

Ameloblastoma Acantomatoso: Reporte de caso y revisión de la literatura

Acantomatous ameloblastoma: Case report and review of the literature

Javier Larios-León^{1,a}, Juan Mansilla-Rodríguez^{2,b}, Raket Cardeña-Mamani^{3,c}, Willys Flores-Alvarez^{4,d}

RESUMEN

Introducción. El ameloblastoma es un tumor benigno raro, ocasionalmente con comportamiento agresivo, proveniente de las células productoras de esmalte. Localizado con mayor frecuencia en la mandíbula, teniendo su mayor incidencia entre la 4ta 5ta década de la vida, generalmente asintomático, siendo los estudios de imágenes la prueba diagnóstica fundamental. **Reporte del caso:** Presentamos el caso de una mujer de 43 años con una tumoración en maxilar inferior izquierda de crecimiento progresivo, sin limitación funcional. La TAC de mandíbula muestra una lesión osteolítica y expansiva de bordes definidos, que rompe la cortical anterior infiltrando partes blandas; es sometida a extracción tumoral asociado a curetaje; conjuntamente en la anatomopatológica se identifica Ameloblastoma Acantomatoso. **Conclusión:** El ameloblastoma Acantomatoso tiene larga supervivencia libre de recurrencia si su diagnóstico es oportuno y su tratamiento es multidisciplinario, incluyendo cirugía y radioterapia, aunque su rareza ocasiona dificultad en encontrar el mejor tratamiento disponible.

Palabras Clave: ameloblastoma; neoplasias maxilomandibulares; tumores odontogénicos (**Fuente:** DeCS-BIREME).

ABSTRACT

Introduction. Ameloblastoma is a rare benign tumor, occasionally with aggressive behavior, originating from enamel-producing cells. Located most frequently in the mandible, having its highest incidence between the 4th 5th decade of life, generally asymptomatic, imaging studies being the fundamental diagnostic test. **Case report:** We present the case of a 43-year-old woman with a progressively growing tumor in the left lower jaw, without functional limitation. The CT of the mandible shows an osteolytic and expansive lesion with defined edges, which breaks the anterior cortex, infiltrating soft tissues; she is subjected to tumor extraction associated with curettage; jointly in the pathology, Acantomatous Ameloblastoma is identified. **Conclusion:** Acantomatous ameloblastoma has a long recurrence-free survival if its diagnosis is timely and its treatment is multidisciplinary, including surgery and radiotherapy, although its rarity causes difficulty in finding the best available treatment.

Keywords: ameloblastoma; maxillomandibular neoplasms; odontogenic tumors (**Source:** DeCS-BIREME).

INTRODUCCIÓN

El Ameloblastoma es una rara neoplasia odontogénica de comportamiento benigno, pero que en ocasiones suele ser persistente y localmente agresivo. Representa el 1% de los tumores mandibulares, su localización más frecuente es en la zona posterior de la mandíbula, teniendo una amplia variedad de presentación clínica y radiográfica. Su pico de mayor incidencia es entre la 4^a y 5^a década de la vida^(1,2).

Su origen histológico es epitelial, derivado de las células del esmalte o progenitoras, con 6 subtipos claramente establecidos: folicular, plexiforme, granular, basal, desmoplásico y acantomatoso^(1,2).

El ameloblastoma acantomatoso es el subtipo más raro, por lo que su incidencia es muy difícil de determinar, siendo los reportes de casos y los estudios prospectivos la principal fuente de datos.

El tratamiento definitivo debe incluir la resección quirúrgica total, que tienen como principal objetivo

1. Servicio de Oncología Médica, Hospital Almazor Aguinaga Asenjo (Essalud) Chiclayo, Perú.
 2. Servicio de Radioterapia, Clínica Oncorad, Chiclayo, Perú.
 3. Departamento Anatomía Patológica, Hospital Almazor Aguinaga Asenjo (Essalud), Chiclayo-Perú.
 4. Facultad de medicina humana-USMP-Filial norte, Chiclayo, Perú.
- a. Médico especialista en Oncología médica.
b. Médico especialista en radioterapia.
c. Médico especialista en Anatomía patológica.
d. Estudiante de medicina.

disminuir la tasa de recurrencia, que puede llegar hasta un 45% en estos pacientes⁽³⁾.

Presentamos el caso de una paciente de 43 años con diagnóstico anatomopatológico de ameloblastoma acantomatoso, sometida a resección quirúrgica total, logrando una sobrevida libre de recurrencia de 1 año.

REPORTE DEL CASO

Se reporta el caso de una paciente mujer de 43 años de edad, con estudios superiores, secretaria de profesión, procedente de Bagua Grande, con antecedentes de Hipertensión arterial tratada, que acude a nuestro hospital con un tiempo de enfermedad de 1 año, caracterizado por dolor y tumor en maxilar inferior izquierdo, (Figura.1,2), signos de inflamación de la encía de la región mencionada que le impiden la masticación, sin pérdida de peso asociada.

Al examen presenta una tumoración de consistencia dura en mandíbula izquierda, dolorosa a la palpación, sin signos de flogosis, la lesión ocupa todo el maxilar inferior izquierdo.



Figuras 1 y 2
Aumento de volumen en mandíbula izquierda.

El examen radiológico: (Figura 3) Panorámica, muestra una lesión radiolúcida de límites definidos en sínfisis y cuerpo mandibular izquierdo que condiciona reabsorción radicular de la pieza 34 y 35, asociado a borramiento parcial del conducto dentario inferior.



Figura 3.
Lesión radiolúcida en maxilar inferior izquierdo multiquistica.

La tomografía (Figura 4) muestra una lesión osteolítica y expansiva en mandíbula izquierda de bordes definidos, que rompe la cortical anterior, atravesándola e infiltrando partes blandas, multiquistica con septos internos, bordes escleróticos.

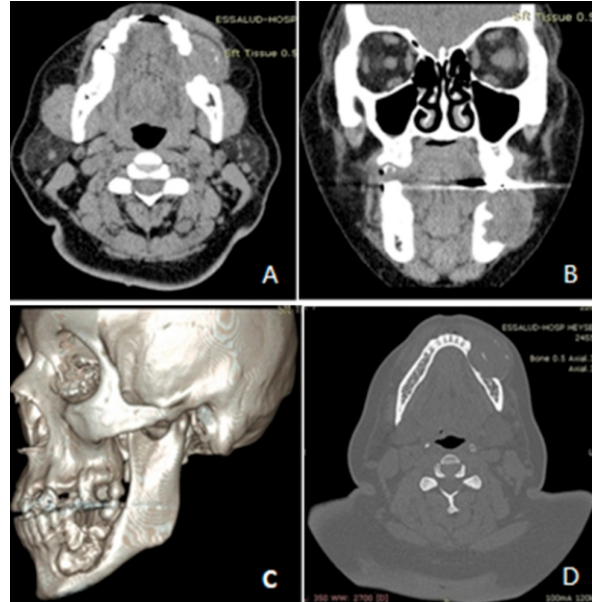


Figura 4.
Lesión osteolítica y expansiva en mandíbula izquierda, destructiva, e infiltra partes blandas.

La paciente fue intervenida quirúrgicamente con diagnóstico de tumor odontogénico a descartar Ameloblastoma, con extracción y curetaje, hallándose una tumoración intramandibular izquierda, que destruye la cortical ósea intraoral, parcialmente encapsulada, que protruye hacia partes blandas, deformando el lado izquierdo de la mandíbula.

En el estudio de anatomía Patológica macroscópicamente, presenta múltiples fragmentos de tejido de color gris, consistencia blanda, al examen microscópico, encontramos un patrón folicular con células epiteliales periféricas son cilíndricas con polarización inversa y vacuolización citoplasmática orientada hacia el tejido conectivo, núcleos alargados, cromatina homogénea hipercromáticas, el centro presenta células estrelladas, y células con diferenciación acantomatosa con formación de perlas corneas, sin atipia, no se observan mitosis, ni necrosis. (Figura. 5).

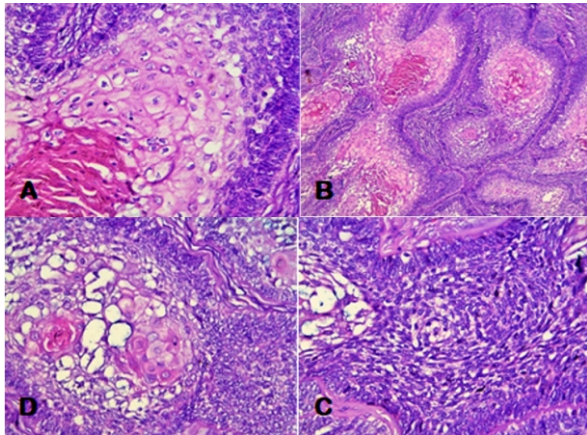


Figura 5.

Imagen A. HE 4X neoplasia benigna con patrón folicular, núcleos alargados hiper cromáticos con polarización inversa y centros con rasgos acantomatosos, **Imagen B.** HE 40X Diferenciación acantomatosa de los centros foliculares, **Imagen C:** HE 40X centro de folículos con células estrelladas que semejan el órgano del esmalte, **Imagen D:** HE 40X Formación de perlas córneas.

Actualmente la paciente se encuentra en su primer año de control sin evidencias de recidiva.

DISCUSIÓN

Los tumores de la cavidad oral representan el 50% de las neoplasias de cabeza y cuello, el 9% de estos son tumores odontogénicos; de los cuales el ameloblastoma representa sólo el 1%. El ameloblastoma se caracteriza por tener un comportamiento benigno, crecimiento lento y asintomático, pero en ocasiones suele ser persistente y localmente agresivo. El pico de incidencia es entre la cuarta y quinta década de la vida^(1,2,6).

Gruica B. y col. establecen 6 subtipos histológicos de ameloblastoma: folicular, plexiforme, granular, basal, desmoplásico y acantomatoso; siendo el folicular y el acantomatoso, el subtipo más frecuente y menos frecuente respectivamente⁽⁴⁾.

Los ameloblastomas acantomatosos son extremadamente raros y generalmente aparecen en ancianos, histológicamente se evidencian centros o nidos de diferenciación escamosa y formación de perlas corneas reemplazando a las células estrelladas^(10,12).

Aproximadamente el 80% de los ameloblastomas acantomatosos se localizan en la mandíbula posterior y un 20% en el maxilar, por lo que pueden debutar con una amplia variedad clínico-radiográfica⁽³⁾.

Li Tj. Y col. evaluaron las características clínico-patológicas de los ameloblastomas en 33 pacientes, encontrando dientes impactados como una característica común en estos pacientes. En la actualidad se plantea que el Virus del papiloma humano

(VPH) y algunas alteraciones moleculares en la vía de las quinasas juegan un papel determinante en la etiología^(5,8).

En nuestra paciente no se encontraron alteraciones dentales en la evaluación física, no presentaba factores de riesgo para ser portadora de virus de papiloma humano; por lo que continúa siendo una necesidad la realización de estudios prospectivos para encontrar una relación causal.

La presentación clínica y radiológica de la paciente concuerda con la descrita en la literatura. Clínicamente suele aparecer una tumefacción y dolor progresivo que en ocasiones suelen confundirse con quistes o fibromas ameloblásticos. Mientras que en estados avanzados de la enfermedad es común ver deformidad facial, sobreinfecciones, úlceras en mucosa oral o compromiso del nervio dentario inferior. Desde el punto de vista radiológico, la tomografía axial computarizada y la resonancia magnética de mandíbula muestran lesiones características de este tipo de neoplasia; sin embargo, ninguna es patognomónica. Los ameloblastomas aparecen como lesiones captantes de contraste, multiquísticas, con compromiso de la cortical sin afectación perineural^(2,7).

El tratamiento principal de los ameloblastomas acantomatosos es la resección quirúrgica radical, la cual tiene como objetivo erradicar la alta carga tumoral y evitar la recurrencia en estos pacientes. Debido a que la tasa de recurrencia en estas pacientes puede llegar hasta un 45%, el tratamiento de los ameloblastomas recurrentes suele ser una segunda intervención quirúrgica conservadora dependiendo de características propias del paciente, tales como la edad, dimensiones y localización de la lesión, la media de crecimiento tumoral, características clínicas de la lesión recurrente, estado funcional y compromiso de tejidos blandos^(2,12,13).

Importante resaltar que nuestra paciente tiene una sobrevida libre de recurrencia de más de 1 año, teniendo controles imagenológicos periódicos, los cuales no han demostrado evidencia de enfermedad.

Finalmente, las metástasis son muy raras en cualquier subtipo de ameloblastomas, siendo el pulmón el órgano más afectado^(9,11). La presencia de metástasis en un paciente con ameloblastoma conlleva una elevada mortalidad, con escasos tratamientos disponibles, por lo que la cirugía de primera intención y los controles seriados son determinantes para aumentar la sobrevida en estos pacientes.

CONCLUSIÓN

El ameloblastoma acantomatoso es un tumor poco frecuente, benigno, pero en ocasiones localmente agresivo, sus características clínicas-patológicas no

están bien establecidas, como consecuencia de la falta de estudios prospectivos. A pesar de la resección quirúrgica radical su tasa de recurrencia puede llegar aproximadamente al 45%, siendo los controles imagenológicos seriados parte fundamental del seguimiento de los pacientes con esta enfermedad, asegurando un aumento de su supervivencia.

Conflictos de interés: Los autores niegan conflictos de interés.

Financiamiento: Autofinanciado.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Bansal M, Chaturvedi TP, Bansal R, Kumar M. Acanthomatous ameloblastoma of anterior maxilla. *Journal of Indian Society of Pedodontics and Preventive Dentistry*. 2010; 28(3): 209-211.
2. Thompson L. and Wenig. *Diagnostico en Patología de Cabeza y Cuello*. 1era ed. México: Marbán; 2013.
3. Cossio IP, Pratz-Golczer V, Belmonte-Caro R. Treatment of recurrent mandibular ameloblastoma. *Experimental and therapeutic medicine*. 2013; 6: 579-583.
4. Gruica B, Stauffer E, Buser D. Ameloblastoma of the follicular, plexiform and Acanthomatous type in the maxillary sinus: a report. *Quintessence Int*. 2003; 34(4): 311-4.
5. Li TJ, Wu YT, Yu SF. Unicystic ameloblastoma: a clinicopathologic study of 33 chinese patients. *Am journal pathology*. 2000; 24(10): 1385-92.
6. Di Cosola M. and Turco M. Ameloblastoma del hueso maxilar y mandibular: un estudio clínico basado en nuestra experiencia. *Odontoestomatol*. 2007; 23 (6): 359-365.
7. Armas R. Ameloblastoma: A Case Report. *Rev. Ac. Ec. ORL*. 2013; (9)1: 29-32.
8. Torres D. Ameloblastoma mandibular. Revisión de la literatura y presentación de seis casos. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2005; 10: 231-8.
9. Ramos D. Ameloblastoma. *Rev. Odontol. Sanmarquina*. 2008; 11(1): 32-34.
10. McClary C. Ameloblastoma: a clinical review and trends in management. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology*. 2016; 273(7): 1649-61.
11. Ugrappa S, Jain A. Acanthomatous ameloblastoma in anterior mandibular region of a young patient: A rare case report. *Ann Afr Med*. 2017; 16(2): 85-89.
12. Singh G, Agarwal R, Kumar V. Acanthomatous Ameloblastoma - A Case Report. *Journal of International Oral Health*. 2013; 5(2): 54-58.

Correspondencia

Rakel Cardaña Mamani.

Dirección: plaza de la seguridad sin número- Chiclayo.

Teléfono: : (74)-481120 anexo3222

Correo: yakye@hotmail.com

Revisión de pares

Recibido: 20/06/2020

Aceptado: 10/09/2020