

Ameloblastoma unicístico intramural, reconstrucción tardía y rehabilitación con implantes dentales. Reporte de Caso*

José Luis Gil 1
Gerardo José Guillen Rivera 2
Ana Isabel Ortega-Pertuz 3
Michelle Leinin Espina Suárez 4

Intramural unicystic
ameloblastoma, late reconstruction
and rehabilitation with dental
implants. Case report*

RESUMEN

Introducción: el ameloblastoma unicístico es considerado una variante del ameloblastoma, con características clínico-radiográficas e histológicas particulares, mostrando un mejor pronóstico que la forma sólida. **Objetivo:** describir el manejo y procedimientos de un paciente con ameloblastoma unicístico intramural (AUIM) en línea media mandibular con énfasis en la reconstrucción tardía y su rehabilitación. **Materiales y métodos:** se presenta un varón de 18 años con una lesión indolora en la zona anterior de la mandíbula, relacionada con un diente retenido. Radiográficamente, mostraba imagen unilocular, corticalizada, que causaba expansión de las corticales óseas. Se realizó la resección segmental y ajuste de placa de reconstrucción; en un segundo tiempo quirúrgico se colocó injerto óseo autólogo y, posteriormente, se procedió a la rehabilitación con implantes. **Discusión:** en el artículo se discute la elección del tratamiento basado en el comportamiento biológico del AUIM, así como la necesidad de restablecer la estética y la función después de una cirugía radical.

Palabras clave: tumor odontogénico; neoplasias maxilomandibulares; ameloblastoma; reconstrucción mandibular.

ABSTRACT

Background: the unicystic ameloblastoma (UA) is considered a variant of ameloblastoma, with particular clinical-radiographic and histological characteristics, showing a better prognosis than the solid/multicystic type. **Objective:** to describe the managing and procedures of a patient with an unicystic ameloblastoma intramural (IMUA) with emphasis in the late reconstruction and rehabilitation. **Materials and methods:** a case of an 18-year-old male with a painless lesion in the mandibular anterior area, related to an impacted tooth. Radiographically, it showed a unilocular, corticalized image, which caused expansion of the cortical plates, a segmental resection and reconstruction plate placement was performed; in a second surgical time, autologous bone graft was placed and subsequent rehabilitation with implants. **Discussion:** the article discusses the choice of treatment based on the lesion biological behavior, as well as the need to restore aesthetics and function after radical surgery.

Keywords: odontogenic tumor; maxillomandibular neoplasm; ameloblastoma; mandibular reconstruction.

* Reporte de caso clínico. Institución donde se realizó el caso: Servicio de Cirugía Bucal, Hospital Dr. Manuel Noriega Trigo, estado Zulia, Venezuela.

1 Especialista en Cirugía Bucal. Dirección de Estudios para Graduados. Facultad de Odontología. Universidad del Zulia, Venezuela. Contacto: > josegil_86@hotmail.com

2 Doctor en Odontología. Magíster en Ciencias Dentales, mención Cirugía Oral y Maxilofacial. Pebble Hills Dental Care, Estados Unidos de América. Contacto: > geraldguillenr@gmail.com

3 Doctora en Odontología. Magíster en Radiología Odontológica. Área de Odontología Forense, Instituto de Investigaciones, Facultad de Odontología. Universidad del Zulia, Venezuela. Contacto: > anitaortegav@gmail.com

4 Doctora en Odontología. Magíster en Ciencias Dentales, mención Ortodoncia. El Paso Family Orthodontics, Estados Unidos de América. Contacto: > michellelespinas@hotmail.com

CITACIÓN SUGERIDA

Gil JL, Guillen Rivera GJ, Ortega-Pertuz AI, et al. Ameloblastoma unicístico intramural, reconstrucción tardía y rehabilitación con implantes dentales. Reporte de caso. *Acta Odontol Col* [en línea] 2018 [fecha de consulta: dd/mm/aaaa]; 8(2): 98-106. Disponible en: <https://revistas.unal.edu.co/index.php/actaodontocol/index>

Recibido	Aprobado	Publicado
01/18/2018	22/05/2018	01/07/2018

Introducción

El ameloblastoma uniuquístico (AU) es una neoplasia intraósea revestida por epitelio ameloblástico (1) considerada una variante del ameloblastoma (AM). La lesión fue descrita por primera vez por Robinson y Martínez (2) quienes resaltaron su apariencia radiográfica unilocular, el aspecto quístico al examen microscópico, una respuesta favorable al tratamiento conservador, así como la aparición de la misma en pacientes más jóvenes que el AM sólido.

El AU representa entre el 6% y el 28% de los casos de AM (4,5). La lesión es observada en la segunda década de la vida, con leve predilección por el género masculino (1, 3, 6), localizada en la zona posterior mandibular, en asociación a un diente retenido en el 52 a 86% de los casos (3, 5, 7-9), siendo el tercer molar el más frecuentemente afectado –52 a 100%– (3).

Con respecto a la etiopatogenia del AU, se ha indicado que la lesión representa la transformación de un revestimiento quístico normal o surge de a partir de restos epiteliales odontogénicos preexistentes. Asimismo, se ha señalado que el AU podría originarse a partir de la degeneración quística de las islas ameloblásticas de un AM sólido con la subsecuente fusión de múltiples microquistes y el desarrollo de una lesión uniuquística. La evidencia de un gran número de lesiones con un molar intralesional sugiere que el AU podría originarse de un quiste dentífero que ha experimentado una transformación hacia un linaje ameloblástico (3,10-12).

Clínicamente, el AU suele ser asintomático, los pacientes refieren un aumento de volumen de crecimiento lento e indoloro (5, 8, 10, 11), que puede relacionarse con parestesia (7), dificultad en la masticación y/o deglución, maloclusión y disminución de la abertura bucal (7-9). En las radiografías, la lesión suele mostrar un patrón unilocular, bordes definidos, corticalizados, causando expansión de tablas óseas, semejante a un quiste dentífero cuando está relacionado a un diente retenido (3, 5, 6, 8,10, 11); sin embargo, se han reportado lesiones multiloculares. La reabsorción radicular ha sido relatada y su asociación con imágenes uniloculares debe alertar al clínico sobre la posibilidad de que la lesión sea un AM. Cuando la imagen radiográfica no muestra asociación con una pieza dentaria, se presenta en pacientes en la cuarta década de la vida, mimetizando un quiste residual o queratoquiste (3).

De acuerdo con Robinson y Martínez (2) deben observarse algunas de las siguientes características en el examen histológico para que la lesión sea considerada como AU: 1) El epitelio del quiste es homogéneamente ameloblástico en mayor o menor grado. 2) Un nódulo ameloblástico se proyecta en el lumen quístico, sin infiltración de epitelio odontogénico en la pared fibrosa del quiste; 3) Uno o más proyecciones epiteliales odontoblásticas proliferan en la pared conectiva, ya sea de tipo folicular o plexiforme, las cuales pueden o no estar conectadas al revestimiento del quiste; 4) Islas de epitelio ameloblástico presentes en el interior de la pared conectiva en contacto directo con el epitelio del quiste aparentemente no neoplásico. Ackerman *et al.* (13) revisaron los criterios diagnósticos de Robinson y Martínez (2), y propusieron una clasificación del AU en tres grupos: 1) Simple o luminal, 2) Intraluminal, 3) Mural o intramural. Posteriormente, Phillipsen y Reichart (3) presentaron otra clasificación, resaltando que la lesión a menudo muestra una combinación de características histológicas, a saber: grupo 1, simple; grupo 1.2,

simple o intraluminal; grupo 1.2.3, simple, intraluminal o intramural y grupo 1.3 simple e intramural.

El enfoque terapéutico del AU es controversial y se sugiere considerar su comportamiento biológico, el cual es menos agresivo que el AM sólido (2-5). Factores como el tamaño y localización de la lesión, las características clínicas, el tipo histológico, la recurrencia y edad del paciente deben ser determinantes en la selección del tratamiento (1, 10, 14). El AU ha sido abordado de forma conservadora con enucleación y curetaje o marsupialización seguida de enucleación; estos tratamientos a menudo son complementados con crioterapia, cauterización química o térmica e inclusive radio o quimioterapia (1, 6).

Dado que en circunstancias donde el seguimiento del caso es limitado o cuando el paciente ignora los síntomas por un período prolongado, se recomienda la resección de la misma independientemente de la variante histológica (6, 12). El tipo intramural ha sido tratado mediante resección, pues se considera más infiltrativo, mostrando una tasa de recurrencia mayor que los otros tipos de AU (37,5%) después de un tratamiento conservador (3, 11).

El tratamiento de tumores mandibulares mediante resección produce un defecto substancial en la continuidad del hueso, puesto que en estas circunstancias la estética, el habla y la masticación se encuentran adversamente afectadas y, por ende, la calidad de vida del paciente. El objetivo principal de la reconstrucción es primariamente restaurar la continuidad del contorno óseo, para ello se han utilizado injertos autólogos (autogénicos) vascularizados o no vascularizados, aloplásticos, isogénicos, xenogénicos, colgajos microvascularizados compuestos y placas de reconstrucción (15, 16)

El injerto óseo no vascularizado ha sido empleado satisfactoriamente en la reconstrucción de defectos mandibulares resultantes de la escisión de lesiones benignas destructivas y trauma. Los sitios dadores comúnmente utilizados son la cresta ilíaca (CI), la escápula, costillas, clavícula y la fíbula. La CI es empleada con frecuencia debido a que proporciona un adecuado volumen y contorno (15,17). Los injertos de CI son ideales debido a su combinación de hueso esponjoso y cortical; mientras que la cortical provee un “andamiaje”, el hueso esponjoso contiene elementos de osteoblastos, células osteoprogenitoras y médula ósea; esta última favorece la osteogénesis y presenta factores de crecimiento.

En particular, la CI posterior provee gran cantidad de tejido óseo (alrededor de 100ml) con las mismas propiedades fisiológicas que la CI anterior; asimismo, su proximidad a la superficie corporal facilita la recolección del injerto, se produce menor sangrado que en la técnica para la CI anterior, con la disminución del dolor posoperatorio y disturbios en la marcha, además de una posible reducción en la estancia hospitalaria (18, 19).

Planteándonos como objetivo describir el manejo y proceder con un paciente con un AU intramural (AUIM) en línea media mandibular, tratado mediante resección en bloque, reconstrucción tardía con injerto óseo de CI posterior y colocación de implantes dentales para la rehabilitación protésica.

Presentación del caso

Se reporta paciente masculino de 18 años de edad quien refería aumento de volumen en el rostro y dificultad en la masticación, de un mes y medio de evolución. Antecedentes médicos personales fueron interrogados y negados. Antecedentes odontológicos sin relevancia. Los exámenes de laboratorio complementarios se encuentran bajo parámetros normales, cuyos resultados fueron:

Hematología: hemoglobina: 13 gr/L; hematocrito: 40,0%; tiempo de protrombina (TP): testigo: 14"/ paciente: 13"; tiempo parcial de tromboplastina (TPT): testigo: 31"/ paciente: 30"; plaquetas: 270.000 mm³; leucocitos: 5.600 mm³.

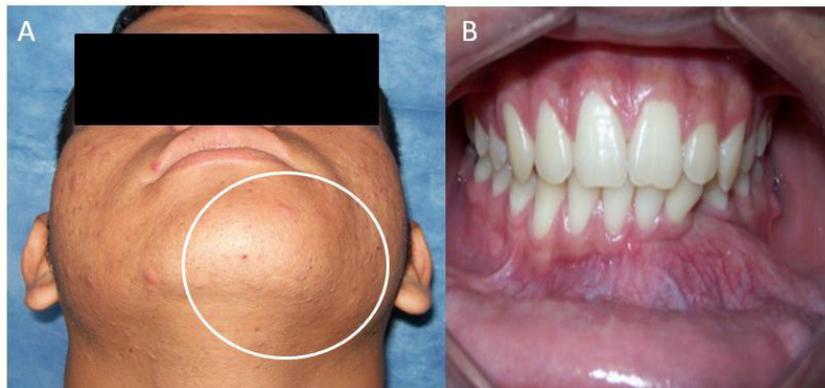
Bioquímica sanguínea: glicemia: 90 mg/dL; urea: 29 mg/dL, creatinina: 0,84 mg/dL.

Serología: VDRL: no reactivo; HIV: negativo.

Al examen clínico extraoral se evidenció asimetría facial en hemiarcada izquierda a predominio de tercio inferior en zona mentoniana (Figura 1A), sin adenopatías palpables en cuello, no se refirió alteraciones neurológicas sensitivas ni limitación de apertura bucal. Intraoralmente se observó escasa definición de surco vestibular del lado inferior izquierdo, expansión de la cortical ósea vestibular, firme a la palpación, sin secreciones activas, ni úlceras en su superficie mucosa y ausencia del 33 (Figura 1B).

En la ortopantomografía se observó una imagen radiolúcida, de bordes definidos, corticalizados, localizada en zona anterior de cuerpo mandibular en relación al 33 retenido, que se extendía desde el 43 hasta el 36, causando desplazamiento de los dientes adyacentes (Figura 1C). En la tomografía computarizada se evidenció en los cortes axiales y reconstrucciones multiplanares, una imagen hipodensa delimitada que causaba adelgazamiento y expansión de ambas corticales óseas (Figura 1D). La impresión diagnóstica fue de AM versus queratoquiste odontogénico. El examen histopatológico (después de biopsia incisional) reveló un diagnóstico de AUIM.

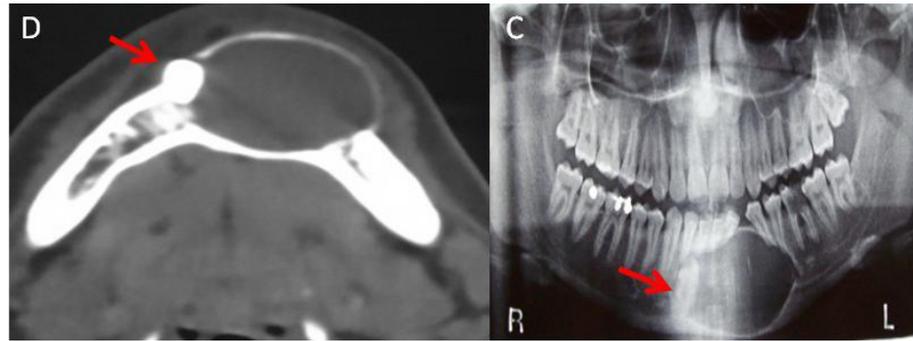
Figura 1. Examen clínico extraoral e intraoral y exámenes radiográficos del paciente



A: vista extraoral del paciente, donde se observa asimetría facial en hemiarcada izquierda. B: vista intraoral, se evidencia aumento de volumen en la zona antero-inferior con escasa definición del surco vestibular en lado izquierdo.

Fuente: imagen propia del estudio del caso

Figura 1. Examen clínico extraoral e intraoral y exámenes radiográficos del paciente



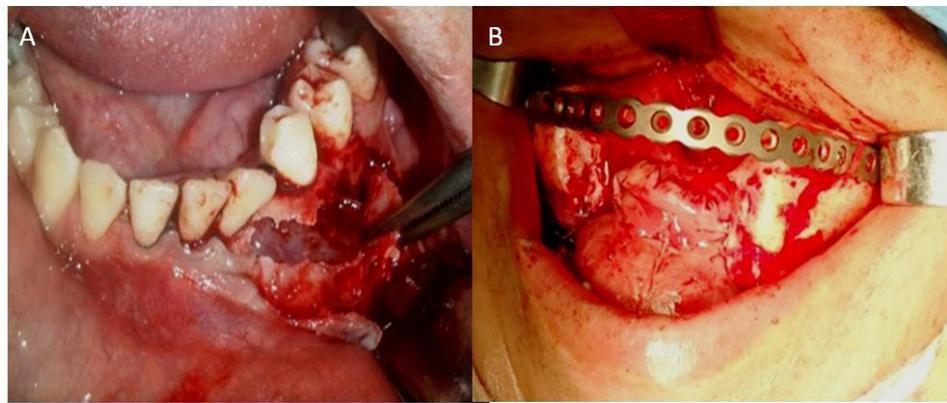
C: radiografía panorámica inicial con imagen radiolúcida, de bordes definidos, corticalizados, localizada en zona antero-inferior en relación al 33 retenido (flecha). D: corte axial de Tomografía Computarizada, mostrando imagen hipodensa delimitada que causaba expansión de ambas corticales óseas en asociación a diente retenido (flecha).

Fuente: imagen propia del estudio del caso

Proceder

Previamente al acto quirúrgico se colocaron arcos de Erich bajo anestesia local; luego bajo anestesia general balanceada e intubación nasotraqueal, se realizó una incisión lineal en el fondo del surco vestibular entre los dientes 44 a 37; posteriormente, con una cierra recíproca se delimitó la lesión y respetando un margen de seguridad de un centímetro, se procedió a la hemimandibulectomía; seguidamente, se adaptó una placa de reconstrucción de 21 orificios previamente contorneada, fijada con 10 tornillos del sistema (ver Figura 2).

Figura 2. Procedimiento quirúrgico inicial



A: resección en bloque de la lesión vía intraoral. B: adaptación de placa de reconstrucción previamente contorneada en el defecto óseo post-resección.

Fuente: Imagen propia del estudio del caso.

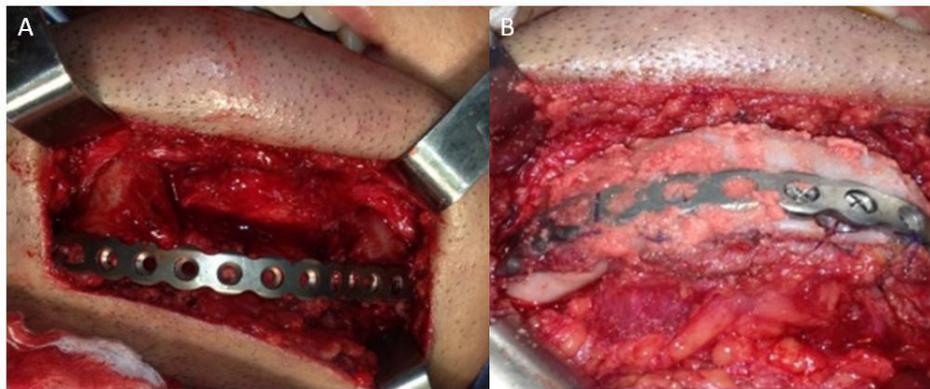
El examen histopatológico del espécimen confirmó el diagnóstico inicial. El control postoperatorio a los tres meses del primer tiempo quirúrgico evidenció radiográficamente, la presencia del defecto óseo post-resección y la placa de reconstrucción cumpliendo

función sin signos de un proceso osteolítico asociado; por esto se decidió proceder a la segunda fase del tratamiento mediante la colocación de injerto óseo de CI posterior con un abordaje extraoral, realizando una incisión curvilínea en la zona submental.

Se adaptaron las corticales obtenidas de los bloques de la cresta a la placa de osteosíntesis con la ayuda de seis tornillos para proveer atura al injerto y adicionalmente se compactó injerto óseo particulado así como injerto alogénico (Figuras 3A y 3B).

Transcurrido seis meses de la resección, se decidió colocar cuatro implantes dentales (MIS Implants Technologies Inc, Fair Lawn, NJ, USA) a nivel de los dientes 33, 34, 35 y 43 (Figura 4). Transcurridos cuatro meses, una vez constatada radiográficamente la oseointegración de los implantes, se decidió descubrirlos (bajo anestesia local), colocar tornillos de cicatrización y, posteriormente, proceder a la adaptación de una prótesis híbrida con soporte de malla metálica. Después de la eliminación de la lesión no se han evidenciado, en los cuatro años de seguimiento del caso, signos clínicos o radiográficos de recidiva.

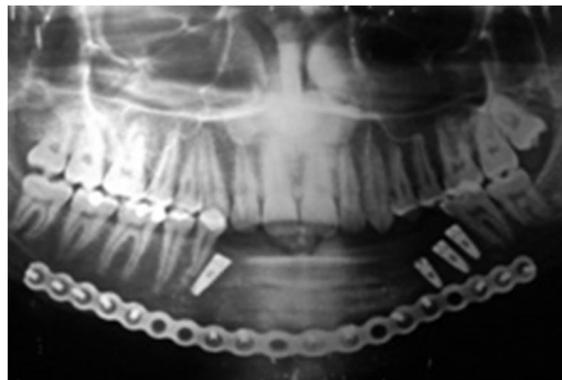
Figura 3. Colocación de injerto óseo mediante abordaje extraoral en la zona submental.



A: abordaje extraoral submental para exponer la placa de reconstrucción. B: adaptación de corticales obtenidas de los bloques de la cresta ilíaca a la placa de osteosíntesis.

Fuente: imagen propia del estudio del caso.

Figura 4. Control radiográfico de los implantes dentales, donde se constata su oseointegración.



Fuente: Imagen propia del estudio del caso.

Discusión y conclusiones

El AU es una variante del AM con características clínicas, radiológicas e histológicas específicas. Por lo general la imagen radiográfica unilocular, asociada a un diente retenido, sugiere una impresión diagnóstica inicial de quiste dentífero (1, 2).

Se ha reportado que el AU ocurre en la segunda década de la vida, en este caso, el paciente contaba con 18 años de edad en el momento del diagnóstico, lo cual concuerda con estudios previos (1, 3, 6). En relación a su localización, el AU se presenta frecuentemente en la zona posterior de la mandíbula; en el caso reportado, la lesión se extendía desde el sector anterior hacia al cuerpo mandibular izquierdo, que es una presentación inusual. Clínicamente se ha descrito que el AU suele ser asintomático, causando un aumento de volumen indoloro y progresivo, recubierto por mucosa normal, que eventualmente causa asimetría facial; las lesiones incipientes a menudo descubiertas en un examen radiográfico de rutina, muestran la apariencia de un quiste odontogénico (5, 7-10). En el caso relatado, el paciente acude a la consulta por la presencia de asimetría a predominio del lado inferior izquierdo y dificultad en la masticación, mientras que el examen radiográfico mostró la imagen típica unilocular en relación a un canino retenido.

La elección del tratamiento del AU basado en el comportamiento biológico de la lesión es imperativa. Debido a que la variante intramural muestra una naturaleza más infiltrativa que los otros tipos de AU (3,11), se consideró, en este caso, la resección en bloque y la sucesiva reconstrucción en fases debido al tamaño del defecto óseo y la posibilidad de reconstrucción, reduciendo así la eventualidad de una recidiva.

Entre las ventajas del uso de injertos no vascularizados de CI se encuentran: un adecuado volumen de tejido, facilidad en la recolección y la similitud biomecánica con la mandíbula. Por tal motivo, su empleo es favorecido sobre sitios como las costillas, calvaria, escápula y fíbula en la reconstrucción mandibular (16). En este sentido, Omeje *et al* (19) resaltan el éxito del uso de injertos de CI en defectos óseos entre 4 cm y 12 cm, con una baja tasa de reabsorción, esto puede estar relacionado con el uso de fijación rígida del injerto mediante placas, la administración profiláctica de antibióticos y su empleo en el postoperatorio, así como la naturaleza benigna de las lesiones tratadas.

Por otra parte, Guerrier *et al* (17) señalan el empleo satisfactorio de injertos de CI en defectos de más de 5cm; de acuerdo a los autores, esto puede ser atribuido a que el protocolo de reconstrucción fue abordado en fases. En nuestro caso, el uso de injerto óseo de CI posterior y su adaptación a la placa de reconstrucción permitió restablecer satisfactoriamente el contorno y altura mandibular, importantes para la colocación de los implantes dentales y su estabilidad en el tiempo.

En conclusión el manejo del AU debe ser guiado por su comportamiento biológico, en este sentido la naturaleza infiltrativa del AUIM indica, hasta nueva evidencia, un tratamiento radical, limitando la posibilidad de recidiva. Cuando se trata de un gran defecto óseo post-resección, se recomienda el abordaje en fases, tal como se realizó en el caso presentado, para garantizar la estabilidad y durabilidad del injerto y, por ende, la longevidad de los implantes dentales que complementaron la rehabilitación del paciente.

Referencias

1. Lau SL, Samma N. Recurrence related to treatment modalities of unicystic ameloblastoma: a systematic review. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2006; 35(8): 681-690.
2. Robinson L, Martínez MG. Unicystic ameloblastoma: a prognostically distinct entity. *Cancer* 1977; 40(5): 2278-2285.
3. Philipsen HP, Reichart PA. Unicystic ameloblastoma: A review of 193 cases from the literature. *Oral Oncol* 1998; 34(5): 317-325.
4. Fregnani ER, da Cruz Perez DE, de Almeida OP, Kowalski LP, et al. Clinicopathological study and treatment outcomes of 121 cases of ameloblastomas. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2010; 39(2): 145-149.
5. Hsu MH, Chiang ML, Chen JK. Unicystic ameloblastoma. *Journal of Dental Sciences* 2014; 9: 407-411.
6. Seintou A, Martinelli-Kla CP, Lombardi T. Unicystic ameloblastoma in children: systematic review of clinicopathological features and treatment outcomes. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2014; 43(4): 405-412.
7. Gupta N, Saxena S, Rathod VC, et al. Unicystic ameloblastoma of the mandible. *J Oral Maxillofac Pathol* 2011; 15(2): 228-231.
8. De Melo WM, Pereira-Santos D, Sonoda CK, et al. Large unicystic ameloblastoma of the mandible: management guided by biological behavior. *J Craniofac Surg* 2012; 23(5): e499-e502.
9. García NG, Oliveira DT, Rodríguez MTV. Unicystic ameloblastoma with mural proliferation managed by conservative treatment. *Case Rep Pathol* [en línea] 2016 [fecha de consulta: 19 de diciembre de 2016]; 4p. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC5005522/>
10. Kumar KR, George GB, Padiyath S, et al. Mural unicystic ameloblastoma crossing the midline. A rare case report. *Int J Odontostomat* 2012; 6(1): 97-103
11. 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.
12. Arora S. Unicystic Ameloblastoma: A perception for the cautious interpretation of radiographic and histological findings. *J Coll Phys Surg Pak* 2015; 25(10): 761-764.
13. Ackerman GL, Altini M, Shear M. The unicystic ameloblastoma: a clinicopathological study of 57 cases. *J Oral Pathol Med* 1998; 17(9-10): 541-546.

14. Sammartino G, Zarrelli C, Urciulo V, *et al.* Effectiveness of a new decisional algorithm in managing mandibular ameloblastomas: a 10-years experience. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2007 Jun; 45(4): 306-310.
15. Handshell J, Hassanyar H, Depprich RA, *et al.* Nonvascularized iliac bone grafts for mandibular reconstruction--requirements and limitations. *In vivo* 2011; 25(5): 795-800.
16. Okeje VN, Obimakinde OS, Aroutiba JT, *et al.* Mandibular defect reconstruction with nonvascularized iliac crest bone graft. *J Clin Pract* [en línea] 2012 [fecha de consulta: 19 de diciembre de 2016]; 15: 224-227. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/22718178>
17. Guerrier G, Alaqeeli A, Jawadi AW, *et al.* Reconstruction of residual mandibular defects by iliac crest bone graft in war-wounded Iraqi civilians, 2006-2011. *Br J Oral Maxillofac Surg*.2015; 53(6): e27-e31.
18. Boucree T, McLaughlin D, Akrawe S, *et al.* Posterior iliac crest bone graft: how much is enough. *J Craniofac Surg* 2017; 28(8): 2162-2164.
19. Omeje K, Efunkoya A, Amole I, *et al.* A two-year audit of non-vascularized iliac crest bone graft for mandibular reconstruction: technique, experience and challenges. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* [en línea] 2014 [fecha de consulta: 19 de diciembre de 2016]; 40(6): 272-277. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4279977/>