

## Caso clínico

# Tratamiento conservador de tumor epitelial odontogénico calcificante asociado al canino inferior retenido: relato de caso clínico

Renato Yassutaka Faria Yaedú<sup>a</sup>, Julierme Ferreira Rocha<sup>b,\*</sup>, Eduardo Dias-Ribeiro<sup>c</sup>, Alberto Consolaro<sup>d</sup>, Vanessa Soares Lara<sup>d</sup> y Eduardo Sant'ana<sup>a</sup>

<sup>a</sup> Cirugía Oral, Departamento de Estomatología, Facultad de Odontología de Bauru-Universidad de São Paulo (FOB-USP), São Paulo, Brasil

<sup>b</sup> Cirugía Oral y Anatomía, Universidad Federal de Campina Grande (UFCG), Patos, Brasil

<sup>c</sup> Cirugía Oral, Centro Universitario de João Pessoa (Unipê), João Pessoa, Brasil

<sup>d</sup> Patología Oral, Departamento de Estomatología, Facultad de Odontología de Bauru-Universidad de São Paulo (FOB-USP), São Paulo, Brasil

### INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

#### Historia del artículo:

Recibido el 21 de septiembre de 2011

Aceptado el 29 de septiembre de 2011

On-line el 23 de noviembre de 2011

#### Palabras clave:

Tumores odontogénicos  
 Tumor odontogénico epitelial calcificante  
 Mandíbula  
 Biopsia

#### Keywords:

Odontogenic tumours  
 Calcifying epithelial odontogenic tumour  
 Mandible  
 Biopsy

### R E S U M E N

El tumor epitelial odontogénico calcificante corresponde a menos de 1% de todos los tumores odontogénicos de origen ectodérmica, afectando principalmente la región posterior de la mandíbula, relacionada muchas veces a un diente molar retenido. En este artículo son realizadas las consideraciones en relación a las características clínicas, radiográficas, histopatológicas y sobre las modalidades de tratamiento del tumor epitelial odontogénico calcificante por medio de una revisión de literatura, siendo relatado la asociación de un tumor de este tipo a un canino inferior retenido, en un paciente de género masculino, de 32 años de edad, tratado de forma conservadora y en el cual no se observó recurrencia de la lesión después de 5 años de acompañamiento.

© 2011 SECOM. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

### Conservative treatment of a calcifying epithelial odontogenic tumour associated with an impacted mandibular canine: A case report

#### A B S T R A C T

The calcifying epithelial odontogenic tumour is a rare benign odontogenic neoplasm that accounts for approximately 1% of all odontogenic tumours. They are mainly located in the premolar/molar mandibular region, and are associated with an unerupted molar tooth. We present a literature review of the clinical, radiographic, pathological findings and treatment options of the calcifying epithelial odontogenic tumour, as well as describing the case

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: juliermerocha@hotmail.com (J.F. Rocha).

of an calcifying epithelial odontogenic tumour associated with an impacted right mandibular in a 32-year-old male patient, who was treated conservatively, without no sign of recurrence of the lesion after five years.

© 2011 SECOM. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

## Introducción

El tumor epitelial odontogénico calcificante (TEOC) fue primeramente descrito por Pindborg en 1955, siendo denominado tumor de Pindborg. Según la Organización Mundial de la Salud (2005), se clasifica como tumor odontogénico benigno, presentando apenas un componente epitelial, siendo derivado del epitelio del órgano del esmalte<sup>1</sup>. Dos entidades son citadas: las lesiones centrales (94%) y las lesiones que afectan los tejidos blandos – lesiones periféricas (6%)<sup>2</sup>.

Se observa que el TEOC corresponde a menos de 1% de todos los tumores odontogénicos de origen ectodérmica<sup>3</sup>, presentándose clínicamente como una masa sólida de crecimiento lento, asintomática, localmente invasiva, afectando principalmente la región posterior de la mandíbula, estando muchas veces asociada a un diente molar retenido. Afecta a individuos entre la tercera y quinta década de vida<sup>2,4</sup>. Radiográficamente, puede ser observada una lesión radiolúcida con márgenes definidas o no definidas, conteniendo en su interior una cantidad variable de material radiopaco asociada con el tiempo de evolución de la lesión<sup>4,5</sup>. Células epiteliales grandes separadas por un escaso tejido conjuntivo, localizándose entre ambos componentes unos cuerpos homogéneos eosinófilos de naturaleza amiloide que se calcifican progresivamente y se denominan anillos de Liesegang son características histológicas del TEOC<sup>6</sup>.

Por ser localmente invasivo, el tratamiento de la lesión consiste, generalmente, de una resección ósea con una margen de tejido óseo saludable<sup>6,7</sup>, sin embargo, la enucleación de la lesión en conjunto con la remoción de los dientes asociados sea citada<sup>5</sup>.

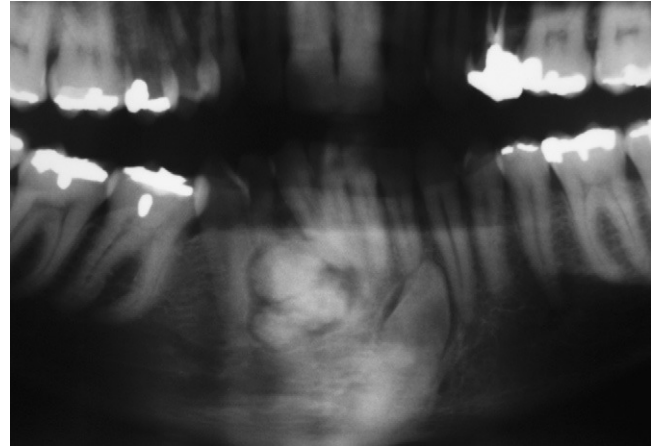
El objetivo de este estudio es relatar un caso de TEOC asociado a un canino inferior retenido tratado de forma conservadora.

## Caso clínico

Paciente de género masculino, 32 años de edad, se presentó al Servicio de Estomatología de la Facultad de Odontología de Bauru de la Universidad de São Paulo, con queja de «diente dentro del hueso» después de realizarse un examen radiográfico de rutina.

Clínicamente, se observó que el diente 83 estaba presente dentro del arco dentario y el elemento dentario 43 estaba ausente. Se confirmó un aumento de tamaño óseo asintomático, con evolución aproximada de cinco años, extendiéndose de la región del diente 32 al diente 44.

En la visualización del examen radiográfico panorámico fue detectada una alteración radiolúcida de límites bien definidos con material amorfo radiopaco en el centro, con aspecto lobular, ausencia de reabsorción radicular de los dientes adyacentes la lesión y la presencia del elemento dentario 43 no



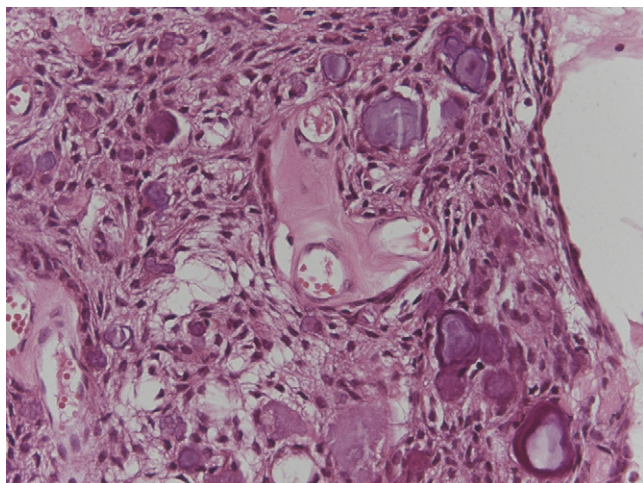
**Figura 1 – Radiografía panorámica evidenciando el aspecto radiopaco de la lesión y del diente 43 no-erupcionado.**

erupcionado (fig. 1). El diagnóstico presuntivo fue de odontoma complejo.

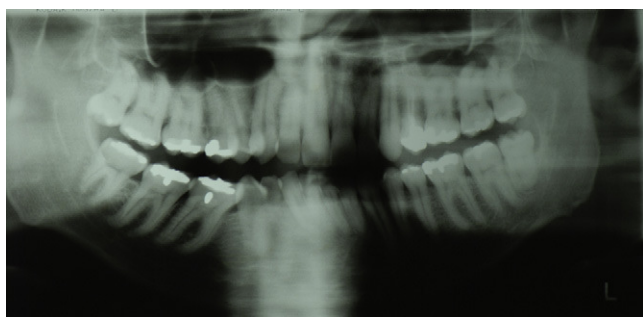
Bajo anestesia local, se realizó el acceso por medio de una incisión intra-sulcular extendiéndose de la región de los dientes 34 al 45 con consecuente exposición de la lesión a través de la ventana ósea creada con fresa quirúrgica bajo irrigación constante (fig. 2). La lesión fue removida por enucleación con un curetaje agresivo juntamente con el diente 43 no erupcionado. Los cortes microscópicos revelaron la proliferación de las células epiteliales odontogénicas en íntimo contacto con inúmeros focos redondeados concéntricos de mineralización compatibles con anillos de Liesegang, a veces resultando en densas masas sean eosinófilas o basofílicas. Las células presentaban puentes intercelulares bien evidentes, además del pleomorfismo, hiper cromatismo y variación en relación al



**Figura 2 – Aspecto trans-operatorio de la lesión.**



**Figura 3 – Aspecto histopatológico de la lesión evidenciando proliferación de células epiteliales odontogénicas e inúmeros focos arredondados concéntricos de mineralización (anillos de Liesegang) (HE 40x).**



**Figura 4 – Radiografía panorámica 5 años después de la remoción de la lesión sin signos de recurrencia.**

tamaño de los núcleos. En el tejido conjuntivo fibroso, se observaban cordones o islas de epitelio odontogénico. El diagnóstico histopatológico fue de TEOC (fig. 3).

El examen radiográfico de proservación de cinco años muestra la ausencia de señales de recurrencia de la lesión (fig. 4).

## Discusión

Los tumores odontogénicos basados en el predominio del componente celular pueden ser clasificados en: tumores epiteliales sin componente mesenquimal, tumores con componente epitelial y mesenquimal y tumores con componente mesenquimal sin componente epitelial. El comportamiento varía desde lesiones consideradas hamartomas a neoplasias<sup>1</sup>. Se cree que el TEOC intra-óseo, tumor epitelial sin componente mesenquimal, se origina del estrato intermedio del órgano del esmalte, mientras que la variación periférica surge de los restos de la lámina dentaria o de células de la capa basal del epitelio gingival<sup>4</sup>.

Dentro de los tumores que presentan apenas el epitelio odontogénico, el TEOC es una lesión relativamente infrecuente. Guerrisi et al.<sup>8</sup> encontraron que la prevalencia de TEOC (1,3%) es relativamente baja cuando es comparada con otros tumores como el odontoma (50,9%), ameloblastoma (18,3%) y mixoma (8,5%). Ladeinde et al.<sup>9</sup> observaron que el TEOC frecuentemente afecta la mandíbula, siendo el ameloblastoma el tumor odontogénico de mayor prevalencia (63%) y el odontoma (2,5%) y el TEOC (1,6%) lesiones casi raras. A pesar de existir relatos de TEOC no asociados a dientes no erupcionados<sup>4,6</sup>, se cree que la relación con estos dientes, principalmente molares mandibulares, tengan un fuerte indicio<sup>2</sup>, observándose en el caso relatado una asociación con un canino inferior retenido, mostrando una localización de común ocurrencia. Mientras que su ocurrencia en el maxilar superior no es infrecuente. En algunos casos, se observa que la lesión invadió estructuras nobles adyacentes como el seno maxilar<sup>10,11</sup>. A pesar de ser una lesión solitaria, lesiones multifocales son relatadas<sup>12</sup>.

El patrón radiográfico típico del TEOC es de una lesión mixta radiolúcida-radiopaca, siendo la cantidad de material radiopaco asociado con el tiempo de evolución de la lesión<sup>2</sup>. Las lesiones mayores presentan bordes difusos y con aspecto radiolúcido-radiopaco multilocular tienden a afectar la mandíbula, siendo que el aspecto de «flocos de nieve» con bordes definidos y corticales es visto en un pequeño porcentaje de casos<sup>13</sup>. El estudio por medio de la resonancia magnética podrá ser realizado cuando exista una sospecha de invasión de estructuras nobles adyacentes por el tumor<sup>14</sup>. Por su patrón de lesión mixta radiolúcida-radiopaca, el diagnóstico diferencial deberá ser realizado con otras lesiones de aspecto semejante, a citar: ameloblastoma, quiste óseo aneurismático, mixoma odontogénico, odontoma complejo, tumor odontogénico adenomatoide (TOA), fibro-odontoma ameloblástico, fibroma osificante y tumor odontogénico queratoquístico<sup>4,5</sup>.

El estudio histopatológico del TEOC parece ser de gran variabilidad. Nidos o cordones de células epiteliales poliédricas en un estroma fibrovascular, conteniendo material semejante a amiloide y lamelas concéntricas calcificadas (anillos de Liesegang) parece ser un patrón dominante<sup>7</sup>. Ai-Ru et al.<sup>15</sup> describieron cuatro patrones histopatológicos del TEOC tomando por base características celulares (tipo y variación celular) y la presencia de material amiloide y de anillos de Liesegang. Germanier et al.<sup>5</sup> describieron una variación de células claras del TEOC. Wang et al.<sup>16</sup> relataron una variación sin material calcificado conteniendo células de Langerhans en la lesión. Gopalakrishnan et al.<sup>17</sup> describieron una variante cística localizada en el seno maxilar. A pesar de las figuras mitóticas y pleomorfismo celular sean infrecuentes, Kawano et al.<sup>18</sup> describieron un caso de TEOC maligno emitiendo metástasis para los pulmones. La asociación entre TOA-TEOC también es citada, creyéndose en esos casos, que el comportamiento del tumor sea parecido con el TOA que es una lesión benigna<sup>2</sup>.

El TEOC es una lesión no encapsulada y por eso, localmente infiltrativa. Eso ha llevado a controversias en relación al tratamiento ideal. Para lesiones de márgenes indefinidas y de grandes proporciones, la resección ósea por medio de maxilectomía/mandibulectomía es el tratamiento ideal<sup>7</sup>.

**Tabla 1 – Tumor epitelial odontogénico calcificante, como se informó en la literatura**

Autor/Año	Sitio de ocurrencia	Patrones histo-patológicos	Tratamiento	Recurrencia
Belmonte et al. <sup>21</sup> (2002)	Posterior de la mandíbula	Normal	Enucleación	Recurrencia y resección ósea
Germanier et al. <sup>5</sup> (2005)	Posterior de la mandíbula	Células claras	Enucleación	Incumplido
Ladeinde et al. <sup>9</sup> (2005)	Mandíbula (4); maxilar (1)	–	–	–
Patiño et al. <sup>4</sup> (2005)	Mandíbula (2); maxilar (2)	Normal	Resección ósea (3)	Incumplido
Rapidis et al. <sup>7</sup> (2005)	Anterior de la mandíbula	Normal	Resección ósea	Incumplido
Tabangay-Lim et al. <sup>22</sup> (2005)	Posterior de la mandíbula	Normal	Resección ósea	Observó
Deboni et al. <sup>23</sup> (2006)	Posterior de la mandíbula	Normal	Resección ósea	–
Gopalakrishnan et al. <sup>17</sup> (2006)	Posterior del maxilar	Quística	Enucleación	Incumplido
de Oliveira et al. <sup>24</sup> (2009)	Mandíbula (1); maxilar (1)	Células claras	Biopsia excisional	Incumplido
Nascimento et al. <sup>6</sup> (2009)	Posterior del maxilar	Normal	Resección ósea	Incumplido

Sin embargo, parece no tener un consenso en la literatura en relación a la utilización de la cirugía radical, principalmente cuando la lesión envuelve la mandíbula. Las lesiones localizadas en el maxilar superior tienden a ser menos definidas y crecen más rápidamente, siendo indicado en estos casos un tratamiento más agresivo<sup>2</sup>.

La elección del tratamiento debe ser basada en la localización y tamaño de la lesión, grado de destrucción ósea, tipo histopatológico, edad y condición de la salud del paciente<sup>19,20</sup>. Belmonte et al.<sup>21</sup> creen que el tratamiento del TEOC debe ser realizado cuando ocurre una lesión localmente agresiva y/o casos de lesión recidivante. En ese caso, optamos por el tratamiento por medio de la enucleación con curetaje agresiva por tratarse de una lesión de pequeñas proporciones con márgenes bien definidas y localizadas en la mandíbula.

Frente a los casos tratados de forma conservadora, se cree que el TEOC tenga un índice de recurrencia en torno de 14%<sup>21</sup>. Siendo así, el acompañamiento por el periodo de cinco años es ideal para confirmar que el paciente esté libre de signos de la enfermedad<sup>2</sup> (tabla 1).

## Conclusión

El abordaje terapéutico del TEOC deberá tomar factores bases tales como la localización, tamaño y características histopatológicas de la lesión, así como las condiciones generales de salud del paciente. A pesar de no ser un consenso en la literatura, el tratamiento por medios conservadores propicia condiciones satisfactorias de la salud del individuo, descartando la necesidad de procedimientos reconstructivos mayores cuando la cirugía agresiva fuese utilizada, facilitando el proceso de rehabilitación.

## Conflicto de intereses

Los autores declarar no tener ningún conflicto de intereses.

## Responsabilidades éticas

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

## BIBLIOGRAFÍA

- Jordan RCK, Speight PM. Current concepts of odontogenic tumours. *Diagn Histopathol*. 2009;15:303–10.
- Philipsen HP, Reichart PA. Calcifying epithelial odontogenic tumour: biological profile based on 181 cases from the literature. *Oral Oncol*. 2000;36:17–26.
- Adebiyi KE, Odukoya O, Taiwo EO. Ectodermal odontogenic tumours: analysis of 197 Nigerian cases. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2004;33:766–70.
- Patiño B, Fernández-Alba J, García-Rozado A, Martín R, López-Cedrún JL, Sanromán B. Calcifying epithelial odontogenic (pindborg) tumor: a series of 4 distinctive cases and a review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg*. 2005;63:1361–8.
- Germanier Y, Bornstein MM, Stauffer E, Buser D. Calcifying epithelial odontogenic (pindborg) tumor of the mandible with clear cell component treated by conservative surgery: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg*. 2005;63:1377–82.
- Nascimento GJ, Pereira KM, Nonaka CF, Medeiros AM, Galvão HC. Calcifying epithelial odontogenic tumor of the maxilla. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2009;75:468.
- Rapidis AD, Stavrianos SD, Andressakis D, Lagogiannis G, Bertin PM. Calcifying epithelial odontogenic tumor (CEOT) of the mandible: clinical therapeutic conference. *J Oral Maxillofac Surg*. 2005;63:1337–47.
- Guerrisi M, Piloni MJ, Keszler A. Odontogenic tumors in children and adolescents. A 15-year retrospective study in Argentina. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2007;12: E180–5.
- Ladeinde AL, Ajayi OF, Ogunlewe MO, Adeyemo WL, Arotiba GT, Bamgbose BO, et al. Odontogenic tumors: a review of 319 cases in a Nigerian teaching hospital. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2005;99:191–5.
- Mohtasham N, Habibi A, Jafarzadeh H, Amirchaghmaghi M. Extension of Pindborg tumor to the maxillary sinus: a case report. *J Oral Pathol Med*. 2008;37:59–61.
- Gupta R, Singh S, Jain S, Mandal AK. Recurrent calcifying epithelial odontogenic tumor of the maxilla: report of a case with cytologic diagnosis. *Acta Cytol*. 2006;50:545–7.
- Sedghizadeh PP, Wong D, Shuler CF, Linz V, Kalmar JR, Allen CM. Multifocal calcifying epithelial odontogenic tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2007;104:e30–4.
- Kaplan I, Buchner A, Calderon S, Kaffe I. Radiological and clinical features of calcifying epithelial odontogenic tumour. *Dentomaxillofac Radiol*. 2001;30:22–8.

14. Cross JJ, Pilkington RJ, Antoun NM, Adlam DM. Value of computed tomography and magnetic resonance imaging in the treatment of a calcifying epithelial odontogenic (Pindborg) tumour. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2000;38:154-7.
15. Ai-Ru L, Zhen L, Jian S. Calcifying epithelial odontogenic tumors: a clinicopathologic study of nine cases. *J Oral Pathol.* 1982;11:399-406.
16. Wang YP, Lee JJ, Wang JT, Liu BY, Yu CH, Kuo RC, et al. Non-calcifying variant of calcifying epithelial odontogenic tumor with Langerhans cells. *J Oral Pathol Med.* 2007;36:436-9.
17. Gopalakrishnan R, Simonton S, Rohrer MD, Koutlas IG. Cystic variant of calcifying epithelial odontogenic tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2006;102:773-7.
18. Kawano K, Ono K, Yada N, Takahashi Y, Kashima K, Yokoyama S, et al. Malignant calcifying epithelial odontogenic tumor of the mandible: report of a case with pulmonary metastasis showing remarkable response to platinum derivatives. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2007;104:76-81.
19. Lee CY, Mohammadi H, Mostofi R, Habibi A. Calcifying epithelial odontogenic tumor of the maxillary sinus. *J Oral Maxillofac Surg.* 1992;50:1326-8.
20. Daskalopoulou D, Rapis AD, Maounis N, Markidou S. Fine-needle aspiration cytology in tumors and tumor-like conditions of the oral and maxillofacial region: diagnostic reliability and limitations. *Cancer.* 1997;81:238-52.
21. Belmonte R, Torres D, Mayrga F, García-Perla A, Infante P, Gutiérrez JL. Tumor odontogénico epitelial calcificante (tumor de Pindborg). *Med Oral.* 2002;7:309-15.
22. Tabangay-Lim IM, Mallari RNC, Lacsamana NM, Paz DDZ, Villafuerte ARR, Quilendrin PRM. Recurrent calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg tumor): A case study. *Oral Oncol Extra.* 2005;41:259-66.
23. Deboni MC, Naclério-Homem Mda G, Pinto Junior DS, Traina AA, Cavalcanti MG. Clinical, radiological and histological features of calcifying epithelial odontogenic tumor: case report. *Braz Dent J.* 2006;17:171-4.
24. de Oliveira MG, Chaves AC, Visioli F, Rojas EU, Moure SP, Romanini J, et al. Peripheral clear cell variant of calcifying epithelial odontogenic tumor affecting 2 sites: report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2009;107:407-11.