



Quiste odontogénico glandular en un hombre anciano: reporte de caso

Daniel Alberto Cervantes Espinoza,* Cynthia Marina Urías Barreras,*†
Héctor Jovany Inzunza Estrada,§ Efrén Rafael Ríos Burgueño¶

* Facultad de Odontología, Universidad Autónoma de Sinaloa, Culiacán, México.

§ Departamento de Cirugía Maxilofacial del Instituto Mexicano del Seguro Social, Culiacán, Sinaloa, México.

† Servicio de Anatomía Patológica, Centro de Investigación y Docencia en Ciencias de la Salud, Hospital Civil de Culiacán, Universidad Autónoma de Sinaloa, Culiacán, Sinaloa, México.

RESUMEN

El quiste odontogénico glandular (QOG) es una lesión del desarrollo poco común de los maxilares, se presenta como un aumento de volumen asintomático de lento crecimiento con una alta tasa de recurrencia. El rango de edad es amplio siendo la edad promedio de 45.7 años. El caso reportado es un masculino de 76 años de edad con un aumento de volumen en la mandíbula anterior, radiográficamente se observó una radiolucidez multilocular que fue manejada con enucleación y curetaje. Las características histopatológicas fueron consistentes con un quiste odontogénico glandular. Después de 15 meses, se observó persistencia de la lesión durante el seguimiento.

Palabras clave: Quiste odontogénico, glandular, radiolucidez multilocular, mandíbula, anciano.

INTRODUCCIÓN

El quiste odontogénico glandular es un quiste del desarrollo con características epiteliales que simulan glándula salival o diferenciación glandular, también conocido como quiste sialo-odontogénico,¹ fue reportado por primera vez por Padayachee y Van Wyk en 1987;² un año más tarde, Gardner y colaboradores³ sugirieron el término quiste odontogénico glandular (QOG). Es un quiste raro que representa menos del

0.5% de todos los quistes odontogénicos, se presenta en un amplio rango de edad del paciente, con un pico de incidencia entre los 40-70 años, sin predilección por el género. La etiología del QOG es desconocida, se considera que es un quiste del desarrollo que surge de remanentes de la lámina dental. Clínicamente, la presentación más común es como un aumento de volumen asintomático.¹ Radiográficamente, el QOG aparece como una lesión radiolúcida uni- o multilocular, de bordes bien definidos, el desplazamiento dental y reabsorción radicular son comunes y la asociación con un diente impactado es extremadamente rara, en el 75% de los casos se localiza en la mandíbula.⁴⁻⁶ Las características histológicas muestran una cavidad quística revestida por un epitelio plano estratificado no queratinizado, con células cuboidales o columnares, ocasionalmente células ciliadas, presentando áreas de engrosamiento, estructuras de diferenciación glandular simulando pequeños quistes dentro del epitelio y un número variable de células mucosecretoras.^{4,7} Estas características histológicas son semejantes a las observadas en otras lesiones de origen odontogénico como el quiste odontogénico botriode o el quiste periodontal lateral; sin embargo, el QOG se caracteriza por su comportamiento agresivo y una alta tasa de recurrencia;⁸ además, el QOG puede ser confundido microscópicamente con un carcinoma mucoepidermoide central, pero las células cuboidales, cilios, áreas de engrosamiento del epitelio y micro quistes intraepiteliales o estructuras ductales no son típicas del carcinoma mucoepidermoide central.⁹ El tratamiento es controversial aún y varía desde curetaje, enucleación y resección quirúrgica.^{9,10} La enucleación es el tratamiento más común, pero se asocia con una alta tasa de recurrencia (30-50%). La recurrencia puede

Recibido: Septiembre 2018. Aceptado: Enero 2020.

Citar como: Cervantes EDA, Urías BCM, Inzunza EHJ, Ríos BER. Quiste odontogénico glandular en un hombre anciano: reporte de caso. Rev Odont Mex. 2020; 24 (1): 72-79.

© 2020 Universidad Nacional Autónoma de México, [Facultad de Odontología]. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

www.medigraphic.com/facultadodontologiaunam

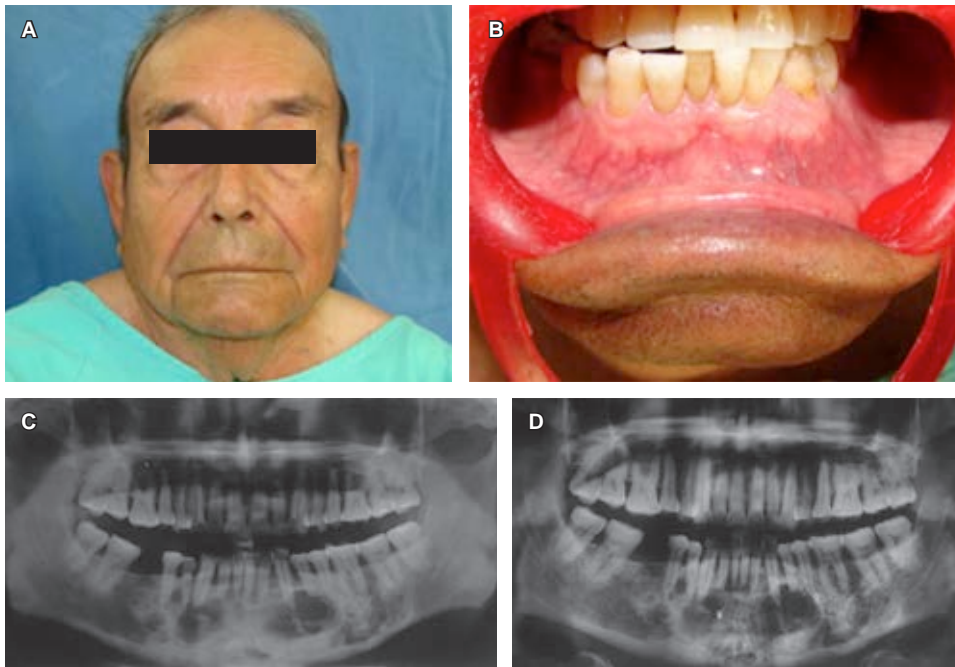


Figura 1:

A) Apariencia extraoral, asimetría facial mínima; **B)** Apariencia intraoral, aumento de volumen en la zona anterior mandibular; **C)** Apariencia radiográfica, radiolucidez multilocular en mandíbula anterior; **D)** Ortopantomografía postoperatoria, reconstrucción con placa después de una escisión conservadora.

A) Extraoral appearance, minimal facial asymmetry; **B)** Intraoral appearance, increased volume in the anterior mandibular area; **C)** Radiographic appearance, multilocular radiolucency in the anterior mandible; **D)** Postoperative orthopantomography, plate reconstruction after conservative excision.

ser tardía, con un tiempo promedio de ocho años para la primera recurrencia; por ello, la resección quirúrgica ha sido recomendada especialmente para lesiones grandes o multiloculares.¹ En el presente estudio se reporta un caso de QOG en un hombre anciano y se realiza una revisión de la literatura.

REPORTE DEL CASO

Un paciente de 76 años de edad fue referido al Departamento de Cirugía Maxilofacial del Instituto Mexicano del Seguro Social con un aumento de volumen asintomático en la región anterior del cuerpo mandibular. En la exploración extraoral se evidenció una ligera asimetría facial (*Figura 1A*). Intraoralmente, se observó un aumento de volumen en la zona anterior mandibular, de consistencia dura, sin cambio de color en la mucosa (*Figura 1B*).

La ortopantomografía reveló una zona radiolúcida multilocular comprendida entre la zona del segundo premolar inferior derecho y el segundo premolar inferior izquierdo, con bordes escleróticos, que ocasiona leve rizólisis de los órganos dentales involucrados (*Figura 1C*).

Se realizó enucleación y curetaje, un tratamiento conservador, y se adaptó una placa reconstructiva (*Figura 1D*). El espécimen consistió de múltiples fragmentos de tejido blando de color café oscuro; se incluyeron en su totalidad en una cápsula para examinación microscópica (*Figura 2*).

La examinación histopatológica reveló fragmentos de pared quística, parcialmente revestida por epitelio cúbico a columnar estratificado, de grosor variable, con algunas células ciliadas, así como estructuras ductales intraepiteliales con células mucosecretoras y con áreas de engrosamiento del epitelio. La cápsula de tejido conjuntivo fibroso denso mostró infiltrado inflamatorio de tipo crónico, moderado y focal, áreas de hemorragia reciente y antigua y múltiples compartimentos quísticos (*Figura 3 A-H*).

Debido a las características observadas en el estudio histopatológico, el diagnóstico de quiste

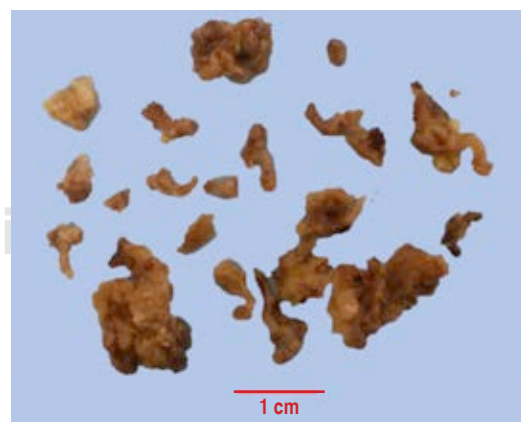


Figura 2: Características macroscópicas, espécimen de tejido blando multifragmentado.

Macroscopic features, multifragmented soft tissue specimen.

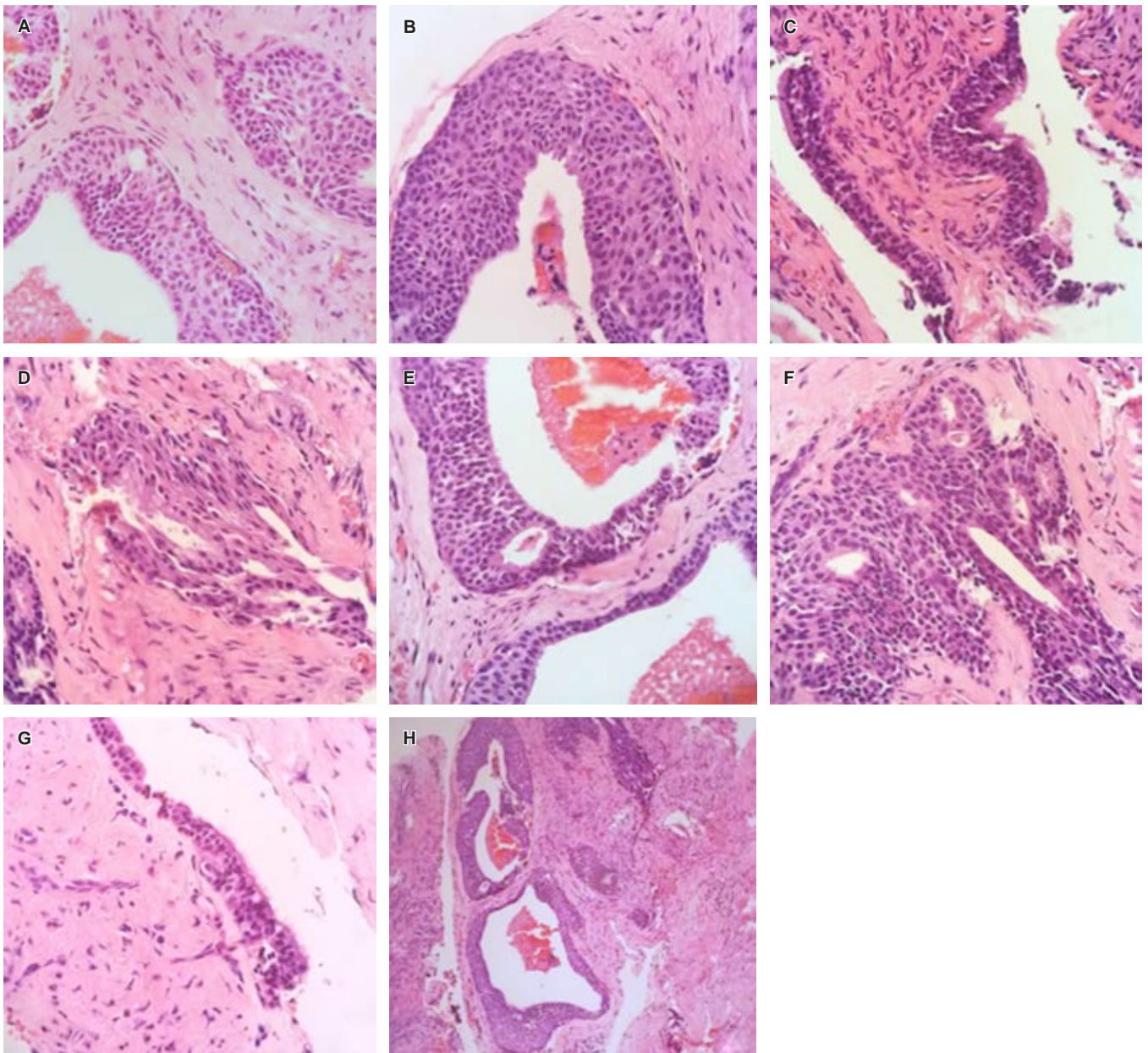


Figura 3: **A)** Revestimiento epitelial de grosor variable (H&E, x 400); **B)** Zonas arremolinadas en el epitelio (H&E, x 400); **C)** Células ciliadas, algunas de ellas exhibiendo cambios apocrinos (H&E, x 400); **D)** Células mucosecretoras en la superficie del epitelio (H&E, x 400); **E-F)** Estructuras ductales intraepiteliales (H&E, x 400); **G)** Revestimiento quístico con células cúbicas eosinofílicas en la superficie y células ciliadas (H&E, x 400); **H)** Múltiples compartimentos quísticos (H&E, x 100).

A) Variable thickness of epithelial lining (H&E, x 400); **B)** Swirling areas in the epithelium (H&E, x 400); **C)** Cilium epithelial cells, some of them exhibiting apocrine changes (H&E, x 400); **d)** Mucosecretory cells on the surface of the epithelium (H&E, x 400); **E-F)** Ductal intraepithelial structures (H&E, x 400); **G)** Cystic lining with surface eosinophilic cubic cells and ciliary cells (H&E, x 400); **H)** Multiple cystic compartments (H&E, x 100).

odontogénico glandular fue emitido. Después de 15 meses de seguimiento, los estudios radiográficos revelaron signos de persistencia de la lesión entre los premolares inferiores derechos y a nivel de in-

cisivos, canino y primer premolar inferior izquierdo (*Figura 4 A y B*).

Se realizó curetaje, sin evidencia de erosión ósea ni expansión de corticales y se envió a estudio histopato-

lógico, el cual reportó fragmentos de una pared quística de tejido fibroso denso revestida por epitelio plano estratificado de grosor variable no queratinizado, con células cúbicas eosinofílicas en la superficie, exhibiendo cam-

bios apocrinos con zonas arremolinadas en el epitelio, algunas células mucosecretoras y escasa formación de lucas intraepiteliales, compatible con persistencia de quiste odontogénico glandular (*Figura 4 C a G*).

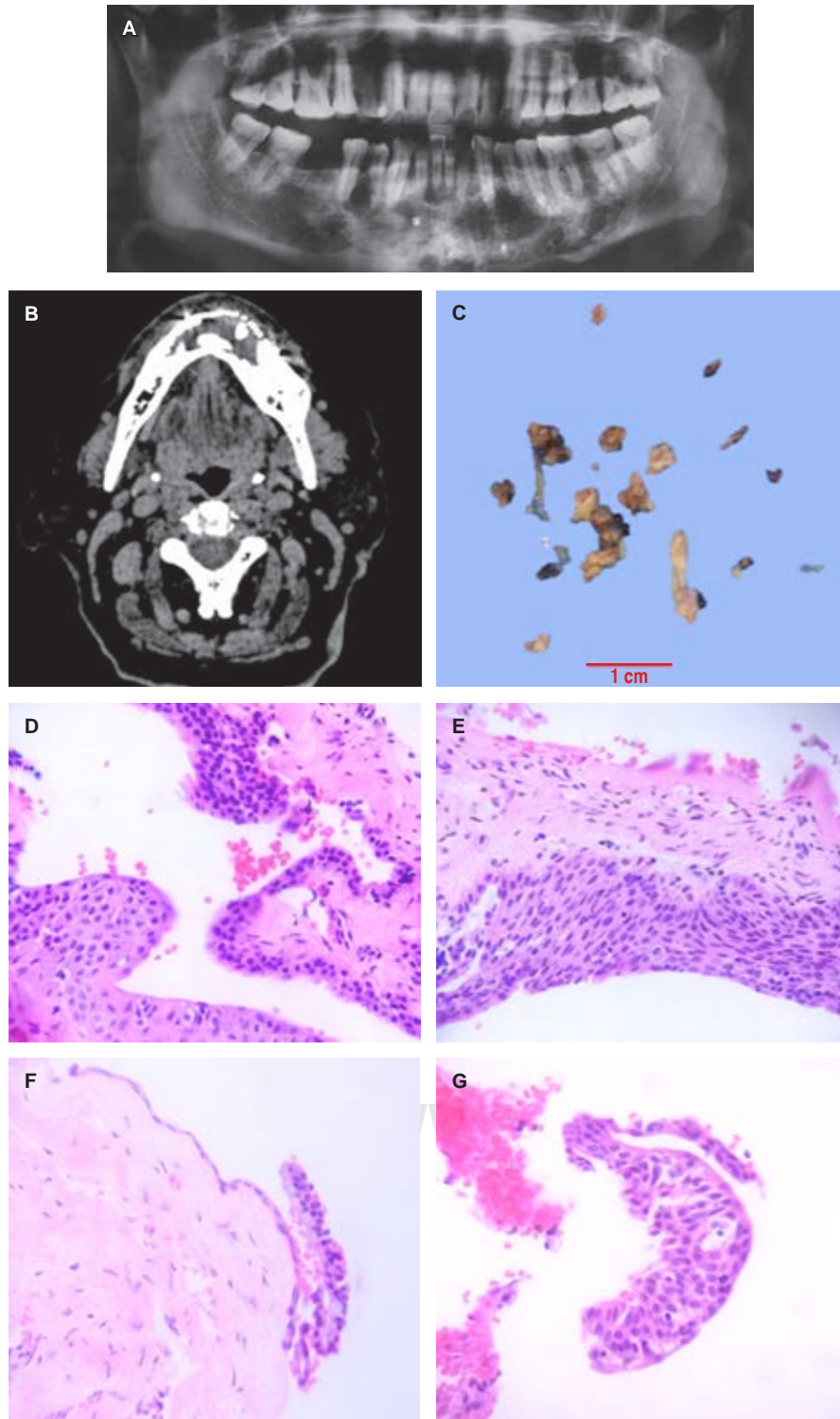


Figura 4:

A) Ortopantomografía, radiolucidez acentuada entre premolares inferiores del lado derecho, y en incisivos, canino y premolares del lado izquierdo; **B)** Tomografía computarizada, en un corte axial se evidencia la persistencia de la lesión en el sector anterior de la mandíbula; **C)** Características macroscópicas del producto del curetaje; **D)** Revestimiento epitelial del quiste de grosor variable, algunas células cuboidales eosinofílicas del estrato superficial exhiben cambios apocrinos (H&E, x 400); **E)** Zonas arremolinadas en el epitelio (H&E, x 400); **F)** Células mucoproduceras (H&E, x 400); **G)** Proliferación luminal focal (H&E, x 400).

A) Orthopantomography, accentuated radiolucency between lower right premolars, and lower left incisors, canines and premolars; **B)** Computed tomography, in an axial section, the persistence of the lesion in the anterior sector of the mandible is evident; **C)** Macroscopic characteristics of the curettage product; **D)** Epithelial lining of the cyst of variable thickness, some eosinophilic cuboidal cells of the superficial stratum show apocrine changes (H&E, x 400); **E)** Swirling areas in the epithelium (H&E, x 400); **F)** Mucoproducer cells (H&E, x 400); **G)** Focal luminal proliferation (H&E, x 400).

DISCUSIÓN

El QOG es una lesión rara que corresponde al 0.012% de los quistes en los maxilares según López y su equipo;¹¹ el presente reporte coincide con lo reportado en la literatura en cuanto a las características clínicas del QOG como un aumento de volumen asintomático,¹ de localización preferentemente en la sección anterior de la mandíbula, como una lesión radiolúcida multilocular con bordes bien definidos;^{6,9} según Fowler y colaboradores,¹² el QOG se localiza en la mandíbula en el 80% de los casos y el sector anterior representa el 60%. Asimismo, el presente caso evidencia lo ya descrito localizándose en diferentes cavidades, lo que ocasiona erosión de los huesos maxilares y reabsorción radicular,¹³ e interesantemente concuerda con el reporte de Byung-Do y su grupo de investigadores,⁶ que informa que el QOG puede presentarse incluso en los pacientes que cursan la séptima década de vida.

Los hallazgos histológicos de nuestro caso concuerdan con los criterios sugeridos por Kaplan y colaboradores,¹⁴ algunos criterios están presentes en todos los casos: (1) grosor variable en el epitelio de revestimiento del quiste, dos a tres o más capas de células cúbicas o planas; (2) capa luminal de células cúbicas a columnares, llamadas células *hobnail*, al menos focalmente presentes. Otros criterios están presentes en la mayoría de los casos: (3) microquistes intraepiteliales; (4) metaplasia apocrina de la células lumbales; (5) células claras en los estratos basal y parabasal; (6) proyecciones papilares «penachos» en el lumen; (7) células mucosas. Otros criterios microscópicos para el diagnóstico son: (8) esferas epiteliales similares a las que se observan en el quiste periodontal lateral, las cuales se identifican frecuentemente; (9) cilios, los cuales son vistos ocasionalmente; y (10) arquitectura multiquistica o multiluminal, la cual algunas veces está presente.

Respecto a las características microscópicas observadas en la recidiva, Fowler y su equipo¹² mencionan que en ocasiones no se observan muchas de las características del QOG primario, lo cual se evidenció en nuestro caso.

Además, en el diagnóstico diferencial del QOG, la identificación de epitelio ciliado y estructuras ductales con células mucosas permiten distinguirlo del quiste periodontal lateral y del quiste odontogénico botriode. No obstante, el QOG puede compartir algunas características microscópicas con el carcinoma mucoepidermoide central; sin embargo, el QOG es consistentemente negativo para rearrreglos del gen MAML2, lo que sugiere que son entidades separadas, pero actualmente no se puede excluir la posibilidad de que el

carcinoma mucoepidermoide central podría desarrollar un QOG preexistente.^{1,15,16} En nuestro caso, no se observó una proliferación sólida con espacios microquísticos que mostraran los componentes celulares que caracterizan al carcinoma mucoepidermoide.

Interesantemente, AbdullGaffar y colegas¹⁷ proponen que observar hemosiderina intraepitelial podría tener un valor en el diagnóstico del QOG, al observarse el pigmento en el revestimiento epitelial del quiste sin hemosiderófagos estromales; aunque este hallazgo podría reflejar una hemorragia intraluminal espontánea inespecífica, puede ser una clave diagnóstica adicional del QOG en casos difíciles, ya que este fenómeno no se ha reportado en otras lesiones que simulan quistes.

El tratamiento es controversial debido a que el QOG es considerado agresivo y debe ser realizado dependiendo de su extensión clínica y radiográfica.¹⁸ A diferencia de los casos reportados por Boffano⁷ López¹¹ y Faisal¹⁹ junto a sus respectivos equipos de investigadores, cuyo tratamiento fue enucleación y curetaje, nuestra investigación reportó persistencia de la lesión 15 meses después de ser tratado de igual forma; no obstante, el caso de López y colaboradores¹¹ se presentó como una radiolucidez unilocular, lo cual posiblemente contribuyó a una enucleación menos compleja y a no tener recurrencia. Por otro lado, Oliveira y su grupo²⁰ reportaron un caso tratado con curetaje e informaron recurrencia después de un seguimiento de nueve meses.

Finalmente, Chrcanovic y colaboradores²¹ informaron un análisis de 169 casos de QOG reportados en la literatura, y señaló que aunque la tasa de recurrencia no es tan alta como se consideraba previamente, es un fenómeno relevante (21.6%), por lo que se deberían considerar procedimientos adyuvantes después de la enucleación; ninguna de las características clínicas/radiológicas e histopatológicas evaluadas en su estudio tuvieron un efecto estadísticamente significativo sobre la tasa de recurrencia.

CONCLUSIÓN

El QOG puede presentarse en personas de edad avanzada, en quienes puede ser pertinente un tratamiento conservador, considerando como indispensable el seguimiento clínico radiográfico a largo plazo y un eventual procedimiento adyuvante después de la enucleación.

Clinical case

Glandular odontogenic cyst in an elderly man: case report