



Caso inusual de un ameloblastoma unicístico en paciente pediátrico

Unusual case of unicystic ameloblastoma in pediatric patient

Andrea Carolina Salcedo-Pájaro¹ , María Isabel Fonseca-Martínez² , Samuel Urbano-del Valle³ ,
Erich López-Aparicio⁴ , Antonio Díaz-Caballero⁵ 

Tipología: Reporte de caso clínico

Para citar este artículo: Salcedo-Pájaro AC, Fonseca-Martínez MI, Urbano-del Valle S, López-Aparicio E, Díaz-Caraballo A. Caso inusual de un ameloblastoma unicístico en paciente pediátrico. Duazary. 2019 mayo; 16(2): 295-302. Doi: <https://doi.org/10.21676/2389783X.2756>

Recibido en noviembre 24 de 2017

Aceptado en diciembre 04 de 2018

Publicado en línea en febrero 15 de 2019

RESUMEN

El ameloblastoma a pesar de ser un tumor benigno es uno de los más agresivos y destructivos localmente de la región maxilofacial, siendo capaz de generar grandes deformaciones faciales en un corto lapso de tiempo, creciendo dentro del hueso sin perforarlo. La variante unicística, por ser considerada la menos agresiva, permite un manejo conservador de esta patología. No es frecuente en niños y los criterios de tratamiento quirúrgico en la infancia son controversiales, debido, en parte, al riesgo de recurrencia cuando se practican métodos conservadores. Se presenta un caso inusual de ameloblastoma unicístico localizado en la región anterior del maxilar inferior. Este tipo de lesiones se presenta mayormente en adultos jóvenes, principalmente en la segunda década de vida y en este caso se presentó en una niña de 12 años. La lesión fue manejada de manera conservadora con un seguimiento de cuatro años, siendo que esta no presentó recidiva.

Palabras clave: ameloblastoma; neoplasias de la boca; neoplasias maxilomandibulares; cirugía bucal.

ABSTRACT

Ameloblastoma is one of the most aggressive and destructive benign tumors locally in the maxillofacial region, it is able to generate large facial deformations in a short period. Within its classification, the unicystic variant is considered the least aggressive and allows a conservative management of this pathology. It is not frequent in children and the criteria for surgical treatment in childhood are controversial, due to the risk of recurrence when practicing conservative methods. An unusual case of unicystic ameloblastoma is located in the anterior region of the lower jaw. This type of lesions occurs mainly in young adults, mainly in the second decade of life and in this case, was presented in a 12-year old girl. The lesion was managed conservatively with a follow-up of four years, since it did not present a recurrence.

Keywords: Ameloblastoma; Mouth Neoplasms; Jaw Neoplasms; Oral Surgery.

1. Universidad de Cartagena. Cartagena, Colombia. Correo: asalcedop@unicartagena.edu.co - <http://orcid.org/0000-0001-8204-3845>
2. Universidad de Cartagena. Cartagena, Colombia. Correo: mfonsecam@unicartagena.edu.co - <http://orcid.org/0000-0003-1357-9843>
3. Universidad de Cartagena. Cartagena, Colombia. Correo: surbanod@unicartagena.edu.co - <https://orcid.org/0000-0002-5773-8642>
4. Universidad de Cartagena. Cartagena, Colombia. Correo: ericklopezaparicio@hotmail.com - <http://orcid.org/0000-0003-4458-1794>
5. Universidad de Cartagena. Cartagena, Colombia. Correo: adiazc1@unicartagena.edu.co - <http://orcid.org/0000-0001-9693-2969>

INTRODUCCIÓN

El ameloblastoma se clasifica clínicamente en tipos sólidos, quísticos, periféricos, malignos y carcinomatosos. El ameloblastoma quístico fue identificado por primera vez por Robinson y Martínez en 1977, ellos mencionan que este a su vez puede ser uniuíquístico o multiquístico, el primero se considera el de menor agresividad, por lo que permite un manejo más conservador con una tasa de recidiva menor con relación a la variante multiquística, y se caracteriza por tener una pared quística revestida parcial o totalmente de epitelio ameloblástico, que muestra una capa basal con polaridad invertida¹.

Los tumores odontogénicos conforman un grupo de lesiones inusuales en los maxilares que se forman a partir del tejido que participa en la odontogénesis, algunos de ellos no llegan a ser verdaderas neoplasias sino alteraciones de una de las etapas de la odontogénesis, como es el caso del ameloblastoma, que posiblemente es el tumor odontogénico más significativo clínicamente y que genera una gran controversia en cuanto a su manejo por su ubicación agresiva, su leve potencial metastásico y su elevada tasa de recurrencia².

El ameloblastoma uniuíquístico se presenta mayormente en adultos jóvenes, principalmente en la segunda década de vida, raramente en menores de 16 años. Estos se observan como un área radiolúcida y pueden presentar patrones diferentes. El más frecuente es el multilocular, con varios quistes agrupados y separados por tabiques de refuerzo óseo, en otras ocasiones se puede observar una imagen en forma de panal de abeja, siendo ésta la segunda con mayor frecuencia³.

La gran mayoría (más del 90%) de las lesiones se encuentran en el cuerpo mandibular, principalmente en la región posterior, zona de molares específicamente. Esta neoplasia benigna epitelial de origen odontogénico puede producirse a partir del órgano del esmalte, de los remanentes de la lámina dental, del epitelio de quistes dentígeros o posiblemente de las células basales del epitelio de la mucosa oral. Algunos elementos que han sido precursores de esta lesión podrían ser dientes incluidos, quistes odontogénicos, extracciones dentarias, traumatismos externos o el virus del papiloma humano (VPH)^{4,5}.

Se puede estar ante la sospecha de un ameloblastoma cuando el paciente acude a la consulta por una tumoración de crecimiento lento, asintomático, con pérdida o movilidad dentaria, parestesias del nervio dentario inferior o como un hallazgo radiográfico. El estudio se debe complementar con radiografía panorámica, escáner intraoral en 3D o resonancia magnética⁶.

El diagnóstico definitivo de la lesión debe ser otorgado por la biopsia excisional, mientras que el diagnóstico inicial puede ser mediante punción-aspiración con aguja fina (PAAF) o biopsia incisional⁷.

El diagnóstico y la terapia de esta lesión en las edades tempranas es de mucha trascendencia debido a la tasa de recurrencia que puede alcanzar esta patología cuando no se trata apropiadamente, según Müller y Sloopveg en su serie de 84 casos, donde describen una tasa de recidiva en los ameloblastomas uniuíquísticos tratados de forma conservadora de un 20%, lo que podría afectar tanto la estética como la funcionalidad ya que en la intención de evitar la recurrencia se practican métodos radicales en la etapa de crecimiento y desarrollo^{8,9}.

El objetivo de este artículo es presentar el análisis clínico de una lesión de origen odontogénico en una niña de 12 años, manejado de forma conservadora, en la que se llevaron a cabo controles de seguimiento durante cuatro años sin presencia de recidiva.

REPORTE DE CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 12 años, remitida al Hospital Infantil Napoleón Franco Pareja el 18 de noviembre del 2014 para valoración y manejo de tumoración en región mandibular.

La paciente refiere presentar dolor en dientes anteroinferiores. Al examen clínico extraoral se observa deformidad en región mandibular anterior. Al examen intraoral no presenta movilidad dental en ninguno de los órganos dentarios. Se procedió a realizar una ortopantomografía donde se observa lesión radiolúcida intraósea con bordes bien definidos en zona de sínfisis mandibular con desplazamiento de los dientes anteroinferiores, respetando la basal mandibular (Figura 1). Se realiza biopsia incisional para determinar el tipo de patología y proceder a un tratamiento idóneo.

Figura 1. Radiografía panorámica muestra un área radiolúcida intraósea con bordes bien definidos localizado en zona de sínfisis mandibular.



Dos meses después de realizada la biopsia incisional la paciente asiste a control de seguimiento donde refiere dolor en región mandibular izquierda y movilidad del incisivo lateral inferior izquierdo. Al examen intraoral se observa buena cicatrización y

no presenta signos de infección, radiográficamente se observa el canino inferior izquierdo incluido en mal posición y el incisivo lateral inferior izquierdo con movilidad dental, patología reporta ameloblastoma unicístico (Figura 2).

Figura 2. Vista macroscópica de resección del tumor, lesión sólida, bien delimitada con un tamaño de 4x3x2cm de color pardo oscuro.



Bajo anestesia general con intubación nasotraqueal, se realiza infiltración con lidocaína al 1% con epinefrina, se realiza incisión en zona sínfisaria, disección por planos se expone lesión tumoral, se realiza resección completa de la lesión, extracción del canino inferior izquierdo permanente, se realiza curetaje óseo profuso y se sutura por planos.

Histológicamente se observa una lesión benigna de linaje epitelial, constituido por una proliferación de células de aspecto basaloide, con aumento de la relación núcleo citoplasma, núcleos vesiculosos, de bordes irregulares, con nucléolo visible, escaso citoplasma eosinófilo y una baja tasa mitótica. Se evidencia una pared

de tejido fibroso tapizado por epitelio ameloblástico en la pared, se observa además nidos de este mismo epitelio, confirmando por el diagnóstico inicial (Figura 3).

La paciente asiste a control de seguimiento de ameloblastoma en región de sínfisis mandibular la cual no refiere dolor asociado, al examen físico facial no se observa deformidad de contorno, no presenta signos de infección, al examen intraoral se observa oclusión estable sin movilidad de dientes anteroinferiores. Se realizó una cita control después de tres meses con radiografía panorámica en la que se evidenciaron cambios radiográficos positivos, donde se observa neoformación ósea en región de sínfisis mandibular (Figura 4).

Figura 3. Se evidencia histológicamente lesión benigna, compuesta por células dispuestas formando estructuras papilares y nidos, con pared de tejido fibroso tapizado por epitelio ameloblástico.

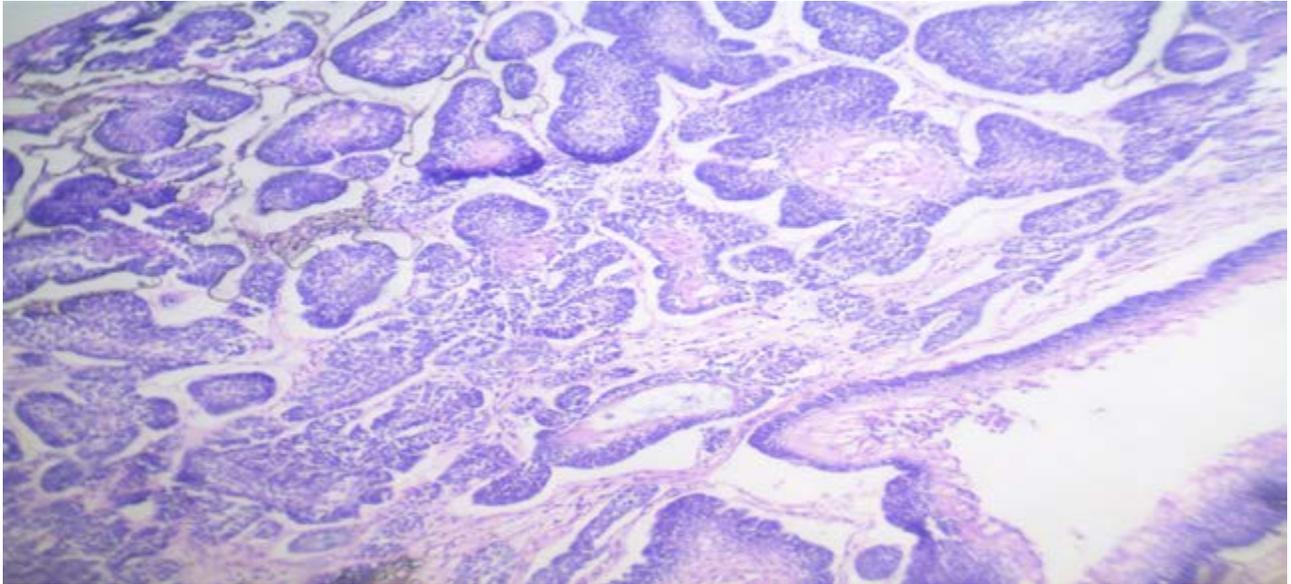


Figura 4. Radiografía panorámica posquirúrgica de control a los cuatro años, se evidencia franca mejoría a nivel de sínfisis mandibular.



Declaración sobre aspectos éticos

Los principios generales que orientan el proceso investigativo se presentan al tenor de las normas de ética como elementos de riguroso cumplimiento y se basan en acciones de tipo administrativo o inherente al procedimiento y de carácter técnico-científico. El presente artículo fue desarrollado observando el estricto cumplimiento de la Declaración de Helsinki y la resolución 8430 de 1993, las cuales establecen la normatividad científica, técnica y administrativa para la investigación en salud. Por lo tanto, en esta se han guardado tanto la confidencialidad como la intimidad del individuo objeto de estudio, lo cual ha quedado citado en el consentimiento informado. De igual forma, los investigadores declaran que la presente investigación es propia, evitando así la duplicidad, el plagio o las copias parciales o totales de esta, dejando en claro si así fuese que es posible la existencia de investigaciones similares en contenido u orientaciones pero cuyas bases fundamentales en el resumen ejecutivo o marco teórico marcan diferencias que se pueden igualmente determinar a través de conclusiones del mismo o con la revisión de expertos en el tema.

DISCUSIÓN

El ameloblastoma presenta una muy baja incidencia, con solamente 0,3 casos por cada millón de habitantes en las comunidades caucásicas; estimando a este como un tumor benigno bastante agresivo y destructivo localmente¹⁰. Es asintomático y se encuentra en pruebas diagnósticas de rutina, tales como radiografías periapicales y principalmente en radiografías panorámicas. Tiene un crecimiento lento; sin embargo, con el tiempo puede causar el movimiento de las raíces dentales o la reabsorción radicular como

se presentó en este caso, maloclusión, en ocasiones parestesia o dolor¹¹.

Dentro de la clasificación clínica del ameloblastoma se encuentra la versión quística. Gardner comenta que hay cierta diferencia en el comportamiento patológico entre aquellas lesiones que son simplemente quísticas o que muestran proliferación intraluminal tipos 1 y 2 y aquellas en las que el epitelio penetraba y rompía la pared fibrosa, por lo tanto tenía la capacidad de invadir el hueso esponjoso (tipo 3). Esta clasificación tiene serias implicaciones para el clínico, ya que los tipos 1 y 2 favorecen el resultado exitoso con un manejo conservador¹².

La edad media de su presentación es la segunda década de vida, lo que se pone en discusión al conocer casos que ocurren en edades inferiores a esta. El sitio más común de presentación es el cuerpo mandibular (en un 80%), siendo que el 70% se localiza en el área de los molares o rama ascendente, a diferencia del caso presente el cual se manifestó en la región anterior del maxilar inferior, atravesando la línea media e incurriendo en un desplazamiento de los dientes anteroinferiores, lo que se considera un caso inusual comparándolo con la literatura¹³.

Las características radiográficas del ameloblastoma aparecen con mayor frecuencia como una zona radiolúcida, lesión quística unilocular o multilocular, con un aspecto característico de “burbuja de jabón”, adelgazamiento o destrucción cortical con invasión local y reabsorción de la raíz. Estos rasgos radiológicos característicos son evidentes en el caso presente¹⁴.

Es importante conocer bien las características clínicas y radiográficas de esta neoplasia ya que son muy similares a otras lesiones odontogénicas y

poder establecer diagnóstico diferencial con otras patologías, principalmente con el quiste dentígero ya que clínica y radiográficamente se parecen¹⁵.

El tratamiento y diagnóstico de los ameloblastomas representan gran controversia por lo que siguen siendo motivo de investigación. A medida que pasa el tiempo se han desarrollado planes de tratamiento, siendo la cirugía radical la primera opción, debido a sus características histológicas, ya que tienen un alto grado de recidiva; o proceder a una resección conservadora. Existe un dilema sobre la aplicabilidad de una cirugía radical inicial extensa en niños. Gardner discutió el tratamiento del ameloblastoma unicístico sobre la base de patología y consideraciones anatómicas y curetaje recomendado. Existen tres subtipos clínicos del Ameloblastoma: unicístico, multiquístico y periférico. Al formular el plan de tratamiento quirúrgico del ameloblastoma unicístico se debe tener en cuenta la salud general del paciente, el tamaño del tumor, la ubicación, la duración y el impacto psicológico¹⁶.

En este caso, debido a su extensión un tratamiento radical inicial implicaba necesariamente secuelas funcionales y estéticas, pues dicho tratamiento consiste en hemimandibulectomía con márgenes de seguridad de 1.5 cm, colocación de material de osteosíntesis y por consiguiente rehabilitación con prótesis implantosoportada, por lo que, teniendo en cuenta la edad y las condiciones sistémicas de la paciente, se decidió efectuar un tratamiento conservador con curetaje óseo y un seguimiento de la lesión por cuatro años sin presencia de recidiva.

De acuerdo con las características del ameloblastoma unicístico, la bibliografía recomienda un seguimiento cada tres meses por un período mínimo de cinco años, por lo que es fundamental informar y motivar al paciente para que sea

consciente de su responsabilidad en el éxito, así como conocer las pautas pretratamiento, tales como marsupialización, aplicar sustancias como solución de carnoy o curetaje¹⁷.

DECLARACIÓN SOBRE CONFLICTOS DE INTERESES

Somos independientes con respecto a las instituciones financiadoras y de apoyo, y durante la ejecución del trabajo o la redacción del manuscrito no han incidido intereses o valores distintos a los que usualmente tiene la investigación.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Morales D. Ameloblastoma. Revisión de la literatura. *Rev Cubana Estomatol.* 2009; 46(3): 48-61.
2. Lawal AO, Adisa AO, Olajide MA. Cystic ameloblastoma: a clinico-pathologic review. *Ann Ibd. Pg. Med.* 2014;12(1):49-53.
3. Torres D, Infante P, Hernández JM, Gutiérrez JL. Mandibular ameloblastoma. A review of the literature and presentation of six cases. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2005;10(3): 231-8.
4. Pallagatti S, Sheikh S, Aggarwal A, Singh R, Gupta D, Gupta R, et al. Unicystic ameloblastoma of the mandible with all variants *J Pak Med Stud.* 2013; 3(2): 106-109.
5. Figueiredo NR, Meena M, Dinkar AD, Malik S, Khorate M. Unicystic Ameloblastoma Presenting as a Multilocular Radiolucency in the Anterior Mandible: A Case Report. *J Dent Res Dent Clin Dent Prospects* 2015; 9(3): 199-204.

6. Valls A, Montané E, Bescós C, Saez M, Munill M, Alberola M. Manejo quirúrgico del ameloblastoma. *Rev Esp Cir Oral y Maxilofac* 2012; 34(3): 98-104.
7. Kubbi JR, Tipirisety S, Dubbudu R, Oruganti R. Unicystic ameloblastoma of mandible: Non dentigerous variant – A rare case report. *J Indian Acad Oral Med Radiol.* 2016; 28: 420-3.
8. Valls Adaia, Montané Esther, Bescós Coro, Saez Manel, Munill Montserrat, Alberola Margarita. Manejo quirúrgico del ameloblastoma. *Rev Esp Cirug Oral y Maxilofac.*
9. Zamora C. Ameloblastomas en la infancia localizados en el seno maxilar. *MEDISAN* 2013; 17(11): 9004-9008.
10. Mejía-Barbosa JP, Peña Vega CP, Jaramillo de Barberi L, Quintana Muñoz H. Descompresión y posterior enucleación de un ameloblastoma unicístico-variante de células granulares: reporte de caso. *Univ Med.* 2016; 57(4): 517-23.
11. Ramesh RS, Manjunath S, Ustad TH, Pais S, Shivakumar K. Unicystic ameloblastoma of the mandible-an unusual case report and review of literature. *Head & Neck Oncology* 2010; 2: 1.
12. Meshram M, Sagarka L, Dhuvad J, Anchlia S, Vyas S, Shah H. Conservative Management of Unicystic Ameloblastoma in Young Patients: A Prospective Single-Center Trial and Review of Literature. *J. Maxillofac. Oral Surg.* 2017 Sep; 16(3): 333-341.
13. Argandoña J, Espinoza J. Ameloblastoma unicístico, bases del tratamiento conservador: Presentación de caso clínico y actualización de la bibliografía. *Rev Esp Cirug Oral y Maxilofac* 2011; 33(2): 88-92.
14. Ramos D. Ameloblastoma. *UNMSM.* 2008;11(1): 32-34 [13] Flores EJA, Romero FJ, Millán OAF. Ameloblastoma unicístico. Reporte de caso clínico. *Rev Mex Cir Bucal Max* 2009; 5(3): 95-98.
15. Duque F, Radi J, Del valle A. Ameloblastoma: reporte de diez casos y revisión de la literatura.
16. Flores EJA, Romero FJ, Millán OAF. Ameloblastoma unicístico. Reporte de caso clínico. *Rev Mex Cir Bucal Max.* 2009; 5(3): 95-98.
17. Ugrappa S, Jain A, Fuloria NK, Fuloria S. Acanthomatous Ameloblastoma in Anterior Mandibular Region of a Young Patient: A Rare Case Report. *Ann Afr Med* 2017;16(2): 85-89.