

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)

^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 Heilderberg. 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

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

tales ulcerativas y necrotizantes^{9,10,17-19}. El diagnóstico diferencial debe incluir a la periodontitis crónica (PUN) y los tumores. Un hallazgo importante es el enlentecimiento en la curación de la herida. La imagen radiológica de "dientes flotantes" es típica clínicamente con el sobrecrecimiento alveolar. Se encuentra a menudo en los casos de manifestación oral de HCL. Por ello, el diagnóstico diferencial debe incluir también a las periodontitis agudas, periodontitis apical, quistes odontogénicos, y neoplasias o mesenquimales benignas o malignas.

La manifestación oral de una HCL pone su diagnóstico en la colaboración interdisciplinaria requerida entre el diagnóstico y un adecuado plan de tratamiento para el tratamiento periodontal sistemático.

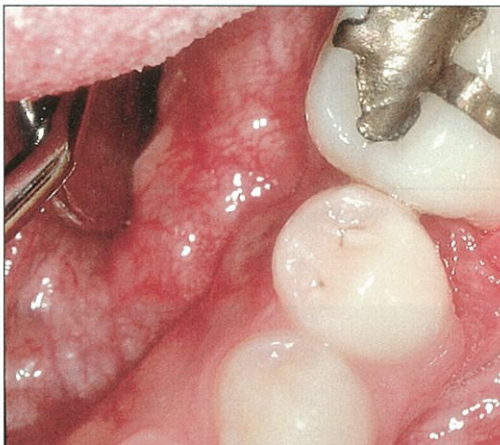
Un caso

Un paciente de 55 años de edad fue remitido a la Sección de Diagnóstico del Departamento de Odontología Clínica de Enfermedades Orales, Dentales y Maxilofaciales del Hospital Universitario de Córdoba, continuando el tratamiento en el Departamento de Periodontología del Hospital Universitario de Córdoba. Le habían diagnosticado una HCL por biopsia, pero a cargo una revisión de todo el cuerpo, y una imagen radiológica completa, no había revelado un foco de la enfermedad, a excepción de

los primeros molares inferiores derechos establecidos. Las profundidades de bolsa sondadas (PB) eran de 12 mm. Todos los dientes eran positivos para sensibilidad de dióxido de carbono a examen clínico. El primer molar inferior derecho que había sido tratado. Ninguno de los dientes mostraba manifestación de la enfermedad. Ni respuesta positiva a la prueba de radiografía panorámica (julio 2000) reveló una lesión interproximal de aproximadamente el 50% de las profundidades radicales en el segundo premolar inferior izquierdo (fig. 4a). Las radiografías de mordida adicionales detectaron múltiples lesiones de caries que alcanzaban a la dentina. Las lesiones de caries se han reseñado antes³¹.

Debido al diagnóstico inicial de PUN, se inició el tratamiento de HCL, el paciente recibió raspado supragingival y instrucciones de higiene oral. Para el seguimiento se programó diariamente durante tres días hasta que se lograra la remisión de la inflamación alrededor del primer molar inferior izquierdo. Durante el raspado supragingival y anestesia local de esta región, se tomó una muestra de tejido empleando un punch de tejidos blandos^{10,32,33}. El estudio histomorfológico no pudo confirmar la presencia de manifestación oral de HCL. Además, se administró antibiótico, se trataron todas las lesiones de caries que llegaban a dentina mediante restauración directa (fig. 4b). Cuatro semanas más tarde, se realizó la medición de los parámetros periodontales, la lesión interproximal del segundo premolar y primer molar inferiores derechos seguía inflamada, y las PBS

7. Lesión costrosa en cuero cabelludo.



Segundo premolar y primer molar inferiores izquierdos antes del tratamiento periodont



	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	5
ar	3	3	2	2	2
c	3	3	2	2	3
	4	4	2	2	2
	4	5	2	4	2
	6	10	2	6	3

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



grafía panorámica antes del tratamiento periodontal (julio 2000).

grafía periapical del primer molar inferior izquierdo (julio 2000).

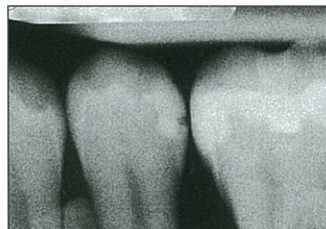


embargo, el paciente presentaba una
estable³⁴ (Registro del Control de Pla-
civitis³⁵ (Índice de Sangrado Gingival:
había más signos orales de HCL se
ivitis debida a la placa³⁶. El paciente
instrucciones de higiene oral. La es-
go individual de periodontitis reveló

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

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

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



La adherencia con una pérdida extensa es un hallazgo raro^{7,26,38}. Lesiones maxilares localizadas de enfermedad de Langerhans, se recomienda un procedimiento con la extracción de los dientes afectados. Por lo tanto, este tratamiento parece apropiado para los dientes que presenten mucha movilidad y pérdida de soporte periodontal³². En el caso descrito, los dientes afectados no eran móviles y la pérdida de soporte periodontal era limitada. Por ello se llevó a cabo un meti-pulido y alisado, así como cirugía de conservación de los dientes⁴¹. El tratamiento periodontal, junto con el raspado, pulido y alisado, produjo una significativa reducción de los depósitos de placa y de la inflamación de los tejidos periodontales de la encía y de la mucosa alveolar. Las áreas interproximales afectadas y que requerían un profundo raspado, pulido y alisado, lograron una condición periodontal estable a los 21 meses y 24 meses después de la cirugía.

La extracción quirúrgica de los terceros molares inferiores, el diente superior izquierdo que llevó a cabo la cirugía, fuera de la Clínica de Enfermedades Periodontales y Maxilofaciales, se observó un retraso en la cicatrización de las heridas de los alvéolos. La curación de las heridas de la cirugía periodontal y de la extracción de los terceros molares restantes fue normal.

La extracción de placa es un estímulo para la proliferación de células de Langerhans en el área de la lesión. Por lo tanto, el tratamiento requiere un control de placa eficaz.

La adherencia con una pérdida extensa es un hallazgo raro. Las razones para el correcto diagnóstico son: el tamaño inadecuado de la biopsia, la muestra de un material necrótico o el diagnóstico de una infección de la úlcera. La sobreinfección de los tejidos periodontales, como en este caso, puede cubrir el aspecto histológico de la HCL.

El pronóstico de la HCL, cuando se presenta como una lesión intraósea solitaria, es bueno. Sin embargo, cuando se ven afectados otros órganos, el pronóstico es peor. La afectación cutánea. Por lo tanto, el pronóstico a largo plazo es menos favorable^{10,43,45,46}.

Agradecimientos

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

Bibliografía

1. Lampert IA, Suiters AJ, Chisholm PM. Expression of keratin 1 in epidermal keratinocytes in graft-versus-host disease. *J Invest Dermatol*. 1993;101:293-149-50.
2. Lombardi T, Hauser C, Budtz-Jørgensen J. The histiocytosis of the oral cavity: Structure, function and role in oral pathology. *J Oral 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 histiocytosis in the oral cavity: Langerhans' cell histiocytosis. *Lancet*. 1994;343:1000-1001.
5. Itoh H, Miyaguni H, Kataoka H, et al. Primary intraosseous Langerhans' cell histiocytosis showing malignant phenotype in a young woman: A report of a fatal case. *J Cutan Pathol*. 1994;21:1000-1001.
6. Brinck GA, Daley TD, Veinot LA, Wussack

32. McGowan C, Sagar AV, Reese W. Identification of Langerhans' cells in human epithelium. *J Pathol*. 1985;56:48-54.

33. de Paiva P, Hosse G, Gorlin RJ. Histiocytosis X. Clinicopathologic findings with special attention to oral lesions. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1969;27:760-71.

34. Antonio M. Eosinophilic granuloma of the mandible presenting as a periodontal lesion. *J Periodontol*. 1989;60:100-103.

35. Kersner DF, Kramer RN. Recurrent histiocytosis X with oral lesions. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1984;54: 420-3.

36. de la Jara JV, Jiménez Y, Pérez A, Scully C, Antoniades GS. Histiocytosis X: A review of the disease. *Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2001;91:76-9.

37. Selzer A. Zur Differentialdiagnose des eosinophilen Granuloms und der Parodontitis marginalis profunda. *Dtsch Zahnärztl Z*. 1978;33:781-4.

38. Kersner S, Lozada F, Kushner J. Histiocytosis X: Occurrence and involvement in six adolescent and adult patients. *Oral Pathol*. 1983;55:24-8.

39. Kersner S. Eosinophilic granuloma manifesting as a periodontal lesion. *J Periodontol*. 1985;161:66-7.

40. Kersner S. Eosinophilic granuloma of the mandible. *Oral Pathol*. 1976;41:93-100.

41. Wright HD. Histiocytosis X: An oral diagnostic problem. *J Periodontol*. 1988;15:312-5.

42. Giannini K, Mombelli A, Lang NP. Diagnostic problems in periodontitis-like lesions caused by eosinophilic granuloma. *J Periodontol*. 1989;16:505-9.

43. Kersner S. Eosinophilic granuloma presenting as a chronic lateral periodontitis. *Br Dent J*. 1991;170: 100-103.

44. McGowan C, Sagar AV, Reese W. Identification of Langerhans' cells in human epithelium. *J Pathol*. 1985;56:48-54.

45. O'Leary TJ, Drake RB, Naylor JE. The plaque hypothesis in periodontal disease. *J Periodontol*. 1972;43:38.

46. Ainamo J, Bay I. Problems and proposals for standardization in clinical studies of plaque and plaque. *Int Dent J*. 1975;25:229-35.

47. Armitage GC. Developments of a classification of periodontal diseases and conditions. *Ann Periodontol*. 1999;4:1-10.

48. Ramseier CA, Lang NP. Die Parodontalbetreuung. *Parodontologie*. 1999;1:1-10.

49. Bottomley WK, Gabriel SA, Corio RL, Jacobs MA. Histiocytosis X: Report of an oral soft tissue lesion. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1981;51:100-103.

50. Young WG, Sedano HO. *Atlas of Oral Pathology*. University of Minnesota Press. 1981:143-4.

51. Fowler CB. Benign and malignant neoplasms of the oral cavity. *J Periodontol*. 1999;21:33-83.

52. Laskaris G, Scully C. Periodontal manifestations of systemic diseases. Berlin: Springer. 2003:270-2.

53. Newcomb GM, Seymour GJ, Powell RN. Association of eosinophilic granuloma with accumulation of Langerhans' cell number in the gingiva. *J Clin Periodontol*. 1991;18:100-103.

54. Horwarth DM, Gilchrist GS, Mullan BP, Wise JH, Schomberg PJ. Langerhans' cell histiocytosis: A review of the oral history, management and outcome. *Cancer*. 1991;66:100-103.

55. Richter MP, D'Angio GJ. The role of radiation therapy in the management of children with histiocytosis X. *Am J Oncol*. 1981;3:161-3.

56. Komp DM, Herson J, Starling KA, Vietti T, Herson J. A system for histiocytosis X: A Southwest Oncology Group study. *Cancer*. 1981;47:798-800.

57. Lahey ME. Prognostic factors in histiocytosis X. *Am J Pathol Oncol*. 1981;3:57-60.