

Manifestación periodontal de histiocitosis de células de Langerhans en un hombre joven: presentación de un caso con 24 meses de seguimiento

Filip Klein, Dr. med. dent.^a, Diana Krigar, Dr. med. dent.^b, Detlev Petzoldt, Prof. Dr. med.^c, y Peter Eickholz, Prof. Dr. med. dent.^d

Un varón de 25 años que presentaba lesiones cutáneas de histiocitosis de células de Langerhans (HCL) fue remitido para recibir tratamiento periodontal debido a lesiones periodontales bilaterales ulceradas intensamente inflamadas en el área de los segundos premolares y primeros molares inferiores. En el lado izquierdo, se observaba una importante pérdida de hueso. El tratamiento antibiótico y el tratamiento quirúrgico periodontal consiguieron una significativa reducción de la profundidad de sondaje de la bolsa y ganancia de adhesión clínica que se mantuvieron hasta 24 meses después de la cirugía. Durante la cirugía periodontal se tomaron biopsias. La tinción inmunohistoquímica reveló que las lesiones periodontales eran manifestaciones periodontales poco frecuentes de HCL. Se revisa la literatura y métodos de tratamiento de las manifestaciones orales de la HCL.

(*Quintessence Int.* 2006;37(3):175-82)

Las células dendríticas de Langerhans se encuentran localizadas en las capas suprabasales de la epidermis y del epitelio oral. Estas células provienen de las células de la médula ósea y forman parte del sistema reticuloendotelial. Su principal función es la presentación de antígenos, pero podrían también jugar un papel en el proceso de queratinización^{1,2}. La histiocitosis de células de Langerhans (HCL) es un proceso reactivo proliferativo. Trabajos recientes sugieren que podría tratarse de una enfermedad clonal³⁻⁵. Se conoce muy poco sobre la etiología de esta rara enfermedad (prevalencia 1:50.000). La causa podría encontrarse bien en un proceso reactivo o en una alteración de la respuesta del sistema inmunitario^{2,6}. Su manifestación suele tener lugar normalmente antes de los 30 años de edad, aunque también se han reseñado presentaciones más tardías de HCL^{7,8}. Los hombres se ven más afectados que las mujeres (4,7:1). Las manifestaciones intraorales de HCL son un hallazgo frecuente, y las lesiones con frecuencia se presentan en la región molar de la mandíbula⁹⁻¹¹. Se conocen tres formas clínicas diferentes, el anteriormente llamado granuloma eosinofílico, la enfermedad de Letterer-Siwe, y el síndrome de Hand-Schuller-Christian. Lichtenstein en vista de los similares rasgos clínicos e histopatológicos, así como de la etiología y patogénesis desconocida, introdujo el término de *histiocitosis X* para designar a este grupo de enfermedades¹².

Con frecuencia es imposible establecer una diferenciación detallada de los tres tipos debido a la enorme variabilidad de los hallazgos clínicos. Además, también es posible la transición de un tipo a otro. Hoy en día, la enfermedad se denomina histiocitosis de células de Langerhans^{13,14} (clases I a III). El diagnóstico se confirma histológicamente e inmunohistoquímicamente por la expresión del antígeno CD1a y de la proteína S-100 de las células proliferativas de Langerhans. La prueba clave es la detección mediante el microscopio electrónico de los

^aInstructor. Sección de Periodoncia. Departamento de Odontología Conservadora. Clínica de Enfermedades Orales. Dentales y Maxilofaciales. Hospital Universitario de Heidelberg. Alemania. Práctica Privada, Frankfurt. Alemania.

^bInstructor. Sección de Periodoncia. Departamento de Odontología Conservadora. Clínica de Enfermedades Orales. Dentales y Maxilofaciales. Hospital Universitario de Heidelberg. Alemania.

^cProfesor. Departamento de Dermatología. Hospital Universitario de Heidelberg. Heidelberg. Alemania.

^dProfesor. Sección de Periodoncia. Departamento de Odontología Conservadora. Clínica de Enfermedades Orales. Dentales y Maxilofaciales. Hospital Universitario de Heidelberg. Alemania.

Correspondencia: Prof. Dr. Peter Eickholz. Sektion Parodontologie. Poliklinik für Zahnerhaltungskunde. Klinik für Mund-, Zahn- und Kieferkrankheiten. Universitäts-klinik Heidelberg. Im Neuenheimer Feld 400, D-69115 Heidelberg. Alemania.

Correo electrónico: peter_eickholz@med.uni-heidelberg.de

la HCL se caracteriza a menudo por lesiones ulcerativas y necrotizantes^{9,10,17}. El diagnóstico diferencial debe incluir a la periodontitis aguda (PUN) y los tumores. Un hallazgo que sugiere la HCL es el enlentecimiento en la curación de una lesión. La imagen radiológica de "dientes flojos" es compatible clínicamente con el sobrecrecimiento gingival que se encuentra a menudo en los casos de mastoiditis aguda y óseas de HCL. Por ello, el diagnóstico diferencial debe incluir también a las periodontitis agudas, la celulitis, quistes odontogénicos, y neoplasias óseas mesenquimales benignas o malignas.

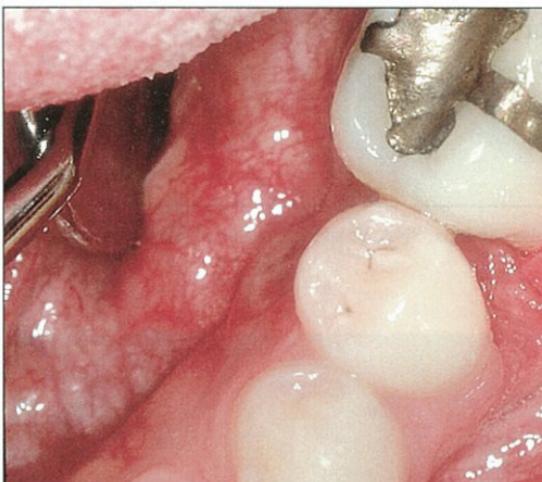
anifestación oral de una HCL pone su
aboración interdisciplinaria requerida
diagnóstico y un adecuado plan de tra-
tamiento, incluyendo la intervención

ños de edad fue remitido a la Sección del Departamento de Odontología Clínica de Enfermedades Orales, Dentales del Hospital Universitario de la siguiendo tratamiento en el Departamento de Odontología del Hospital Universitario de la que le habían diagnosticado una HCl. A pesar de haber hecho a cargo una revisión de todo el cuerpo y radiológico completo, no había reve-

y laterales superiores izquierdos y del segundo molar inferior derecho establecidos. Las profundidades de bolsa sondadas (PI) fueron de 12 mm. Todos los dientes eran positivos a la sensibilidad de dióxido de carbono a excepción del primer molar inferior derecho que había sido tratado. Ninguno de los dientes mostraba manifestación ni respuesta positiva a la radiografía panorámica (julio 2000) reveló una lesión interproximal de aproximadamente el 50% de las superficies radiculares en el segundo premolar inferior izquierdo (fig. 4a). Las radiografías de mordida adicionales detectaron múltiples caries que alcanzaban a la dentina. Las caries se han reseñado antes³¹.

Debido al diagnóstico inicial de PUD, el paciente recibió raspado supratracciones de higiene oral. Para el seguimiento diariamente durante tres días hasta que se remisó la inflamación alrededor de la inferior izquierdo. Durante el raspado se aplicó anestesia local de esta región, se tomó un impresión y se realizó un punch de tejidos blandos^{10,32}. El examen munohistológico no pudo confirmar la presencia de manifestación oral de HCL. Además, se administró un antibiótico, se trataron todas las lesiones y se realizó una restauración de dentina mediante restauración completa (fig. 4b). Cuatro semanas más tarde, se realizó una evaluación de los parámetros periodontales, la cual mostró una mejoría del segundo premolar y primer molar.

1. Lesión costrosa en cuero cabelludo.



Segundo premolar y primer molar inferiores izquierdos antes del tratamiento periodontal.



7	10	3	6	3
5	8	3	7	4
3	5	2	5	5
3	3	3	3	3
inferior izquierdo				
ar	9	11	2	6
ar	3	3	2	2
ar	3	3	2	3
ar	4	4	2	2
ar	4	5	2	4
ar	6	10	2	6

bolsa sondada; SNA-V: sondaje del nivel de adhesión vertical.



Imagen radiográfica panorámica antes del tratamiento periodontal (julio 2000).
Imagen radiográfica periapical del primer molar inferior izquierdo (julio 2000).

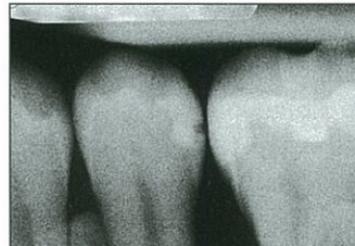
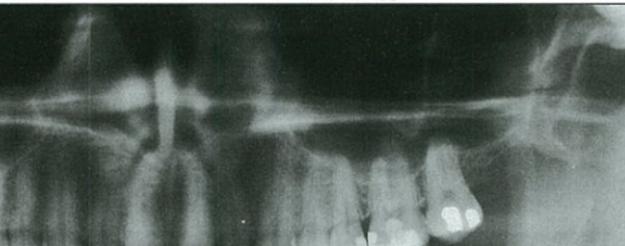


embargo, el paciente presentaba una
stable³⁴ (Registro del Control de Pla-
ivitis³⁵ (Índice de Sangrado Gingival:
había más signos orales de HCL se
ivitis debida a la placa³⁶. El paciente
instrucciones de higiene oral. La es-
sgo individual de periodontitis reveló

rior en la cara mesiovestibular del p-
ferior izquierdo que requirió desbrida-
gival.

El paciente continuó examinándose
piel cada 6 semanas en el Departamento
gía. En primavera de 2002, se llevó a c-
radiológico en busca de lesiones óseas.

do premolar y primer molar inferio-
1 meses después del tratamiento



extensa es un hallazgo raro^{7,26,38}.

iones maxilares localizadas de enfermedad de Langerhans, se recomienda un profundo raspado con la extracción de los dientes afectados. Aunque, este tratamiento parece apropiado en pacientes que presenten mucha movilidad y pérdida de soporte periodontal³². En el caso descrito, los dientes que fueron resecados no eran móviles y la pérdida de inserción era moderada. Por ello se llevó a cabo un meticuloso raspado, pulido y alisado, así como cirugía de las encías que conservaron los dientes⁴¹. El tratamiento periodontal, junto con el raspado, pulido y alisado, llevó a una significativa reducción de los espesores de la encía y de la mucosa alveolar. Se utilizaron técnicas de colgajo periodontal, que se aplicaron a las áreas interproximales afectadas y que incluyeron un profundo raspado, pulido y alisado. Se logró mantener una condición periodontal estable durante los 21 meses y 24 meses después de la cirugía.

a extracción quirúrgica de los terceros molares restantes fue normal.

ulación de placa es un estímulo para las células de Langerhans en el área de la se requiere un control de placa eficaz.

para el correcto diagnóstico. Las razones serían un tamaño inadecuado de la biopsia, la muestra de un material necrótico o molido de la úlcera. La sobreinfección de los periodontales, como en este caso, para cubrir el aspecto histológico de la HCL.

El pronóstico de la HCL, cuando se trata de una lesión intraósea solitaria, es bueno, pero cuando se ven afectados otros órganos, la probabilidad de afectación cutánea es alta. Por lo tanto, el pronóstico a largo plazo es menos favorable^{10,43,45,46}.

Agradecimientos

Queremos agradecer a Alan D. Smith, DMD, MS, Dental Corps, Heidelberg, Alemania, su valiosa contribución de este manuscrito.

Bibliografía

1. Lampert IA, Sutters AJ, Chisholm PM. Expression of epidermal keratinocytes in graft-versus-host disease. *Br J Dermatol* 1993;129:149-50.
 2. Lombardi T, Hauser C, Budtz-Jørgensen E. Histiocytosis: Structure, function and role in oral pathology. *Scand J Pathol Med* 1993;22:193-202.
 3. Willman CL, Busque L, Griffith BB, et al. Histiocytosis (Histiocytosis X) - A clonal proliferation of histiocytes. *Engl J Med* 1994;331:154-60.
 4. Yu RC, Chu C, Buluwela L, Chu AC. Clonal proliferation of histiocytes in a patient with Langerhans' cell histiocytosis. *Lancet* 1994;343:1251-2.
 5. Itoh H, Miyaguni H, Kataoka H, et al. Primary Langerhans' cell histiocytosis showing malignant phenotype in a woman: A report of a fatal case. *J Cutan Pathol* 1994;21:205-10.
 6. Pringle GA, Daley TD, Veinot JA, Wysocki J. Primary Langerhans' cell histiocytosis in a woman: A report of a fatal case. *J Cutan Pathol* 1994;21:205-10.

1. D'Amico D, Rowden GE, Gagliano JW, Ricchi JP. Classification of Langerhans' cells in human epithelia. *Am J Pathol*. 1985;115:48-54.
2. Sica P, Hosse G, Gorlin RJ. Histiocytosis X. Clinical and histologic findings with special attention to oral cavity. *Am J Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1969;27:760-71.
3. Antoni M. Eosinophilic granuloma of the mandible and periodontal tissues. A case report. *J Periodontol*. 1980;51:100-3.
4. Gers DF, Kramer RN. Recurrent histiocytosis X with oral manifestations. *Am J Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1984;54: 420-3.
5. Antoni M, Jiménez Y, Pérez A, Scully C, Antoniades G. Histiocytosis restricted to the oral mucosa. *Am J Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2001;91:76-9.
6. Wesseler A. Zur Differentialdiagnose des eosinophilen Granuloms und der Parodontitis marginalis profunda. *Dtsch Zahnärztl Z*. 1978;33:781-4.
7. Khan S, Lozada F, Kushner J. Histiocytosis X: Occult involvement in six adolescent and adult patients. *Am J Oral Pathol*. 1983;55:24-8.
8. Antoni M. Eosinophilic granuloma manifesting as a periodontal disease. *Am J Pathol*. 1985;161:66-7.
9. Antoni M. Eosinophilic granuloma of the mandible. *Am J Oral Pathol*. 1976;41:93-100.
10. Hight HD. Histiocytosis X: An oral diagnostic problem. *J Periodontol*. 1988;15:312-5.
11. Antoni M, Mombelli A, Lang NP. Diagnostic problems of periodontitis-like lesions caused by eosinophilic granuloma. *J Periodontol*. 1989;16:505-9.
12. Antoni M. Eosinophilic granuloma presenting as a chronic lateral periodontitis: A lesson in diagnosis? *Br Dent J*. 1991;170: 100-3.
13. Magnani DM, Sader S, Gómez RE. Adult onset histiocytosis X presenting as a periodontal problem. *Am J Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1991;49:417-9.
14. O'Leary TJ, Drake RB, Naylor JE. The plaque-iodontitis syndrome. *Am J Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1972;43:38.
15. Ainamo J, Bay I. Problems and proposals for the study of plaque. *Int Dent J*. 1975;25:229-35.
16. Armitage GC. Developments of a classification of dental diseases and conditions. *Ann Periodontol*. 1999;1:1-10.
17. Ramseier CA, Lang NP. Die Parodontalbetreuung: Ein Programm zur Qualitätssicherung in der Parodontologie. Berlin: Quintessenz; 1999.
18. Bottomley WK, Gabriel SA, Corio RL, Jacobsen JW. Histiocytosis X: Report of an oral soft tissue involvement. *Am J Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1980;51:100-3.
19. Young WG, Sedano HO. *Atlas of Oral Pathology*. University of Minnesota Press. 1981:143-4.
20. Fowler CB. Benign and malignant neoplasms of the periodontium. *Am J Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1999;21:33-83.
21. Laskaris G, Scully C. Periodontal manifestations of systemic diseases. Berlin: Springer. 2003:270-2.
22. Newcomb GM, Seymour GJ, Powell RN. Association between accumulation of Langerhans' cell number and gingival index of attached gingiva. *J Clin Periodontol*. 1999;26:101-6.
23. Horwarth DM, Gilchrist GS, Mullan BP, Wise JH, Schomberg PJ. Langerhans' cell histiocytosis: Clinical history, management and outcome. *Cancer*. 1988;51:161-3.
24. Richter MP, D'Angio GJ. The role of radiation in the management of children with histiocytosis X. *Am J Clin Oncol*. 1981;3:161-3.
25. Komp DM, Herson J, Starling KA, Vietti T, Hwang J. A prognostic system for histiocytosis X: A Southwest Oncology Group study. *Cancer*. 1981;47:798-800.
26. Lahey ME. Prognostic factors in histiocytosis X. *Am J Clin Oncol*. 1981;3:57-60.