

International journal of interdisciplinary dentistry

ISSN: 2452-5588 ISSN: 2452-5596

Sociedad de Periodoncia de Chile Implantología Rehabilitación Odontopediatria Ortodoncia

Vergara-Gárate, Valentina; Sabelle-Herrera, Nicole; Mardones-Muñoz, Marcelo; Bravo-Ahumada, Rodrigo; Ortega-Pinto, Ana; Maturana-Ramírez, Andrea Tumor Odontogénico Adenomatoide Quístico, presentación inusual. Reporte de dos casos International journal of interdisciplinary dentistry, vol. 15, núm. 1, 2022, pp. 90-93 Sociedad de Periodoncia de Chile Implantología Rehabilitación Odontopediatria Ortodoncia

DOI: https://doi.org/10.4067/S2452-55882022000100090

Disponible en: https://www.redalyc.org/articulo.oa?id=610071148019



Número completo

Más información del artículo

Página de la revista en redalyc.org



Sistema de Información Científica Redalyc

Red de Revistas Científicas de América Latina y el Caribe, España y Portugal Proyecto académico sin fines de lucro, desarrollado bajo la iniciativa de acceso

abierto

# REPORTE CLÍNICO



# Tumor Odontogénico Adenomatoide Quístico, presentación inusual. Reporte de dos casos.

# Cystic Adenomatoid Odontogenic Tumor, unusual presentation. Report of two cases.

Valentina Vergara-Gárate<sup>1</sup>, Nicole Sabelle-Herrera<sup>2</sup>, Marcelo Mardones-Muñoz<sup>1,3</sup>, Rodrigo Bravo-Ahumada<sup>1,3</sup>, Ana Ortega-Pinto<sup>4</sup>, Andrea Maturana-Ramírez<sup>4,5\*</sup>

- 1. Departamento de Cirugía y Traumatología Bucal y Máxilo Facial, Facultad de Odontología, Universidad de Chile, Santiago, Chile.
- 2. Escuela de Pregrado, Facultad de Odontología de la Universidad de Chile, Santiago, Chile.
- 3. Cirugía Oral y Máxilo Facial, Servicio de Cirugía, Hospital San José, Santiago, Chile.
- 4. Departamento de Patología y Medicina Oral, Facultad de Odontología, Universidad de Chile, Santiago, Chile.
- 5. Patología Oral y Máxilo Facial, Servicio CDT Dental/Servicio de Anatomía Patológica, Hospital San José, Santiago, Chile.
- \* Correspondencia Autor: Andrea Paz Maturana-Ramírez | Dirección: Olivos 943, Independencia. Santiago, Chile. 8380492. | Tel: +56229781707 | E-mail: andreamaturanar@gmail.com Trabajo recibido el 30/06/2020. Trabajo revisado 07/09/2020 Aprobado para su publicación el 10/09/2020

## RESUMEN

El tumor odontogénico adenomatoide es un tumor benigno, poco común, que corresponde al 2-7% de los tumores odontogénicos. Se presenta con mayor prevalencia en la segunda década de vida y se ubica preferentemente en maxilar anterior. Es una lesión encapsulada, no agresiva, de crecimiento lento, que puede pasar desapercibida durante años. Deriva del epitelio odontogénico, y se caracteriza histológicamente por células epiteliales dispuestas en nidos, remolinos o cordones con escaso tejido conjuntivo. Puede presentar estructuras canaliculares un patrón ductiforme, con calcificaciones y presenta cápsula. El presente estudio reporta dos casos, el primero es una mujer de 30 años y el segundo el de un hombre de 36 años, ambos con un tumor odontogénico adenomatoide ubicado en zona maxilar anterior derecha, asintomático, sin asociación con diente incluido y de presentación guística a nivel imagenológico e histopatológico. Se discuten características clínicas, radiográficas, histopatológicas y terapéuticas de los casos.

#### PALABRAS CLAVE:

Tumor adenomatoide; Tumor odontogénico; Tumor odontogénico adenomatoide;

Int. J. Inter. Dent Vol. 15(1); 90-93, 2022.

## **ABSTRACT**

Adenomatoid odontogenic tumor is a benign, rare tumor that accounts for 2-7% of odontogenic tumors. It appears with greater prevalence in the second decade of life and is located preferentially in the anterior maxilla. It is a slow-growing, non-aggressive, encapsulated lesion that can go unnoticed for years. It is derived from the odontogenic epithelium, and is characterized histologically by epithelial cells arranged in nests, eddies, or cords with little connective tissue. It may have canalicular structures and a ductiform pattern, with calcifications and it has a capsule. The present study reports two cases, the first is a 30-year-old woman and the second is a 36-year-old man, both with an adenomatoid odontogenic tumor located in the right anterior maxillary area, asymptomatic, without association with an included tooth and cystic presentation at the imaging and histopathological levels. The clinical, radiographic, histopathological and therapeutic characteristics of the cases are discussed.

## **KEY WORDS:**

Adenomatoid tumor; Odontogenic tumor; Adenomatoid odontogenic tumor; Maxilla.

Int. J. Inter. Dent Vol. 15(1); 90-93, 2022.

## INTRODUCCIÓN

El tumor odontogénico adenomatoide (TOA), es un tumor epitelial benigno, poco común; representa entre el 2-7% de todos los tumores odontogénicos (TO), siendo el cuarto TO en prevalencia(1,2). Se presenta con mayor frecuencia en las tres primeras décadas de vida, principalmente la segunda<sup>(3)</sup>; en la región anterior de maxilares, siendo dos veces más común en maxilar que en mandíbula y mayormente en mujeres, con una relación con hombres de 2:1 respectivamente<sup>(3,4)</sup>. Es una lesión encapsulada, no invasiva, ni agresiva, de crecimiento lento, generalmente asociada con un diente impactado, pudiendo pasar desapercibida durante años. Se caracteriza histológicamente por células epiteliales dispuestas en nidos, remolinos o cordones con escaso tejido

conjuntivo. Puede presentar estructuras canaliculares y un patrón ductiforme, parecidos a estructuras glandulares, de ahí su nombre "adenomatoide", pero no tiene origen en epitelio glandular(1). Su nombre actual fue introducido el año 1969 por Philipsen y Birn, presentándolo como una lesión diferente del ameloblastoma, y no como una variante, basados en su comportamiento biológico<sup>(2,5,6,7)</sup>. Los reportes presentados fueron realizados bajo pauta CARE(8)

#### **REPORTE CASO 1**

Paciente sexo femenino, 30 años. Trasplantada renal el año 2006 por glomerulopatía, actualmente con inmunosupresores micofenolato 500mg y prednisona 5mg, sin diálisis. Epilepsia en tratamiento desde los 19 años. Consulta en el Hospital San José de Santiago de Chile, en cirugía maxilofacial en noviembre del año 2017, por aumento de volumen hemimaxilar derecho, 2 años de evolución, asintomático, crecimiento lento y sin alteraciones funcionales.

Al examen facial se observa aumento de volumen en región hemimaxilar derecha, de límites netos, bien circunscrito, con esfumamiento del surco nasogeniano, sin compromiso de piel (Figura 1a). Al examen intraoral, se observa vestíbulo ocupado en relación a dientes 1.6, 1.5, 1.4 y 1.3 cubierto por mucosa normal, de 4x3 cm aproximadamente, consistencia dura, indoloro a la palpación (Figura 1b). En la tomografía computarizada (TC) se observó una lesión de densidad similar a tejido blando, en zona maxilar superior derecha, en relación a dientes 1.6, 1.5, 1.4 y 1.3 de límites definidos, bordes corticalizados, que expande y adelgaza tabla vestibular, la cual se observa fina y discontinua en una zona, de 4x3 cm mesio-distal y de 5x3 cm alto-vestíbulo palatino, que provoca desplazamiento de las raíces de los dientes 1.5 y 1.4, sin producir rizálisis (Figura 1c).



Figura 1. Imágenes clínicas y Tomografía Computarizada corte coronal a) imagen extraoral, asimetría facial por aumento de volumen en región hemimaxilar derecha, b) imagen intraoral, aumento de volumen en reborde posterior maxilar derecho cubierto por mucosa normal, c) lesión de densidad similar a tejido blando, localizada en zona maxilar superior derecha, que expande y adelgaza tabla vestibular la cual se observa fina v discontinua en una zona.

Se planifica biopsia incisional con hipótesis diagnóstica de queratoquiste odontogénico. Bajo sedación y anestesia local se realiza acceso transoral vestibular maxilar, con buen plano de clivaje, ya que, la membrana no se disgrega y se realiza exéresis aparentemente completa de la lesión, finalmente se realiza aseo de lecho óseo e instalación de cánula de descompresión (Figura 2).

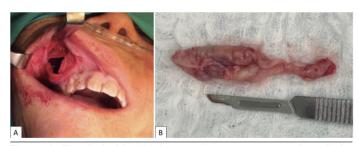


Figura 2. Biopsia incisional, a) se realiza acceso transoral vestibular maxilar b) se realiza exéresis de membrana quística aparentemente completa.

Macroscópicamente se describe una membrana quística ovalada, superficie lisa, lobulada, color blanco grisáceo, blanda, que mide 32x23x10mm. Al dividirla se observa en el interior sustancia de aspecto pastoso firme, pardo, ovalada (Figura 3a). Microscópicamente se observan cortes con múltiples cavidades quísticas de gran extensión, compuestas por un epitelio cúbico que varía de 2-3 capas, hasta zonas de 10-12 células, con crecimiento mural. Destaca zona de proliferación de epitelio odontogénico, con patrón de rosetas, bandas arremolinadas y zonas de microquistes, similares a conductos cortados transversalmente, rodeados por células cilíndricas que recuerdan ameloblastos. Entre estas zonas arremolinadas se observa material eosinófilo homogéneo y escasos fragmentos de calcificaciones amorfas. En un segmento de la muestra, se observa a estos conglomerados en relación directa con la membrana quística, proliferando hacia ella con un patrón más plexiforme.

El diagnóstico histopatológico fue compatible con TOA quístico (Figura 3b y 3c). Se realiza control al mes de realizada la biopsia, paciente en buenas condiciones, se evidencia disminución de aumento de volumen en hemimaxilar derecho y se retira cánula de descompresión. Se informa

resultado de biopsia; dada la baja posibilidad de recidiva, la aparente exéresis total y su relación con el piso orbitario, es que se indican controles periódicos para seguimiento, junto con la derivación a la especialidad de endodoncia para evaluación de vitalidad en piezas 1.6, 1.5, 1.4 y 1.3. Al control de los 6 meses se evidencia disminución del aumento de volumen tanto extraoral como intraoralmente, paciente en buenas condiciones, sin sintomatología (Figura 4).

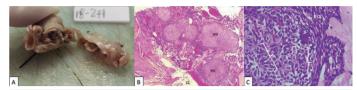


Figura 3. Examen histopatológico a) macroscópico, se puede ver tejido con apariencia de guiste bien circunscrito, en cuyo interior se presentan vegetaciones intraluminales, que histológicamente representan el crecimiento tumoral nodular, b) microscópico, se observa cavidad quística (cc) y zona de epitelio odontogénico (eo) aumento original 4x. c) microscópico, se observa epitelio odontogénico eo formando rosetas (llaves). Aumento original 40x. Tinción hematoxilina-eosina.



Figura 4. Control a los 6 meses, se observa evidente disminución del aumento de volumen extraoral.

## **REPORTE CASO 2**

Paciente sexo masculino, 36 años. Sin antecedentes mórbidos ni hábitos de relevancia. Consulta en Hospital San José de Santiago de Chile, en cirugía maxilofacial en diciembre del año 2019 por aumento de volumen hemimaxilar derecho, 3 años de evolución, asintomático, crecimiento lento y sin alteraciones funcionales.

Al examen facial se observa aumento de volumen en región hemimaxilar derecha, de límites netos, bien circunscrito, con esfumamiento del surco nasogeniano, sin compromiso de piel. Al examen intraoral, se observa vestíbulo ocupado en relación con dientes 1.4, 1.3, 1.2 y 1.1, los que desplaza, cubierto por mucosa normal, de 2x3cm aproximadamente, consistencia dura, indoloro a la palpación (Figura 5a). En la Tomografía Computada Cone Beam se observó una lesión hipodensa. localizada en zona maxilar superior derecha, en relación con dientes 1.4, 1.3, 1.2 y 1.1 de límites definidos, bordes corticalizados, que expande y adelgaza tabla vestibular la que se observa fina y discontinua en algunas zonas, que provoca desplazamiento de raíces de los dientes 1.2 y 1.3, sin producir rizálisis (Figura 5b y 5c).



Figura 5. Imagen clínica intraoral y Tomografía Computada Cone Beam a) se observa vestíbulo ocupado en zona maxilar anterior a los que desplaza, cubierto por mucosa normal con pigmentación fisiológica b) lesión hipodensa, localizada en zona maxilar derecha, que expande y adelgaza tabla vestibular la cual se observa fina y discontinua en algunas zonas c) lesión hipodensa que desplaza las raíces de los dientes 1.2 y 1.3, sin producir rizálisis.

Se planifica biopsia excisional, bajo anestesia general se realiza acceso transoral vestibular maxilar, divulsión por plano de clivaje se realiza exéresis de membrana quística aparentemente completa, aseo de lecho óseo y drena contenido quístico espeso con aspecto de queratina.

En el examen macroscópico se reciben tres muestras, muestra mayor con apariencia de membrana guística, blanda, de color blanco amarillento. superficie lisa, que mide 55 x 30 x 18 mm. Se divide en fragmentos de 5 mm. aproximadamente, evidenciando una sustancia pastosa y granular en su interior, de color café, que mide 10 mm. Al examen microscópico se observan múltiples cortes con fragmentos de membranas quísticas revestidas por un epitelio de células cúbicas, cilíndricas, con grosor que varía de 2-3 capas hasta 15 células, en algunas zonas con patrón de crecimiento mural. Destaca adosado a la membrana, y como continuación de el mismo epitelio, una zona de proliferación de epitelio odontogénico con patrón de rosetas y de bandas arremolinadas y algunas zonas de microquistes, formadas por células que recuerdan ameloblastos. Entre las zonas arremolinadas hay restos de hemosiderina y fragmentos con calcificaciones amorfas. En algunos sectores prolifera con patrón plexiforme. Se observan fragmentos de tejido óseo vital entre tejido conectivo fibroso denso (Figura 6).

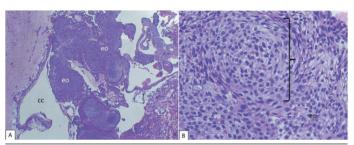


Figura 6. Examen histopatológico a) se observa cavidad quística (cc) y zona de epitelio odontogénico (eo) aumento original 4x. b) se observa epitelio odontogénico (eo) formando roseta (llave) aumento original 40x. Tinción hematoxilina-eosina.

El diagnóstico histopatológico fue compatible con TOA quístico. Se realiza control tras un mes realizada la biopsia, se informa resultado, paciente en buenas condiciones, higiene oral regular y se evidencia disminución de aumento de volumen en zona hemimaxilar derecha. Al control de los 6 meses se observa disminución del aumento de volumen tanto extraoral como intraoralmente, paciente en buenas condiciones, sin sintomatología (Figura 7).



Figura 7. Control a los 6 meses, se observa evidente disminución del aumento de volumen extraoral.

## DISCUSIÓN

En el presente artículo presentamos dos casos, una paciente sexo femenino y un paciente de sexo masculino, con diagnóstico de TOA que compartían grandes similitudes en su presentación clínica e histopatológica.

El TOA es una neoplasia epitelial benigna de origen odontogénico, infrecuente, completamente benigna, algunos autores lo plantean incluso como un hamartoma. Se origina de la proliferación de restos epiteliales odontogénicos frente a estímulos de variada etiología $^{(1,3,4)}$ . La presentación clínica tiene lugar al final de la adolescencia o adultos jóvenes, muy rara vez se presentan en personas mayores a 30 años,

como en los presentes casos y su frecuencia es el doble en mujeres que en hombres<sup>(1,9)</sup>. Su principal ubicación es en relación a dientes maxilares anteriores (53%) y clínicamente se presentan como aumentos de volumen intra o extraorales, de consistencia firme, generalmente asintomáticos, como en esta oportunidad, sin embargo, a diferencia de nuestros casos, se asocian principalmente a caninos incluidos(1,10)

En un estudio realizado por Ochsenius et al., en el año 2002 se estudiaron 362 casos de TO en Chile y en la comparación del porcentaje relativo de TOA de otros países como México, Canadá, China y Nigeria, se evidenció que el porcentaje de TOA en Chile es del 6,6%, muy similar al porcentaje relativo publicado en la literatura internacional<sup>(11)</sup>.

Radiográficamente, se presentan radiolúcidas, uniloculares, bien definidas y pueden abombar tablas óseas, sin embargo, no es posible realizar un diagnóstico definitivo, ya que, es similar a múltiples tumores y quistes odontogénicos, como el quiste dentígero, cuando se asocia a una pieza dental incluida, queratoquiste odontogénico y el ameloblastoma uniquístico<sup>(9,12)</sup>. Se ha reportado que dos tercios de los casos intraóseos pueden presentar pequeños focos radiopacos(3). El TOA se subdivide en 3 variantes: folicular; que corresponde a una variante intraósea, y se asocia a un diente incluido, siendo el 75% de los casos; la variante extrafolicular, también intraósea, se presenta radiográficamente como un quiste y corresponde al 24%, a esta variante corresponderían a nuestros casos. Y, por último, la variante extraósea, la más infrecuente y que afecta la mucosa oral(1,3,6,9).

En cuanto a las características histopatológicas del TOA, estas son distintivas. Es una lesión bien definida, generalmente rodeada por una cápsula gruesa y fibrosa. Las células epiteliales pueden formar estructuras en forma de rosetón alrededor de un espacio central, el que puede estar vacío o contener pequeñas cantidades de material eosinofílico, siendo estas estructuras tubulares las más características del TOA(1,2,3,10)

Es fundamental un adecuado diagnóstico de estas lesiones, descartando otros TO, como el ameloblastoma, con quien presenta ciertas similitudes, debido a que el TOA es un tumor benigno cuyo tratamiento es conservador, y consiste en la enucleación de la lesión, a diferencia del ameloblastoma cuyo tratamiento es mucho más agresivo. La enucleación del TOA se ve facilitada gracias a su cápsula gruesa y fibrosa, sin requerir la necesidad de márgenes de seguridad. Por lo anterior, con la enucleación quirúrgica conservadora se obtiene un resultado excelente, prácticamente sin recurrencia, como lo observado en estos casos, sin recurrencias en 2 años(5,9,10)

Es debatido en la literatura, debido al comportamiento clínico del TOA, si éste corresponde a un guiste, neoplasia o hamartoma. Algunos autores lo consideran una neoplasia benigna, de crecimiento continuo, no invasiva ni agresiva. Neville et al., señala que, aunque el tumor es claramente de origen odontogénico, su histogénesis es incierta. Las células tumorales tienen un gran parecido morfológico con células del estrato intermedio del órgano del esmalte; sin embargo, algunos investigadores han sugerido recientemente que el tumor surge de restos de las láminas dentales en función de su distribución anatómica(13,14). Otros autores lo consideran hamartoma, debido a su crecimiento limitado y baja recurrencia, incluso habiendo removido de forma incompleta la lesión. Las escasas recidivas reportadas en la literatura correspondían a ameloblastomas y no a TOA. Otros grupos, lo consideran quiste, pues en el examen histopatológico encontraron una luz quística, revestimiento y una cápsula de tejido conectivo, como en estos casos<sup>(2,5,15)</sup>.

# CONCLUSIÓN

El TOA corresponde a un TO con un comportamiento clínico similar a un hamartoma, y cuyas características clínicas e imagenológicas requieren de un estudio histopatológico para su confirmación. En el análisis microscópico es fundamental su diferenciación histológica, principalmente con el ameloblastoma, y así realizar un adecuado manejo y tratamiento de una lesión con un excelente pronóstico. Los controles son siempre necesarios para garantizar la salud del paciente.

#### RELEVANCIA CLÍNICA

El TOA es un tumor odontogénico de muy baja prevalencia, de crecimiento lento pero que puede alcanzar importantes dimensiones. Nuestro objetivo fue mostrar dos casos de TOA de presentación quística, la que es inusual, comparando manifestaciones clínicas, imagenológicas e histopatológicas en ambos pacientes.

Estos casos sirven, una vez más, como ejemplo de lesiones que podrían confundirse con quistes de huesos maxilares y permite destacar la relevancia del estudio histopatológico de todas las lesiones enucleadas durante un procedimiento quirúrgico, a fin de realizar un correcto diagnóstico y tratamiento de los pacientes.

#### **CONFLICTO DE INTERESES**

Los autores de este artículo no tienen intereses en competencia.

#### **FUENTES DE FINANCIAMIENTO**

Los autores de este artículo no recibieron financiación para este artículo.

## **APROBACIÓN ÉTICA**

No aplica.

## **CONSENTIMIENTO DE LOS PACIENTES**

Se obtuvieron los consentimientos.

## Bibliografía

- 1. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Chi AC. Oral and Maxillofacial Pathology. 4a ed. Canadá: Elsevier; 2016:664-6
- 2. Thakur A, Tupkari JV, Joy T, Hanchate AV. Adenomatoid odontogenic tumor: What is the true nature? Med Hypotheses. 2016;97:90-3.
- 3. El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, Takata T, Slootweg PJ. WHO classification of head and neck tumours. 4a ed. Lyon, France: International Agency for Research on Cancer; 2017:221-2.
- 4. Briones D, Basili A, Castellón L, Montero S. Adenomatoid odontogenic tumor: case report and review of the literature. Rev Dent Chile. 2005;96(2)14-6.
- 5. Neha S, Santosh M, Sachin MG, Poonam SR, Simranjit S, Abdul KA. Adenomatoid odontogenic tumour: An enigma. Saudi Dent J. 2018;30(1)94-6.
- 6. Dhirawani RB, Pathak S, Mallikaarjuna K, Sharma A. An adenomatoid odontogenic tumor in disguise. J Indian Soc Pedod Prev Dent. 2016;34(3):291-3.
- 7. Manjunatha BS, Harsh A, Purohit S, Naga MV. Adenomatoid odontogenic tumor associated with a dentigerous cyst. J Cancer Res Ther. 2015;11(3):649.
- 8. Gagnier JJ. Kienle G. Altman DG. et al. The CARE guidelines: consensus-based clinical case report guideline development. J Diet Suppl. 2013;10(4):381-90

- 9. Mohanty N, Routray S, Swain N, Ingale Y. Adenomatoid odontogenic tumor with clear cell changes. Indian J Pathol Microbiol. 2014;57(2):290-3.
- 10. Kalia V, Kalra G, Kaushal N, Sharma V, Vermani M. Maxillary adenomatoid odontogenic tumor associated with a premolar. Ann Maxillofac Surg. 2015;5(1):119-22. 11. Ochsenius G, Ortega A, Godoy L, Peñafiel C, Escobar E. Odontogenic tumors in Chile: a study of 362 cases. J Oral Pathol Med. 2002;31(7):415-20.
- 12. Velasco I, Aguilar L, Venables C. Adenomatoid odontogenic tumor in maxilla: a report case and review of the literature. Int J Odontostomat. 2011;5(1): 65-9.
- 13. de Matos FR, Nonaka CFW, Pinto LP, et al. Adenomatoid odontogenic tumor: retrospective study of 15 cases with emphasis on histopathologic features. Head Neck Pathol. 2012;6(4):430-7.
- 14. Philipsen HP, Samman N, Ormiston IW, Wu PC, Reichart PA. Variants of the adenomatoid odontogenic tumor with a note on tumor origin. J Oral Pathol Med. 1992:21:348-52.
- 15. Chrcanovic BR, Gomez RS. Adenomatoid odontogenic tumor: An updated analysis of the cases reported in the literature. J Oral Pathol Med. 2019;48(1):10-6.