

Reporte de caso



Acta de Otorrinolaringología & Cirugía de Cabeza y Cuello

www.revista.acorl.org



Reporte de caso

Tumor odontogénico epitelial calcificante maxilar (tumor de Pindborg): Tratamiento conservador, reporte de caso. Maxillary calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg tumor): Conservative treatment, a case report.

Zaki Antonio Taissoun-Aslan*, Juan Fernando Muñoz-Tamayo**

* Departamento de cabeza y cuello, Instituto de Cancerología de Medellín-Colombia. Profesor de postgrado Otorrinolaringología, Universidad de Antioquia

** Departamento de Otorrinolaringología, Hospital Universitario Clínica San Rafael, Universidad Militar Nueva Granada.

Forma de citar: Taissoun-Aslan ZA, Muñoz-Tamayo JF. Tumor odontogénico epitelial calcificante maxilar (tumor de Pindborg): Tratamiento conservador, reporte de caso. Acta otorrinolaringol. cir. cabeza cuello. 2017;45(2): 122-126.

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido: 29 de noviembre de 2016

Evaluado: 1 de mayo de 2017

Aceptado: 25 de mayo de 2017

Palabras clave (DeCS):

Neoplasias Maxilares, Tumores Odontogénicos.

Key words (MeSH):

Paraganglioma, larynx, Head and Neck Neoplasms.

RESUMEN

El tumor odontogénico epitelial calcificante (TOEC) es poco común y corresponde a menos 1% de los tumores odontogénicos. Desde su descripción por Pindborg en 1958 es considerado una lesión benigna y comúnmente se conoce como tumor de Pindborg. Presentamos el caso de un hombre 57 años edad con un tumor con TOEC en maxilar derecho tratado con maxilectomía parcial. Hoy en día sin recurrencia a 12 meses. De este caso se puede concluir que la cirugía conservadora, y acorde a los pocos casos reportados en la literatura; es adecuada, a menos que se encuentren factores de riesgo histopatológicos para malignidad

ABSTRACT

Calcifying epithelial odontogenic tumors (CEOT) are uncommon, accounting for less than 1% of all odontogenic tumors. The CEOT, since its description by Pindborg in 1958 is considered a benign lesion, commonly known as the Pindborg tumor. We present a male 57 year old patient with a right maxillary CEOT who was treated with partial maxillectomy. Nowadays, without recurrence at 12 months. From this case we can conclude that such conservative surgery, according to few cases reported in the literature; is adequate, unless histopathologic risk factors were found for malignancy.

Correspondencia:

Zaki Antonio Taissoun Aslan.

Instituto de Cancerología de Medellín - Las Americas.

ztaissoun@hotmail.com / info@doctorzaki.com

Introducción

El tumor odontogénico epitelial calcificante (CEOT), clasificado por la OMS en el año 2005, dentro de los tumores del epitelio odontogénico con estroma fibroso maduro sin ectomesenquima odontogénico, tuvo su primera descripción por el patólogo holandés Jens Jorgen Pindborg en 1955, al reportar tres casos benignos con un comportamiento local agresivo (1).

Epidemiológicamente, corresponde al 0.8-1% de los tumores odontogénicos, en pacientes entre 8-60 años, con media de aparición a los 40 años, sin predilección en género (2,3). En Colombia sin reportes publicados. Clínicamente de ubicación interósea, la más común, y extra ósea, con predilección en mandíbula rama posterior, media y anterior. Puede existir compromiso en el maxilar, aunque son pocos los reportes de la literatura. Las características clínicas más comunes son las de una masa indolora de crecimiento lento que puede causar deformidad y epistaxis cuando se invade el hueso maxilar (2,3,4).

Los tratamientos descritos por la literatura pueden ser enucleación o curetaje, resecciones amplias como procedimientos conservadores y resecciones más extensas como la hemimandibulectomía, maxilectomía, con o sin reconstrucción (5).

Por lo anterior y la baja frecuencia en (CEOT) maxilares, presentamos un caso clínico, de nuestra experiencia.

Caso clínico

Paciente 57 años quien presenta masa indolora con deformidad del paladar duro, con caída progresiva de piezas dentales de siete años de evolución. (Figura 1) Antecedentes patológicos de hipertensión arterial e hipotiroidismo.

El examen físico: masa de 4x4 cms en cavidad oral que deforma el paladar duro, puente alveolar superior derecho y pared lateral del hueso maxilar con apariencia expansiva sin destruirlo (Figura 1).



Figura 1. Tumor preoperatorio.

Los rayos X panorámicos, evidencian una lesión mixta de tipo radio lucido-radiopaco de bordes bien definidos en maxilar derecho con un centro tumoral compatible con calcificaciones. Así como abombamiento de los huesos sin destrucción de la cortical.

Tomografía de cráneo y macizo facial en fase ósea muestra masa de 38x21x29mm hipodensa con hiperdensidad interna compatible con calcificación, que se extiende desde el puente alveolar superior derecho y parte del paladar duro derecho. En otros cortes se observa proyección hacia el seno maxilar derecho con bordes irregulares sin afectar el mismo. Biopsia fuera de la institución reporta tumor odontogénico epitelial calcificante o tumor de Pindborg, corroborada por nuestros patólogos (Figura 2).

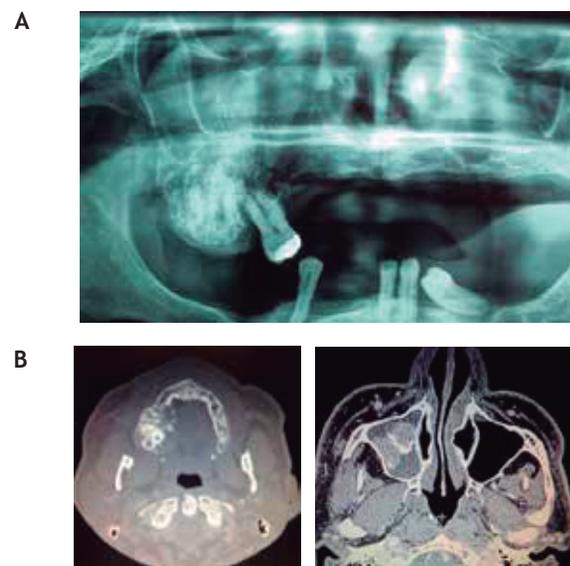


Figura 2. A) Rayos X Panorámico y B) Cortes axiales Tomografía senos paranasales y Macizo facial.

Tras la evaluación de los datos clínicos, radiológicos, y patológicos, se planteo en nuestro servicio de Cabeza y cuello realizar una maxilectomía parcial derecha que involucra resección de paladar duro, puente alveolar superior derecho respetando las paredes del seno maxilar debido a no presentar invasión. Los hallazgos transoperatorios muestran un tumor de 3x4 cm que compromete región dentoalveolar derecha, paladar duro y ocupa todo seno maxilar ipsilateral sin invadirlo, respetando el paladar blando. El cual luego resección completa se procede a colocación de obturador temporal.

Reporte histopatológico muestra un espécimen de 4,5x3,5x2,5cm de tipo óseo con superficie color pardo con pieza dental incluida (Figura 3). La descripción Microscópica, tumor de tamaño intermedio citoplasma eosinófilo, con núcleos de tamaño variable, algunos grandes e inclusiones intranucleares, estas se disponen en grupos y sábanas que rodean espacios con material amorfo eosinófilo que recuerda amiloide. Sin necrosis, atipias o mitosis. Conclusión: Tumor odontogénico epitelial calcificante (Figura 4).

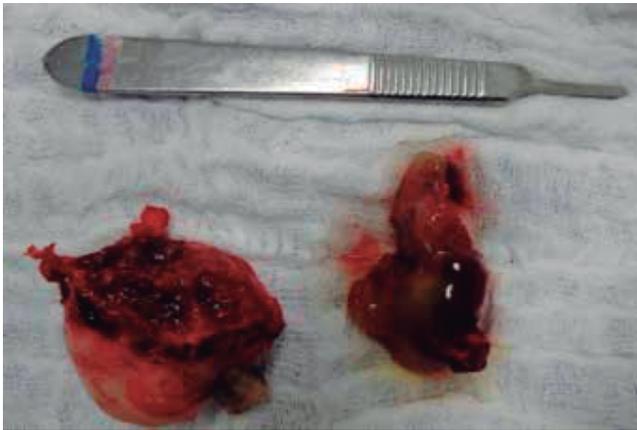


Figura 3. Espécimen Quirúrgico.

Actualmente con un periodo libre de recurrencia de 12 meses, y supervivencia de 16 meses; En fase de rehabilitación con obturador definitivo, sin complicaciones para el habla o deglución ;Radiología panorámica de 12 meses después de cirugía sin recurrencias (Figura 5 a-b.).

Discusión

El CEOT es una lesión benigna de frecuencia rara que se presenta desde 0.8 -1 % 2,3, sin predilección de género

(1:1) 6, Philipsen H et al , menciona que la edad de aparición podría ser variable entre los tumores intraoseos y extraoseos, con rangos de 8-92 años (media 38.9), 12-64 años (media 34.4) respectivamente (2). Los tumores intraoseos también llamados (centrales) dominan la frecuencia en 95% afectando la mandíbula en relación a la maxila 2:1, seguido de los tumores extraoseos o (periféricos) 5%, estos tumores presentan dientes impactados o no erupcionados en un 52% (2,7,8).

Los criterios histológicos reportados por diferentes autores, mencionan al CEOT con capas epiteliales poliédricas, bien definidos acompañados en alta frecuencia de puentes intercelulares, la célula presenta un núcleo y nucléolo que son a menudo prominentes, adicional una característica celular resaltante de estos tumores son las áreas circulares con sustancia homogénea que asemeja al materia amiloide, característicamente denotada en la tinción rojo Congo, y la calcificación denotada microscópicamente en forma de anillo concéntricos de Liesegang patognomonicos de estos tumores (7-12), con similitud en nuestro caso reportado.

Los CEOT aun se consideran controversiales en su patogenia, algunos consideran que deriva del epitelio oral como describió Pindborg en su estudio, asociándolos a que la mayoría de los casos son relacionados a dientes impactados o no erupcionados . Sucesivamente ,también se menciona otra teoría que proviene del epitelio reducido en el esmalte dental, mencionada por Chaudhry et al, haciendo énfasis en que

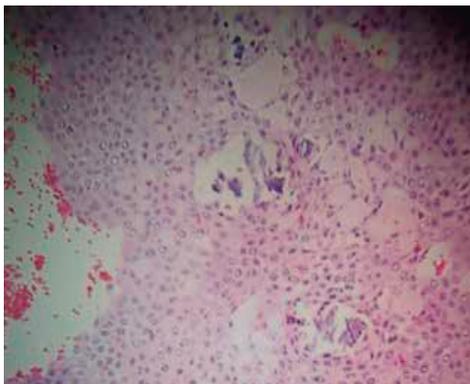


Figura 4. Compromiso tumoral en maxilar (H-E a 100X) celularidad con citoplasma eosinófilo, núcleos de tamaño variable, algunos grandes e inclusiones intranucleares que se disponen en grupos y sábanas con abundante material amorfo eosinófilo..

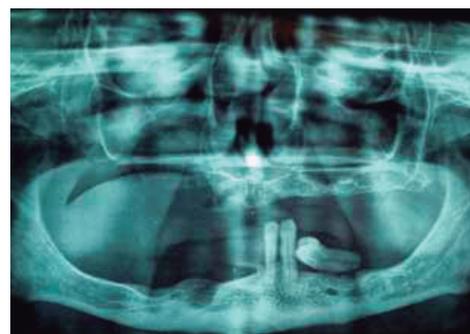
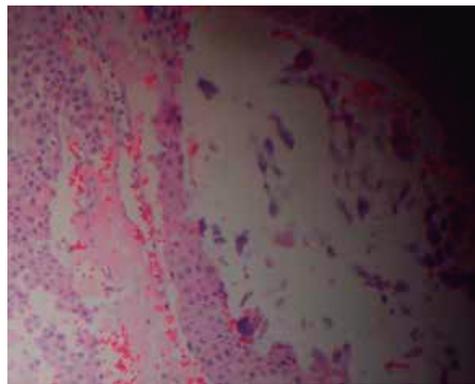


Figura 5. A). Doce (12) meses posquirúrgico sin obturador definitivo, sin recurrencias. B) Radiología panorámica sin datos de enfermedad recurrente con ausencia de paladar duro y puente alveolar derecho.

el tumor presenta células epiteliales de origen escamoso con alta actividad de la fosfatasa alcalina y adenosina trifosfato, categóricamente encontrados en sus casos que también presentaban piezas dentales impactadas, relacionando estrechamente que estos tumores son un producto de ambas teorías (9,13-17). En los subsiguientes reportes de casos con tumores intraoseos sin asociación a dientes impactados o no erupcionados, además de variantes extraoseas, demuestran que otras teorías podrían existir y explicar la aparición del CEOT, Entre unas, la que surgen de los restos de la lamina dental o de células basales del epitelio oral (18,19).

Su evolución clínica con masa indolora de crecimiento lento de varios años, movilidad de las piezas dentales, deformidad de el puente alveolar y paladar duro sin destruirlo, muy parecido a lo descrito. Adicionalmente, se mencionan expansión de las placas corticales, congestión nasal cuando hay afección importante del maxilar, cefalea, y en casos más agresivos invasión maxilar extensa con destrucción osea, proptosis ocular por invasión de la fosa craneal media son afortunadamente de menor frecuencia (2,7,20).

Los hallazgos radiológicos muestran múltiples apariencias, radiolucidez pericoronal, radiolucidez pericoronal con radiopacidades pequeñas, lesión mixta con radiolucidez-radiopacidad no asociada a diente no erupcionado y una apariencia final descrita como "falling-snow"(21); morfológicamente Kaplan et al, describe una apariencia uniloculada (58%), multiloculada (27%), no loculada (15%)(22), importantes para delimitar una lesión.

Tomando en cuenta las características clínicas como el tamaño, sitio anatómico, Karfnosky, expresa la necesidad de reconstrucciones inmediatas o difereridas que permiten una planificación quirúrgica adecuada (23,24). Las opciones quirúrgicas deben ser individualmente analizadas con base a lo antes expuesto, diferentes procedimientos podrán ser opciones adecuadas como la enucleación, curetaje, resecciones amplias con osteotomías, incluyendo procedimientos extensos que involucran tejidos mixtos de gran volumen con reconstrucción, siendo estos más agresivos por estar cercanos a estructuras vitales. Sin embargo, consideramos en nuestro caso que la opción ideal fue la cirugía conservadora con resección mínima del paladar y puente alveolar con control macroscópicos de los márgenes quirúrgicos, al evaluar que no se presentan factores de riesgo para la recurrencia como las atipias celulares, alta tasa mitótica, concentración amiloidea mínima, células claras agregando mayor agresividad, focos de calcificación (25). Es difícil inferir que estos factores de riesgo descritos con tasas de recurrencias tumorales de 14-22% (7,26), sean o no cercanos a la realidad debido a los pocos casos reportados valiendo de importancia vital a experiencia de cada institución en manejos de estos tumores, a pesar de que estas recurrencias pueden presentarse en cualquier momento, incluso en décadas después del tratamiento inicial (2).

En conclusión, el tratamiento estándar de estos tumores es la resección quirúrgica conservadora o radical, dependiendo de los hallazgos clínicos, radiológicos e histológico, así

como factores dependientes del paciente para recibir un tratamiento. Aun así sobre estos tumores muchas controversias no han sido respondidas; motivo por el cual nuestro servicio de cabeza y cuello individualizamos cada caso teniendo como base a todos los factores mencionados para definir una estrategia terapéutica.

Conflicto de Interés

Los autores declaran no tener conflicto de interés.

REFERENCIAS

1. Pindborg JJ. The calcifying epithelial odontogenic tumor: review of literature and report of an extraosseous case. *Acta Odontol Scand.* 1966;24:419-430.
2. Philipsen HP, Reichart PA. Calcifying epithelial odontogenic tumour: biological profile based on 181 cases from the literature. *Oral Oncol.* 2000;36:17-26.
3. Mosqueda-Taylor A, Ledesma-Montes C, Caballero-Sandoval S, Portilla-Robertson J, Ruíz-Godoy Rivera LM, Meneses-García A. Odontogenic tumors in Mexico: A collaborative retrospective study of 349 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1997;84(6):672-675.
4. Servato JP, Prieto-Oliveira P, de Faria PR, Loyola AM, Cardoso SV. Odontogenic tumours: 240 cases diagnosed over 31 years at a Brazilian university and a review of international literature. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2013;42(2):288-93.
5. Lee CY, Mohammadi H, Mostofi R, Habibi A. Calcifying epithelial odontogenic tumor of the maxillary sinus. *J Oral Maxillofac Surg.* 1992;50(12):1326-1328.
6. Lin J, Bianchi M, Popnikolov NK, Abaza NA. Calcifying epithelial odontogenic tumor: case report with immunohistochemical and ultra-structural study and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 2013;71(2):278-289.
7. Franklin CD, Pindborg JJ. The calcifying epithelial odontogenic tumor: a review and analysis of 113 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1976;42(6):753-765.
8. Pindborg JJ. A calcifying odontogenic tumor. *Cancer.* 1958;11(4):838-843.
9. Bingham RA, Adrian JC. Combined epithelial odontogenic tumor-adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg.* 1986;44(7):574-577
10. Nelson SR, Schow SR, Read LA, Svane TJ. Treatment of an extensive calcifying epithelial odontogenic tumor of the mandible. *J Oral Maxillofac Surg* 1992;50(10):1126-1131.
11. Leipzig B, Yau PC. Pindborg tumor of the mandible. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1982;90(1):69-74.
12. Asano M, Takahashi T, Kusama K, Iwase T, Hori M, Yamanoi H, et al. A variant of calcifying epithelial odontogenic tumor with Langerhans cells. *J Oral Pathol Med.* 1990;19(9):430-434.
13. Basu MK, Matthews JB, Sear AJ, Browne RM. Calcifying epithelial odontogenic tumor: a case showing features of malignancy. *J Oral Pathol* 1984;13(3):310-319.
14. Siar CH, Ng KH. The combined epithelial odontogenic tumor in Malaysians. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 1991;29(2):106-109.

15. Ismail IM, Al-Talabani NG. Calcifying epithelial odontogenic tumor associated with dentigerous cyst. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 1986;15(1):108-111.
16. Ficarra G, Hansen LS, Stiesmeyer EH. Intramural calcifying epithelial odontogenic tumor. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 1987;16(2):217-221.
17. Chaudhry AP, Holte NO, Vickers RA. Calcifying epithelial odontogenic tumor. Report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1962;15:843-8.
18. Wertheimer FW, Zielinski RJ, Wesley RK. Extrasosseous calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg tumor). *Int J Oral Surg.* 1977;6(5):266-9.
19. Takeda Y, Suzuki A, Sekiyama S. Peripheral calcifying epithelial odontogenic tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1983;56(1):71-75.
20. Houston GD, Fowler CB. Extrasosseous calcifying epithelial odontogenic tumor. Report of two cases and review of literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1997;83(5):577-583.
21. Khoo SP, Jalil N, Yaacob HB. Caclifying epithelial odontogenic tumour – Case report and review of the literature. *Annals Dent Univ Malaya.* 1997;4:45-47.
22. Kaplan I, Buchner A, Calderon S, Kaffee I. Radiological and clinical features of calcifying epithelial odontogenic tumor. *Dentomaxillofac Radiol.* 2001;30(1):22–28.
23. Bridle C, Visram K, Piper K, Ali N. Maxillary calcifying epithelial odontogenic (Pindborg) tumor presenting with abnormal eye signs. Case report and literature review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2006;102(4):e12-e15
24. Sahni P, Nayak MT, Singhvi A, Sharma J. Clear cell calcifying epithelial odontogenic (Pindborg) tumor involving the maxillary sinus: A case report and review of literature. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2012;16(3):454-459.
25. Sadeghi EM, Hopper TL. Calcifying epithelial odontogenic tumor. *J Oral Maxillofac Surg.* 1982;40(4):225-229.
26. Hicks MJ, Flaitz CM, Wong ME, McDaniel RK, Cagle PT. Clear cell variant of calcifying epithelial odontogenic tumor: Case report and review of the literature. *Head Neck.* 1994;16(3):272-277.