expansión cortical, con desplazamiento dental y reabsorción radicular de los dientes asociados^{5,8}. El diagnóstico es hecho a través de un examen radiográfico de rutina o una tomografía computarizada.

Radiográficamente el TOA tiene aspecto unilocular, radiolúcido, bien circunscrito, con límites radiopacos, y en la mayoría de los casos, contiene en su interior un órgano dental, el cual, es asociado a múltiples radiopacidades pericoronales. El examen histológico es necesario para diferenciar el TOA de otras lesiones y neoplasias odontogénicas y no odontogénicas⁹. Histopatológicamente está compuesto por células fusiformes o poligonales que forman láminas y masas en espiral en el estroma de tejido fibroconectivo⁶, con pequeñas áreas de calcificación distrófica. Así mismo, la OMS describe al TOA histopatológicamente, con estructuras similares a conductos, conocidos como pseudoconductos, revestidos por una fila única de epitelio columnar con núcleos polarizados^{5,6,10}.

Actualmente, el tratamiento indicado es el quirúrgico con métodos conservadores debido a la naturaleza no agresiva del tumor, por tanto, la enucleación quirúrgica y el legrado son las opciones terapéuticas más indicadas⁶.

A nivel mundial, la literatura actual sobre el TOA ha descrito series de casos y casos clínicos en distintas poblaciones; en Japón un estudio establece que, de 1089 tumores odontogénicos, 17 fueron TOA de los cuales 13 se localizaron en mandíbula y cuatro en maxilar. Por otro lado, en una serie de casos internacional de TOA, Oliveira CR *et al.* en 2021 incluyeron 36 casos de Sudáfrica, 33 de Brasil, 23 de México y 13 de Guatemala de los cuales el 48.5% se presentaron en la región anterior del maxilar^{11,12}.

En el estudio de Mosqueda *et al.* 1997, realizado en México, de los 349 tumores odontogénicos evaluados, 25 eran TOA, este último, el cuarto más frecuente entre las patologías odontogénicas con predilección por el género femenino (64%)¹³.

Por sus similitudes con otras lesiones de origen odontogénico, los datos clínicos e imagenológicos del Tumor Odontogénico Adenomatoides pueden no representar suficiente información para establecer un diagnóstico preoperatorio; por lo que el diagnóstico histopatológico es necesario⁹.

El objetivo de este trabajo es describir el tumor odontogénico adenomatoides como una entidad patológica poco frecuente dentro de los quistes y tumores de origen odontogénico, hacer énfasis en la importancia de la correlación clínico-patológica para su diagnóstico y tratamiento.

Reporte de caso

Paciente femenino de 25 años, acude al servicio de cirugía maxilofacial, por presentar un aumento de volumen intrabucal, localizado en el lado izquierdo de la región maxilar anterior, asintomático, con más de un año de evolución. En la exploración clínica se observa el desplazamiento nasal desde la perspectiva caudocefálica y desviación de la línea media nasal hacia el lado derecho (Figura 1). En el examen intrabucal, se evidencia, aumento de volumen en la región anterior del maxilar vestibular del lado izquierdo, así como en el paladar duro, con ausencia clínica del diente 22.

Radiográficamente, la imagen es radiolúcida, bien delimitada con bordes escleróticos, algunas áreas radiopacas internas y aproximadamente 3 cm de diámetro. El diente 22 se observa en su interior, así como una divergencia radicular de los dientes 21 y 23 que son adyacentes a los límites de la lesión (Figura 2). En la tomografía computarizada de haz cónico se observa una lesión bien definida ocupando el seno maxilar izquierdo, con presencia en su interior del incisivo lateral superior, el cual se encuentra íntimamente relacionado con una zona hipodensa con calcificaciones internas (Figura 3).

El procedimiento quirúrgico fue bajo anestesia general e intubación bucal. El abordaje trapezoidal se realizó desde el incisivo lateral superior derecho hasta el primer molar superior izquierdo, con colgajo de espesor total para alcanzar el borde superior de la lesión. Posteriormente, se delimitó la lesión con osteotomía, permitiendo el acceso visual. Cuidadosamente, la lesión fue dise-



Figura 1. Perspectiva caudocefálica clínica: un aumento de volumen en región maxilar, lado izquierdo, desplazamiento nasal y desviación de la línea media.



Figura 2. Ortopantomografía. área radiolúcida unilocular bien delimitada en el maxilar del lado izquierdo. Diente 22 en el interior.



Figura 3. Tomografía computarizada de haz cónico, preoperatoria de corte transversal. Relación de la lesión con el diente involucrado.

cada y separada de la cavidad quirúrgica. Para exponer totalmente la lesión, fue necesario levantar la porción de la cortical expandida. En seguida, se realizó la enucleación total. Finalmente, se recuperó la lesión con el diente 22 incluido en su interior, esta última presentaba áreas de aspecto mixoide y zonas de material calcificado (Figura 4A, 4B y 5).

Durante la última fase del procedimiento, se regularizaron los bordes de la cavidad quirúrgica, un injerto de hueso autólogo con plasma rico en factores de crecimiento fue aplicado, y posteriormente, una membrana de colágeno (Figura 4A y 4B). Con ácido poliglicólico 4-0 se suturó, finalizando el procedimiento quirúrgico sin complicaciones.

Macroscópicamente fue descrita una lesión completa de aproximadamente 2.8 cm, con el diente 22 en

su interior, aspecto mixoide y zonas con mineralización en yuxtaposición al diente (Figura 5). Para la evaluación histopatológica, la lesión fue incluida en parafina.

En el análisis histopatológico se identificó una lesión benigna de origen odontogénico caracterizada por la presencia de mantos de células epiteliales poliédricas y fusiformes, entre las que se observaban la formación de estructuras pseudoductales compuestas por células columnares y un contenido de material basófilo amorfo. En algunas zonas se identificó material calcificado distrófico. La lesión estaba rodeada por una pared de tejido fibroso laxo maduro bien vascularizado (Figura 6). Los hallazgos clínicos, radiográficos e histológicos corresponden al diagnóstico de Tumor Odontogénico Adenomatoido.

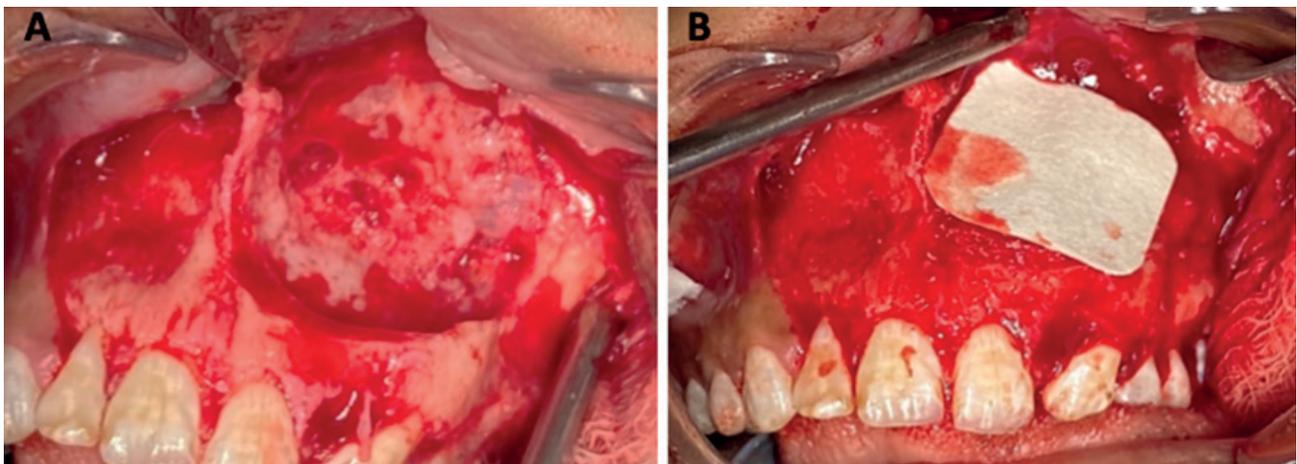


Figura 4. Fotografías durante la biopsia. Cavidad quirúrgica (4A) Aplicación de membrana de colágeno (4B).

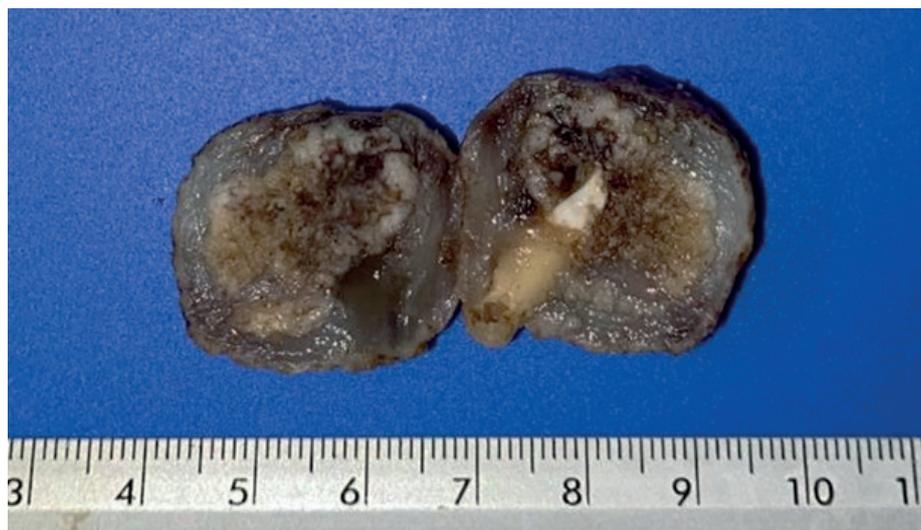


Figura 5. Imagen macroscópica de la lesión enucleada.

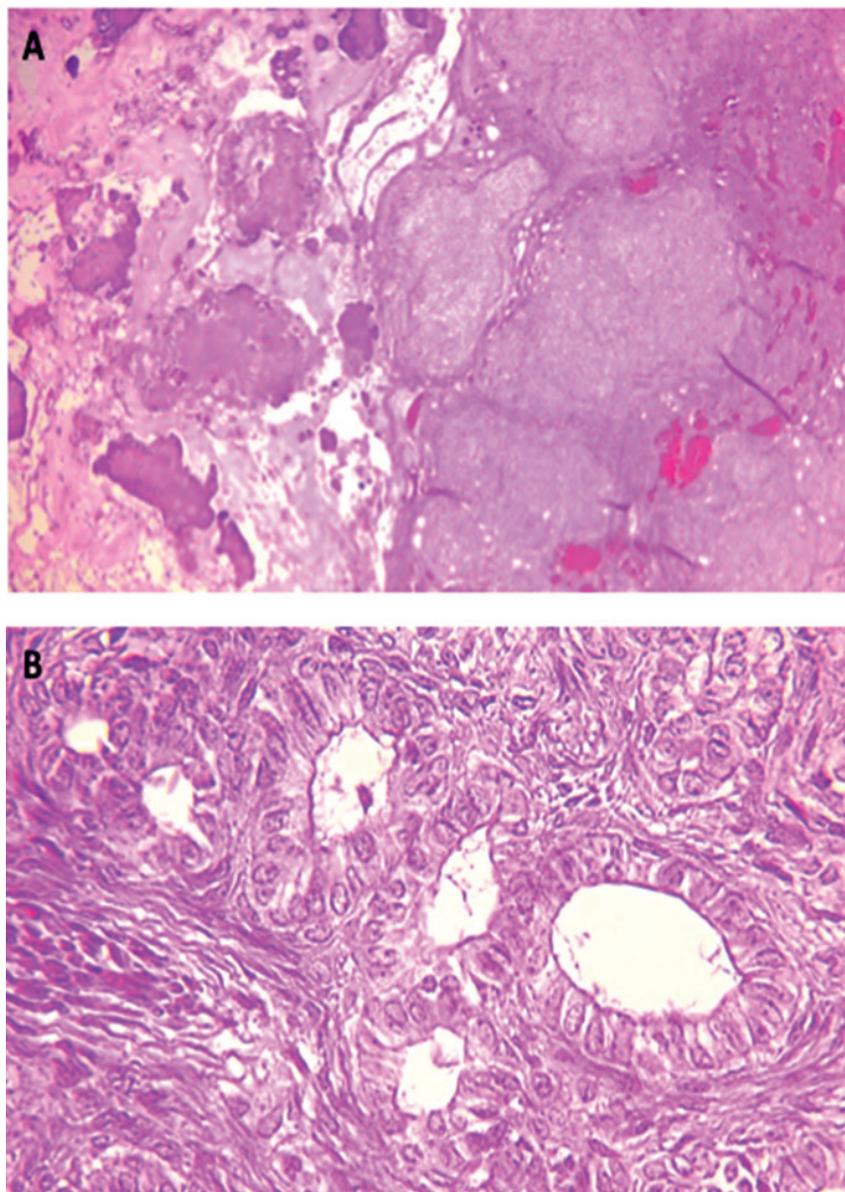


Figura 6. A. fotomicrografía a 10x de la lesión con tinción de hematoxilina y eosina: disposición de mantos celulares y zonas de calcificación. B. fotomicrografía a 40x con pseudoductos del TOA.

Discusión

El TOA es una lesión benigna y no invasiva que se origina de epitelio odontogénico. La OMS lo define como un tumor compuesto por epitelio odontogénico en una variedad de patrones histoarquitectónicos sobre un estroma de tejido fibroconectivo maduro, de crecimiento lento⁷.

Estas lesiones suelen ser asintomáticas, con expansión cortical y benignas, por lo que algunos autores las consideran como un hamartoma, por tanto, pueden tratarse mediante enucleación local^{6,14}.

El TOA afecta principalmente a pacientes jóvenes, se ha descrito que dos tercios de los casos se diagnostican en la segunda década de vida (de 10 a 19 años) y más de la mitad de los casos ocurren en la adolescencia (13 a

19 años). Es poco común en pacientes mayores de 30 años. Las mujeres son más afectadas que los hombres, así como, la región anterior del maxilar.^{15, 16, 17}.

El TOA se puede presentar de forma intraósea y extraósea. El intraóseo puede dividirse en dos tipos, el folicular que es la variante más común, se trata de una lesión radiolúcida unilocular bien definida que rodea la corona y a menudo forma parte de la raíz de un diente no erupcionado. Estas características se asemejan a las del quiste dentígero, lo que hace difícil distinguir radiográficamente el TOA tipo folicular⁷; el segundo tipo denominado extra folicular es una lesión radiolúcida bien delimitada, pero a diferencia del primero se encuentra superior o, superpuesta a la raíz de un diente no erupcionado. Además, con frecuencia se encuentran radiopacidades diminutas de forma variable dentro de la lesión.

El tipo extraóseo, periférico o gingival rara vez se detecta radiográficamente, pero puede haber una ligera erosión de la corteza del hueso alveolar subyacente^{7,16,17}.

En el presente caso la lesión era radiolúcida, unilocular, folicular bien definida y estaba asociada a un incisivo lateral superior izquierdo no erupcionado. Como mencionado, la mayoría de los TOAs son asintomáticos, tienen entre 1-3 cm de diámetro⁷; aproximadamente el 78% de los TOA muestran depósitos calcificados dentro del área radiolúcida. El examen histológico es definitivo para establecer el diagnóstico. En cuanto a las dos variantes del TOA (folicular y extrafolicular) tienen un patrón histológico similar^{6,14}.

El TOA es un tumor benigno y bien encapsulado, por lo que la enucleación quirúrgica es considerada el tratamiento de elección, ya que suele llevarse a cabo sin complicaciones con raras recidivas^{6,9,14}.

Conclusión

Las características clínicas, imagenológicas e histopatológicas del presente caso de TOA se apegan a las reportadas en la literatura científica. Los estudios sobre el TOA en México, así como, los de otros quistes y tumores odontogénicos son escasos, por lo que, se considera importante, el reporte de casos y de series de casos, ya que además de divulgar el conocimiento, también permite comprender el comportamiento clínico y biológico. En la práctica de cirugía, patología y medicina bucal es fundamental llevar a cabo una correlación clínico-patológica de las lesiones óseas, considerando la historia clínica completa, estudios de imagen e histopatológicos para establecer el diagnóstico definitivo e indicar el tratamiento adecuado y específico de cada caso.

Referencias bibliográficas

- Silveira FM, Pereira-Prado V, Bolonga-Molina R. Bases moleculares de los tumores odontogénicos benignos: revisión de la literatura en contexto de la última clasificación de la Organización Mundial de la Salud. [Internet]. 24feb.2022; 24 (39). Available from: <https://odon.edu.uy/ojs/index.php/ode/article/view/401>
- Marín C, Sven E, Niklander, Martínez F. Genetic. Profile of Adenomatoid Odontogenic Tumor and Ameloblastoma. A Systematic Review. *Front Oral Health*. 2021; 2: 1-13. DOI: <https://doi.org/10.3389/froh.2021.767474>
- Kamble A, Shimpi MR, Dash JK, et al. Adenomatoid Odontogenic Tumor of the Maxilla in a 13-year-old Patient: A Rare Case Report with a Review of Literature. *Int J Clin Pediatr Dent*. 2021;14: 596-600. DOI: <https://doi.org/10.5005/jp-journals-10005-1771>
- Soluk T, John M. The World Health Organization Classification of Odontogenic Lesions: A Summary of the Changes of the 2022 (fifth) Edition. *Turk Patology Derm*. 2022;38: 168-184. DOI: <https://doi.org/10.5146/tjpath.2022.01573>
- El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, Takata T, Sloerweg PJ. International Agency for Research on Cancer. WHO classification of head and neck tumors. 4a ed. IARC; 2017.
- Farha SS, Sodhi S, Patil S, Tambe S. Adenomatoid odontogenic tumor in mandible: A rare case. *J Indian Acad Oral Med Radio*. 2018; 30:185-8.
- Chuan X, Gao Y. Adenomatoid Odontogenic tumor: a report of a with recurrence. *J Oral Pathol Med* 2007;36: 440-3. DOI: <https://doi.org/10.1111/j.1600-0714.2007.00521.x>
- Higo M, Sato T, Komatsu T, Kikuo T. Adenomatoid Odontogenic tumor of the mandible with a large, calcified mass: Report a rare case. *J Oral Maxillofac Surg Med Pathol*. 2015;27: 88-91.
- Bachir A, Bdioui A, Mestiri S, Ayachi S, Khochtali H, Hmissa S. La tumeur adénomatoïde odontogène: à propos de deux observations. *Pan Afr Med J*. 2021; 38: 386. DOI: <https://doi.org/10.11604/pamj.2021.38.386.22898>
- Nguyen QD, Vu NL, Nguyen PT, Ngo MH, Dang HD. A giant adenomatoid odontogenic tumor of mandible: A case report and literature review. *Int J Surg Case Rep*. 2022;96: 1-7. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2022.107295>
- Oliveira CR, Román C, Willie FP, Bruno AB, Adalberto MT, Alan SS, Márcio AJ, Oslei PA, Mario JR, Pablo AV. An international collaborative study of 105 new cases of adenomatoid odontogenic tumors Case Reports. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2021;132(3):327-338. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.oooo.2020.06.001>
- Katsutoshi K, Kei Y, Kei N, Yoshihiko A, Takatoshi C, Masayuki T, Akira K, Kenichi M. Frequency of Odontogenic Tumors: A Single Center Study of 1089 Cases in Japan and Literature Review. *Head Neck Pathol* 2022; 16:494-502. DOI: <https://doi.org/10.1007/s12105-021-01390-w>
- Mosqueda A, Ledesma C, Caballero S, Portilla J, Ruíz LM, Meneses A. Odontogenic tumors in Mexico: a collaborative retrospective study of 349 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 1997 ;84(6):672-5. DOI: [https://doi.org/10.1016/s1079-2104\(97\)90371-1](https://doi.org/10.1016/s1079-2104(97)90371-1)
- Reichart PA, Philipsen HP, Khongkhunthian P, Sciubba JJ. Immunoprofile of the adenomatoid odontogenic tumor. *Oral Dis* 2017;23(6):731-736. DOI: <https://doi.org/10.1111/odi.12572>
- Mehkri S, Rajkumar GC, Nagesh KS, Manjunath GS. Bilateral adenomatoid odontogenic tumor of the maxilla in a 2-year-old female- the report of rare case and review of the literature. *Dentomaxillofac Radiology*. 2012, 41: 342-348. DOI: <https://doi.org/10.1259/dmfr/63978332>
- Kelcie B, Jian Q, Chunlin Q, Hua Z, Yi-Shing LC. Adenomatoid odontogenic tumor: evidence for mixed odontogenic tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2022; 2022, 133: 675-683. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.oooo.2021.11.005>
- Deepti G, Sangeeta P, Shetty VB, Anju B. Adenomatoid odontogenic tumor – hamartoma or true neoplasm: a case report. *J Oral Sc*. 2009;1: 155-159. DOI: <https://doi.org/10.2334/josnusd.51.155>

Declaración de conflicto de interés

Los autores no presentan conflicto de interés en la publicación del artículo.

Contribuciones de los autores

AR, OA, LR, VB, GS, OT, LS: Redacción del artículo, análisis de datos/interpretación de datos, estadísticas, aprobación del artículo, acuerdo para responsabilizarse de todos los aspectos del trabajo. AR, OA, LR, VB, GS, OT, LS: Recogida de datos, revisión crítica del artículo, aprobación del artículo. Aceptación de ser responsable de todos los aspectos del trabajo. AR, OA: Interpretación de datos de revisión crítica.