

Queratoquiste Odontogénico de amplia dimensión: reporte de caso

Large dimension odontogenic keratocysts: case report

Ceratocisto odontogénico de grande dimensão: relato de caso

Received: 12/21/2020 | Reviewed: 12/23/2020 | Accept: 12/24/2020 | Published: 12/28/2020

Marcelo Enrique Cazar Almache

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-6806-7442>

Facultad de Odontología de la Universidad de Cuenca, Ecuador

E-mail: marcelo.cazar@ucuenca.edu.ec

María Fernanda Torres Calle

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8097-212X>

Facultad de Odontología de la Universidad de Cuenca, Ecuador

E-mail: mfernanda.torresc@ucuenca.edu.ec

María Paz Pinos Gavilanes

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-2224-0286>

Facultad de Odontología de la Universidad de Cuenca, Ecuador

E-mail: paz.pinosg@ucuenca.edu.ec

Darwin Vicente Castillo Yaguana

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4224-5674>

Facultad de Odontología de la Universidad de Cuenca, Ecuador

E-mail: darwin.castillo@ucuenca.edu.ec

Juan Diego Cárdenas Campoverde

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-5773-0774>

Facultad de Odontología de la Universidad de Cuenca, Ecuador

E-mail: juan.cardenas2703@ucuenca.edu.ec

Resumen

El Queratoquiste Odontogénico (OKC) es una lesión cuyo origen es el epitelio dental, tiene predilección por presentarse en la parte posterior de la mandíbula y es considerada una de las más comunes dentro de los quistes odontogénicos. El siguiente estudio presenta un caso de Queratoquiste Odontogénico de larga dimensión. Una paciente femenina presenta sintomatología inflamatoria a nivel de la mandíbula. En el examen físico intraoral se realizó

prueba de palpación y adicionalmente exámenes radiográficos, donde se determinó una imagen radiolúcida multilocular de 8x3 cm. Posteriormente se realizó una biopsia cuya histología, resultó compatible con Queratoquiste Odontogénico. Este artículo revisa la etiopatogenia, características clínicas, radiográficas, histopatológicas, inmunohistoquímica y tratamiento, con el objetivo de describir la importancia de esta lesión debido a su capacidad de llegar a medir grandes dimensiones y presentar alta recidiva. Por lo tanto, es importante realizar un diagnóstico correcto que permita establecer un plan de tratamiento adecuado para esta lesión.

Palabras clave: Queratoquiste; Odontogénico; Quiste; Recidiva; Crecimiento.

Abstract

Odontogenic keratocyst (OKC) is a lesion which origin is the dental epithelium, it has a predilection for presenting itself in the posterior portion of the mandible and is considered one of the most common lesions within odontogenic cysts. The following study presents a case of Odontogenic Keratocyst of a large dimension. A female patient presents with inflammatory symptoms at the level of the jaw. In the intraoral physical examination a palpation test was performed and together with radiographic examinations, in which a multilocular radiolucent image of 8x3 cm was determined. Subsequently, a biopsy was performed and the histology was compatible with Odontogenic Keratocyst. This article reviews the etiopathogenesis, clinical, radiographic, histopathological, immunohistochemical and treatment; with the aim of describing the importance of this lesion due to its ability to reach large dimensions and present high recurrence. Therefore, it is important to make a correct diagnosis that allows to establish an adequate treatment plan for this lesion.

Keywords: Keratocyst; Odontogenic; Cyst; Recidive; Growth.

Resumo

O Ceratocisto Odontogênico (OKC) é uma lesão cuja origem é o epitélio dentário, que tem predileção por ocorrer na parte posterior da mandíbula e é considerada uma das lesões mais comuns dentro dos cistos odontogênicos. O estudo a seguir apresenta um caso de ceratocisto odontogênico de grande dimensão. Uma paciente do sexo feminino apresenta sintomas inflamatórios ao nível da mandíbula. No exame físico intraoral, foi realizado um teste de palpação e, adicionalmente, exames radiográficos, onde foi determinada uma imagem radiolúcida multilocular de 8x3 cm. Posteriormente, foi realizada biópsia cuja histologia era compatível com Ceratocisto Odontogênico. Este artigo revisa as características

etiopatogênicas, clínicas, radiográficas, histopatológicas, imunohistoquímicas e de tratamento, com o objetivo de descrever a importância desta lesão dada a sua capacidade de atingir grandes dimensões e apresentar elevada recorrência. Portanto, é importante fazer um diagnóstico correto que permita estabelecer um plano de tratamento adequado para essa lesão.

Palavras-chave: Ceratocisto; Odontogênico; Cisto; Recorrência; Crescimento.

1. Introdução

El Queratoquiste Odontogénico comprende el 13% de los quistes mandibulares (Karahde 2019), anteriormente la OMS lo definió como un tumor odontogénico queratoquístico (KCOT), por su alta recurrencia, agresividad, aparición de quistes satélites y mutaciones en el gen supresor tumoral PTCH1; y la asociación con el síndrome de Gorlin-Goltz, sin embargo, en el año 2017 la OMS lo clasificó nuevamente como quiste bajo el nombre de Queratoquiste Odontogénico (Kaczmarzyk et al., 2018; Kahraman, Gunhan, & Celasun, 2018; Polak, Jędrusik-Pawłowska, Drozdowska, & Morawiec, 2019; Wright & Vered, 2017) El OKC puede crecer hasta un gran tamaño antes de manifestarse clínicamente, y tiene una alta recurrencia del 5% al 62% según estudios a diferencia de otros quistes de la mandíbula (Kshirsagar et al., 2019). Por lo que, el objetivo de este artículo es describir la importancia de esta lesión, su correcto diagnóstico y tratamiento oportuno.

1.1 Etiopatogenia

El Queratoquiste Odontogénico se origina de la lámina dental o de las células basales del epitelio oral en un 60% y el 40% restante se desarrolla a partir del epitelio reducido del esmalte del folículo dental (Cohen & Ziccardi, 2018).

1.2 Características Clínicas

Es un hallazgo clínico bastante común, ya que representa el 10-20% de los quistes odontogénicos y es el tercer quiste más común de la mandíbula (Kaczmarzyk et al., 2018). Se encuentra localizado con mayor frecuencia en la parte posterior de la mandíbula y la rama ascendente, muestran una ligera predilección por el sexo masculino (Bhargava, Deshpande, & Pogrel, 2012; Cohen & Ziccardi, 2018; da Silva, Stoelinga, & da Graça Naclério-Homem, 2019; Kahraman et al., 2018; Sigua-Rodriguez, Goulart, Sverzut, Asprino, & de Moraes,

2019; Vallejo-Rosero, Camolesi, de Sá, & Bernaola-Paredes, 2020). La lesión puede diagnosticarse en cualquier edad (Vallejo-Rosero et al., 2020). Puede producir expansión bucal o lingual, dolor, hinchazón o secreción y en raras ocasiones, los pacientes experimentan parestesia del labio inferior (Cohen & Ziccardi, 2018; Kshirsagar et al., 2019). En muchos casos, los pacientes no presentan síntomas hasta que alcanzan gran tamaño (Kshirsagar et al., 2019). Generalmente es una lesión asintomática y se identifica por hallazgos incidentales (Johnson, Gannon, Savage, & Batstone, 2014).

1.3 Características Radiográficas

El OKC radiográficamente se identifica como una lesión radiolúcida, bien delimitada con un borde cortical delgado y bien definido (Sigua-Rodriguez et al., 2019; Vallejo-Rosero et al., 2020). La mandíbula es el sitio más común en el que se encuentra esta lesión, su variante unilocular es la más predominante a diferencia de la multilocular que generalmente son lesiones más grandes (Bhargava et al., 2012; Sansare et al., 2013; Vallejo-Rosero et al., 2020). Puede existir expansión de corticales y reabsorción radicular (Bhargava et al., 2012; Sigua-Rodriguez et al., 2019). Se suele asociar a dientes sin erupcionar del 25% al 40% (Kshirsagar et al., 2019).

1.4 Características Histopatológicas

El diagnóstico del OKC se basa principalmente en las características histopatológicas (Kshirsagar et al., 2019). Se caracteriza por un epitelio escamoso estratificado paraqueratinizado de ocho a diez células de espesor, las células de la capa basal presentan patrón empalizado, característico con núcleos uniformes (Khan et al., 2019; Pittl, Meier, Hakl, Sutter, & Turhani, 2017; Vallejo-Rosero et al., 2020).

La luz del quiste puede contener un líquido transparente, similar a un trasudado de suero o un material caseoso (Kshirsagar et al., 2019). La delgada pared fibrosa generalmente carece de infiltrado inflamatorio (Khan et al., 2019). Tal vez se vean pequeños quistes satelitales, cordones o islas de epitelio odontogénico dentro de la pared fibrosa (Kshirsagar et al., 2019).

1.5 Inmunohistoquímica

Al tener una alta tasa de recurrencia es importante un diagnóstico temprano; se han identificado alteraciones en biomarcadores como la COX-2, PCNA y Ki-67 en esta lesión (Bhargava et al., 2012; da Silva et al., 2019; Kaczmarzyk et al., 2018; Kshirsagar et al., 2019; Portes et al., 2020; Sigua-Rodriguez et al., 2019).

La expresión del COX-2 es un marcador importante ya que aumenta el nivel de Bcl-2 suprimiendo la apoptosis, dentro del comportamiento biológico del OKC se ha observado que después de la descompresión de la lesión la expresión de COX-2 disminuye (Kaczmarzyk et al., 2018).

El antígeno nuclear de células en proliferación (PCNA), ha demostrado ser un marcador útil en tumores de cabeza y cuello, la alta expresión de PCNA en el Queratoquiste Odontogénico puede reflejar el alto nivel de proliferación celular en el epitelio de revestimiento y apoya el concepto de la naturaleza neoplásica de esta lesión (Kaczmarzyk et al., 2018).

La Ki-67 representa un marcador confiable al momento de evaluar la proliferación celular expresados en todo el ciclo celular menos en la etapa G0 del ciclo celular, en el OKC, se expresa en un alto índice en la capa suprabasal a comparación de la capa basal (Portes et al., 2020).

1.6 Tratamiento

El enfoque terapéutico debe basarse según en el tamaño del quiste, el estado de recidiva y la evidencia radiográfica de perforación cortical (Kshirsagar et al., 2019).

Existen múltiples opciones quirúrgicas para el tratamiento, como la descompresión con drenaje, marsupialización, enucleación seguida de quimioablación con solución de Carnoy; además, existen técnicas más agresivas que utilizan criocirugía o destrucción química y técnicas quirúrgicas radicales con resección ósea (Cohen & Ziccardi, 2018; Sigua-Rodriguez et al., 2019). La aplicación de la solución de Carnoy disminuye la posibilidad de recidiva, debido que proporciona una cauterización química a una profundidad de 1,54 mm cuando se aplica durante 5 minutos. Sin embargo existe el riesgo de que afecte al nervio dentario inferior en lesiones mandibulares y es por ello que algunos cirujanos optaron por minimizar el tiempo a 3 minutos (Cohen & Ziccardi, 2018).

En la mayoría de los casos, cuando crece a un tamaño grande, la mejor opción de tratamiento es la marsupialización y descompresión con enucleación posterior para reducir el tamaño del tumor y preservar las estructuras adyacentes (Pittl et al., 2017).

2 Metodología

Este artículo es un reporte de caso clínico, abordado de manera descriptiva y carácter cualitativo. La publicación cumple con los principios éticos, la paciente firmó el consentimiento informado de la intervención quirúrgica, así también dio la aprobación para el uso de historia clínica, fotografías y estudios radiográficos para su difusión. Los investigadores fueron los responsables de recolectar dicha información, por el cual no se requirió el uso de encuestas, debido que se contó con una detallada historia clínica (Pereira, Shitsuka, Parreira, & Shitsuka, 2018). Además se realizó una revisión de la literatura para complementar y sustentar el estudio, a partir de la búsqueda en las bases de datos digitales PubMed, Science Direct y Cochrane.

3 Reporte de Caso

Paciente femenina de 17 años de edad, sin antecedentes médicos de importancia, refiere que hace 5 años acudió a consulta por la presencia de dolor y presión mandibular, el clínico que la evaluó mediante una radiografía le dio diagnóstico diferencial de Mixoma o Ameloblastoma y la paciente nunca regresó a consulta para realizarse el tratamiento.

Después de 5 años la paciente acude a consulta porque inicia con dolor e inflamación a nivel de la sínfisis mandibular, refiere aumento de volumen de tejidos cuando se expone al sol y superficies calientes, al examen intraoral se identifica expansión de la tabla ósea, presenta una fístula activa de líquido blanco amarillento espontáneo, a la palpación la lesión se encuentra blanda y depresible con expulsión de líquido a la dígito presión y al examen radiográfico se observa una imagen radiolúcida multilocular de 8x3cm de bordes definidos que se extiende desde la zona mesial de la pieza 3.6 hasta distal de la pieza 4.5, el borde superior está en relación con el tercio apical de las piezas involucradas, la lesión se extiende hacia la cima de la cresta alveolar, generando desplazamiento las piezas sin signos de reabsorción radicular. Se aprecia adelgazamiento de la cortical basal en la zona de la sínfisis. (Figura 1).

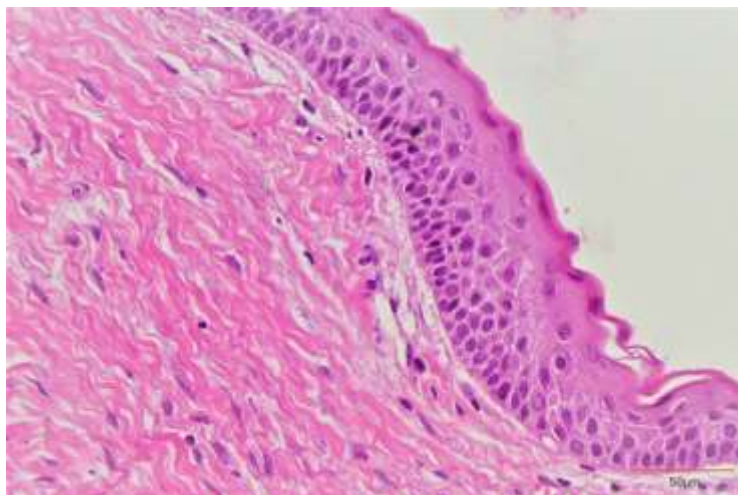
Figura 1. Radiografía panorámica. Imagen radiolúcida multilocular desde la zona mesial de la pieza 3.6 hasta la 4.6, divergencia de raíces, sin signos de reabsorción radicular.



Fuente: Los Autores.

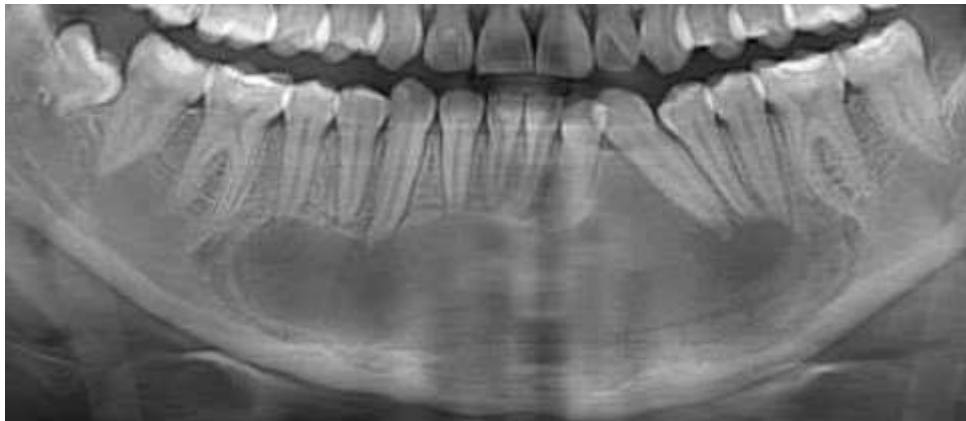
Se procede a realizar biopsia incisional que da como resultado un epitelio escamoso estratificado paraqueratinizado, depapilado, cuyas células basales evidencia hiperchromatismo y polarización inversa; siendo compatible con Queratoquiste Odontogénico (Figura 2). Posteriormente después del diagnóstico histológico se procede a colocar una válvula para drenaje que se mantuvo por 20 semanas. Se realizó la exéresis del remanente y curetaje, nuevamente se envió a estudio anatomopatológico confirmando el diagnóstico inicial de Queratoquiste Odontogénico. Después de un período de tres meses, se realizó control clínico y radiográfico y se observó condensación ósea y formación de nuevo tejido en la zona del quiste (Figura 3).

Figura 2. Epitelio paraqueratinizado, depapilado, células basales con hiperchromatismo nuclear y polarización inversa (H&E, 40x).



Fuente: Los Autores.

Figura 3. Radiografía panorámica después de 3 meses de enucleación. Formación de nuevo tejido.



Fuente: Los Autores.

4 Discusión

El Queratoquiste Odontogénico es una lesión benigna de alta prevalencia, naturaleza agresiva y alta recidiva; el diagnóstico radiográfico suele confundirse con otras lesiones como: quiste dentífero, ameloblastoma, tumor odontogénico adenomatoide (TOA), quiste odontogénico calcificante, mixoma y fibroma ameloblástico (Kshirsagar et al., 2019; Vallejo-Rosero et al., 2020). Las lesiones grandes o multiloculares deben evaluarse mediante una tomografía computarizada y se debe tener gran importancia debido a que se asocian con su alta recurrencia (Kaczmarzyk et al., 2018; Kshirsagar et al., 2019).

En el presente caso, la lesión es particularmente grande, siendo muy pocos casos reportados en la literatura (Gupta, Gupta, & Borle, 1985; Khan et al., 2019; Pittl et al., 2017), el periodo de crecimiento sin ser tratado fue de aproximadamente 5 años, debido a localización y tamaño que llega a extenderse en el segmento anterior y posterior de la mandíbula se confundió radiográficamente con un ameloblastoma y/o mixoma.

En la revisión bibliográfica que hemos realizado, no hemos encontrado casos reportados de OKC de amplia dimensión en el Ecuador, ni de su prevalencia, sin embargo se ha encontrado que esta lesión está asociada a dientes retenidos en un 22% según el estudio de Santana realizado en la ciudad de Guayaquil (Santana & Denisse, 2016). En otros países de latinoamérica como en Colombia se realizó un estudio con pacientes que asistieron a la facultad de Odontología de la Universidad Nacional de Colombia durante el periodo del 2014 al 2017 fueron diagnosticados 18 pacientes con quiste odontogénico confirmado y de los cuales el 11.2% (2 pacientes) fueron Queratoquiste Odontogénico (Fajardo Ortiz & Peña

Vega). En Venezuela la prevalencia del OKC fue del 27,69% en una población de estudio de 1878 pacientes con diagnóstico de quiste odontogénico en el periodo 2004 - 2018 (Villarreal-Dorrego & Rondón). En Chile de un total de 29364 muestras del Instituto de Referencia de Patología Oral, 2944 casos tuvieron diagnóstico de quistes odontogénicos de junio de 1976 hasta septiembre de 2004, de los cuales el 14,3% (421 casos) fueron OKC (Ochsenius Rondanelli, Escobar López, Godoy Rojas, & Peñafiel, 2007). En Brasil se obtuvo 27854 biopsias orales de los archivos de patología Oral y Maxilofacial de la Universidad Federal de Minas Gerais (FO-UFGM) y Pontificia Universidad Católica de Minas Gerais, estas fueron revisadas desde su apertura hasta 2012, siendo el más frecuente el OKC con 207 casos que representan el 41,7% (Jaeger et al., 2017).

El Queratoquiste Odontogénico presenta recurrencia del 7-28% durante los 5 primeros años después del tratamiento (Vallejo-Rosero et al., 2020). Muchos autores señalaron que la recurrencia de OKC puede estar relacionada con un tratamiento inadecuado ya que las lesiones multiloculares y grandes son de difícil acceso y los fragmentos se pasan por alto fácilmente en el curso del procedimiento quirúrgico (Kaczmarzyk et al., 2018). La marsupialización y la descompresión se han utilizado ampliamente como terapia inicial para las OKC grandes (Sigua-Rodríguez et al., 2019), método utilizado en el presente caso clínico.

El tratamiento radical elimina la lesión pero presenta otras necesidades, como procedimientos quirúrgicos, reconstrucciones e instalación de implantes y prótesis dentales (Sigua-Rodríguez et al., 2019)

5 Consideraciones Finales

El Queratoquiste Odontogénico generalmente se identifica por un hallazgo radiográfico, los odontólogos deben ser capaces de establecer el diagnóstico correcto de la lesión, analizando las características clínicas, radiográficas e histológicas. El tratamiento depende del tamaño de la lesión, en este caso presentamos un método de tratamiento mínimamente invasivo que nos permite preservar las estructuras anatómicas adyacentes por la edad y requerimiento del paciente. Se recomienda que todos los pacientes se realicen controles clínicos y radiográficos a largo plazo y de forma sistemática para identificar y tratar posibles recidivas.

Se sugiere que se realicen más investigaciones sobre los biomarcadores que nos indique la capacidad proliferativa de las células en esta lesión para tener un mayor valor pronóstico a futuro.

Referencias

Bhargava, D., Deshpande, A., & Pogrel, M. A. (2012). Keratocystic odontogenic tumour (KCOT)—a cyst to a tumour. *Oral and maxillofacial surgery*, 16(2), 163-170.

Cohen, J. M., & Ziccardi, V. B. (2018). Use of Virtual Surgical Planning as an Adjunct for Enucleation of Multiple Recurrent Odontogenic Keratocysts: Case Report. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 76(10), 2137. e2131-2137. e2136.

Fajardo Ortiz, L. V, & Peña Vega, C. P. Frequency of Odontogenic Cysts in Patients of the National University of Colombia Dental School.

Gupta, D, Gupta, M, & Borle, R. (1985). Pan-mandibular keratocyst with eosinophilia. *International journal of oral surgery*, 14(3), 311-313.

Jaeger, F., de Noronha, M. S, Silva, M. L. V, Amaral, M. B. F, Grossmann, S. d. M. C., Horta, M. C. R, & Mesquita, R. A. (2017). Prevalence profile of odontogenic cysts and tumors on Brazilian sample after the reclassification of odontogenic keratocyst. *Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery*, 45(2), 267-270.

Johnson, N. R., Gannon, O. M., Savage, N. W, & Batstone, M. D. (2014). Frequency of odontogenic cysts and tumors: a systematic review. *Journal of investigative and clinical dentistry*, 5(1), 9-14.

Kaczmarzyk, T., Kisielowski, K., Koszowski, R., Rynkiewicz, M., Gawełek, E., Babiuch, K, & Drozdowska, B. (2018). Investigation of clinicopathological parameters and expression of COX-2, bcl-2, PCNA, and p53 in primary and recurrent sporadic odontogenic keratocysts. *Clinical oral investigations*, 22(9), 3097-3106.

Kahraman, D., Gunhan, O, & Celasun, B. (2018). A series of 240 odontogenic keratocysts: Should we continue to use the terminology of ‘keratocystic odontogenic tumour’ for the solid variant of odontogenic keratocyst? *Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery*, 46(6), 942-946.

Khan, A. A., Al Qahtani, S., Dawasaz, A. A., Saquib, S. A., Asif, S. M., Ishfaq, M, . & Ibrahim, M. (2019). Management of an extensive odontogenic keratocyst: A rare case report with 10-year follow-up. *Medicine*, 98(51).

Kshirsagar, R. A., Bhende, R. C., Raut, P. H., Mahajan, V., Tapadiya, V. J, & Singh, V. (2019). Odontogenic keratocyst: Developing a protocol for surgical intervention. *Annals of Maxillofacial Surgery*, 9(1), 152.

Ochsenius Rondanelli, G., Escobar López, E., Godoy Rojas, L, & Peñafiel, C. (2007). Quistes odontogénicos: Análisis de 2.944 casos en Chile.

Pereira, A., Shitsuka, D., Parreira, F, & Shitsuka, R. (2018). Metodologia da pesquisa científica.[e-book]. Santa Maria. Ed.

Pittl, T. L., Meier, M., Hakl, P, Sutter, W, & Turhani, D. (2017). Long-term observation of a large keratocystic odontogenic tumour of the mandible treated by a single enucleation procedure: A case report and literature review. *International Journal of Surgery Case Reports*, 34, 119-122.

Polak, K., Jędrusik-Pawłowska, M., Drozdowska, B, & Morawiec, T. (2019). Odontogenic keratocyst of the mandible: A case report and literature review. *Dental and Medical Problems*, 56(4), 433-436.

Portes, J., Cunha, K. S. G., da Silva, L. E., da Silva, A. K. F., Conde, D. C, & Junior, A. S. (2020). Computerized Evaluation of the Immunoexpression of Ki-67 Protein in Odontogenic Keratocyst and Dentigerous Cyst. *Head and neck pathology*, 14(3), 598-605.

Sansare, K., Raghav, M., Mupparapu, M., Mundada, N., Karjodkar, F. R., Bansal, S, & Desai, R. (2013). Keratocystic odontogenic tumor: systematic review with analysis of 72 additional cases from Mumbai, India. *Oral surgery, oral medicine, oral pathology and oral radiology*, 115(1), 128-139.

Santana, O, & Denisse, M. (2016). Patologías asociadas a dientes retenidos encontradas en tomografía Cone Beam entre Centro Radiológico Guayaquil-2015.

Silva, Y. S., Stoelinga, P. J., & Graça Naclério-Homem, M. (2019). The presentation of odontogenic keratocysts in the jaws with an emphasis on the tooth-bearing area: a systematic review and meta-analysis. *Oral and maxillofacial surgery*, 1-15.

Sigua-Rodriguez, E. A., Goulart, D. R., Sverzut, A., Asprino, L., & de Moraes, M. (2019). Is surgical treatment based on a 1-step or 2-step protocol effective in managing the odontogenic keratocyst? *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 77(6), 1210. e1211-1210. e1217.

Vallejo-Rosero, K. A., Camolesi, G. V., de Sá, P. L. D., & Bernaola-Paredes, W. E. (2020). Conservative management of odontogenic keratocyst with long-term 5-year follow-up: Case report and literature review. *International Journal of Surgery Case Reports*, 66, 8-15.

Villarroel-Dorrego, M., & Rondón, N. L. Prevalencia de quistes odontogénicos en población venezolana.

Wright, J. M., & Vered, M. (2017). Update from the 4th edition of the World Health Organization classification of head and neck tumours: odontogenic and maxillofacial bone tumors. *Head and neck pathology*, 11(1), 68-77.

Porcentaje de contribución de cada autor en el manuscrito:

Marcelo Enrique Cazar Almache - 20%

María Fernanda Torres Calle - 20%

María Paz Pinos Gavilanes - 20%

Darwin Vicente Castillo Yaguana - 20%

Juan Diego Cárdenas Campoverde - 20%