

TUMOR ODONTOGÉNICO HÍBRIDO: tumor odontogénico quístico calcificante con odontoma complejo y focos de ameloblastoma

Delgado WA, Arrascue M, Calderón V, Paniura D. TUMOR ODONTOGÉNICO HÍBRIDO: tumor odontogénico quístico calcificante con odontoma complejo y focos de ameloblastoma. Rev Estomatol Herediana. 2006; 16(2):120-125.

RESUMEN

Los tumores odontogénicos híbridos están compuestos por más de un tipo histológico y son extremadamente raros. Se presenta un caso en una paciente mujer de 24 años de edad con un tumor mandibular que histológicamente correspondió a un Tumor Odontogénico Quístico Calcificante compuesto por una parte quística y una sólida, además se encontró odontoma complejo y focos de ameloblastoma folicular. Se discute el caso desde el punto del diagnóstico clínico, radiográfico e histopatológico, así como los resultados de un tratamiento conservador. Se enfatiza la importancia de obtener biopsias representativas de una lesión que radiográficamente muestre imagen radiolúcida con áreas radiopacas para establecer el diagnóstico definitivo.

Palabras clave: TUMORES ODONTOGÉNICOS / ODONTOMA / AMELOBLASTOMA.

HYBRID ODONTOGENIC TUMOUR: calcifying cystic odontogenic tumor with complex odontoma and foci of ameloblastoma.

ABSTRACT

Hybrid odontogenic tumors are composed of more than one tissue type. These lesions are extremely rare. A tumor in the bicuspid and molar area of the mandible of a 24-year-old peruvian woman is reported. The histologic study of the lesion disclosed a Calcifying Cystic Odontogenic Tumor with a cystic component and a solid portion. Additionally, a complex odontoma and foci of follicular ameloblastoma was found. The clinical, radiographic and histologic changes of the case are presented and discussed. Conservative treatment provided good result for the management of the lesion. Representative biopsies of a lesion composed radiographically of both radiolucency and radiopaque areas are needed to establish definitive diagnosis.

Key words: ODONTOGENIC TUMORS / ODONTOMA / AMELOBLASTOMA.

Wilson A. Delgado Azañero¹
Manuel Arrascue Dulanto¹
Victor Calderón Ubaqui¹
Ditel Paniura Rodríguez²

¹Docente del Departamento Académico de Medicina, Cirugía y Patología Oral.

²Residente de Cirugía Oral y Maxilofacial. Facultad de Estomatología. Universidad Peruana Cayetano Heredia

Correspondencia

Dr. Wilson A. Delgado Azañero
Av. Honorio Delgado 430 - Lima 31, Perú
Teléfono: (511) 381-1950 (252)
e-mail: wdelgado@upch.edu.pe

Recibido : 15 de noviembre del 2006

Aceptado : 10 de abril del 2007

Introducción

Los tumores odontogénicos derivan del tejido epitelial y ectomesenquimal que normalmente dan origen a los dientes. Durante la formación de estos órganos, estos tejidos muestran una secuencia de procesos interactivos o de inducción recíproca que conducen al desarrollo de los ameloblastos, células productoras del esmalte y a los odontoblastos que generan la dentina. Los tumores odontogénicos pueden estar constituidos exclusivamente por tejido epitelial, ectomesenquimal o por ambos, reproduciendo diferentes etapas evolutivas del diente, es decir, sin formación de tejidos duros o con presencia de esmalte y dentina o de estructuras que se parecen a estos tejidos. Estos tumores se pue-

den desarrollar exclusivamente dentro de los huesos maxilares, en los tejidos blandos que constituyen la encía o en los rebordes alveolares edéntulos.

Recientemente la OMS ha propuesto una nueva clasificación de los tumores odontogénicos, basada en las características histológicas que exhiben cada uno de los tumores y que a su vez corresponden a un comportamiento biológico que puede ser francamente benigno, maligno o simplemente hamartomatoso (1)

La clasificación de la OMS no incluye a los tumores odontogénicos híbridos, los cuales de acuerdo a la literatura están formados por más de un tipo de tumor odontogénico. Así, se han reportado tumores odontogénicos donde se han identificado dos

y hasta tres tipos histológicos, en algunos casos con presencia de tejido dental calcificado correspondiente a odontoma compuesto y complejo. La mayoría se han desarrollan dentro de los maxilares, con mayor frecuencia en la mandíbula, pero también se han descrito casos extraóseos (2-6, 10-13).

El propósito de este artículo es presentar y discutir un tumor odontogénico híbrido compuesto de un Tumor Odontogénico Quístico Calcificante (TOQC) y un Odontoma Complejo (OC), además de la presencia de focos de ameloblastoma folicular (AF).

Reporte de caso

Paciente de sexo femenino de 24 años de edad, de raza mestiza, quien

es referida al servicio de Medicina y Cirugía Oral y Maxilofacial de la Facultad de Estomatología de la Universidad Peruana Cayetano Heredia en mayo de 2006, por presentar un tumor en la mandíbula, lado derecho.

La paciente manifestó que hace seis años notó un ligero aumento de volumen en la región premolar inferior derecha, el cual incrementó su tamaño lentamente sin producir dolor u otro tipo de sintomatología. Hace cuatro meses notó movilidad de la pieza dental 45 la cual es extraída, después de un mes la pieza dental 46 también fue extraída por la misma causa. Hace dos meses sintió ligero dolor y observó que el aumento de volumen intraoral le había producido una deformación de la parte inferior derecha de la cara. En estas condiciones le indican una radiografía panorámica para luego

referirla a nuestro servicio con el diagnóstico de quiste mandibular.

La historia médica de la paciente así como el examen físico general correspondía a una paciente en buen estado general.

El examen extraoral mostraba asimetría facial a expensas de la región paramentoniana derecha. Intraoralmente se observaba persistencia de la pieza 83, ausencia de las piezas dentarias 43,45,46, aumento de volumen del reborde alveolar correspondiente a estos dientes y un abultamiento de las tablas vestibular y lingual que se extendían desde la cara mesial de la pieza 47 hasta mesial de la 44, siendo más notorio en la tabla vestibular. La palpación de esta estructura producía ligero dolor y crepitación (Fig.1)

Las radiografías panorámica, oclusal y periapicales mostraban una lesión radiolúcida corticalizada

que se extendía desde la raíz mesial de la pieza 47 hasta distal de la pieza 31. Ambas tablas vestibular y lingual aparecían adelgazadas y distendidas, siendo mayor este cambio a nivel de la tabla vestibular. La pieza 47 presentaba reabsorción en su raíz mesial. En la parte inferior y anterior se notaba la presencia de varias imágenes radiopacas de pocos milímetros de tamaño, de forma irregular. La pieza dental 43 aparecía impactada y rechazada hacia la zona basal mandibular (Fig. 2).

Con el diagnóstico presuntivo de quiste dentígero más odontomas se realizó una punción-aspiración, obteniéndose aproximadamente 4 cc. de una secreción de color amarillento. Este hallazgo reforzó el diagnóstico presuntivo de quiste dentígero por lo que se procedió a realizar una ventana quirúrgica de descompresión y a la marsupializa-



Fig. 1. Reborde alveolar y tablas óseas vestibular y lingual abultadas. Ausencia de pieza 43 y persistencia de pieza 83.

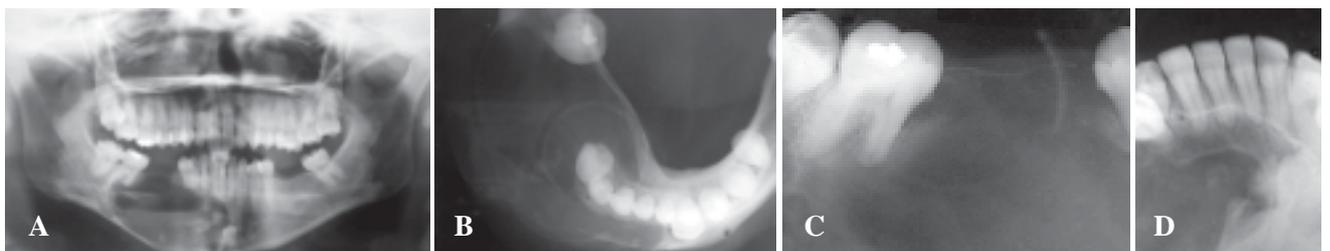


Fig. 2. A, B, C, D. Lesión radiolúcida corticalizada conteniendo material radiopaco y la pieza 43 impactada en la zona basal mandibular.

ción de la membrana del quiste, para luego colocar un tutor de acrílico que permitió la limpieza de la cavidad durante varios meses. También se esperaba que la pieza 43 migrara a una posición próxima al reborde alveolar, para un posterior manejo ortodóncico. El examen histopatológico del tejido extirpado para la descompresión fue informado como quiste dentífero, debido a que se observaba un epitelio con una capa basal cúbica sobre las cuales habían varias capas de células planas no

queratinizadas y la interfase epitelio-conectivo era en línea recta.

En octubre de 2006, es decir después de cinco meses de la marsupialización, el examen clínico mostraba disminución considerable de la distensión de las tablas óseas vestibular y lingual (Fig. 3) y un nuevo estudio radiográfico revelaba neoformación ósea dentro de casi toda la cavidad quística; sin embargo, la pieza dental impactada no había cambiado de posición y adyacente a su corona persistía una imagen mixta consti-

tuida por un área radiolúcida conteniendo el material radiopaco identificado en la radiografías iniciales del mes de mayo (Fig. 2).

Bajo anestesia local se procedió a extraer el diente impactado y mediante curetaje se removió la lesión adyacente. El examen histopatológico de este tejido fue informado como: Tumor Odontogénico Híbrido, compuesto por tumor odontogénico calcificante y odontoma complejo, además de focos de ameloblastoma folicular (Figs. 4-9)

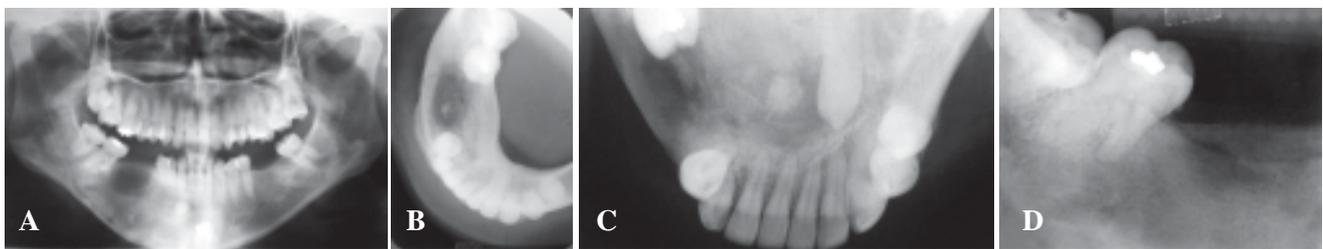


Fig. 3. A, B, C, D. Radiografías de control después de cinco meses. Nótese la formación ósea desde la periferie al centro de lesión, Tablas óseas engrosadas. Persistencia de la pieza impactada y del material radiopaco.

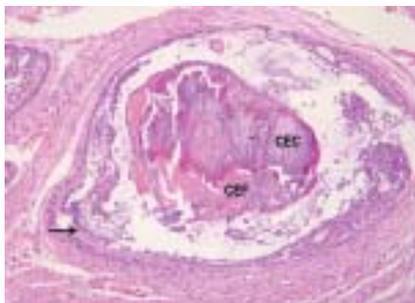


Fig. 4. Microquiste de TOQC. Nótese el epitelio cilíndrico semejante a ameloblastos (flecha), células epiteliales fantasma queratinizadas (CEF) y células epiteliales calcificadas (CEC). H&E 200X.

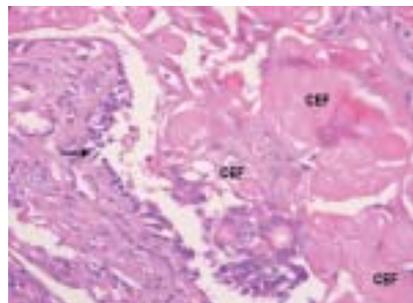


Fig. 5. Epitelio cúbico-cilíndrico del TOQC (flecha). En el centro existen células epiteliales fantasma en diferentes estadios de queratinización (CEF). H&E 400X.

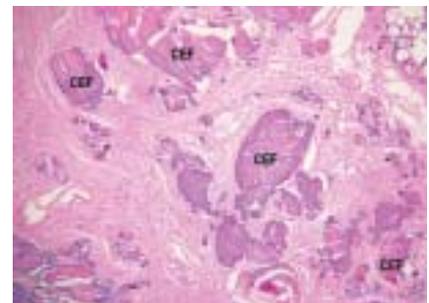


Fig. 6. Parte sólida del TOQC. Mantos y nidos de células epiteliales fantasma (CEF), rodeados por tejido conectivo fibroso.

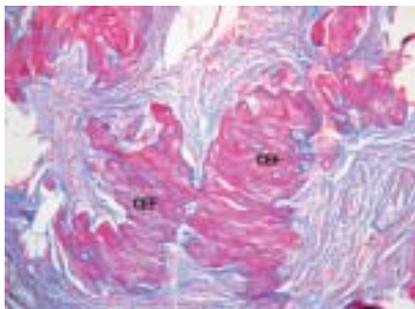


Fig. 7. Parte sólida del TOQC. Células epiteliales fantasma en diferentes grados de queratinización y calcificación (CEF). Tricrómica. 200X.

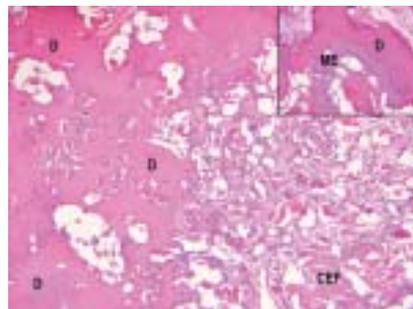


Fig. 8. Odontoma complejo. Dentina mal formada (D), los espacios claros corresponden al esmalte perdido en el proceso de descalcificación. Células epiteliales fantasma (CEF). El recuadro muestra matriz de esmalte (ME). H&E 200X.

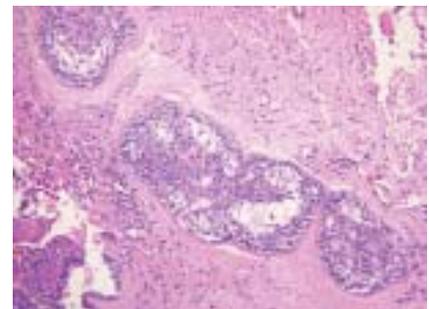


Fig. 9. Islas de ameloblastoma folicular. Se distingue algo de inducción en el tejido conectivo que las rodea. H&E 400X.

El control radiográfico a los 14 meses de iniciado el tratamiento indicaba que la deformación de la tablas vestibular y lingual era mínimo, el adelgazamiento había desaparecido y aparecían ahora engrosadas, igualmente la radiolucidez central había sido reemplazada por tejido óseo (Fig. 10). En la actualidad la paciente se encuentra en control periódico.

Discusión

Los tumores odontogénicos híbridos son entidades patológicas infrecuentes. Dentro de este contexto los casos reportados corresponden a combinaciones de TOQC con ameloblastoma (5), TOC con fibroma ameloblástico (4), TOQC con fibroodontoma ameloblástico (7-9), TOQC con odontoma complejo (10-12), TOQC con tumor odontogénico adenomatoide (2) TOQC con ameloblastoma y tumor odontogénico adenomatoide (6) y tumor odontogénico adenomatoide con tumor odontogénico epitelial calcificante (13).

El caso que se reporta esta compuesto por TOQC, odontoma complejo y focos de ameloblastoma folicular. Indudablemente, la lesión reunía las características que pue-

den encontrarse en el TOQC, es decir crecimiento óseo asintomático con desplazamiento de tablas óseas, que radiográficamente aparece como una imagen radiolúcida corticalizada conteniendo material radiopaco. El caso además mostraba un diente impactado.

Debido a que clínicamente había crepitación, que en la punción-aspiración se obtuvo líquido quístico y al hecho de que el diagnóstico microscópico de la biopsia obtenida de la zona de la punción fue informada como quiste dentífero, la primera fase del tratamiento fue descompresión con marsupialización, logrando una reducción considerable del tamaño de la lesión. Sin embargo, después de cinco meses el estudio radiográfico mostraba que la pieza 43 no había modificado su posición y persistía el material radiopaco próximo al diente, por lo que se planteó la presencia de un componente tumoral, el cual fue tratado mediante curetaje conjuntamente con la extracción de la pieza dental impactada.

El examen histológico del material proveniente del curetaje permitió establecer el diagnóstico definitivo de tumor odontogénico híbrido compuesto por TOQC y odontoma complejo, además de focos de

ameloblastoma folicular. El TOQC estaba compuesto por una parte quística y una sólida. La primera mostraba cavidades quísticas cuyas paredes mostraba células ameloblastomatosas y en el lumen se distinguían células fantasmas con diferentes grados de queratinización y calcificación (Figs. 4 y 5). El componente sólido estaba constituido por mantos extensos de células fantasmas rodeadas por tejido fibroso (Figs. 6 y 7). La otra parte importante del tumor correspondía a un odontoma donde se distinguía dentina y matriz de esmalte relacionados en forma desordenada, adyacente a los cuales existían células epiteliales fantasmas (Fig. 8). En algunas áreas la dentina mostraba un patrón tubular regular y en otras aparecía totalmente irregular, pudiendo considerarse como dentina displásica. Dentro del tejido fibroso se distinguían focos aislados de ameloblastoma folicular (Fig. 9) algunos de los cuales mostraban calcificación distrófica.

En la mayoría de los reportes sobre tumores odontogénicos híbridos, el tumor que se presenta con mayor consistencia es el TOQC. Este tumor fue descrito por primera vez en el año 1962 por Gorlin et al.

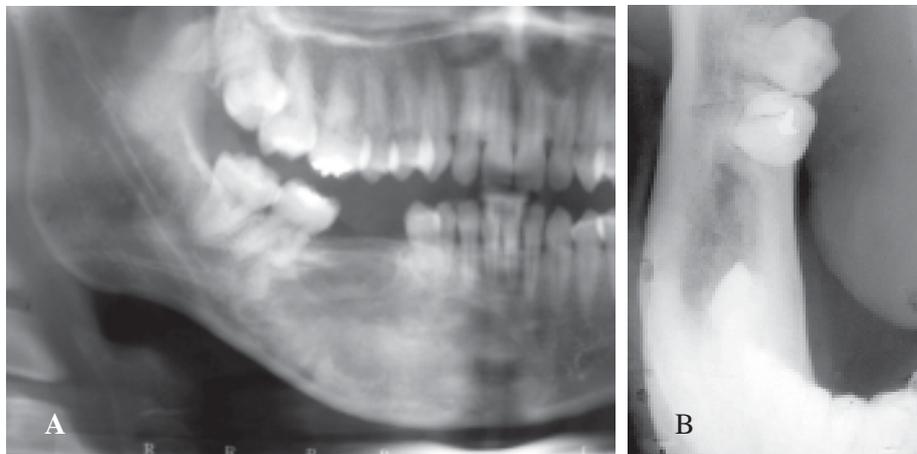


Fig.10. A, B. Control radiográfico después de 14 meses de iniciar el tratamiento. Se observa notable formación de hueso en toda el área de la lesión.

(14) bajo la denominación de quiste odontogénico calcificante. En 1971 (15) y 1992 (16) la OMS la clasificó como una lesión quística no neoplásica. Sin embargo, varios reportes han demostrado que no todos los casos de TOQO son quistes, en algunos casos pueden ser totalmente sólidos y en otros pueden estar compuestos por áreas quísticas y áreas sólidas, como en el presente reporte. Debido a estas variantes, Fejerskov y Krogh (16) propusieron denominarlo "tumor odontogénico de células fantasmas calcificante". Freedman et al. (18) sugirió que debe ser clasificado como tumor odontogénico calcificante quístico. En 1981, Praetorius et al. (7) sostuvieron que existen dos formas una quística y una sólida. La forma quística tiene tres tipos: a) tipo unikuístico simple b) tipo unikuístico productor de odontoma y c) tipo quístico con proliferación ameloblastomatosa. Para la forma sólida propuso el término de tumor de células fantasmas dentinogénico.

La última clasificación de la OMS (1) incluye al TOQO dentro de los tumores odontogénicos describiéndola como una neoplasia quística benigna de origen odontogénico caracterizada por la presencia de un epitelio parecido al del ameloblastoma y con células fantasmas que pueden calcificarse, igualmente se consideran sinónimos los términos quiste odontogénico calcificante y queratinizante, quiste de Gorlin y tumor odontogénico calcificante. El TOQC se presenta dentro de un rango de edad de 5 a 92 años, siendo más frecuente en la segunda década de vida (15), no existe predilección por sexo (8) y puede presentarse también como lesión extraósea (19)

Desde el punto de vista histológico, la característica más destacable

del TOQO es la presencia de un epitelio cilíndrico y células epiteliales fantasmas con diferentes grados de queratinización y de calcificación; morfológicamente es muy semejante al tumor cutáneo llamado epiteloma calcificante de Malherbe (13). El fenómeno biológico que explique la calcificación de las células epiteliales no está establecido. En el caso que se reporta las células fantasmas se encontraban en el porción quística (Figs. 4 y 5) pero también se en abundante cantidad formando mantos e islas dentro del tejido conectivo constituyendo la porción sólida (Figs. 6 y 7).

El diagnóstico final del caso fue tumor odontogénico híbrido compuesto por TOQC y Odontoma Complejo. El epitelio que inicialmente condujo al diagnóstico de quiste dentífero, era en realidad parte del componente quístico del TOQC. En consecuencia, el caso corresponde a un tumor odontogénico compuesto por tejido epitelial y ectomesenquimal. El componente epitelial del tumor estaba representado por un TOQC con sus porciones quísticas y sólidas, por las islas de ameloblastoma folicular y por matriz de esmalte, mientras que el componente ectomesenquimal se expresaba por la presencia de dentina regular e irregular en el odontoma complejo.

Los hallazgos histológicos demuestran el potencial de crecimiento y de inducción que tiene el epitelio odontogénico y la amplia variedad de cuadros histológicos que pueden identificarse en los tumores odontogénicos. Dentro de este contexto, el haber encontrado en forma aislada estructuras con características de ameloblastoma folicular, no convertía la lesión en un tumor híbrido con componente de ameloblastoma, en cambio sí se consideró híbrido por la abundante cantidad de

odontoma complejo identificado en la lesión. Por otro lado, teniendo en cuenta estos aspectos no se planteó realizar un tratamiento quirúrgico complementario.

El análisis clínico, radiográfico, histológico así como la evolución del caso permite destacar los siguientes aspectos: 1) el diagnóstico inicial de quiste dentífero, fue el resultado de una muestra de biopsia parcialmente representativa de la lesión, 2) el seguimiento del caso fue muy importante para establecer el diagnóstico definitivo, 3) el tratamiento conservador dio buen resultado, el cual consistió en descompresión y marsupialización de la parte quística y curetaje del componente sólido. 4) es importante enfatizar que cuando una lesión de los maxilares radiográficamente muestra una imagen radiolúcida corticalizada conteniendo áreas de material radiopaco, aún cuando se haya obtenido líquido en la punción-aspiración, el diagnóstico debe considerar a un tumor y no a un quiste odontogénico. 5) La biopsia debe ser representativa de la lesión, es decir se deben obtener muestras de la zonas radiolúcidas y radiopacas y 6) En el diagnóstico diferencial de lesiones semejantes al presente caso, deben considerarse TOQC, Tumor odontogénico adenomatoide Tumor odontogénico epitelial calcificante (tumor de Pindborg) y Tumor odontogénico híbrido.

Referencias bibliográficas

1. Barnes L, Eveson JW, Reichart PA, Sidransky D, editors. World Health Organization classification of tumours: pathology and genetics of tumours of the head and neck. Lyon: IARC:2005.
2. Zeitoun IM, Dhanrajani PJ, Mosadomi HA. Adenomatoid odontogenic tumour arising in a calcifying odontogenic cyst. J

- Oral Maxillofac Surg. 1996; 54(5): 634-7.
3. Yoon JH, Kim HJ, Yook JI, Cha IH, Ellis GL, Kim J. Hybrid odontogenic tumor of calcifying odontogenic cyst and ameloblastic fibroma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2004;98(1):80-4.
 4. Lin CC, Chen CH, Lin LM, Chen YK, Wright JM, Kessler HP, Cheng YS, Ellis E 3rd. Calcifying odontogenic cyst with ameloblastic fibroma: report of three cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2004; 98(4):451-60.
 5. Seim P, Regezi JA, O'Ryan F. Hybrid ameloblastoma and calcifying epithelial odontogenic tumor: case report. *J Oral Maxillofac Surg.* 2005; 63(6): 852-5.
 6. Zhang W, Chen Y, Geng N, Bao D, Yang M. A case of a hybrid odontogenic tumour: ameloblastoma and adenomatoid odontogenic tumor. *Oral Oncology EXTRA.* 2006; 42:287-290.
 7. Praetorius F, Hjørting-Hansen E, Gorlin RJ, Vickers RA. Calcifying odontogenic cyst. Range, variations and neoplastic potential. *Acta Odontol Scand.* 1981; 39(4):227-40.
 8. Hong SP, Ellis GL, Hartman KS. Calcifying odontogenic cyst. A review of ninety-two cases with reevaluation of their nature as cysts or neoplasms, the nature of ghost cells, and subclassification. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1991; 72(1):56-64.
 9. Buchner A. The central (intraosseous) calcifying odontogenic cyst: an analysis of 215 cases. *J Oral Maxillofac Surg.* 1991; 49(4):330-9.
 10. Nagao T, Nakajima T, Fukushima M, Ishiki T. Calcifying odontogenic cyst with complex odontoma. *J Oral Maxillofac Surg.* 1982; 40(12):810-3.
 11. Keszler A, Guglielmotti MB. Calcifying odontogenic cyst associated with odontoma: report of two cases. *J Oral Maxillofac Surg.* 1987; 45(5):457-9.
 12. Toida M, Ishimaru J, Tatematsu N. Calcifying odontogenic cyst associated with compound odontoma: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg.* 1990; 48(1):77-81.
 13. Montes Ledesma C, Mosqueda Taylor A, Romero de León E, de la Piedra Garza M, Goldberg Jaukin P, Portilla Robertson J. Adenomatoid odontogenic tumour with features of calcifying epithelial odontogenic tumour. (The so-called combined epithelial odontogenic tumour.) *Clinico-pathological report of 12 cases.* *Eur J Cancer B Oral Oncol.* 1993; 29B(3):221-4.
 14. Gorlin RJ, Pindborg JJ, Clausen FP, Vickers RA. The calcifying odontogenic cyst--a possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of Malherbe. An analysis of fifteen cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1962;15:1235-43.
 15. Pindborg JJ, Kramer IRH, Torloni H. *Histological typing of odontogenic tumours, jaw and cysts and allied lesions.* Geneva, Switzerland, World Health Organization, 1971.
 16. Kramer IR, Pindborg JJ, Shear M. *Histological typing of odontogenic tumours* 2nd ed. London Springer-Verlag. World Health Organization, 1992.
 17. Fejerskov O, Krogh J. The calcifying ghost cell odontogenic tumor - or the calcifying odontogenic cyst. *J Oral Pathol.* 1972; 1(6):273-87.
 18. Freedman PD, Lumerman H, Gee JK. Calcifying odontogenic cyst. A review and analysis of seventy cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1975; 40(1):93-106.
 19. Buchner A, Merrell PW, Hansen LS, Leider AS. Peripheral (extraosseous) calcifying odontogenic cyst. A review of forty-five cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1991; 72(1):65-70.