

International journal of interdisciplinary dentistry

ISSN: 2452-5588

ISSN: 2452-5596

Sociedad de Periodoncia de Chile Implantología  
Rehabilitación Odontopediatria Ortodoncia

Díaz-Reiher, Marlene; Yévenes-Souper, Francisco; Fernández-Toro, María de los Ángeles; Donoso-Hofer, Francisca

Ameloblastoma uníquístico patrón mural: Reporte de un caso.

International journal of interdisciplinary dentistry, vol. 15, núm. 2, 2022, pp. 161-164

Sociedad de Periodoncia de Chile Implantología Rehabilitación Odontopediatria Ortodoncia

DOI: <https://doi.org/10.4067/S2452-55882022000200161>

Disponible en: <https://www.redalyc.org/articulo.oa?id=610072516013>

- ▶ Cómo citar el artículo
- ▶ Número completo
- ▶ Más información del artículo
- ▶ Página de la revista en redalyc.org

## REPORTE CLÍNICO



# Ameloblastoma uníquístico patrón mural: Reporte de un caso.

## Unicystic mural ameloblastoma: A case report.

Marlene Díaz-Reiher<sup>1\*</sup>, Francisco Yévenes-Souper<sup>1</sup>, María de los Ángeles Fernández-Toro<sup>1,2</sup>, Francisca Donoso-Hofer<sup>1,2</sup>.

1. Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital San Juan de Dios, Santiago, Chile.

2. Dpto. Cirugía y Traumatología Máximo Facial, Facultad Odontología, Universidad de Chile, Santiago, Chile.

\* Correspondencia Autor: Marlene Díaz-Reiher | Dirección: Avenida Portales 3239, Santiago, Chile. | E-mail: marlene.diazr@gmail.com

Trabajo recibido el 15/11/2020.

Trabajo revisado 15/04/2021

Aprobado para su publicación el 09/06/2021

### RESUMEN

El ameloblastoma es un tumor odontogénico agresivo que se clasifica en uníquístico, extraóseo/periférico y metastatizante. Una mujer de 42 años acudió al Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial por aumento de volumen hemifacial izquierdo de 6 meses de evolución. Al examen se observó aumento de volumen de la región parótidea y submandibular izquierda, abombamiento tablas óseas mandibulares y movilidad dental. La tomografía axial computarizada reveló una lesión de aspecto quístico en la región mandibular. Se realizó la biopsia incisional y el tratamiento quirúrgico conservador. El diagnóstico histopatológico fue ameloblastoma uníquístico patrón mural. Luego de seis meses de descompresión, se realizó una nueva biopsia incisional, curetaje óseo y se aplicó solución de Carnoy. Once meses posteriores a la primera intervención, se constató radiográficamente aposición ósea de la lesión. El tratamiento de estos ameloblastomas continúa siendo controversial por lo que cada caso se debe abordar de manera única.

### PALABRAS CLAVE:

ameloblastoma; ameloblastoma uníquístico; amebloblastoma uníquístico mural; ameloblastoma mural.

Int. J. Inter. Dent Vol. 15(2); 161-164, 2022.

### ABSTRACT

Ameloblastoma is an aggressive odontogenic tumor classified as unicystic, extraosseous / peripheral, and metastasizing. A 42-year-old woman was attended at the Oral and Maxillofacial Surgery Service due to a 6-month facial asymmetry. Clinically, we observed a volume increase of the left parotid and submandibular region, bulging of the mandibular bone tables and dental mobility. Computed Tomography revealed a cystic-like lesion in the mandibular region. An incisional biopsy and conservative surgical treatment were performed. The histopathological diagnosis was unicystic ameloblastoma, mural pattern. After six months of decompression, a new incisional biopsy and bone curettage were performed, and Carnoy's solution was applied. Eleven months after the first intervention, bone apposition was observed in the x-ray. The treatment of these ameloblastomas continues to be controversial, so every case should be approached in a unique manner.

### KEY WORDS:

ameloblastoma; unicystic ameloblastoma; unicystic mural amebloblastoma; mural ameloblastoma.

Int. J. Inter. Dent Vol. 15(2); 161-164, 2022.

### INTRODUCCIÓN

El ameloblastoma es un tumor odontogénico agresivo formado a partir del epitelio odontogénico dentro de un estroma fibroso maduro sin ectomesénquima odontogénico<sup>(1)</sup>. Representa el 1% de los tumores que afectan el territorio oro-maxilofacial<sup>(2)</sup> y 13 a 58% de los tumores odontogénicos. Su incidencia estimada es de 0,5 por millón de población al año, observándose mayor incidencia en países de África y Asia<sup>(3)</sup>.

De acuerdo a su presentación clínica, histológica y radiográfica, la Organización Mundial de la Salud (OMS) lo clasifica en tres tipos: 1) uníquístico, 2) extraóseo/periférico y 3) metastatizante<sup>(4,5)</sup>. El ameloblastoma uníquístico fue descrito inicialmente como un ameloblastoma que se presentaba comúnmente en pacientes jóvenes, con apariencia radiográfica de lesión unilocular, de naturaleza quística al microscopio y que respondía bien al tratamiento conservador<sup>(6)</sup>.

De acuerdo a sus variantes histológicas, fue posteriormente subclasificado en tres tipos: 1) el tipo luminal o simple es una lesión quística unilocular con epitelio de revestimiento, 2) el tipo intraluminal es una lesión quística que comprende nódulos tumorales intraluminales y epitelio odontogénico con patrón plexiforme, y 3) el tipo mural presenta islas tumorales epiteliales ameloblastomatosas en la pared quística, que pueden estar unidas al revestimiento del quiste<sup>(3,4,7,8)</sup>.

El ameloblastoma uníquístico se localiza mayoritariamente en la zona posterior de la mandíbula, donde puede presentarse aumento de volumen asintomático como consecuencia de la expansión de las tablas óseas<sup>(1)</sup>. Dependiendo del tipo histológico y de la localización del ameloblastoma, la literatura ha sugerido diferentes tratamientos: conservadores en las variantes luminal e intraluminal, y más agresivos en la variante mural. Sin embargo, el manejo de los ameloblastomas uníquisticos de tipo mural continúa siendo controversial, debido a su similitud en recurrencia con el

ameloblastoma convencional. Se han reportado tasas de recurrencia a los 5 años del 10 al 20% luego de tratamiento conservadores. En cambio, la recidiva disminuiría a un 4% luego de tratamientos radicales<sup>[3,9]</sup>.

A continuación, se presenta el caso de una paciente con un ameloblastoma uníquístico de tipo mural de gran tamaño. Se analizó su presentación clínica y radiográfica, diagnósticos diferenciales confundentes y se discutió acerca de las controversias de los distintos esquemas terapéuticos y tasas de recurrencia.

## CASO CLÍNICO

Paciente de sexo mujer, 42 años de edad, con antecedentes de hipotiroidismo en tratamiento, acude al Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial del Hospital San Juan de Dios, en Santiago de Chile, por aumento de volumen hemifacial izquierdo de 6 meses de evolución. Al examen clínico se observó un aumento de volumen de la región parotídea y submandibular izquierda (figura 1), desdentamiento parcial bimaxilar, abombamiento tablas óseas mandibulares y movilidad de tercer molar inferior izquierdo (diente 3.8) (figura 2). La radiografía panorámica reveló extensa lesión en zona posterior del cuerpo y en casi la totalidad de la rama mandibular izquierda, de características quísticas y expansivas, sugerentes de quiste odontogénico (figura 3). En la tomografía axial computarizada (TAC) se observó una lesión de aspecto quístico en la región mandibular izquierda, desde cuello condilar hasta cuerpo mandibular izquierdo, con expansión de corticales óseas vestibular y lingual (figura 4).



Figura 1. Fotografías extraorales iniciales: Aumento de volumen hemifacial izquierdo.



Figura 2. Fotografía intraoral inicial.



Figura 3. Radiografía panorámica inicial.

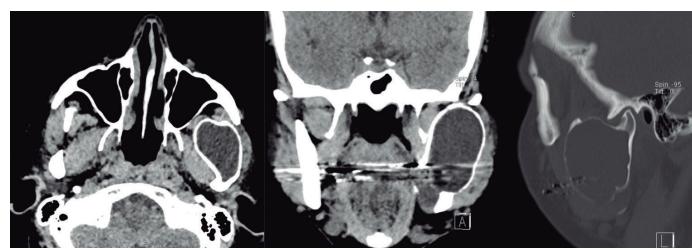


Figura 4. Tomografía axial computarizada inicial.

Bajo anestesia local, se realizó un colgajo de espesor total, accediendo directamente a la lesión por la cortical vestibular perforada. El contenido de la lesión fue un líquido de aspecto hemático, sin similitud a la queratina. Se realizó la biopsia incisional de la membrana quística mandibular izquierda, curetaje óseo, exodoncia de tercer molar inferior izquierdo e instalación de una cánula de descompresión. La paciente recibió la indicación de irrigar a través de cánula con suero fisiológico y se mantuvo en controles periódicos. El diagnóstico histopatológico fue ameloblastoma uníquístico patrón mural, describiéndose una pared fibrosa fibrovascular revestida parcialmente de epitelio ameloblástico y múltiples islas y cordones de epitelio ameloblástico de tipo folicular que infiltran la pared fibrosa.

Seis meses después – al observar radiográficamente una disminución del área radiolúcida y aposición ósea (figura 5) – se realizó un nuevo abordaje, esta vez bajo anestesia general, para permitir un curetaje más agresivo y mayor remoción de tejido tumoral. Se realizó una nueva biopsia incisional y se aplicó solución de Carnoy. El resultado histopatológico fue ameloblastoma uníquístico patrón mural con proceso inflamatorio crónico y agudo.

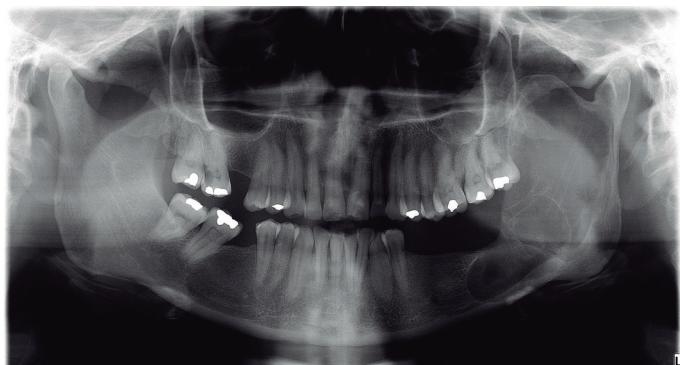


Figura 5. Radiografía panorámica 4 meses postquirúrgica.

La paciente se mantuvo en control clínico y radiográfico periódico, observándose disminución de la lesión y la aposición ósea mandibular, y la consecuente simetrización facial. Once meses posteriores a la primera intervención quirúrgica, se constató radiográficamente aposición ósea de la lesión radiolúcida del cuerpo y rama mandibular izquierda, límites netos esclerosados y expansión ósea a nivel de la rama mandibular (figura 6), aposición ósea que continúo progresivamente, como se observó en la radiografía panorámica realizada 21 meses postquirúrgica (figura 7).



Figura 6. Radiografía panorámica 11 meses postquirúrgica.

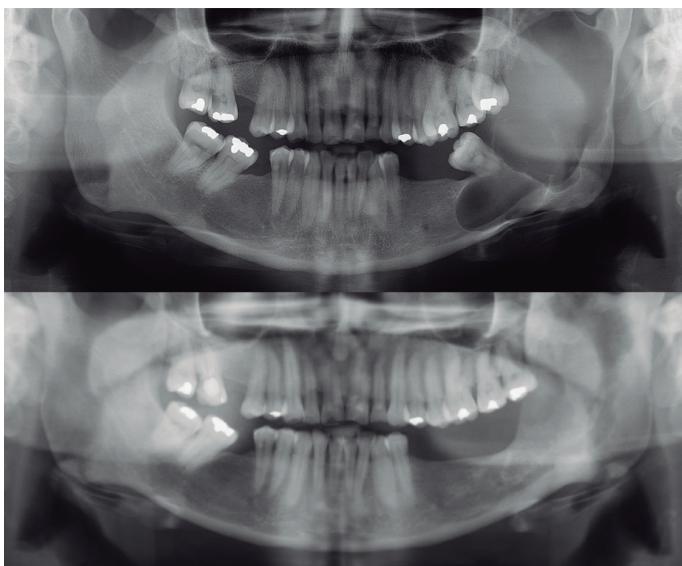


Figura 7. Radiografías panorámicas inicial y 11 meses postquirúrgica

## DISCUSIÓN

El ameloblastoma uníquístico es un tumor odontogénico benigno, localmente agresivo, caracterizado por presentar una cavidad única bien definida y tener un alto riesgo de recurrencia. La biopsia incisional continua siendo el gold standard para su diagnóstico, por lo que errores en la muestra, especialmente en lesiones grandes y heterogéneas, pueden llevar a un incorrecto plan de tratamiento y con ello a un peor pronóstico<sup>(10)</sup>.

Las distintas alternativas de tratamiento como la enucleación, marsupialización o descompresión y resección radical continúan siendo controversiales, ya que los manejos conservadores se asocian a mayor tasa de recidiva, mientras que los tratamientos radicales presentan variadas complicaciones asociadas a su alta morbilidad<sup>(11)</sup>. Situaciones clínicas como las presentadas en nuestro caso hacen cuestionar el real costo/beneficio de los distintos abordajes de tratamientos, debido a que el extenso compromiso mandibular de nuestra paciente hubiese podido significar la necesidad de una hemimandibulectomía y la posterior reconstrucción mediante prótesis articular o injertos autólogos.

Estudios han reportado que las características imagenológicas de reabsorción radicular y perforación de las tablas óseas, asociados a la presencia de un subtipo histopatológico mural, podrían sugerir un potencial agresivo de la lesión, por lo que el tratamiento inicial mediante la marsupialización o descompresión no estaría indicado. Sin embargo, Zheng et al., al analizar los efectos de esta alternativa de tratamiento en ameloblastomas uníquísticos, reportaron que el único factor predictor de recurrencia de la lesión fue la perforación de las corticales óseas. Por otra parte, la literatura ha sugerido que la presencia de impactación dental en ameloblastomas uníquísticos es el único factor significativo que indique menor agresividad de la lesión<sup>(12)</sup>, lo que no se observó en nuestra paciente.

La enucleación por si sola resultaría en la mayor tasa de recurrencia del ameloblastoma uníquístico, variando entre 30,5 a 60% según diferentes estudios. No obstante, el uso de sustancias coadyudantes, como la solución de Carnoy, permiten una reducción de la recidiva, alcanzando una tasa de 16%. La recurrencia del ameloblastoma uníquístico tratado mediante la marsupialización o descompresión y un procedimiento quirúrgico adicional (enucleación o resección) es de 18%. En el caso de ameloblastomas uníquísticos tratados desde un inicio de forma radical, la tasa de recurrencia alcanza el 3%<sup>(10,13)</sup> (Rikhotso and Premviyasa 2019).

La descompresión, al reducir el tamaño quístico, permite una disminución de la morbilidad al momento de realizar el tratamiento reseptivo definitivo, aumentando la probabilidad de preservación del nervio alveolar inferior, reduciendo el riesgo de fracturas patológicas y disminuyendo la necesidad de injertos óseos. Sin embargo, su evolución es impredecible, ya que los ameloblastomas reducen su tamaño en tiempos variados y sus tasas de recurrencia van entre el 4,5 a más del 50%. La literatura ha indicado que el periodo promedio de recurrencia es de alrededor de los 5 años, por lo que el seguimiento de los pacientes debe ser largo<sup>(12)</sup>.

Las posibles complicaciones de la descompresión son diversas. Si bien, la reducción del tumor puede ser evidente, la remoción de las células tumorales satélites puede haber sido inadecuada y haber invadido el tejido óseo esponjoso, pudiendo llevar a la recurrencia más allá del margen de la lesión inicial. Además, las múltiples intervenciones quirúrgicas pueden causar o acelerar la recurrencia debido a la implantación de células tumorales. Por lo mismo, en caso de recurrencias, debe ser considerado tratamiento más agresivos que prioricen la eliminación de las células tumorales.

El ameloblastoma uníquístico patrón mural es considerado ser tan agresivo como el ameloblastoma convencional, debido a su alto potencial de recurrencia, por lo que su manejo tienden a ser la resección y posterior reconstrucción. En el presente caso, la resección del total del segmento hubiese significado la necesidad de reconstrucción para devolver la funcionalidad de la articulación temporomandibular y el probable compromiso nervioso. Esto se hubiese traducido a un largo periodo de rehabilitación kinésico-funcional. Además, si bien la lesión tenía un patrón histológico mural, su comportamiento clínico era expansivo, pero sin perforación de las corticales óseas o rizálisis dentarias. Esto nos permitió suponer un comportamiento medianamente agresivo, y con ello un posible predictor positivo. La paciente se mantuvo con indicación de irrigación a través de la cánula por un periodo de 6 meses. Luego, volvió a ser sometida a un tratamiento quirúrgico, que consistió en el curetaje y la aplicación de solución de Carnoy. La descompresión del contenido interno del ameloblastoma, al promover la remodelación ósea y la osteogénesis, preservó el contorno mandibular y permitió evitar la hemimandibulectomía planificada inicialmente.

Actualmente, la paciente se encuentra en controles periódicos, evolucionando favorablemente tanto clínica como radiográficamente. Se plantea en un futuro cercano realizar la resección en bloque de la lesión, sin la necesidad de la reconstrucción de la articulación temporomandibular. Bajo nuestro criterio clínico, el tratamiento agresivo debería reservarse en casos de recurrencia.

## CONCLUSIÓN

El tratamiento de los ameloblastomas uníquísticos patrón mural continua siendo controversial, debido a su naturaleza agresiva y su potencial recidiva. Pese a las distintas opciones de tratamientos, es imperativo evaluar cada caso de manera única, prefiriendo un abordaje agresivo pero limitando las comorbilidades del tratamiento. De esta forma, muchas veces es preferible terapias menos radicales de manera inicial, pero siempre considerando el seguimiento a largo plazo de los pacientes y la posibilidad de nuevas intervenciones quirúrgicas.

## RELEVANCIA CLÍNICA

El ameloblastoma uníquístico es un tumor que se subclasifica en tipo luminal, intraluminal y mural. Dependiendo del tipo histológico y de la localización del ameloblastoma, la literatura ha sugerido diferentes tratamientos: tratamiento más conservadores para las variantes histológicas luminal e intraluminal, y tratamiento más radicales para la variante mural. Sin embargo, en casos como el planteado en nuestro trabajo, tratamientos radicales significarían gran morbilidad. Por lo mismo, el tratamiento de estos ameloblastomas continua siendo controversial, debiéndose abordar cada caso de manera única, prefiriendo terapias menos radicales, pero considerando el seguimiento a largo plazo y la posibilidad de segundas intervenciones quirúrgicas.

## CONFLICTO DE INTERESES

Los autores declaran no tener conflicto de interés con ninguno de los aspectos presentados en este caso clínico.

## FUENTES DE FINANCIAMIENTO

No se recibió ningún tipo de apoyo económico de empresas externas. Todos los bienes fueron aportados por el equipo de investigación y el Hospital San Juan de Dios.

## CONSENTIMIENTO INFORMADO

Todos los pacientes incluidos en este estudio aprobaron y firmaron un consentimiento informado declarando la aprobación del uso de sus imágenes e información clínica.

## Bibliografía

1. Effiom OA., Oladunni MO, Abdulwarith OA, Sunday OA. Ameloblastoma: Current etiopathological concepts and management. *Oral Dis.* 2018;24(3):307-16. DOI:10.1111/odi.12646.
2. Xavier SP, de Mello-Filho FV, Rodrigues WC, Sonoda CK, de Melo WM. Conservative approach: Using decompression procedure for management of a large unicystic ameloblastoma of the mandible. *J Craniofac Surg.* 2014;25(3):1012-14. DOI:10.1097/SCS.0000000000000716.
3. Seintou A, Martinelli-Klär CP, Lombardi T. Unicystic ameloblastoma in children: systematic review of clinicopathological features and treatment outcomes. *Maxillofac Surg.* 2014;43(4): 405-12. DOI:10.1016/j.ijom.2014.01.003.
4. Speight PM, Takata T.. New tumour entities in the 4th edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck tumours: odontogenic and maxillofacial bone tumours. *Virchows Arch.* 2018;472(3): 331-9. DOI:10.1007/s00428-017-2182-3.
5. Wright JM, Vered M. Update from the 4th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours: Odontogenic and Maxillofacial Bone Tumors. *Head and Neck Pathol.* 2017;11(1): 68-77. DOI:10.1007/s12105-017-0794-1.
6. Robinson L, Martinez MG. Unicystic ameloblastoma: a prognostically distinct entity. *Cancer.* 1977;40(5): 2278-85. DOI: 10.1002/1097-0142(197711)40:5<2278::aid-cncr2820400539>3.0.co;2-1.
7. Ackermann GL, Altini M, Shear M. The unicystic ameloblastoma: a clinicopathological study of 57 cases. *J Oral Pathol.* 1988;17(9-10): 541-546. DOI: 10.1111/j.1600-0714.1988.tb01331.x.
8. Cadavid AMH, Araujo JP, Coutinho-Camillo CM et al. Ameloblastomas: current aspects of the new WHO classification in an analysis of 136 cases. *Surg Exp Pathol.* 2019;2(1):17. DOI:10.1186/s42047-019-0041-z.
9. Antonoglou GN, Sándor GK. Recurrence rates of intraosseous ameloblastomas of the jaws: A systematic review of conservative versus aggressive treatment approaches and meta-analysis of non-randomized studies. *J Craniomaxillofac Surg.* 2015;43(1):149-57. DOI: 10.1016/j.jcms.2014.10.027.
10. Rikhotso RE, Premviyasa V. Conservative treatment of ameloblastoma in a paediatric patient: A case report. *J Oral Maxillof Surg.* 2019;77(8): 1643-49. DOI: 10.1016/j.joms.2019.02.025.
11. Zheng CY, Cao R, Hong WS, Sheng MC, Hu YJ.. Marsupialisation for the treatment of unicystic ameloblastoma of the mandible: a long-term follow up of 116 cases. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2019;57(7):655-62. DOI: 10.1016/j.bjoms.2019.06.002.
12. Gupta K, Chaturvedi TP, Gupta J, Agrawal R. Cell proliferation proteins and aggressiveness of histological variants of ameloblastoma and keratocystic odontogenic tumor. *Biotech Histochem.* 2019;94(5):348-51. DOI: 10.1080/10520295.2019.1571226.
13. Henda FN, Natsir Kalla DS, Van Cann EM, de Vet HCW, Helder MN, Forouzanfar T. Radical vs conservative treatment of intraosseous ameloblastoma: systematic review and meta-analysis. *Oral Dis.* 2019;25(7): 1683-96. DOI: 10.1111/odi.13014.