

¿PUEDEN LAS LESIONES QUÍSTICAS TENER POTENCIAL NEOPLÁSICO?

Reporte de caso

Can cystic lesions have neoplastic potential?
Case report

POR

NICOLAS **SOLANO**¹

PATRICIA **LÓPEZ**²

RAFAEL **CONCHO**³

1. Cirujano Bucal y Maxilofacial, Servicio de Cirugía Bucal y Maxilofacial. Hospital Universitario de Maracaibo, Venezuela. Postgrado de Cirugía Bucal. Universidad del Zulia. Venezuela. nsolanocbmf@gmail.com.
 orcid.org/0000-0002-6054-0362
2. Residente de Postgrado de Cirugía Bucal. Universidad del Zulia. Venezuela. patriciapla101@gmail.com
 orcid.org/0000-0002-9027-6996
3. Residente de Postgrado de Cirugía Bucal. Universidad del Zulia. Venezuela. drconchorafael@gmail.com.
 orcid.org/0000-0003-4340-5019

Autor de correspondencia: Nicolas Solano. Cirujano Bucal y Maxilofacial. Servicio de Cirugía Bucal y Maxilofacial. Hospital Universitario de Maracaibo, Venezuela. Postgrado de Cirugía Bucal. Universidad del Zulia. Venezuela. Dirección: Avenida 16, Hospital Universitario de Maracaibo, Zulia, Venezuela. Teléfono: +58 424 6065347. nsolanocbmf@gmail.com

Como citar: Solano N, López P, Concho R. ¿Pueden las lesiones quísticas tener potencial neoplásico? Reporte de caso. ROLA; 2025, No Esp. 62-70.



Resumen

El queratoquiste odontogénico y los ameloblastomas son lesiones odontogénicas distintas de la cavidad oral, diagnosticadas histopatológicamente. Ambos se encuentran principalmente en las regiones posteriores de la mandíbula. En el presente caso se reporta una lesión inusual mandibular de transformación ameloblástica proveniente de un queratoquiste odontogénico. Se presentan las características clínico-patológicas de dicha lesión, se revisó la literatura relevante de este tipo de lesión odontogénica. El caso clínico corresponde a una mujer de 40 años de edad remitida al Servicio de Cirugía Bucal y Maxilofacial del Hospital Universitario de Maracaibo-Venezuela, por presentar aumento de volumen en región anterior mandibular con 4 años de evolución, asintomático, con diagnóstico histopatológico previo compatible con Queratoquiste Odontogénico, donde debido a características clínicas y radiográficas poco usuales se realiza 2da toma de biopsia incisional dando como resultado Ameloblastoma Plexiforme. Se concluye que este caso destaca el potencial neoplásico de las lesiones quísticas y la importancia de un examen histopatológico cuidadoso de la muestra completa, con cortes múltiples.

PALABRAS CLAVE: transformación ameloblástica, lesiones neoplásicas, lesiones quísticas, queratoquiste odontogénico, ameloblastoma.

Abstract

Odontogenic keratocyst and Ameloblastomas are distinct odontogenic lesions of the oral cavity diagnosed histopathologically. Both are found mainly in the posterior regions of the mandible. An unusual mandibular lesion of ameloblastic transformation originating from an odontogenic keratocyst is reported in the present case. We present the clinicopathological characteristics of this lesion and review the relevant literature on this type of odontogenic lesion. It is reported a 40-year-old woman was referred to our service for presenting an increase in volume in the anterior mandibular region with 4 years of evolution, asymptomatic, with a previous histopathological diagnosis compatible with Odontogenic Keratocyst, where due to clinical and radiographic characteristics, a second incisional biopsy is performed, resulting in Plexiform Ameloblastoma. It can be concluded that this case highlights the neoplastic potential of cystic lesions and the importance of careful histopathological examination of the entire sample with multiple slices.

KEYWORDS: ameloblastic transformation, neoplastic lesions, cystic lesions, odontogenic, keratocyst, ameloblastoma.

Introducción

Los tumores odontogénicos son lesiones de elementos epiteliales, ectomesénquimales y/o mesenquimales, que fueron o son parte del aparato formador de dientes. Según la Organización Mundial de la Salud (OMS), estos tumores se encuentran exclusivamente en la región maxilofacial y pueden presentarse a cualquier edad¹.

El queratoquiste odontogénico (QO) y los ameloblastomas son lesiones odontogénicas distintas de la cavidad oral diagnosticadas histopatológicamente. Ambos se encuentran principalmente en las regiones posteriores de la mandíbula².

El ameloblastoma es una neoplasia odontogénica epitelial benigna derivada de componentes celulares del órgano del esmalte, y es el segundo tumor odontogénico más frecuente, representando alrededor del 1-2% de todos los tumores y quistes de los maxilares. Debido al crecimiento indoloro y al predominio en la región posterior de la mandíbula, el queratoquiste odontogénico se considera uno de los diagnósticos diferenciales del ameloblastoma. Esta lesión también tiene un crecimiento lento; es asintomático y en su mayoría tiene un aspecto radiográfico unilocular. Además de estas similitudes, en la literatura se han descrito lesiones híbridas o combinadas de queratoquistes odontogénicos y ameloblastomas que dificultan el diagnóstico^{1,2}.

En el presente caso se reporta una lesión inusual mandibular de transformación ameloblástica proveniente de un queratoquiste odontogénico. Se presentan las características clínico-patológicas de dicha lesión, se revisó la literatura relevante y la comprensión de los autores de este tipo de lesión odontogénica.

Reporte de caso

Mujer de 40 años de edad remitida al Servicio de Cirugía Bucal y Maxilofacial. Hospital Universitario de Maracaibo, Venezuela, por presentar aumento de volumen en región anterior mandibular con 4 años de evolución, asintomático. A la anamnesis, la paciente refiere antecedente de: Hipertensión Arterial (HTA) controlada y procedimiento quirúrgico de toma de biopsia incisional en el año 2018, de lesión cursante con resultado de diagnóstico histopatológico compatible con queratoquiste odontogénico (FIGURA 1).

El examen clínico extraoral reveló aumento de volumen difuso en región anterior mandibular, donde a la palpación se confirma consistencia firme de la zona. No se evidenciaron linfadenopatía palpables. Al examen clínico intraoral se evidencia aumento de volumen circunscrito, de superficie irregular, ulcerado, eritematoso, sangrante a la palpación, la cual oblitera surco vestibular anteroinferior y expande corticales con un diámetro aproximado de 2 x 3, 50 cm en sentido transversal y mesio-distal respectivamente. Dicho aumento de volumen se encuentra en relación con OD #32, 33, 34, 42, 43, 44 (FIGURA 2).

FIGURA 1. Resultado histopatológico de la primera biopsia incisional: Aspecto histopatológico del queratoquiste odontogénico.

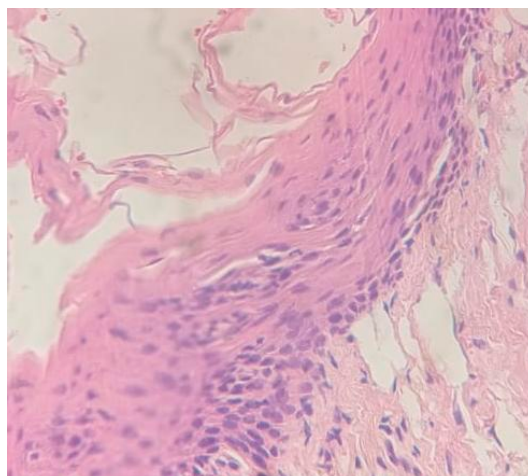


FIGURA 2. Examen intraoral.



La Ortopantomografía reveló presencia de imagen radiolúcida, circunscrita en región anterior mandibular la cual se extiende desde OD# 45 a OD# 35, donde se evidencia proceso de risalisis asociado, afectando OD# 32,33,34,43 y 44 (**FIGURA 3**).

El estudio por imagen tipo Tomografía Computarizada de Haz Cónico (TCHC), reveló una imagen hipodensa, circunscrita, la cual produce fenestración de corticales bucal y lingual, con un diámetro longitudinal antero-posterior cuantificado en 2,96 cm, y un diámetro mesio-distal cuantificado en 4,09 cm (**FIGURA 4**).

Basados en las características clínicas poco usuales e imagenológicas, se procede a realizar toma de biopsia incisional y envío de muestra a estudio histopatológico.

FIGURA 4. Sección de TCHC que muestra fenestración de cortical vestibular.

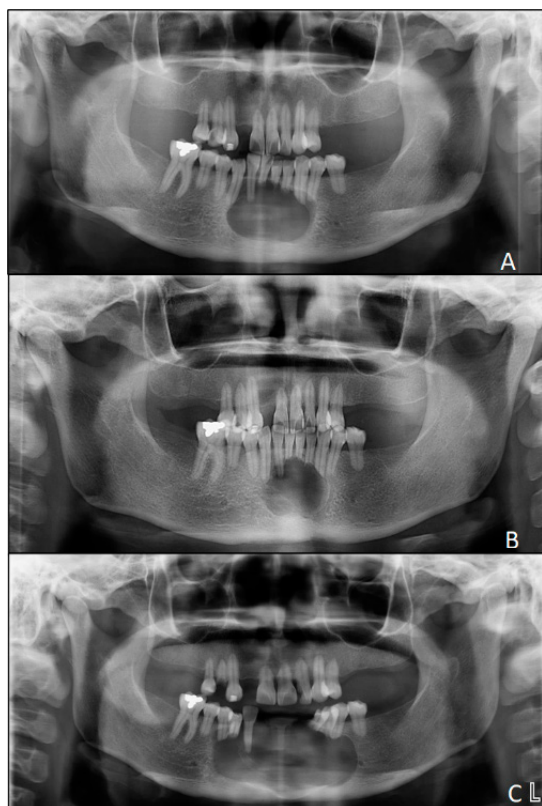
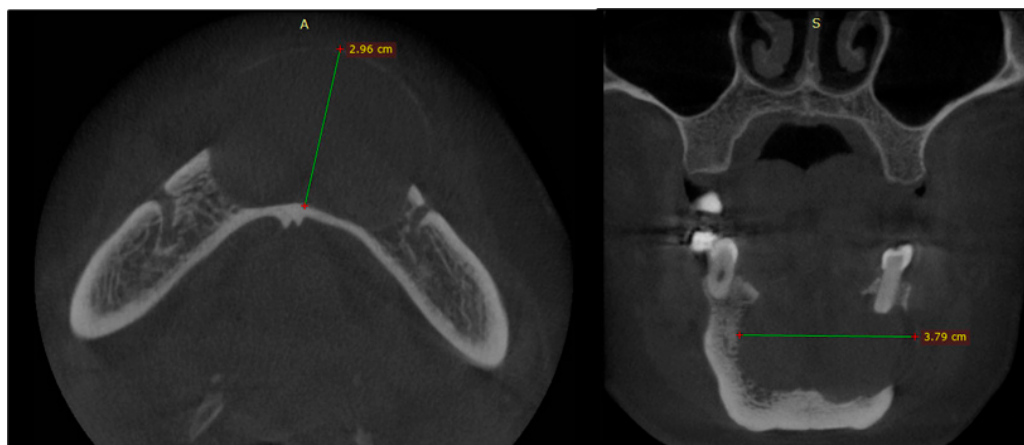
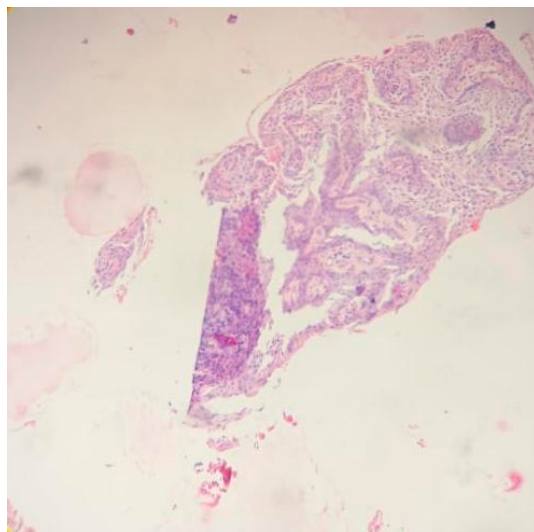


FIGURA 3. Seguimiento radiográfico. A) agosto 2018 B) febrero 2019 C) octubre 2022.



Macroscópicamente se recibió un espécimen fijado en formalina al 10%, de cuatro estructuras de tejido blando, pardo oscuro, midiendo aproximadamente en conjunto 1x0,5x0,5 cm. firmes al corte. Al estudio microscópico se evidenció epitelio estratificado de superficie con atipia en alguno de sus queratinocitos, sobre estroma de tejido conectivo fibroso, el cual contenía un severo infiltrado mononuclear y necrosis. De igual forma se evidenció fragmento de tejido conectivo fibroso, infiltrado por células epiteliales ovaladas, organizadas en cordones que se anastomosan entre sí, formando una especie de red (FIGURA 5).

FIGURA 5. Resultado histopatológico de la segunda biopsia incisional. Aspecto histopatológico del ameloblastoma plexiforme.



Basado en estos hallazgos, el diagnóstico final correspondió a Ameloblastoma Convencional Plexiforme.

Discusión

El queratoquiste odontogénico (QOO) es un quiste odontogénico con rasgos histológicos característicos, alto potencial de crecimiento y propensión a reaparecer después del tratamiento quirúrgico. El QOO fue una vez aceptado como una lesión neoplásica en la clasificación de la Organización Mundial de la Salud (OMS) de 2005; sin embargo, se reclasificó, de nuevo como quiste en la clasificación de tumores odontogénicos de 2017². Así se mantiene en la clasificación del 2022.

Los quistes odontogénicos con potencial neoplásico incluyen los quistes dentígeros, los queratoquistes odontogénicos, los quistes odontogénicos calcificantes, los quistes odontogénicos glandulares y los quistes radiculares. Entre los quistes odontogénicos, la transformación neoplásica es más alta en el queratoquiste odontogénico y el quiste dentígero^{3,4}.

Se ha informado que el epitelio del quiste odontogénico puede transformarse en tumores odontogénicos benignos como el Ameloblastoma, el tumor odontogénico adenomatoide y tumores malignos no odontogénicos como el carcinoma epidermoide y mucoepidermoide. La frecuencia de tal transformación neoplásica es muy baja³.

Hay algunos informes patológicos que describen el epitelio ameloblástico y las características de los quistes en las mismas lesiones, pero no está claro si hay dos lesiones diferentes o solo una transformación celular, probablemente porque algunos quistes y tumores odontogénicos dividen características cruciales que permiten un diagnóstico erróneo⁴⁻⁶.

Varios estudios proliferativos y demostraciones inmunohistoquímicas de marcadores proliferativos sugieren que el aumento de la proliferación celular juega un papel en el desarrollo de quistes odontogénicos y tumores neoplásicos (p. ej., Ameloblastoma). Este aumento de la proliferación celular puede deberse a la interrupción del ciclo celular, mutaciones en oncogenes o genes supresores de tumores^{3,5}.

En el examen histopatológico, se observó un número expresivo de células inflamatorias que podrían interferir en la distinción histológica. En el primer estudio histopatológico se observaron características compatibles a QQQ y podría permitir un diagnóstico erróneo si el análisis se realiza solo en tejido biopsiado. Por el contrario, el segundo análisis, que muestra una gran área de interés, evidenció fragmento de tejido conectivo fibroso, infiltrado por células epiteliales ovaladas, organizadas en cordones que se anastomosan entre sí, formando una especie de red característico de Ameloblastoma Plexiforme.

La pregunta enfocada en este estudio es: ¿El Ameloblastoma sería una lesión “de novo” o una transformación neoplásica de origen quístico (QQQ en este caso)? Esta hipótesis se ve reforzada debido a que se ha descrito la proliferación ameloblástica de QQQ⁷.

El desarrollo de un Ameloblastoma o transformación maligna de las células epiteliales de los QQQ es extremadamente raro. En la literatura publicada, solo se encontraron 8 casos de ameloblastomas que se originaron en el epitelio de QQQ, exceptuando el presente caso, Brannon RB *et al.*⁸, presentaron 2 casos en 1977, Kakarantza-Angelopoulou E y Nicolatou O⁹, presentaron 2 casos en 1990, Ogunsalu C *et al.*¹⁰, presentaron 1 caso en 2007, Geng N *et al.*¹¹, presentaron 1 caso en 2012, Neuman AN *et al.*¹², presentaron 1 caso en 2015 y Matehan Keskin *et al.*⁷, presentaron 1 caso en 2020.

No hubo información sobre la edad, el sexo, las características clínicas, radiológicas e histopatológicas de dos casos informados por Kakarantza-Angelopoulou E y Nicolatou O⁹, sin embargo, Ogunsalu C *et al.*¹⁰, informaron un caso de QQQ con transformación ameloblástica y trataron a este paciente solo con criocirugía; afirmaron que, no hubo recurrencia en el período de seguimiento de 6 años.

Geng N *et al.*¹¹, trataron a un paciente con resección en bloque de un QQQ con transformación ameloblástica y observaron que no hubo recurrencia hasta los 3 años de seguimiento, reportaron las características clínicas, radiológicas y microscópicas de su caso. No hubo datos de seguimiento disponibles para el caso informado por Neuman AN *et al.*¹².

El presente caso, constituye el noveno caso reportado en la literatura, y se encuentra en línea con los casos informados anteriormente con respecto a características clínicas como edad joven, antecedentes de aumento de volumen indoloro. Sin embargo, difiere en localización, observando su presencia en sector anterior mandibular.

Muchos autores creen que las lesiones odontogénicas híbridas no son el resultado de la colisión entre dos entidades distintas, sino que se deben a la pluripotencialidad del epitelio odontogénico con ambas lesiones probablemente desarrollándose a partir de una fuente común o un cambio ameloblástico en un quiste odontogénico existente^{12,13}.

Las lesiones odontogénicas combinadas de los maxilares son casos complejos y pueden ser mal diagnosticados. Es imprescindible una identificación precisa de la lesión antes de establecer un plan de tratamiento adecuado. El examen histopatológico e inmunohistoquímico de las muestras de biopsia juega un papel vital tanto en el diagnóstico como en el pronóstico correcto⁶⁻¹².

Conclusiones

El presente caso de un Ameloblastoma derivado de un Queratoquiste Odontogénico es una entidad rara que da lugar a la histogénesis del Ameloblastoma. Este caso destaca el potencial neoplásico de las lesiones quísticas y la importancia de un examen histopatológico cuidadoso de la muestra completa con cortes múltiples. Sin embargo, debido a la rareza y falta de datos de los casos reportados en la literatura, se desconoce el pronóstico y la mejor opción de tratamiento de estos casos. El mayor número de casos informados proporcionará una mejor comprensión de las lesiones combinadas o híbridas.

Declaración ética

- Todos los procedimientos realizados en el reporte de caso estuvieron de acuerdo con las normas éticas de la institución.
- Se obtuvo el consentimiento informado del paciente.
- Los autores declaran que no existe ningún conflicto de interés con respecto a la publicación de este artículo.

Agradecimiento

A los Dres. Mariana Molina, Sebastián Canelón, Ligia Pérez, Ricardo Priscillo, quienes con el aporte de sus conocimientos y esfuerzo hicieron posible la realización del presente caso clínico.

Bibliografía

1. Rozatto J, Do Canto A, Braz-Silva P, Rodriguez R. Can ameloblastomas arise from odontogenic keratocysts? Clin Lab Res Den. 2015; 21(4): 245-250.
2. Firth N, Alsarraf A, Vujcich N, Kujan O. Synchronous occurrence of odontogenic Keratocyst and ameloblastoma: A case report and review of the literature. Clinics and Practice 2020; 10: 1205.
3. Kondamari SK, Taneeru S, Guttikonda VR, Masabattula GK. Ameloblastoma arising in the wall of dentigerous cyst: Report of a rare entity. J Oral Maxillofac Pathol 2018; 22: S7-10.
4. Mahajan AD, Manjunatha BS, Khurana NM, Shah N. Unicystic ameloblastoma arising from a residual cyst. Case Report. BMJ 2014.

5. Ghafouri-Fard S, Atarbashi-Moghadam S, Thari M. Genetic factors in the pathogenesis of ameloblastoma, dentigerous cyst and odontogenic Keratocyst. *Gene* 771 (2021) 145369.
6. Cunha G, Rocha AFL, Gabrielli MFR, Gabrielli MAC. Unicystic Ameloblastoma and Odontogenic Keratocyst: Difficulty in Differential Diagnosis. *Oral Maxillofac Pathol J.* 2021; 12(1): 38-40.
7. Keskin M., Özkan N., Akbulut N., Bereket C. Odontogenic Keratocyst with Ameloblastomatous Transformation: A Rare Case Report. *Journal of Clinical and Diagnostic Research.* 2020; 14(4): ZD10-ZD13.
8. Brannon RB. The odontogenic Ameloblast. A clinicopathologic study of 312 cases. Part II. Histologic features. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1977; 43(2): 233-55.
9. Kakarantza-Angelopoulou E, Nicolatou O. Odontogenic keratocysts: Clinicopathologic study of 87 cases. *J Oral Maxillofac Surg.* 1990; 48: 593-99.
10. Ogunsalu C, Daisley H, Kamta A, Kanhai D, Mankee M, Maharaj A. Odontogenic Ameloblast in Jamaica: A review of five new cases and five instances of recurrence together with comparative analyses of four treatment modalities. *West Indian Med J.* 2007; 56(1): 86-89.
11. Geng N, Lv D, Chen Q, Zhu Z, Wu R, He Z, et al. Solid variant of keratocystic odontogenic tumor with ameloblastomatous transformation: a case report and review of the literature. *Oral And Maxillofacial Pathology.* 2012; 114(2).
12. Neuman AN, Montague L, Cohen D, Islam N, Bhattacharyya I. Report of two cases of combined odontogenic tumours: Ameloblastoma with odontogenic Ameloblast and Ameloblastic fibroma with calcifying odontogenic cyst. *Head Neck Pathol.* 2015; 9(3): 417-420.
13. Whitt J, Dunlap C, Sheets J, Thompson M, Keratoameloblastoma: a tumor sui generis or a chimera? *Oral And Maxillofacial Pathology.* 2007; 104(3).