

Queratoquiste odontogénico múltiple en un paciente pediátrico

Multiple odontogenic keratocyst in a pediatric patient

Presentado: 22 de febrero de 2018
Aceptado: 16 de abril de 2018

Eduardo José Bava, Andrea Ortolani, Mónica Pantyrer

Cátedra de Odontología Integral Niños, Facultad de Odontología, Universidad de Buenos Aires, Argentina

Resumen

Objetivo: Presentar la situación clínica de dos queratoquistes odontogénicos en maxilar inferior en un paciente pediátrico.

Caso clínico: Un paciente varón de 10 años de edad fue derivado a la Cátedra de Odontología Integral Niños de la Facultad de Odontología de la Universidad de Buenos Aires. Luego de los exámenes clínico, radiológico y el análisis histopatológico, se realizó el tratamiento quirúrgico conservador combinado con la aplicación de solución de

Carnoy en ambas lesiones y control clínico-radiográfico a los 2 años.

Conclusión: Si bien esta patología no es muy frecuente en niños, por su naturaleza agresiva y la alta recurrencia es fundamental el diagnóstico temprano a través de radiografías panorámicas. El tratamiento quirúrgico conservador y el seguimiento a distancia disminuyen el riesgo de recurrencia y la morbilidad.

Palabras clave: Paciente pediátrico, queratoquiste odontogénico, tratamiento.

Abstract

Aim: To present the clinical situation of two mandibular odontogenic keratocysts in a pediatric patient.

Clinical case: 10-year-old patient, male, referred to the Department of Comprehensive Pediatric Dentistry of the University of Buenos Aires Dental Faculty. After clinical-radiographic examination and histopathological analysis, conservative surgical treatment was carried out in both lesions combined with the application of Carnoy's

solution and clinical-radiographic control for 2 years.

Conclusion: even though this is not a very frequent pathology in children, due to its aggressive nature and high recurrence, early diagnosis through panoramic radiography is crucial. Conservative surgical treatment and long-term control decrease the risk of recurrence and morbidity.

Key words: Odontogenic keratocyst, pediatric patient, treatment.

Introducción

El queratoquiste odontogénico (QO) fue hallado por primera vez por Mikulicz en 1876, clasificado por Phillipsen en 1956 y posteriormente descrito por Pindborg y Hansen en 1963 como una lesión solitaria bien delimitada rodeada de una delgada cortical.¹ En 2005, la Organización Mundial de la Salud (OMS) lo reclasificó como tumor odontogénico queratoquistico, debido a la alta tasa de recurrencia, su comportamiento clínico agresivo, la asociación con el síndrome de Gorlin (síndrome nevoide basocelular) y mutaciones en el gen supresor tumoral PTCH. En la

cuarta edición de la OMS (2017),² se volvió a la terminología original de QO, dado que numerosas publicaciones de genética molecular demostraron que la mutación del gen PTCH se podía encontrar en lesiones no neoplásicas, incluso en quistes dentígeros;³ y además, muchos investigadores advirtieron que la resolución del quiste luego de la marsupialización no es compatible con un proceso neoplásico.⁴⁻⁶

Por las características histopatológicas distintivas, es significativo separar el QO de otros quistes odontogénicos. Se origina en fases muy tempranas

del desarrollo a partir de los restos de la lámina dental,⁷ y su prevalencia oscila entre 4 y 12%.⁸⁻¹⁰ Por su potencial agresivo, requiere un tratamiento quirúrgico minucioso y controles de su comportamiento a largo plazo.¹¹⁻¹³ Se presenta con mayor frecuencia en adultos, en la segunda y tercera décadas de vida, con mayor incidencia en el sexo masculino. Proporcionalmente, la mandíbula se ve más afectada que el maxilar superior, en una relación 2:1. Se localiza habitualmente en la zona del tercer molar inferior, y puede invadir el cuerpo y la rama ascendente.^{8,10,14}

Se asocia frecuentemente a dientes retenidos, situación que requiere realizar el diagnóstico diferencial con otras patologías como quiste dentígero, quiste odontogénico calcificante, ameloblastoma, mixoma, tumor odontogénico primordial y fibroma ameloblástico.

En situaciones en las que la lesión quística se presente solitaria, sin involucrar piezas dentarias retenidas, el diagnóstico diferencial deberá efectuarse con entidades como quiste óseo traumático, quiste inflamatorio, quiste periodontal lateral, quiste residual, quiste nasopalatino, granuloma central de células gigantes, tumor pardo del hiperparatiroidismo, plasmocitomas, malformaciones vasculares y tumores óseos benignos.⁸

En ocasiones puede estar asociado al síndrome de Gorlin-Goltz (síndrome carcinoma nevoide basocelular), un trastorno hereditario autosómico dominante que se caracteriza por incluir anomalías neoplásicas y de desarrollo, como el QO. Estas últimas generalmente se desarrollan en la primera década de la vida, y constituyen una de las primeras manifestaciones clínicas o hallazgos radiográficos del síndrome.¹⁵

Clínicamente, el QO se manifiesta con un aumento de volumen de tamaño variable, generalmente asintomático, recubierto por mucosa normal. En su crecimiento agresivo puede producir deformidades óseas, invadir tejidos adyacentes, expandir corticales y desplazar piezas dentarias.

Radiográficamente, aparece como imagen radiolúcida bien circunscripta, uni- o multilocular, con cortical reaccional, con o sin diente no erupcionado. En general, se detecta por hallazgos radiográficos de rutina, ya que en sus primeros estadios es asintomático.¹⁶⁻¹⁸

Histológicamente, presenta una delgada y friable cápsula de tejido fibroso, revestida de un epitelio escamoso estratificado uniforme de 5 a 8 capas celulares, en su variante paraqueratinizado (85-95%) u ortoqueratinizado. La capa basal definida posee células en empalizadas cúbicas o cilíndricas con núcleos hiper cromáticos. La luz del quiste contiene restos de queratina y quistes satélites en el tejido conjuntivo.¹⁸

El tratamiento definitivo aún es controvertido, y no existe consenso para un tratamiento quirúrgico único, dados los índices de recidiva reportados y el comportamiento localmente agresivo. Se sugieren dos tipos: quirúrgico conservador y quirúrgico radical. El primero consiste en una combinación de enucleación y legrado óseo, mientras que el radical es más agresivo, incluye ostectomía periférica o resección ósea en bloque. El uso de adyuvante con agentes químicos como la solución de Carnoy tiene como finalidad eliminar posibles células satélites y disminuir la tasa de recurrencia.^{9,19,20}

Con respecto al tratamiento en niños, se recomienda el conservador, ya que es menos invasivo y traumático. La menor morbilidad es esencial, pues se trata de pacientes en etapa de crecimiento y desarrollo. La decisión sobre la opción de tratamiento debe establecerse según el tamaño y la ubicación de la lesión, la relación con estructuras anatómicas vecinas, el elevado porcentaje de recurrencia, la evidencia radiográfica de destrucción cortical y la variedad histológica (el más común entre los pacientes pediátricos es el tipo paraqueratósico).^{21,22}

Diversos autores proponen las siguientes estrategias de tratamiento: enucleación simple; enucleación combinada con terapia complementaria (solución de Carnoy o criocirugía); marsupialización; descompresión con enucleación secundaria; resección marginal/segmentaria; resección marginal con injerto o relleno óseo.

La solución de Carnoy es un fijador cuyo mecanismo de acción es la coagulación de las proteínas, y tiene como principal objetivo evitar la recidiva de la lesión. La topicación se realiza en el margen óseo, durante 5 minutos, luego de la enucleación del QO, el curetaje y la limpieza de la cavidad quirúrgica. Se ha demostrado que la penetración en los tejidos es de 1,54 mm de profundidad y que produce una cauterización química por su capacidad de impregnación, desvitalización y fijación de las células quísticas.²³⁻²⁶ Cada 100 ml contiene 60 ml de etanol absoluto, 30 ml de cloroformo, 10 ml de ácido acético glacial y 1 mg de ácido fénico glacial.

Caso clínico

Un paciente de 10 años de edad, de sexo masculino, fue derivado por su odontólogo a la Cátedra de Odontología Integral Niños de la Facultad de Odontología de la Universidad de Buenos Aires. Un año y medio antes, el niño había realizado una consulta por la no erupción de la pieza 4.3 y le solicitaron una radiografía panorámica (fig. 1). En el momen-

to de la consulta, se le indicó una nueva radiografía panorámica.

Luego de la firma del consentimiento y asentimiento informado, se confeccionó la historia clínica. Se realizó una interconsulta con el pediatra para descartar su vinculación con el síndrome de Gorlin, tras lo cual se resolvió que los QO pertenecían a la forma no sindrómica.

Examen clínico intrabucal: presentaba dos aumentos de volumen asintomáticos en maxilar inferior, en las regiones de las piezas 4.3 y 3.8; ambos recubiertos por mucosa normal, indoloros a la palpación y con resiliencia a la presión digital en la zona retromolar.

Examen radiográfico: se observaron dos lesiones radiolúcidas, una unilocular en la zona mentoniana que englobaba la corona del 4.3, retenido horizontalmente, y desplazamiento de piezas dentarias vecinas; la segunda, en zona retromolar izquierda, involucraba parcialmente la corona en formación del 3.8. (fig. 2). Para completar el diagnóstico por imágenes se solicitó tomografía axial computada (TAC) de maxilar inferior, que confirmó la presencia de ambas lesiones,



Figura 1. Radiografía panorámica proporcionada por el paciente el día de la primera consulta.



Figura 2. Radiografía panorámica en la que se observan los dos QO.

su tamaño y su relación con zonas anatómicas vecinas (figs. 3 y 4).

Se realizó la toma de material de ambas lesiones para su estudio anatomopatológico, cuyos resultados fueron los siguientes:

Biopsia 1 (zona retromolar). Examen macroscópico: dos fragmentos de tejido blando de aspecto membranoso, de $1 \times 0,5 \times 0,2$ cm y $1,5 \times 0,6 \times 0,4$ cm, con superficies anfractuosas blanquecinas y consistencia elástica al corte. Diagnóstico: el cuadro histopatológico corresponde a un tumor odontogénico queratoquístico (es decir, QO) con lesiones satélites intramurales.

Biopsia 2 (zona mentoniana). Diagnóstico: el cuadro histopatológico corresponde a un tumor odontogénico queratoquístico (un QO) con lesiones satélites intramurales focalizadas.

Tratamiento: tras la psicoprofilaxis y la evaluación prequirúrgica del paciente, se realizó la extirpación quirúrgica del QO en la zona retromolar izquierda, con anestesia troncular e infiltrativa, incisión, colgajo, remoción de tejido óseo con instrumental rotatorio y lavajes con solución fisiológica, curetaje de la cavidad y extracción del germen del 3.8. Se complementó topicando la superficie de la cavidad con solución de Carnoy durante 5 minutos, se lavó con abundante solución fisiológica para evitar efectos tóxicos y se suturó. Se remitió el material para su estudio anatomopatológico.

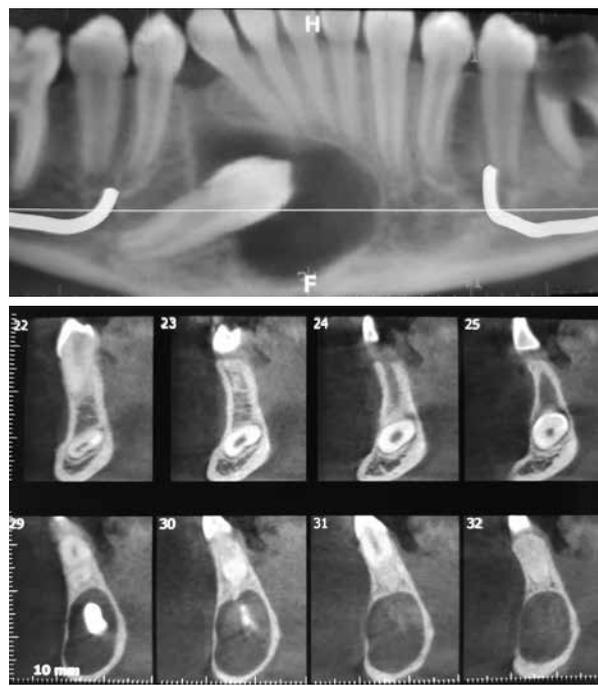


Figura 3. Tomografía axial computada de QO que involucra la pieza 4.3.

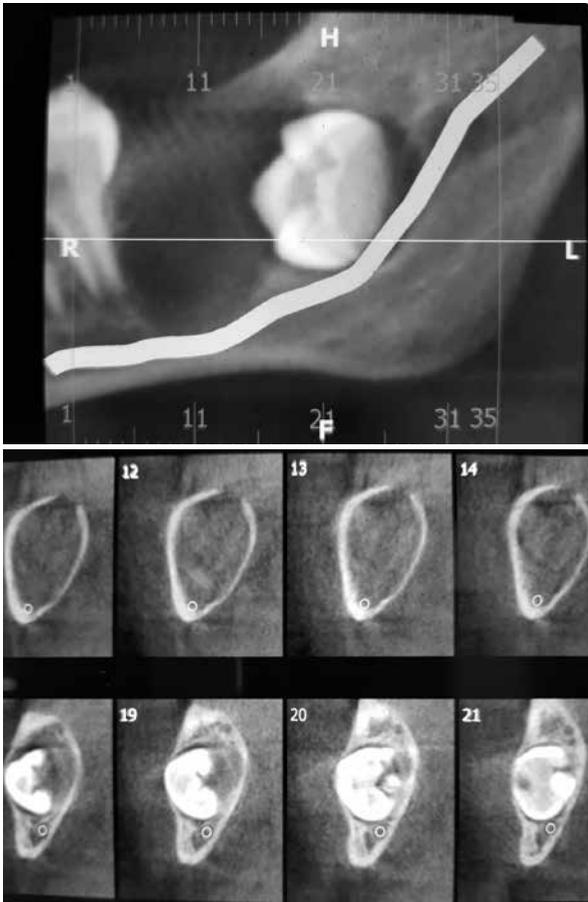


Figura 4. Tomografía axial computada de QO en zona 3.8.

Examen macroscópico: pieza dentaria 3.8 y múltiples fragmentos de tejido blando, de consistencia elástica al corte. El mayor de ellos medía $0,5 \times 0,4$ cm, y los restantes, agrupados, 0,8 cm de diámetro.

Diagnóstico: el cuadro histopatológico confirmó el diagnóstico de la muestra biopsia previamente analizada.

A los 2 meses, se realizó la cirugía de la zona mentoniana con el siguiente procedimiento: anestesia infiltrativa, incisión en fondo de surco de 4.3 a 3.3, colgajo mucoperióstico, osteotomía con instrumental rotatorio, enucleación del quiste y de la pieza 4.3 retenida, lavajes con solución fisiológica, topicación con solución de Carnoy con idéntico procedimiento que en la cirugía anterior y sutura. El material extraído fue remitido para su análisis anatomopatológico (fig. 5).

El motivo por el cual se difiere la segunda intervención es que se trata de un paciente de 10 años que requiere un tiempo de recuperación emocional y psicológica. En los niños, esto debe ser considerado al evaluar riesgos y beneficios de los tratamientos quirúrgicos.

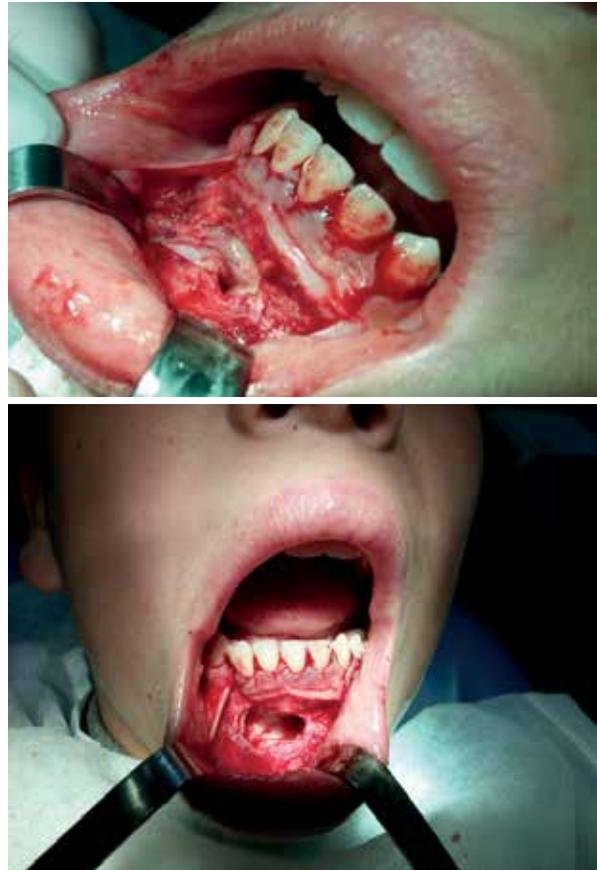


Figura 5. Enucleación del QO y exodoncia de la pieza 4.3.

Examen macroscópico: pieza dentaria 4.3 indemne con adherencias de tejido blando en el límite amelocementario, de $2,5 \times 0,4$ cm, con superficie anfractuosa blanco pardusca y consistencia elástica al corte.

Diagnóstico: el cuadro histopatológico corresponde a un tumor odontogénico queratoquístico (O QO) con lesiones satélites intramurales focalizadas.

En ambos casos se realizó un control clínico posquirúrgico inmediato y otros clínico-radiográficos mediatos periódicos a los 6, 12, 18 y 24 meses (figs. 6-9), sin evidencia de recurrencia.

Discusión

El QO se describe como un quiste odontogénico de desarrollo benigno, con una prevalencia relativamente baja en niños, que surge de los remanentes de la lámina dental, localmente agresivo y altamente recurrente.¹⁸ En la mayoría de los casos, se evidencia mediante radiografías panorámicas en controles de rutina.⁹ En odontopediatría, la radiografía panorámica se sugiere de manera sistemática alrededor de los 6 años de edad, momento que coincide habitualmente con el inicio del recambio dentario.



Figura 6. Control radiográfico a los 6 meses.



Figura 8. Control radiográfico a los 18 meses.



Figura 7. Control radiográfico a los 12 meses.



Figura 9. Control radiográfico a los 24 meses, sin evidencia de recurrencia.

El tratamiento, particularmente en niños, sigue siendo un tema de debate entre cirujanos y patólogos. La decisión depende de múltiples factores, como edad, tamaño, ubicación, compromiso de estructuras anatómicas vecinas, evidencia radiográfica de destrucción cortical y variedad histológica.²² Se recomienda evitar abordajes agresivos y mutilantes que ocasionen deformidades por grandes pérdidas óseas y provoquen daños psicosociales graves, especialmente en adolescentes.

En pacientes jóvenes con grandes y/o numerosas lesiones quísticas que involucren estructuras óseas y dentarias en formación, se prefiere la modalidad de tratamiento más conservadora, con el propósito de preservar la integridad del hueso, la función neuromuscular y la estructura psíquica.²⁷ Además, recientes avances en la comprensión de las características biológicas proporcionan una mayor evidencia de los beneficios del tratamiento conservador.

Debido a que, histopatológicamente, presenta una pared delgada y friable que a menudo es difícil de enuclear del hueso y posee quistes satelitales dentro de la fibrosa pared, se introdujeron múltiples abordajes quirúrgicos, que incluyen descompresión, mar-

supialización, enucleación con o sin complemento (solución de Carnoy) y resección.^{5,21,28}

Trabajos publicados han demostrado que el enfoque quirúrgico conservador más la aplicación de solución de Carnoy arrojaron resultados favorables en pacientes pediátricos, preservando estructuras vitales adyacentes, evitando complicaciones posoperatorias y considerando la baja morbilidad.^{18,29,30}

Por lo tanto, el tratamiento de elección en esta situación clínica fue la enucleación simple conservadora, combinada con el uso de coadyuvantes como la solución de Carnoy, con el fin de disminuir o evitar la recurrencia y los posibles quistes satélites en los límites óseos.

Debido a su naturaleza destructiva, se alerta a los odontólogos y cirujanos de niños sobre la presentación tardía del QO en pacientes en crecimiento y desarrollo. Con respecto a la alta tasa de recurrencia, requiere una consideración quirúrgica especial y un seguimiento posoperatorio cada 6 meses, durante 5 años.²²

Conclusión

Si bien el QO no se presenta como una lesión quística muy frecuente en niños, su naturaleza agresiva y

la alta recurrencia hacen fundamental el diagnóstico temprano por medio de radiografías panorámicas. El tratamiento quirúrgico conservador y el seguimiento a distancia disminuyen el riesgo de recurrencia y la morbilidad. Si bien elegir el tratamiento más apropiado es difícil, es prioritario reducir –tanto como sea posible– las complicaciones en los pacientes en crecimiento.

Referencias

- Meghanand TN, Anjali S, Abhishek S, Rohit S. Odontogenic keratocyst. What is in the name? *J Nat Sci Biol Med* 2013;4:282-5.
- Suluk-Tekkesin M, Wright J M. The word health organization classification of odontogenic lesions: A summary of the changes of the 2017, 4th ed., *Turkish Journal of Pathology* 2018;34.
- Pavelic B, Levanat S, Crnić I, Kobler P, Anić I, Manojlović S, et al. PTCH gene altered in dentigerous cysts. *J Oral Pathol Med* 2001;30:569-76.
- Wakolbinger R, Beck-Mannagetta J. Long-term results after treatment of extensive odontogenic cysts of the jaws: A review. *Clin Oral Investig* 2016;20:15-22.
- Pogrel MA, Jordan RC. Marsupialization as a definitive treatment for the odontogenic keratocyst. *J Oral Maxillofac Surg* 2004;62:651-5.
- Martin L, Speight PM. Odontogenic cysts. *Diagnostic Histopathology* 2015;21:359-69.
- Regezzi JA, Sciubba JJ, Jordan RCK. *Oral pathology. Clinical pathologic correlations*, 5th ed., Filadelfia, Elsevier Saunders, 2008;245.
- Cadena AJL, Muñoz LG, Tapia PDC, Flores TA, Orozco JME. Queratoquiste odontogénico. Revisión de 20 años en la Unidad Médica de Alta Especialidad, Hospital de Especialidades CMN “La Raza” IMSS 1980-2000. *Rev Mex Cir Bucal Max* 2010;6:4-13.
- Grasmuck EA, Nelson BL. Keratocystic odontogenic tumor. *Head Neck Pathol* 2010;4:94-6.
- Thiers LC, Sotomayor CC, Peters FI, Lantaño PC, Thiers LS. Prevalencia de tumores odontogénicos en el Hospital Base Valdivia: período 1989-2008. *Av Odontostomatol* 2013;29.
- Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. World Health Organization Classification of Tumours - Pathology & Genetics, Head and Neck Tumours. *IARC*, 2005.
- González-Alva P, Tanaka A, Oku Y, Yoshizawa D, Itoh S, Sakashita H, et al. Keratocystic odontogenic tumor: a retrospective study of 183 cases. *J Oral Sci* 2008;50:205-12.
- Leite TC, Meirelles V Jr., Janini M. Odontogenic keratocystic tumor. A clinical and histopathologic retrospective study based on the new WHO classification. *Int J Odontostomat* 2011;5:227-34.
- Boffano P, Ruga E, Gallesio C. Keratocystic odontogenic tumor (odontogenic keratocyst): preliminary retrospective review of epidemiologic, clinical, and radiologic features of 261 lesions from University of Turin. *J Oral Maxillofac Surg* 2010;68:2994-9.
- Gorlin RJ. Nevroid basal-cell carcinoma syndrome. *Medicine (Baltimore)* 1987;66:98-113.
- Santos AMB, Yurgel LS. Ceratocisto odontogênico: avaliação das variantes histológicas paracerasinizada e ortoceratinizada. *Rev Odonto Ciência* 1999;14:61-86.
- Souza LB, Albuquerque R, Barboza C, Gurgel B. Estudo clinicopatológico e análise histoquímica da membrana basal de ceratocistos odontogênico. *R Saúde* 1998;12:27-35.
- Singh M, Gupta K. Surgical treatment of odontogenic keratocyst by enucleation. *Contemp Clin Dent* 2010;1:263-67.
- Warburton G, Shihabi A, Ord R. Keratocystic odontogenic tumor (KCOT/OKC). Clinical guidelines for resection. *J Maxillofac Oral Surg* 2015;14:558-64.
- Kaczmarzyk T, Mojsa I, Stypulkowska J. A Systematic review of the recurrence rate for keratocystic odontogenic tumour in relation to treatment modalities. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2012;41:756-67.
- Walid AA. Surgical treatment of keratocystic odontogenic tumour. A review article. *Saudi Dent J* 2011;23:61-5.
- Kamil AH, Tarakji B. Odontogenic keratocyst in children. A review. *Open Dent J* 2016;10:117-23.
- Giuliani M, Grossi GB, Lajolo C, Bisceglia M, Herb KE. Conservative management of a large odontogenic keratocyst: report of a case and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 2006;64:308-16.
- Zhou H, Hou R, Ma Q, Wu K, Ding Y, Qin R, et al. Secondary healing after removal of large keratocystic odontogenic tumor in the mandible: enucleation followed by open packing of iodoform gauze. *J Oral Maxillofac Surg* 2012;70:1523-30.
- Güler N, Sençift K, Demirkol O. Clinical study. Conservative management of keratocystic odontogenic tumors of jaws. *Science World J* 2012;680397.
- Hellstein J, Hopkins T, Morgan T. The history and mystery of Carnoy's solution: an assessment of the need for chloroform. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2007;103:24.
- Maurette PE, Jorge J, De Moraes M. Conservative treatment protocol of odontogenic keratocyst: a preliminary study. *J Oral Maxillofac Surg* 2006;64:379-83.
- Stoelinga PJ. The treatment of odontogenic keratocysts by excision of the overlying, attached mucosa, enucleation, and treatment of the bony defect with Carnoy solution. *J Oral Maxillofac Surg* 2005;63:1662-6.
- Kumar V. Conservative surgical approach to aggressive benign odontogenic neoplasm: a report of three cases. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 2015;41:37-42.
- Chaudhary S, Sinha A, Barua P, Mallikarjuna R. Keratocystic odontogenic tumour (KCOT) misdiagnosed as a dentigerous cyst. *Journal List BMJ Case Rep* 2013;2012008741.

Contacto:

EDUARDO JOSÉ BAVA
 eduardobava@hotmail.com
 México 4248 (C1223ACJ)

Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina