

Multimed 2018; 22(4)

JULIO-AGOSTO

CASO CLÍNICO

**UNIVERSIDAD DE CIENCIAS MÉDICAS DE GRANMA
POLICLÍNICO DOCENTE EDOR DE LOS REYES MARTÍNEZ ARIAS
JIGUANÍ. GRANMA**

Tumor odontogénico quístico queratinizante.

Presentación de un caso

Keratinising odontogenic keratocyst tumour. Presentation of a case

MsC. Salud Bucal Elmo David Rodríguez Licea, Res. 1º Cir. Maxilof. Noeima Lisandra Rodríguez Rosales, Lic. Nelia Esther Labrada Ramírez.

Policlínico Docente Edor de los Reyes Martínez Arias. Jiguaní. Granma, Cuba.

RESUMEN

Los queratoquistes son lesiones de origen odontogénico derivados de los restos de la lámina dental que se presentan con predilección en adultos. Se dice que tienen dos picos de incidencia: entre la segunda y tercera década de vida y entre los 50 y 60 años de edad, con una ligera predilección por el sexo masculino. Generalmente se presentan en el maxilar inferior, específicamente en zona de rama mandibular y zona de terceros molares. Son de crecimiento lento y silencioso, su diagnóstico es con frecuencia de forma casual en el examen radiográfico de rutina o cuando estos se infectan ya que son asintomáticos y no producen expansión de tablas en su gran mayoría. Las probabilidades de recurrencia son variadas debido a su forma de presentación, su ubicación y su tipo histológico. Se reporta un caso de queratoquiste odontogénico en maxilar inferior que se trató con resección mandibular y reconstrucción ósea con placa de reconstrucción y tornillos de titanio

en un paciente masculino de 14 años de edad. Basados en el estudio histopatológico se diagnosticó como queratoquiste odontogénico paraqueratinizado. Luego de dos años de realizada la intervención quirúrgica la evolución clínica y radiográfica del paciente ha sido satisfactoria.

Palabras clave: tumores odontogénicos, quistes odontogénicos, reconstrucción mandibular.

ABSTRACT

The keratocyst is a lesion of odontogenic origin derived from the remains of the dental sheet that appears commonly in adults. Two peaks have been identified in their incidence: between the second and third decades of life, and between 50 and 60 years of age, with a slight predominance of the male sex. Frequently located in the lower jaw and in the third inferior molars. It is an odontogenic tumour, of silent and low growth, being diagnosed forms in the radiographic examination of routine when they become infected since they are asymptomatic and do not produce expansion of tables in its great majority. The probabilities of recurrence are between 10 to 60 % after of the surgery due to its form of presentation, its location and its histological type. We report a case of odontogenic keratocyst in lower jaw that was treated with mandible resection and bone reconstruction with metal plate reconstruction and screw of Titanium a 14-year-old patient male. Considering the histopathological study, the diagnose was parakeratinising odontogenic keratocyst. Two years after surgery, the patient's clinic and radiographic evolution was satisfactory.

Key words: odontogenic tumours, odontogenic cysts, mandibular reconstruction.

INTRODUCCIÓN

El quiste puede definirse como una cavidad patológica, revestida de epitelio, que contiene material líquido o semisólido en su interior compuesto por restos celulares, queratina o moco.¹⁻³

De este grupo de lesiones es el queratoquiste odontogénico (QQO) el que ha generado más controversia en cuanto a su comportamiento biológico y su manejo quirúrgico. Phillipsen lo describió por primera vez en 1956, quien estudio el origen de estas lesiones y determinó su origen odontogénico y no inflamatorio.^{4,5} Para su estudio se agrupan dentro de los quistes odontogénicos del desarrollo, merecen una

consideración especial por sus características histopatológicas y su comportamiento clínico agresivo. ⁶⁻⁹

Se considera que se deriva de restos de la lámina dental, esto podría explicar la frecuente aparición de esta lesión en la zona posterior de la mandíbula, ya que la lámina dental es más activa en esta zona y en la edad en que los pacientes desarrollan estos quistes. ³ Por otra parte, Marx y Stern, ¹ señalan que el 40 % de los QGO surge del epitelio reducido del esmalte del folículo dental, explican así el origen dentígero de los QGO.

Clínicamente, el QGO es una entidad patológica bien definida entre los quistes odontogénicos, los cuales podrían ocurrir como lesiones solitarias o múltiples de los maxilares. Este requiere de especial consideración ya que es una forma distinta de quiste odontogénico, con características específicas histopatológicas y comportamiento clínico-biológico agresivo, alta tasa de recurrencia de un 5 % a un 65 % y en ocasiones puede asociarse con el síndrome de carcinoma y nevo basocelular (SCNBC). ^{3, 10,11}

Suele presentarse en un amplio rango de edades, su pico de incidencia ocurre entre la segunda y tercera décadas de la vida, ^{2,9} con una declinación gradual después de esta. ¹⁰

Cabe señalar que otros autores plantean que estos pueden aparecer en la infancia o en la edad adulta, por lo general el 60 % de los casos se los diagnostica en rangos de edad comprendidos entre la primera y cuarta década de vida.

Es más frecuente en el género masculino que en el femenino, entre un 60 % a 80 % de los casos se localiza en la mandíbula, especialmente en la zona del tercer molar y rama ascendente mandibular, tiende a ser una lesión localmente agresiva que inicia de forma asintomática.¹² Estos reportan la aparición de QGO en la línea media maxilar, hallazgo poco usual.

A menudo estas lesiones son asintomáticas; y se descubren durante el examen radiográfico de rutina ^{11,13} hasta que presentan una infección sobreañadida. Se describen como síntomas parestesias, anestias dentales o labiales, celulitis abscesos, trismo y fracturas patológicas, aunque pueden alcanzar gran tamaño y por consiguiente causar asimetría facial; en ocasiones perforan la cortical e invaden

los tejidos blandos. Los QGO de gran tamaño podrían causar expansión y movilidad dentaria. Algunos se rompen y drenan queratina al tejido circundante, lo que provoca una intensa respuesta inflamatoria que causa dolor y tumefacción. La implicación neurológica puede ser otra manifestación clínica importante. ^{1, 6,13}

Generalmente se ha pensado que esta entidad representa una forma más agresiva de quiste odontogénico. En particular, la variante paraqueratinizada tiene una tasa de recurrencia mayor que la variante ortoqueratinizada. Debido a estos hallazgos se ha aconsejado un tratamiento más agresivo que la simple enucleación.

La reabsorción ósea puede incluir la cortical ósea y el borde inferior de la mandíbula, pero con una evolución más lenta que el hueso trabecular intermedular, el cual es menos denso. Por esta razón ellos se extienden más anteroposteriormente que bucolingualmente. ^{1, 14,15}

Se ha estimado que en un 5 % de los casos pueden presentarse múltiples queratoquistes odontogénicos asociados con el síndrome de carcinoma y nevo basocelular (SCNBC), en estos casos se deben realizar estudios complementarios para descartar el mismo. ^{11, 13,16}

Radiográficamente el QGO puede aparecer como un hallazgo radiográfico en el que se observa una imagen radiolúcida de bordes generalmente definidos y frecuentemente corticados, que se puede encontrar desplazando los dientes adyacentes, o con reabsorción de los mismos en un patrón suave y regular, aunque con menor frecuencia que los quistes dentígeros y radiculares. Esta imagen, por lo general, es unilocular, pero en ocasiones también se presenta multilocular. Se puede encontrar asociado con la corona de un diente no erupcionado entre un 25 % a 40 % de los casos. ^{1, 2,11} Cuando se encuentra asociado con una pieza dental impactada o incluida se denomina *queratoquiste folicular* por su semejanza radiográfica con el quiste dentígero. Pueden presentarse también a nivel periapical al estar asociados con piezas dentales no vitales, diagnosticándose como quistes radiculares o granulomas periapicales. Pueden localizarse entre las raíces de las piezas dentales, su apariencia radiográfica es idéntica a la de un quiste periodontal lateral. Cuando se ubican en la línea media del maxilar tiende a confundirse con un quiste del conducto nasopalatino.¹²

No parece tener un rasgo característico confiable para distinguirlo de otras lesiones radiolúcidas de la mandíbula. ¹³

El tratamiento, incluso en estos tiempos de alto desarrollo tecnológico, y los avances significativos en el campo de la medicina, aún es polémico. Incluso, continúa la clasificación en tratamientos conservadores y agresivos. El tratamiento conservador incluye la enucleación simple o con curetaje y la marsupialización.

Entre los tratamientos agresivos se realiza curetaje químico con solución de Carnoy, crioterapia y la resección localizada en bloque, y en ocasiones resección mandibular segmentaria.

La elección de uno u otro tratamiento debe basarse en diversos factores como la edad del paciente, tamaño y la localización del quiste. El objetivo, en cualquier caso, es elegir la modalidad de tratamiento que lleva a menor riesgo de recurrencia y la menor morbilidad. ^{12, 17,18}

Se requiere un control periódico con evaluación radiográfica anual por más de 5 años, para evaluar la recidiva en estas lesiones, ¹⁹ y luego una revisión clínica y radiográfica cada dos o tres años a partir de entonces. ²⁰

Una nueva clasificación del QO, fue aprobada por la editorial y el consenso de la conferencia realizada en Lyon, Francia (OMS/IARC) en julio de 2003, en conjunto con la preparación del volumen del Blue Book de Patología y Genética de Tumores de Cabeza y Cuello editado en el 2005 por la Organización Mundial de la Salud (OMS), donde gracias a muchas investigaciones tanto clínicas, histopatológicas y moleculares se ha decidido incluir al QO paraqueratinizado dentro del grupo de los tumores odontogénicos como tumor odontogénico quístico queratinizante y ha permanecido el queratoquiste odontogénico ortoqueratinizado como una entidad separada dentro de los quistes odontogénicos ya existentes, es decir, uno pasa a ser una neoplasia odontogénica benigna y otro una entidad quística; sin embargo, los quistes odontogénicos no aparecen en este libro, y aún no se ha publicado la nueva clasificación de los mismos. ^{6,21,22}

Este cambio obedece a numerosas investigaciones que tienen en cuenta su comportamiento clínico y la reactividad para ciertos marcadores que identifican el

potencial proliferativo del epitelio (PCNA, KI-67), así como marcadores de transformación tumoral (p 53).²²

O sea, el antiguamente denominado queratoquiste odontogénico, es un tumor derivado de los restos de la lámina dental. Actualmente, se clasifica como una neoplasia benigna de naturaleza odontogénica.

Según análisis recientes, la reclasificación de QQ hacia TOQ lo transformaría en el tumor odontogénico más frecuente.²³

Se han presentado muchas teorías sobre el desarrollo del tumor odontogénico queratoquístico. Una de ellas plantea que este se desarrolla de los restos de la lámina dental conocido como restos de Serres. De acuerdo con otras teorías, el tumor odontogénico queratoquístico se forma del estrato de las células basales del epitelio de la mucosa oral o del retículo estrellado del esmalte.

Desde el punto de vista clínico, el tumor odontogénico queratoquístico es uno de los tumores odontogénicos más agresivos debido a la alta tasa de recurrencia y a la tendencia de invadir tejidos adyacentes, es decir, localmente agresivo.

Debido a los casos aislados encontrados a nivel mundial no puede estimarse la posible frecuencia de malignización del tumor odontogénico queratoquístico.²⁴

Basados en la revisión de los conceptos actuales de los QQO, donde se evidencia un comportamiento más agresivo, en comparación con otros quistes odontogénicos, se podría sugerir la incorporación de la nueva clasificación propuesta por el consenso de la OMS para los tumores y quistes odontogénicos por parte del patólogo y del cirujano bucomaxilofacial con el fin de unificar la denominación de esta entidad, y de realizar el tratamiento y control periódico adecuado.

PRESENTACIÓN DE CASO

Se presenta el caso de un paciente masculino de 14 años de edad, el cual acudió a la consulta de cirugía maxilofacial de la Clínica Estomatológica de T. Shepon Klerksdorp Hospital, en Sudáfrica, y refirió dolor y movilidad en dientes anteroinferiores de un año y medio de evolución.

Al examen físico facial se observó aumento de volumen moderado en región anterior de la mandíbula, con piel de aspecto normal y consistencia dura doloroso a la palpación. Fig. 1.



Fig. 1. Examen físico facial del paciente.

Intraoralmente constatamos aumento de volumen en surco vestibular anteroinferior, con orificio fistuloso con drenaje de contenido purulento fétido, consistencia blanda, fluctuante, doloroso a la palpación, movilidad y desplazamiento dentario desde el 34 al 44, ausencia clínica del 42, sin historia de exodoncia previa. Fig. 2.



Fig. 2. Aumento de volumen en surco vestibular anteroinferior.

Radiográficamente, en ortopantomografía realizada, se observó imagen radiolúcida multilocular en región mandibular que se extendía desde mesial del 37 hasta mesial del 47 interesando todo el borde inferior de la mandíbula, zona radiopaca compatible con estructura dentaria (42) retenido en posición horizontal por debajo de las raíces de 43, 44 y 45. Presentaba además folículos dentarios de 18, 28, 38 y 48 no erupcionados. Los resultados de tomografía en 3D con cortes axiales y coronales se correspondieron con la imagen anteriormente descrita. Fig. 3.

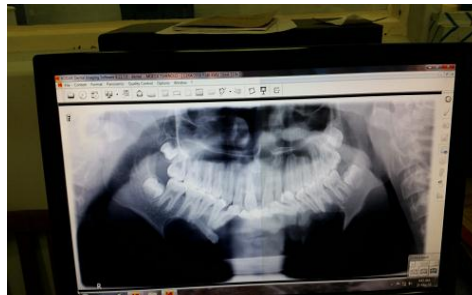


Fig.3. Ortopantomografía realizada.

Se realizó biopsia incisional que informó lesión sugestiva de queratoquiste odontogénico paraqueratinizado.

Con el diagnóstico anteriormente mencionado se intervino quirúrgicamente realizándose una resección mandibular desde ángulo mandibular derecho al izquierdo y reconstrucción ósea con placa metálica de reconstrucción y tornillos de titanio, obteniéndose magníficos resultados estéticos y funcionales. Fig. 4.



Fig. 4. Resección mandibular desde ángulo mandibular derecho al izquierdo y reconstrucción ósea con placa metálica de reconstrucción y tornillos de titanio.

Hasta la fecha pasados 2 años de la intervención se observó una buena evolución clínica y radiográfica y en espera de posible injerto costal. Fig. 5.



Fig. 5. Paciente después de pasados 2 años de la intervención

CONCLUSIONES

La actual inclusión del queratoquiste odontogénico paraqueratinizado dentro del grupo de los tumores odontogénicos como tumor odontogénico quístico queratinizante, nos podría inducir a la realización de tratamientos poco conservadores como la resección mandibular, y descartar la realización de tratamientos más conservadores como la marsupialización que en algunos casos de QQO ha demostrado efectividad, por lo que recomendamos la evaluación individual de cada caso, tener en cuenta factores como el tamaño de la lesión, historia de recurrencia, la edad, colaboración y estado sistémico del paciente, para seleccionar entre todas la mejor alternativa de tratamiento y mejorar así el pronóstico del paciente.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Marx R, Stern D. Contemporary Oral and Maxillofacial Surgery. Chicago: Mosby; 2003.p. 590-604.
2. Sapp JP, Eversole LR, Wysocki GP. Patología Oral y Maxilofacial Contemporánea. 2ª ed. Madrid: Elsevier; 2005.p. 38.
3. Vega Llauradó A, Ayuso Montero R, Teixidor Olmo I, Salas Enric J, Marí Roig A, López López J. Opciones terapéuticas en quistes odontogénicos. Revisión. Av Odontoestomatol [Internet]. 2013 [citado 01 Nov 2017]; 29(2): 81-93. Disponible en: http://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0213-12852013000200004&lng=es.

-
4. Wright JM. The odontogenic keratocyst: orthokeratinized variant. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1981; 51(6): 609-18.
 5. Li TJ, Kitano M, Chen XM, Itoh T, Kawashima K, Sugihara K, et al. Orthokeratinized odontogenic cyst: a clinic-pathological and immunocytochemical study of 15 cases. *Histopathology* [Internet]. 1998 [citado 01 Nov 2017]; 32(3): 242-51. Disponible en: <https://onlinelibrary.wiley.com/doi/epdf/10.1046/j.1365-2559.1998.00380.x>.
 6. Peñón Vivas PA, Sarracent Pérez H, Moreira Rodríguez P. Reemplazo articular temporomandibular debido a queratoquiste odontogénico. *Rev Cubana Estomatol* [Internet]. 2013 [citado 01 Nov 2017]; 50(1): 109-18. Disponible en: http://scielo.sld.cu/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0034-75072013000100009&lng=es.
 7. Shudou H, Sasaki M, Yamashiro T, Tsunomachi S, Takenoshita Y, Kubota Y, et al. Marsupialisation for keratocystic odontogenic tumours in the mandible: longitudinal image analysis of tumour size using 3D visualised CT scans. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2012; 41(3):290-6.
 8. Philipsen HP. Keratocystic odontogenic tumor. En: Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D, eds. *Head and neck tumours. WHO classification of tumours.* Lyon: IARC Press; 2005.p. 306-7.
 9. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE, eds. *Odontogenic cysts and tumours. Oral and maxillofacial pathology.* Philadelphia: WB Saunders; 2002.p. 589-642.
 10. Kimi K, Kumamoto H, Ooya K, Motegi K. Immunohistochemical analysis of cell-cycle- and apoptosis-related factors in lining epithelium of odontogenic keratocysts. *J Oral Pathol Med* [Internet].2001 [citado 01 Nov 2017]; 30(7):434-42. Disponible en: <https://onlinelibrary.wiley.com/doi/epdf/10.1034/j.1600-0714.2001.300709.x>.
 11. Neville B, Damm DD, Allen J, Bouquot J. *Oral & Maxillofacial Pathology.* 2ª ed. St. Louis: Saunders; 2002.

-
12. Davila Ojeda CJ. Manejo del Tumor Odontogénico Queratoquístico. Revisión de la literatura y reporte de 2 casos clínicos [Internet]. [Tesis] Quito: Universidad San Francisco de Quito; 2014. [citado 01 Nov2017]. Disponible en: <http://repositorio.usfq.edu.ec/bitstream/23000/4577/1/112571.pdf>.
13. Myoung H, Hong SP, Hong SD, Lee JI, Lim CY, Choung PH, Lee JH, Choi JY, Seo BM, Kim MJ. Odontogenic Keratocyst: Review of 256 cases for recurrence and clinic-pathologic parameters. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2001; 91(3): 328-333.
14. Brannon RB. The odontogenic keratocyst. A clinic-pathologic study of 312 cases. Part I. Clinical features. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1976; 42(1):54-72.
15. Neville BW, Damm DD, Brock T. Odontogenic keratocysts of the midline maxillary region. *J Oral Maxillofac Surg.* 1997; (4):340-4.
16. Vicente Barrero M, Báez Marrero O, Alfonso Martin JL, Knezevic M, Báez Acosta B, Camacho García MC, Montenegro Dámaso T. Cartilage in the walls of odontogenic keratocyst. *Med Oral* [Internet]. 2004[citado 01 Nov 2017]; 9(3):268-70. Disponible en: http://www.medicinaoral.com/pubmed/medoralv9_i3_p268.pdf.
17. Amorin RF, Godoy GP, Galvao, Souza LB, Freitas RA. Immunohistochemical assessment of extracellular matrix components in syndrome and non-syndrome odontogenic keratocysts. *Oral Dis* [Internet]. 2004 [citado 01 Nov 2017]; 10(5):265-70. Disponible en: <https://onlinelibrary.wiley.com/doi/epdf/10.1111/j.1601-0825.2004.01023.x>.
18. Torrealba P Ramón, Bozan S Fernando, Mebus H Cristina. Tumor Odontogénico Queratoquístico. Revisión de la Literatura a Propósito de un Caso Clínico. *Int J Odontostomat* [Internet]. 2013 [citado 01 Nov 2017]; 7(3): 373-7. Disponible en: http://www.scielo.cl/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0718-381X2013000300006&lng=es.
19. Blanas N, Freund B, Schwartz M, Furts IM. Systematic review of the treatment and prognosis of the odontogenic keratocyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2000; 90(5):553-8.

20. Pogrel MA, Jordan RC. Marsupialization as a definitive treatment for the odontogenic keratocyst. J Oral Maxillofac Surg. 2004; 62(6):651-5.
21. Crowley TE, Kaugars GE, Gunsolley JC. Odontogenic keratocysts: A clinical and histologic comparison of the parakeratin and orthokeratin variants. J Oral Maxillofac Surg. 1992; 50(1):22-6.
22. Díaz Fernández J M, Puig Ravinal L E, Vives Folgar C B. Perfil epidemiológico, clínico y terapéutico de los quistes odontogénicos en Santiago de Cuba. MEDISAN [Internet]. 2014 [citado 01 Nov 2017]; 18(1): 52-60. Disponible en: http://scielo.sld.cu/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1029-30192014000100008&lng=es.
23. Chuong R, Donoff RB, Guralnick W. The odontogenic keratocyst. J Oral Maxillofac Surg. 1982; 40(12):797-802.
24. Barnes L, Evenson J, Reichart P, Sidranski D. World Health Organization Classification of Tumors Pathology & Genetics Head and Neck Tumors. Lyon: IARC Press; 2003.

Recibido: 4 de mayo de 2018.

Aprobado: 13 de junio de 2018.

Elmo David Rodríguez Licea. Policlínico Docente Edor de los Reyes Martínez Arias. Jiguaní. Granma, Cuba. E-mail: rodriguezlicea@infomed.sld.cu