

**Tratamento cirúrgico conservador em paciente jovem com ameloblastoma unicístico:
relato de caso**

**Conservative surgical treatment in young patient with unicistic ameloblastoma: case
report**

**Tratamiento quirúrgico conservador en un paciente joven con ameloblastoma
unicístico: reporte de caso**

Recebido: 17/10/2020 | Revisado: 24/10/2020 | Aceito: 03/12/2020 | Publicado: 06/12/2020

Miquéias Oliveira de Lima Júnior

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-8854-1132>

Real Hospital Português, Brasil

E-mail: miqueias_lima_junior@hotmail.com

Arthur José Barbosa de França

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-4648-0842>

Universidade de Pernambuco, Brasil

E-mail: arthur.franca@upe.br

Cauê Fontan Soares

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-9392-4530>

Hospital Getúlio Vargas, Brasil

E-mail: caue_fontan_@hotmail.com

Valéria Karen De Oliveira Silva

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-7063-877X>

Universidade Federal de Pernambuco, Brasil.

E-mail: valeriakaren01@gmail.com

Riedel Frota Sá Nogueira Neves

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-8732-0020>

Hospital Getúlio Vargas, Brasil

E-mail: riedelfrota@gmail.com

Paloma Rodrigues Genu

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-1026-1389>

Universidade Federal de Pernambuco, Brasil

E-mail: palomagenu@gmail.com

Amanda Vanessa Lira dos Santos Lima

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-7783-7915>

Hospital D'Avilla, Brasil

E-mail: amandalira56778@gmail.com

Ricardo José de Holanda Vasconcellos

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7934-5743>

Universidade de Pernambuco, Brasil

E-mail: ricardo.holanda@upe.br

Resumo

O objetivo deste trabalho é apresentar o caso clínico de um paciente do sexo masculino, 14 anos de idade, diagnosticado com ameloblastoma unicístico em região posterior de mandíbula direita envolvendo os elementos dentários 47 e 48. A lesão foi descoberta em exame de imagem de rotina para instalação de aparelho ortodôntico e após avaliação do paciente, que não apresentava sintomatologia associada, foi proposto um tratamento menos invasivo, por meio de biópsia, enucleação da lesão e instalação de dispositivo descompressivo no mesmo tempo cirúrgico. Após a confirmação através do laudo histopatológico de ameloblastoma, o paciente permanece em acompanhamento ambulatorial há 2 anos, apresentando resposta satisfatória ao tratamento, com regeneração óssea na área do defeito e sem queixas ou sinais de recidiva até o momento. Embora não exista consenso acerca da melhor terapêutica para o ameloblastoma unicístico, abordagens mais conservadoras têm se mostrado efetivas no tratamento de pacientes jovens, permitindo assim a manutenção da morfologia e crescimento mandibular.

Palavras-chave: Ameloblastoma; Mandíbula; Terapêutica.

Abstract

The objective of this study is to present the clinical case of a 14-year-old male patient diagnosed with unicystic ameloblastoma in the posterior region of the right mandible involving dental elements 47 and 48. The lesion was discovered in a routine imaging exam for installation of an orthodontic appliance and after evaluation of the patient, who had no associated symptoms, a less invasive treatment was proposed, through biopsy, enucleation of the lesion and installation of a decompression device at the same surgical time. After confirmation through the histopathological report of ameloblastoma, the patient has been in outpatient follow-up for 2 years, presenting a satisfactory response to treatment, with bone

regeneration in the area of the defect and no complaints or signs of recurrence so far. Although there is no consensus on the best therapeutics for unicystic ameloblastoma, more conservative approaches have been shown to be effective in the treatment of young patients, thus allowing the maintenance of mandibular morphology and growth.

Keywords: Ameloblastoma; Mandible; Therapeutics.

Resumen

El objetivo de este estudio es presentar el caso clínico de un paciente masculino de 14 años diagnosticado de ameloblastoma unicístico en la región posterior de la mandíbula derecha que involucra elementos dentales 47 y 48. La lesión fue descubierta en un examen de imagen de rutina para instalación de un aparato de ortodoncia y luego de la evaluación del paciente, que no presentaba síntomas asociados, se propuso un tratamiento menos invasivo, mediante biopsia, enucleación de la lesión e instalación de un dispositivo de descompresión en el mismo momento quirúrgico. Tras la confirmación mediante el informe histopatológico de ameloblastoma, la paciente lleva 2 años en seguimiento ambulatorio, presentando una respuesta satisfactoria al tratamiento, con regeneración ósea en la zona del defecto y sin quejas ni signos de recidiva hasta el momento. Aunque no existe consenso sobre la mejor terapéutica para el ameloblastoma unicístico, se ha demostrado que los enfoques más conservadores son efectivos en el tratamiento de pacientes jóvenes, permitiendo así el mantenimiento de la morfología y el crecimiento mandibular.

Palabras clave: Ameloblastoma; Mandíbula; Terapéutica.

1. Introdução

Os tumores que acometem o esqueleto maxilofacial são classificados como odontogênicos e não-odontogênicos e podem ser benignos ou malignos (Rikhotso & Premviyasa, 2019). Dentre os tumores odontogênicos com maior incidência, o ameloblastoma é apontado como o mais comum, embora ainda seja considerado um tumor raro de cabeça e pescoço (Johnson *et al.*, 2014).

Ameloblastoma é uma neoplasia benigna de origem epitelial que pode surgir do esmalte, folículo dental, ligamentos periodontais ou revestimento de cistos odontogênicos (Adeel *et al.*, 2016). Não obstante, é um tumor odontogênico localmente agressivo e infiltrativo que tem uma rara capacidade de metastizar (Rikhotso & Premviyasa, 2019). Este tipo de tumor é caracterizado por um crescimento lento e uma alta taxa de recidiva,

acometendo, principalmente, a região posterior da mandíbula (Laborde *et al.*, 2017; Nascimento *et al.*, 2017).

A neoplasia possui a capacidade de promover expansão do osso da mandíbula, sobretudo na região dos molares e ramo mandibular. Em estágio inicial, é comumente assintomática, o que implica no seu diagnóstico. Já no estágio avançado, apresenta sintomatologia dolorosa, inchaço e desconforto local. Sua prevalência está associada a quarta e quinta décadas de vida, sendo rara em crianças e idosos. Não apresenta predileção de sexo e raça e o estímulo desencadeador ainda é desconhecido (Santana, Pessoa, & Horiuchi, 2019).

De acordo com a mais recente classificação da Organização Mundial da Saúde (OMS) para tumores de cabeça e pescoço, atualizada em 2017 (El-Naggar *et al.*, 2017), o ameloblastoma pode ser classificado em três subtipos: ameloblastoma, ameloblastoma unicístico e ameloblastoma periférico ou extraósseo. As terminologias sólida/multicística foram abolidas da classificação, uma vez que não apresentaram significância biológica. A forma desmoplásica, por sua vez, deixou de ser considerada uma entidade clínica e passou a ser classificada como um subtipo histológico, devido ao fato de se comportar como um ameloblastoma convencional (Wright & Soluk-Tekkeşin, 2017; Tolentino, 2018).

O ameloblastoma unicístico foi descrito pela primeira vez em 1977 por Robinson e Martinez. Os autores constataram que esta variante apresenta maior incidência na população jovem, além de demonstrar melhor prognóstico e resposta ao tratamento conservador, tornando-o uma entidade distinguível (Meshram *et al.*, 2017). Cerca de 15% dos ameloblastomas intraósseos são da variante unicística e pelo menos metade desses casos ocorrem na segunda década de vida. A forma unicística pode apresentar três padrões de proliferação: luminal, intraluminal e mural. Esses subtipos podem interferir diretamente no comportamento biológico, tratamento e prognóstico da lesão (Hsu *et al.*, 2014).

Radiograficamente, o ameloblastoma unicístico se apresenta como uma lesão radiolúcida unilocular bem delimitada, frequentemente associada a dentes impactados ou não irrompidos, semelhante às características do cisto dentífero. Por isso, seu diagnóstico é dado pelo exame histopatológico (Hsu *et al.*, 2014). Várias abordagens têm sido empregadas no tratamento, desde os métodos mais conservadores, como enucleação, curetagem e descompressão, até os mais radicais, como ressecção segmentar ou marginal. No entanto, terapêuticas mais conservadoras têm sido relatadas com frequência no tratamento de pacientes mais jovens. (Meshram *et al.*, 2017; Nascimento *et al.*, 2017).

O presente trabalho tem como objetivo relatar caso clínico de um paciente jovem com diagnóstico de ameloblastoma unicístico em região de ramo mandibular direito, o qual foi

tratado por meio de abordagem conservadora, com a combinação de enucleação cirúrgica e descompressão.

2. Relato de Caso

Paciente do sexo masculino, 14 anos de idade, leucoderma, encaminhado por um ortodontista a um Serviço de Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial de referência do nordeste do Brasil, com histórico de lesão em mandíbula, após um achado radiológico de rotina, para instalação de aparelho ortodôntico. Ao exame físico, não apresentou alteração no sistema estomatognático, e não relatou nenhum tipo de desconforto.

A Figura 1 ilustra aspectos encontrados no exame de tomografia computadorizada, onde foi observada lesão unilocular adjacente aos elementos dentários em região mandibular posterior direita, levando ao diagnóstico presuntivo de cisto dentígeno.

Figura 1. Tomografia Computadorizada de face. A) Corte Axial demonstrando lesão unilocular envolvendo o elemento dentário 48 B) Reconstrução Panorâmica: Avalia-se lesão unilocular, envolvendo os elementos dentários 47 e 48, além de inclusão dentária dos dentes 18,28,38.

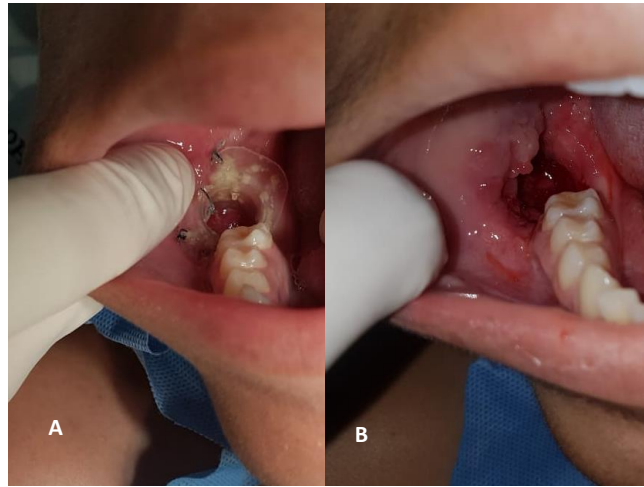


Fonte: Autores.

O tratamento proposto, consistiu em uma biópsia excisional através da enucleação da lesão envolvendo elementos dentários 47/48 e instalação de dispositivo descompressivo, também, por decisão unânime da equipe, optou-se pela remoção dos demais elementos dentários inclusos.

A Figura 2 apresenta o dispositivo instalado no transoperatório, que permaneceu sob a loja cirúrgica por um período de 6 meses, sob constante processo de irrigação com solução fisiológica.

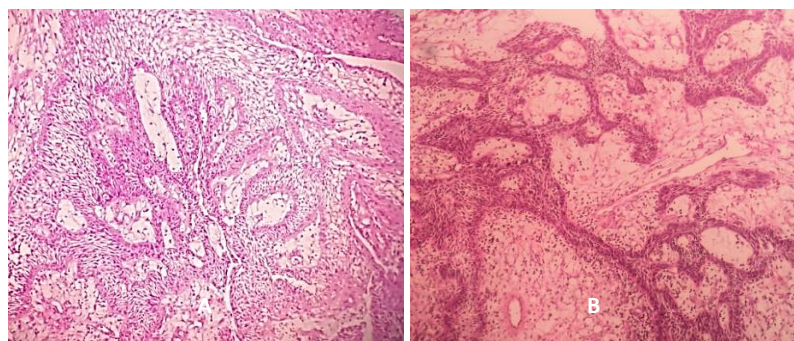
Figura 2. Pós operatório. A) Dispositivo descompressivo feito com seringa de 5ml, adaptado e suturada ao defeito com fios de Nylon 3.0. B) Remoção do dispositivo descompressivo, 6 meses após sua instalação.



Fonte: Autores.

A Figura 3 mostra o corte histológico que levou ao diagnóstico de ameloblastoma unicístico, por meio do exame anatomopatológico ao qual a peça foi submetida posteriormente à remoção cirúrgica.

Figura 3. Imagem da lâmina histológica. A) Fotomicrografia corada em HE, mostrando cordões de epitélio odontogênico em estroma de suporte arranjado frouxamente. B) É possível observar ilha de células odontogênicas neoplásicas, delimitados por células cubóides hiper Cromáticas, semelhantes a ameloblastos.



Fonte: Autores.

O paciente permaneceu sob constante acompanhamento clínico e radiográfico, por períodos de 1 mês, 3 meses, 6 meses, 1 ano, e 2 anos após o procedimento cirúrgico.

Atualmente o paciente permanece em acompanhamento ambulatorial, apresentando boa reparação óssea e nenhum sinal de recidiva.

A Figura 4 demonstra o exame tomográfico de controle, 2 anos após o procedimento de enucleação e descompressão da lesão.

Figura 4. Tomografia Pós-Operatória de controle (2 anos). A) Corte axial, demonstrando neoformação óssea e nenhum sinal de recidiva. B) Reconstrução panorâmica.



Fonte: Autores.

Por se tratar de um Relato de Caso Clínico, não houve necessidade de aprovação pelo Comitê de Ética em Pesquisa da instituição. O relato do caso foi autorizado pelo paciente através da assinatura do Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE).

3. Discussão

O ameloblastoma é um tumor benigno com prevalência entre a quarta e quinta décadas de vida e não apresenta predileção por sexo, ocorrendo com a mesma frequência em homens e mulheres. Em aproximadamente 84% dos casos, a mandíbula é a área mais comumente afetada pelo tumor, sendo a região posterior mandibular mais acometida. A maxila figura em segundo lugar como sítio mais afetado. O surgimento deste tipo de lesão em crianças e adolescentes abaixo de 18 anos é incomum, representando apenas 14,6% dos casos. Todavia, a variante unicística possui uma relativa predileção para a faixa etária mais jovem, com o que corrobora o caso apresentado (Nascimento *et al.*, 2017; Neagu *et al.*, 2019).

As lesões unicísticas são caracterizadas por crescimento lento e relativamente agressivo, bem delimitadas pela cápsula fibrosa do cisto, com poucos tumores percorrendo os tecidos periféricos. Radiograficamente, mostram áreas uniloculares expansivas, radiolúcidas e apresentam margens bem definidas. Cerca de 50-80% dos casos estão associados a um dente

impactado ou não irrompido, como observado no caso relatado. A apresentação clínica e radiográfica de ameloblastoma unicístico são, às vezes, indistinguíveis de cistos dentígeros (Hsu *et al.*, 2014; Seintou, Martinelli-Klay, & Lombardi, 2014; Meshram *et al.*, 2017; Nascimento *et al.*, 2017;).

Diversos estudos corroboram que o ameloblastoma unicístico é o tipo mais comum de ameloblastoma em pacientes caucasianos com menos de 20 anos. Em países subdesenvolvidos, os pacientes procuram atendimento médico apenas quando têm sintomas incapacitantes, o que acredita-se que possa explicar a alta frequência de grandes ameloblastomas. Em contrapartida, em países desenvolvidos a detecção de ameloblastomas acontece frequentemente durante exames dentários de rotina (Seintou, Martinelli-Klay, & Lombardi, 2014). Em nosso caso, o ameloblastoma unicístico foi descoberto durante exame padrão de ortopantomografia dos maxilares.

O tratamento eletivo do ameloblastoma inclui técnicas cirúrgicas conservadoras como a enucleação ou descompressão, combinada ou não com procedimentos de suporte como curetagem, uso de nitrogênio líquido ou solução de Carnoy. Já as técnicas cirúrgicas radicais referem-se à mandibulectomia ou ressecção segmentar da lesão (Takahashi *et al.*, 2019; Neagu *et al.*, 2019). A aplicação de técnicas conservadoras ou radicais para o tratamento do ameloblastoma é controversa e depende do tipo clínico. Com base na antiga classificação da OMS, os ameloblastomas de tipo sólido e multicístico eram considerados localmente agressivos e apresentavam altas taxas de recorrência quando abordados com tratamento conservador. Todavia, o ameloblastoma unicístico possui comportamento biológico menos agressivo, conforme descreveram Robinson e Martinez (1977), com menor taxa de recidiva e pode responder de maneira favorável ao tratamento conservador (Meshram *et al.*, 2017; Neagu *et al.*, 2019). A resposta positiva diante da abordagem conservadora também foi observada no presente caso.

Devido a menor agressividade deste tipo de tumor, a enucleação foi relatada como tratamento adequado para lesões unicísticas. Além disso, a taxa de recorrência foi descrita como baixa. Contudo, é importante destacar a associação entre a variante do ameloblastoma unicístico em que há infiltração mural por células epiteliais e uma maior taxa de recorrência. Neste caso, se faz necessário ampla excisão da lesão para tratamento adequado (Adeel *et al.*, 2016; Soluk-Tekkeşin & Wright, 2018). Fatores como tamanho do tumor, localização da lesão, tempo de evolução, impacto psicológico, saúde geral e exames periódicos de acompanhamento também devem ser considerados na formulação do plano de tratamento (Meshram *et al.*, 2017).

Não obstante, o tratamento do ameloblastoma em crianças e adolescentes é complicado devido a três fatores: (1) o contínuo crescimento facial e diferente fisiologia óssea (maior porcentagem de osso esponjoso, aumento da renovação óssea e periósteo reativo) e presença de dentes não irrompidos; (2) a dificuldade no diagnóstico inicial; e (3) predominância do tipo unicístico de ameloblastoma. Há uma espécie de consenso em diversas literaturas que sugerem que o ameloblastoma deve ser tratado de forma agressiva para evitar recorrências. No entanto, existe um dilema no que se refere à aplicabilidade de uma cirurgia radical e extensa em pacientes jovens. Por esta razão, muitos autores defendem apenas enucleação ou mínima intervenção cirúrgica como terapêutica de eleição para crianças (Meshram *et al.*, 2017; Seintou, Martinelli-Klay, & Lombardi, 2014).

O fato é que o tratamento mais adequado para pacientes jovens e em crescimento permanece controverso. Não há evidências que comprovem qual modalidade de tratamento é mais eficaz (Seintou, Martinelli-Klay, & Lombardi, 2014). Todavia, alguns estudos sustentam que o ameloblastoma unicístico é melhor tratado em crianças e adolescentes de forma conservadora, através de descompressão, enucleação e osteotomia periférica, em consonância com acompanhamento clínico de longo prazo. Abordagem cirúrgica mais radical deve ser considerada quando a lesão apresentar recorrência maior do que duas vezes ou conforme os desejos do paciente. Recomenda-se a realização de biópsia para descartar possível envolvimento mural e, deste modo, evitar as altas taxas de recorrência (Laborde *et al.*, 2017; Meshram *et al.*, 2017).

A ocorrência de ameloblastoma em pacientes pediátricos altera o crescimento craniofacial e desenvolvimento (Rikhotso & Premviyasa, 2019). Uma das vantagens do tratamento conservador do ameloblastoma unicístico em crianças e adolescentes é justamente que a abordagem preserva a integridade do osso e evita alterações no crescimento da mandíbula (Laborde *et al.*, 2017; Nascimento *et al.*, 2017). No caso relatado, a equipe optou pelo tratamento conservador devido à idade do paciente e objetivando evitar mutilações.

A literatura revela que o diagnóstico de ameloblastoma em pacientes jovens resulta frequentemente em distúrbios psicológicos e sociais. Deste modo, o planejamento para o tratamento desta patologia em crianças deve levar em consideração alguns fatores importantes, como a idade do paciente, tipo e tamanho da lesão, e posterior reconstrução do defeito, caso seja necessário. Restaurar função e estética deve ser um dos objetivos do tratamento do ameloblastoma em pacientes pediátricos, contudo, também deve-se considerar o impacto potencial do tratamento (Rikhotso & Premviyasa, 2019).

4. Considerações Finais

Não existe um consenso na literatura acerca do melhor tratamento para pacientes pediátricos diagnosticados com ameloblastoma. No entanto, abordagens mais conservadoras têm se mostrado promissoras no tratamento da variante unicística em pacientes jovens. São procedimentos menos invasivos e que minimizam mutilações. Apesar da menor taxa de recorrência associada ao ameloblastoma unicístico, acompanhamento clínico de longo prazo e realização de exames radiográficos periódicos se fazem necessários para a detecção de possível recidiva. O paciente relatado segue no segundo ano de acompanhamento e apresenta neoformação óssea no defeito, sem sinais de recidiva.

Referências

- Adeel, M., Rajput, M. S. A., Arain, A.A., Baloch, M., & Khan, M. (2018). Ameloblastoma: Management and Outcome. *Cureus*, 10(10), e3437.
- El-Naggar, A. K., Chan, J. K. C., Grandis, J. R., Takata, T. World Health Organization Classification of tumors. Pathology and Genetics of Head and Neck tumors. *4th Lyon: IARC Press*; 2017.
- Hsu, M.-H., Chiang, M.-L., & Chen, J.-K. (2014). Unicystic ameloblastoma. *Journal of Dental Sciences*, 9(4), 407-11.
- 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.
- Laborde, A., Nicot, R., Wojcik, T., Ferri, J., & Raoul, G. (2017). Ameloblastoma of the jaws: Management and recurrence rate. *European Annals of Otorhinolaryngology, Head and Neck diseases*, 134(1), 7-11.
- Meshram, M., Sagarka, L., Dhuvad, J., Anchlia, S., Vyasi, S., & Shah, H. (2017). Conservative management of unicystic ameloblastoma in young patients: a prospective

single-centre trial and review of literature. *Journal of Maxillofacial and Oral Surgery*, 16(3), 333-341.

Nascimento, M. A., Cavalcante, W. R. J., Cardoso, S. V., Henriques, J. C. G., & Silva, C. J. (2017). Ameloblastoma unicístico em criança: relato de caso. *Revista Odontológica Brasileira Central*, 26(77), 53-56.

Neagu, D., Escuder-de la Torre, O., Vázquez-Mahía, I., Carral-Roura, N., Rubín-Roger, G., Penedo-Vázquez, A., ... López-Cedrún-Cembranos, J.-L. (2019). Surgical management of ameloblastoma. *Journal of Clinical and Experimental Dentistry*, 11(1), e70-5.

Rikhotso, R. E., & Premviyasa, V. (2019). Conservative treatment of Ameloblastoma in a paediatric patient: A case report. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 77(8), 1643-1649.

Santana, K. M., Pessoa, R. S., & Horiuchi, N. C. F. N. (2019). Ameloblastoma e suas características clínicas e radiográficas: relato de caso clínico. *Revista Odontológica de Araçatuba*, 40(2), 48-53.

Seintou, A., Martinelli-Klay, C. P., & Lombardi, T. (2014). Unicystic ameloblastoma in children: systematic review of clinicopathological features and treatment outcomes. *International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 43(4), 405-412.

Soluk-Tekkeşin, M., & Wright, J. M. (2018). The World Health Organization Classification of Odontogenic Lesions: A Summary of the Changes of the 2017 (4th) Edition. *Türk Patoloji Derneği*, 34(1), 1-18.

Takahashi, S., Idaira, Y., Sato, T., Asada, Y., & Nakagawa, Y. (2019). Unicystic Ameloblastoma in a Child Treated with a Combination of Conservative Surgery and Orthodontic Treatment: A Case Report. *Journal of Clinical Pediatric Dentistry*, 43(2), 121-125.

Tolentino, E. S. (2018). Nova classificação da OMS para tumores odontogênicos: o que mudou?. *Revista da Faculdade de Odontologia – UPF*, 23(1), 119-123.

Wright, J. M., & Soluk-Tekkeşin, M. (2017). Odontogenic tumors: where are we in 2017?
Journal of Istanbul University Faculty of Dentistry, 51(3 Suppl 1), S10-S30.

Porcentagem de contribuição de cada autor no manuscrito

Miquéias Oliveira de Lima Júnior – 20%

Arthur José Barbosa de França – 18%

Cauê Fontan Soares – 16%

Valéria Karen De Oliveira Silva – 12%

Riedel Frota Sá Nogueira Neves – 10%

Paloma Rodrigues Genu – 8%

Amanda Vanessa Lira dos Santos Lima – 8%

Ricardo José de Holanda Vasconcellos – 8%