



Tratamiento con descompresión de un queratoquiste odontogénico

Alejandro Alonso Moctezuma,* Edmundo Santos Jaimes,* Eric Zeta Castañeda,§
Patricia González-Alva,† Javier Portilla Robertson*

* Departamento de Patología, Medicina Bucal y Maxilofacial. División de Estudios de Postgrado e Investigación. Universidad Nacional Autónoma de México.

§ Residente de la Especialidad en Patología Bucal. UNAM.

† División de Estudios de Postgrado e Investigación. Laboratorio de Bioingeniería de Tejidos.

RESUMEN

Introducción: El tratamiento del queratoquiste, previamente conocido como tumor odontogénico queratoquístico, sigue siendo controversial. El queratoquiste es una lesión odontogénica que probablemente deriva de la lámina dental, de manera frecuente se localiza en la parte posterior del hueso mandibular y, seguramente, representa a la lesión antes denominada quiste primordial. El queratoquiste se considera una lesión benigna de comportamiento biológico agresivo. Una amplia variedad de técnicas se han reportado para su tratamiento, tales como la enucleación, la marsupialización y la resección en bloque, así como la combinación de varios métodos. En general, la resección quirúrgica se considera como la última opción para su tratamiento. **Objetivo:** Presentar el reporte de un caso de una paciente de 36 años con diagnóstico de queratoquiste odontogénico asociado a un proceso inflamatorio crónico. **Material y métodos:** El tratamiento de elección fue una descompresión de la lesión usando un tubo tipo Penrose, seguida de irrigación con clorhexidina al 2%. **Resultados:** Durante el seguimiento se observó una reducción de aproximadamente 80% del tamaño original del quiste. De igual manera, la cavidad aceptaba menos cantidad de irrigación; por último, se realizó una biopsia excisional junto con osteotomía periférica. La biopsia reveló un queratoquiste odontogénico con metaplasia escamosa. **Discusión:** En el presente caso el tratamiento conservador utilizado resultó exitoso; sin embargo, para este tipo de pacientes el seguimiento a largo plazo es recomendable. Además, la asociación con el síndrome del carcinoma basocelular debe considerarse en pacientes con lesiones extensas o múltiples. **Conclusiones:** El abordaje quirúrgico inicial dirigido a pacientes con tumores odontogénicos agresivos puede tener efectos importantes en la recuperación de los pacientes afectados y en su calidad de vida. Por lo tanto, un

adecuado plan de tratamiento requiere de la valoración multidisciplinaria de cada caso.

Palabras clave: Descompresión, marsupialización, metaplasia, queratoquiste, tumor odontogénico queratoquístico.

INTRODUCCIÓN

El queratoquiste (KC) es descrito como una entidad con características clínicas e histológicas bien definidas, acompañadas de una alta tasa de recurrencia si es tratado con simple enucleación.^{1,2} De manera frecuente, la lesión se localiza en la zona posterior del hueso mandibular.^{3,4} Además, el comportamiento local agresivo de la lesión ha sido bien documentada.³ El KC es una lesión quística odontogénica que probablemente deriva de la lámina dental y, seguramente, representa a la lesión antes denominada quiste primordial.⁵

El término KC fue utilizado por primera vez por Philipesen en 1953, en un artículo original escrito en danés, con un resumen en inglés.⁵⁻⁷ La lesión atrajo interés por sus características histológicas específicas, y fue reconocida de manera individual entre 1970 y 1971, después de que Browne describiera sus características clínicas e histológicas.⁵ Finalmente, en 1963, Pindborg y Hansen sugirieron una serie de criterios histológicos que describían las características esenciales de la lesión.⁴

La imagen histológica del KC odontogénico incluye un epitelio escamoso paraqueratinizado y una capa basal bien definida habitualmente corrugada. Las células de la capa basal son distintivas de esta entidad, de forma polarizada y empalizada, además de estar rodeadas por tejido conjuntivo fibroso denso. La pared del quiste suele ser de grosor uniforme y delgada, de entre seis y diez células de espesor; esta pared llega a engrosarse como consecuencia de un proceso inflamatorio crónico.⁸⁻¹¹

Recibido: Mayo 2020. Aceptado: Julio 2020.

Citar como: Alonso MA, Santos JE, Zeta CE, González-Alva P, Portilla RJ. Tratamiento con descompresión de un queratoquiste odontogénico. Rev Odont Mex. 2020; 24 (2): 124-133.

© 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

Pese a los numerosos estudios publicados, los datos con respecto a la prevalencia de los queratoquistes no son consistentes, revelando la falta de consenso que existe entre los cirujanos. Por ejemplo, son pocos los estudios que utilizan la clasificación de la Organización Mundial de la Salud para el diagnóstico del queratoquiste; y es común que los trabajos previos a 1992 incluyan dentro del diagnóstico quistes con epitelio ortoqueratinizado.⁴

En un reciente metaanálisis en el que se revisaron un total de nueve artículos, el cual incluyó 49,846 quistes y tumores asociados a terceros molares impactados, Mello y colaboradores reportaron una prevalencia del 0.5% para el queratoquiste.¹²

La tasa de recurrencia para el KC odontogénico varía desde 0% hasta 62%.¹³⁻¹⁸ Pogrel menciona que entre más tiempo se mantiene el seguimiento, la tasa de recurrencia aumenta, y concluye que la tasa de recurrencia exacta para el KC puede establecerse después de 20 años o más de seguimiento.⁵

La discrepancia relacionada con las tasas de recurrencia podría estar reflejando las diferencias entre los KC esporádicos y sindrómicos.¹⁸ Al profundizar sobre esta misma idea, los pacientes con el síndrome de carcinoma nevoide de células basales (SCNCB) presentan múltiples anomalías esqueléticas, tales como costillas bifidas, calcificación de la hoz del cerebro y múltiples KC en mandíbula y maxila.^{4,18} Además, se ha reportado que entre 60-85% de los pacientes presentan mutaciones en el gen supresor tumoral PTCH, por lo que llegan a desarrollar más de un KC a lo largo de su vida.¹⁹

Después de seis décadas, el tratamiento más apropiado para los KC odontogénicos sigue siendo controversial.⁵ El propósito del presente reporte es presentar el caso de una paciente de 36 años con un queratoquiste asociado a un proceso inflamatorio en el ángulo mandibular izquierdo, y que fue tratado con marsupialización más descompresión. Asimismo, se incluyó una revisión de la literatura acerca del tratamiento del queratoquiste odontogénico.

MATERIAL Y MÉTODOS

Reporte de caso: paciente femenino de 36 años de edad, se presentó en la Clínica de Medicina Bucal, de la División de Estudios de Postgrado e Investigación, en la Universidad Nacional Autónoma de México, por presentar un ligero aumento de volumen en la zona posterior inferior del lado izquierdo, con una evolución de entre ocho meses y un año aproximadamente. La paciente presentaba dolor en la zona sin presentar pérdida de la sensibilidad. A

la exploración intraoral, los tejidos blandos eran de apariencia normal, acompañados de ausencia clínica del órgano dentario 38, en la zona retromolar izquierda se podía observar un aumento de volumen, de consistencia dura y doloroso a la palpación. La paciente refirió haberse sometido a la extracción quirúrgica del tercer molar inferior izquierdo 10 años atrás. No se encontró ningún otro padecimiento sistémico o antecedente de importancia para el padecimiento actual (*Figura 1 A-C*).

En el examen radiográfico se observó una área radiolúcida multilocular, la cual se extendía desde el cuerpo distal del segundo molar a la rama de la mandíbula, de aproximadamente 6 x 4 cm, con bordes bien definidos y escleróticos; junto con un fragmento radicular y coronal, probablemente del órgano dentario 38. La tomografía computarizada reveló una área hipodensa en el hueso mandibular, con expansión y adelgazamiento de las corticales lingual y vestibular (*Figura 1 D y E*). Para el plan de tratamiento se decidió realizar una biopsia incisional con el diagnóstico presuntivo de KC odontogénico versus ameloblastoma.

El estudio histopatológico reveló una cavidad revestida por epitelio plano estratificado, con algunas zonas del estrato basal en empalizada, hipercrómicas y otras con acantosis, exocitosis leucocitaria y áreas con hiperplasia arcoidal. Sin embargo, debido al severo infiltrado inflamatorio, las características distintivas del KC odontogénico se encontraban modificadas: la cápsula del tejido conjuntivo fibroso denso y bien vascularizado, también presentaba un infiltrado inflamatorio crónico linfoplasmocitario severo y difuso, con calcificaciones distróficas, cementículos y matriz osteoide. Por último, se emitió el diagnóstico de queratoquiste odontogénico con proceso inflamatorio crónico (*Figura 2 A y B*).

Procedimiento quirúrgico: el tratamiento consistió en realizar la descompresión de la lesión quística, seguida de marsupialización y enucleación con osteotomía controlada. Primero, bajo anestesia local se realizó una incisión en el borde anterior de la rama mandibular y se extendió hasta el segundo molar; en seguida, se realizó la extracción de los fragmentos del órgano dentario 38. A continuación, se observó una perforación de la cortical vestibular, y en esta zona se accedió a la luz del quiste y se colocó un tubo de látex tipo penrose, el cual fue suturado a la mucosa sana adyacente para dar seguimiento a la marsupialización (*Figura 2 C y D*). Finalmente, se realizaron lavados quirúrgicos con solución fisiológica.

Una vez concluido el procedimiento quirúrgico se le indicó a la paciente que irrigara y permeabilizara

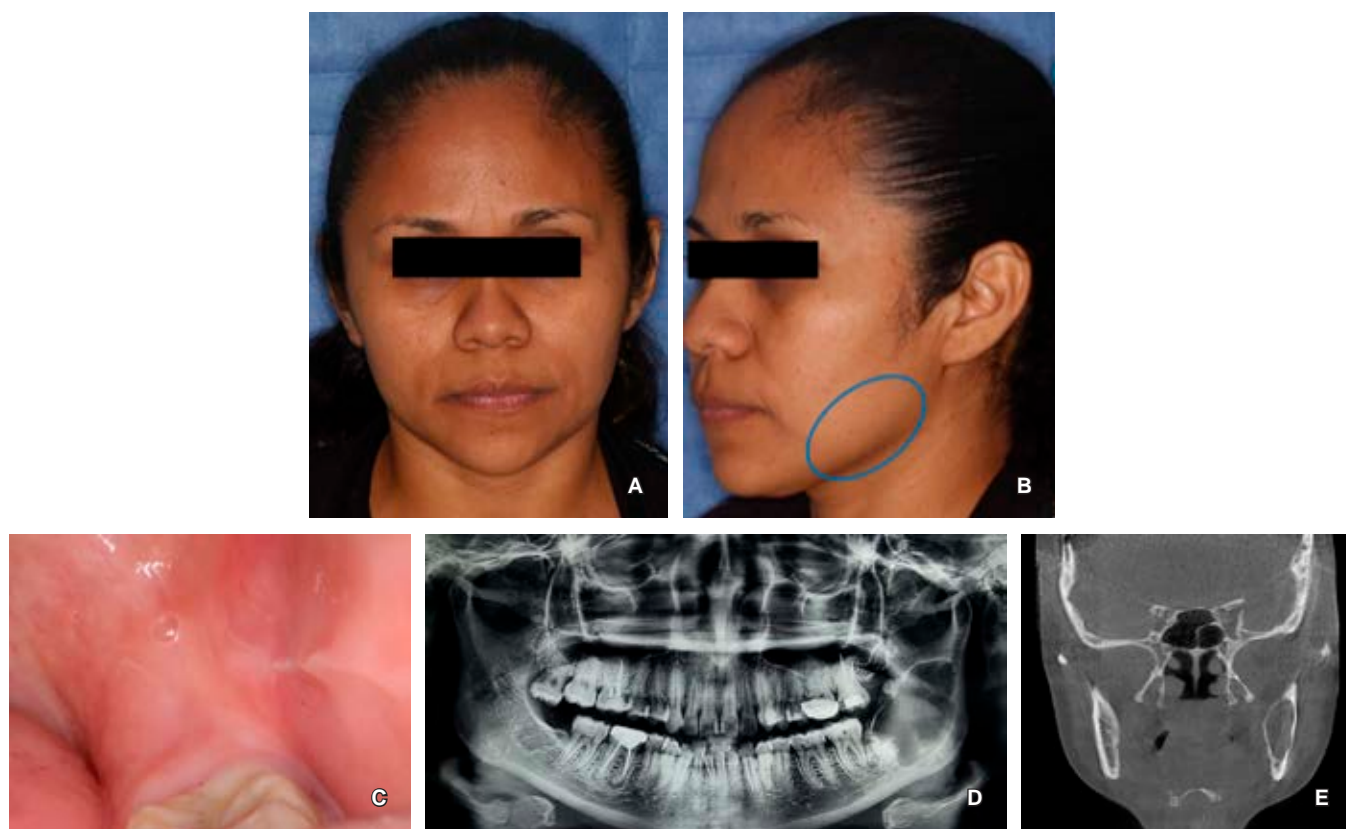


Figura 1: A y B) Las fotografías extraorales iniciales muestran un ligero aumento de volumen en la región del ángulo mandibular. **C)** Intraoralmente se observó un discreto aumento de volumen en el área retromolar. **D y E)** Estudios de imagen previos a la biopsia. **E)** La tomografía computarizada reveló la expansión de las corticales óseas y el desplazamiento del conducto del nervio dentario inferior.

A and B) Initial clinical photographs. The images showed a slight swelling in the mandibular left area. **C)** Intraoral examination showed a slight swelling in the retromolar area. **D and E)** Image studies. **E)** The CT scan revealed an expansion of the cortical bone, and the displacement of the inferior dental nerve.

el tubo con clorhexidina al 0.12%, diariamente y dos veces por día. La paciente acudió a un seguimiento radiográfico mensual hasta que se observó un aumento de la radiopacidad de la lesión. Después de cinco meses, la radiografía mostró disminución de la lesión y una zona residual radiolúcida de aproximadamente 1 × 1 cm de diámetro (*Figura 2 E-G*), aproximadamente 80% menor al tamaño original de la lesión. En este punto se decidió realizar la biopsia excisional de la lesión con osteotomía periférica controlada.

RESULTADOS

La *Figura 3 A y B* muestra clínica y radiográfica-mente el área de la lesión después de la segunda cirugía. No existe recurrencia después de 28 meses, y se ha programado el seguimiento clínico y radiográfico a largo plazo. Aunque la paciente no

presentaba macrocefalia, por su edad y tamaño de la lesión, fue examinada en busca de anomalías esqueléticas en el cráneo, y la presencia de depresiones en las palmas de las manos y las plantas de los pies. No se encontró ningún síntoma que pudiera asociarse con el síndrome de carcinoma de células basales nevoide.

Histológicamente se observó un fragmento de tejido blando compuesto de epitelio con metaplasia escamosa, rodeado por una cápsula de tejido conjuntivo fibroso denso, bien vascularizado y un moderado infiltrado inflamatorio de predominio linfocitario. Además, en el tejido conjuntivo adyacente a la lesión se encontró tejido mineralizado compatible con cemento, haces de tejido muscular de tipo estriado esquelético y acinos glandulares mucoserosos. Finalmente, se emitió el diagnóstico de queratoquiste odontogénico con metaplasia escamosa (*Figura 3C*).

DISCUSIÓN

En la más reciente clasificación de la Organización Mundial de la Salud para tumores de cabeza y cuello, el nombre de tumor odontogénico queratoquístico ha sido cambiado nuevamente por KC odontogénico. Lo anterior sigue causando controversias y confusiones, e inequívocamente disminuye la alerta que se tenía sobre el comportamiento localmente agresivo de la lesión.²⁰ Sin embargo, por sus características y su alto porcentaje de recidivas, el tratamiento de esta lesión

sigue siendo controversial.^{5,21} Entre todas las opciones terapéuticas descritas, la más radical es la resección en bloque con márgenes de seguridad.^{22,23}

En el presente caso, durante la evaluación de los cortes histológicos, se identificó una pérdida de la arquitectura clásica del KC en gran parte del tejido, debido al proceso inflamatorio crónico severo. Siempre que exista inflamación en una lesión de origen odontogénico se debe poner especial cuidado en el diagnóstico. Por ejemplo, las características histopatológicas del KC suelen traslaparse con las del ameloblastoma

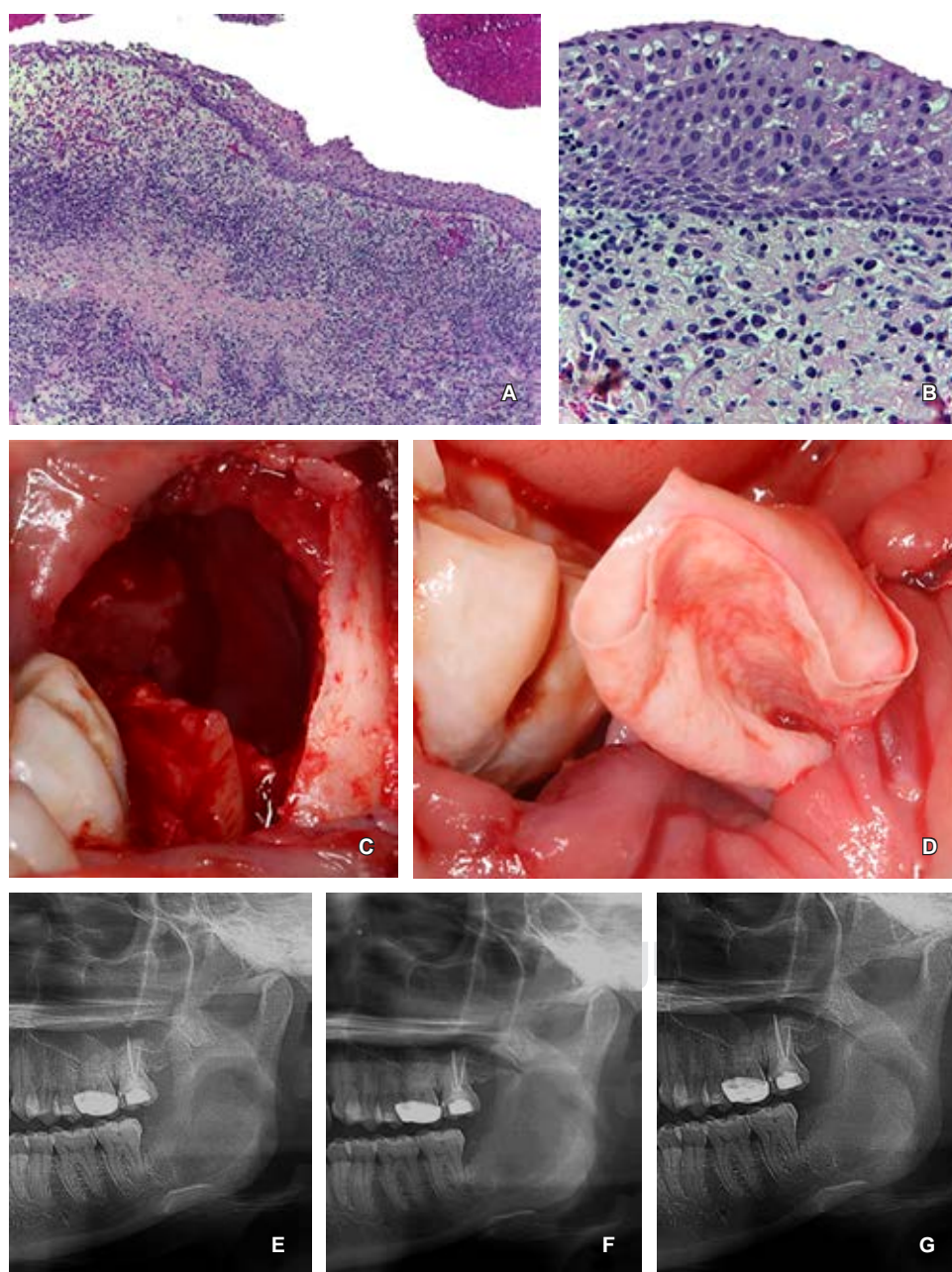


Figura 2:

A y B) Microfotografías de la biopsia inicial, hematoxilina y eosina; **(A)** 100x; **(B)** se puede apreciar el epitelio quístico paraqueratinizada, con un estrato basal en empalizada y núcleos hiper cromáticos, una cápsula de tejido conjuntivo subyacente denso y fibroso, y un severo infiltrado inflamatorio, 400x. **(C)** Abordaje quirúrgico a la cavidad quística. **(D)** Colocación y fijación de drenaje tipo Penrose. **(E-G)** Ortopantomografías de seguimiento. **(E)** Un mes después del tratamiento quirúrgico. **(F)** Dos meses después. **(G)** Cuatro meses después.

A and B) Microphotographs of the initial biopsy, hematoxylin and eosin staining. **(A)** 100 X. **(B)** The image showed a cystic epithelium with palisading of the basal lamina and parakeratinization, the nuclei of the cells from basal lamina are hyperchromatic in appearance, and a capsule of dense connective tissue is present, as well as a severe inflammatory infiltrate, 400 X. **(C)** access to the cystic cavity. **(D)** positioning and fixation of the Penrose tube. **(E-G)** orthopantomography of the follow-up. **(E)** One month follow-up. **(F)** Two months' follow-up. **(G)** Four months' follow-up.



Figura 3: **A)** Fotografía de seguimiento posterior a la enucleación y osteotomía periférica, en la cual se observa una adecuada cicatrización. **B)** Ortopantomografía un mes después del segundo procedimiento quirúrgico, el hueso maxilar muestra mayor radiopacidad, sin evidencia de lesión quística. **C)** Microfotografía de la biopsia excisional con epitelio escamoso con metaplasia, hematoxilina y eosina, 100x.

A) Clinical image of the follow-up after the enucleation and peripheral osteotomy, with adequate healing. **B)** Orthopantomography of one month follow-up after enucleation, the mandibular bone showed an increase in radiopacity, and there is no evidence of the cystic lesion. **C)** microphotograph of the excisional biopsy, the lesion showed a lining of squamous epithelium with metaplasia, hematoxylin and eosin staining, 100 X.

o con las del carcinoma escamocelular. El análisis exhaustivo de las células de la capa basal en empalizada e hipercrómicas fueron determinantes para realizar el diagnóstico de KC, y a su vez, establecer un plan de tratamiento personalizado para la paciente.

Los términos descompresión y marsupialización suelen usarse de manera indistinta, pero técnicamente la descompresión denota cualquier tratamiento que permita eliminar la presión dentro de una lesión, con la finalidad de establecer una comunicación entre la luz del quiste y la cavidad oral.^{21,24,25} Mientras que la marsupialización es una forma de descompresión que denota la creación de una abertura autosustentable, y que puede utilizarse para la completa resolución de una lesión quística.²⁵ Previamente, se han reportado las ventajas de la técnica de descompresión seguida de una marsupialización hasta confirmar radiográficamente que la lesión ha disminuido a un tamaño de 2-3 cm.⁵ Posteriormente, se realiza una enucleación quirúrgica con osteotomía periférica para remover los remantes del quiste.⁵

Los dispositivos utilizados por lo general incluyen tubos de catéteres intravenosos o para alimentación pediátrica, los cuales se fijan con alambres de ortodoncia a los dientes adyacentes o al hueso.^{2,5,23,25} Esta técnica sugiere que el alambre de ortodoncia atraviese el tubo para evitar su compresión. Además, para mantener la permeabilidad del tubo se utilizan adyuvantes como la clorhexidina al 0.12% o solución

salina.²¹ Este protocolo fue levemente modificado para el presente caso, en el cual se utilizó un tubo de Penrose suturado a la mucosa, con el orificio orientado hacia mesial y hacia la zona de las cúspides de los molares, lo que facilitó que la paciente pudiera encontrarlo y realizar su irrigación constante. Lo anterior funcionó eficientemente durante el tratamiento. Diversos reportes muestran que este protocolo disminuye de forma favorable los casos de recurrencia, ya que produce cambios en el epitelio quístico, reduce el tamaño de la lesión y disminuye el diámetro de la luz del quiste.^{9,26,27}

Los KC tratados con simple enucleación tienen un alto porcentaje de recurrencia, entre 23.1 y 56%.^{28,29} En un interesante metaanálisis realizado por Stoeltinga²⁰ se reportó que, comparada con la enucleación simple, la marsupialización acompañada de enucleación, retarda y reduce la tasa de recurrencia en los KC. Sin embargo, el mismo estudio reporta que la mayoría de los casos y los estudios sobre el KC carecen de información detallada sobre el tratamiento de la lesión. En el presente caso tratamos de incluir la mayor información posible. El diagnóstico apropiado en conjunto con el plan de tratamiento, que consistió en realizar una descompresión y marsupialización, seguida de la enucleación de la lesión más osteotomía periférica, resultó en una buena evolución clínica y después de 28 meses de seguimiento la paciente no ha tenido recurrencia.

CONCLUSIONES

Acerca de la descompresión seguida de la marsupialización, se puede decir que la técnica no consiste sólo en un cambio físico durante la evolución del queratoquiste odontogénico; también modifica su comportamiento biológico.²⁴ En el presente caso, el análisis histológico de la biopsia final mostró cambios metaplásicos evidentes del epitelio de revestimiento, lo cual concuerda con los hallazgos de otros autores.^{21,24} Es importante considerar que el tratamiento empleado deberá depender de las características de cada paciente y del propio quiste, entre ellos los hallazgos histopatológicos del mismo, su extensión, la localización y las infecciones asociadas a la lesión.^{21,20}

La librería Cochrane (*Cochrane Database Systematic Review*) en 2010 evaluó las estrategias para el tratamiento del queratoquiste, concluyendo que no existen ensayos clínicos controlados aleatorizados que permitan evaluar la efectividad de cada uno de los tratamientos existentes. Por lo anterior, se recomienda que el personal clínico tome en cuenta las publicaciones de series retrospectivas y su propia experiencia para decidir el mejor plan de tratamiento para cada caso.¹¹ Con base en la literatura revisada sobre el KC, los autores concluimos que, por su alta tasa de recurrencia, la simple enucleación representa un riesgo innecesario para el paciente. Es recomendable que se realice una biopsia en todas las lesiones quísticas de la cavidad bucal. En los casos en los que no sea posible realizar una biopsia, y se sospeche de un posible KC, se recomienda utilizar tratamientos adyuvantes como nitrógeno líquido o solución de Carnoy para eliminar restos de epitelio quístico y prevenir futuras recurrencias.

Clinical case

Treatment with decompression of an odontogenic keratocyst

Alejandro Alonso Moctezuma,*
Edmundo Santos Jaimes,* Eric Zeta Castañeda,§
Patricia González-Alva,¶ Javier Portilla Robertson*

* Department of Pathology, Oral and Maxillofacial Medicine. Faculty of Dentistry. National Autonomous University of Mexico.

§ Resident at Oral Pathology Department. UNAM.

¶ Laboratory of Tissue Bioengineering. Division of Postgraduate Studies and Research. Faculty of Dentistry. National Autonomous University of Mexico.

ABSTRACT

Introduction: The treatment of the odontogenic keratocyst (OKC), formerly known as keratocystic odontogenic tumor, remains controversial. The KC is an odontogenic cystic lesion that probably originates from the primitive dental lamina, commonly located in the posterior mandible, and could be what used to be known as primordial cyst. The KC is a benign lesion with an aggressive local biological behavior. A wide range of techniques has been proposed for the treatment of KC, including, enucleation, marsupialization, resection, and a combination of different methods. However, resection of the KC should be regarded as the last treatment option. **Purpose:** To present a case report of a 36-year-old female patient with a large lesion in the left inferior mandible, accompanied by chronic inflammation. **Material and methods:** The lesion was diagnosed as KC with a chronic inflammatory process. The treatment was marsupialization with decompression, followed by irrigation with 0.12% chlorhexidine. **Results:** The lesion reduced in size and was removed with secondary enucleation and peripheral osteotomy. Once the lesion had reduced by about 80% from its original size, and no signs of inflammation were present, an excisional biopsy was performed. The final histological specimen showed an OKC with squamous metaplasia. **Discussion:** In the present case, conservative treatment was successful. However, long-term follow-up is recommended for this type of lesion. The association with nevroid basal cell carcinoma syndrome should be considered in patients with extended or multiple lesions. **Conclusions:** The initial approach toward odontogenic lesions with local but aggressive behavior could have significant repercussions in the rehabilitation and the quality of life of the affected patients. Therefore, an adequate treatment plan should include the evaluation of a multidisciplinary team for each case.

Keywords: Decompression; odontogenic keratocyst; keratocystic odontogenic tumor; marsupialization, metaplasia.

INTRODUCTION

The odontogenic keratocyst (OKC) is often described as an entity with specific clinical and histological features, with a high recurrence rate when treated with enucleation alone.^{1,2} The lesion is frequently located in the posterior area of the mandibular bone.^{3,4} The aggressive local behavior of the lesions has been well documented.³ The KC is a cystic lesion probably derived from the dental lamina, and it probably represent the lesions previously known as a primordial cyst.⁵

The term KC was first introduced by Philipsen in 1953, in an article originally written in Danish, and with an English abstract.⁵⁻⁷ The lesion attracted interest due to its histological features, and was later recognized as an individual entity between 1970 and 1971. Immediately after that, according to Pogrel,⁵ Dr. Browne described its clinical and histological characteristics. Finally, in 1963, Pingborg and Hanse suggested histological guidelines that described the essential characteristics of the lesion.⁴

The histological image of the odontogenic KC includes a squamous parakeratinized epithelium, and