

C I E N C I A

ODONTO lógica

Revista arbitrada
de la Facultad de
Odontología
Universidad del Zulia



Vol. 16 . No. 1
Enero-Junio 2019

Regeneración Ósea Espontánea Posterior a la Resección en Bloque de un Fibroma Ameloblástico Mandibular: Reporte de un Caso

Gerardo José Guillen Rivera^{1*}; Ana Isabel Ortega-Pertuz²; Michelle Leinin Espina³; Juan Carlos León Molina⁴

1. Cirujano Oral y Maxilofacial. Doctor en Odontología. Prestige Oral and Facial Surgery Center. El Paso, Texas, Estados Unidos de América.
2. Doctora en Odontología. Instituto de Investigaciones, Facultad de Odontología, Universidad del Zulia, Maracaibo. Venezuela.
3. Doctora en Odontología. El Paso Family Orthodontics. El Paso, Texas, Estados Unidos de América
4. Cirujano Bucal. Odontoesthetic. Calle 72 con Av. 5 de Julio. Maracaibo. Venezuela.

Correos electrónicos: geraldguillenr@hotmail.com, anitaortegav@gmail.com, michelleeespina@hotmail.com, juanleonmolina@gmail.com

RESUMEN

Introducción: El fibroma ameloblástico (FA), tumor odontogénico mixto infrecuente, compuesto por tejido mesenquimatoso y epitelio odontogénico; constituye alrededor del 2% de los tumores odontogénicos en la región oral y maxilofacial. **Objetivo:** Presentar un caso de FA gigante en la mandíbula con regeneración ósea espontánea posterior a la resección. **Presentación del caso:** paciente masculino de ocho años de edad, quien presenta aumento de volumen indoloro en el lado izquierdo de la mandíbula. El examen imagenológico mostró una imagen radiolúcida unilocular, de márgenes irregulares, que se extendía desde el ángulo izquierdo mandibular a la zona parasinfisaria derecha. Una biopsia incisional reveló la presencia de un FA por lo que se realizó una resección en bloque con la adaptación de placa de reconstrucción. La biopsia del espécimen confirmó el diagnóstico inicial. El control radiográfico postoperatorio del defecto a los seis meses, mostró regeneración ósea espontánea del sitio resecado, sin signos de recurrencia. **Conclusión:** La resección en bloque de un FA es el tratamiento de elección en lesiones extensas reduciendo la posibilidad de recidiva. La regeneración espontánea evita la realización de injerto, limitando intervenciones quirúrgicas más agresivas.

Palabras clave: Tumor odontogénico; Fibroma ameloblástico; Fibroma odontogénico mandibular; Neoplasmas bucales; Regeneración ósea espontánea.

***Autor de Correspondencia:** Prestige Oral and facial Surgery Center. 7100 Westwind Dr.El Paso, Texas. Suite 115 79912. Estados Unidos de América. Teléfono: 001 915 283 4730.

Spontaneous bone regeneration after block resection of a mandibular ameloblastic fibroma: A Case Report

ABSTRACT

Introduction: Ameloblastic fibroma (AF) is an uncommon mixed odontogenic tumor, composed of mesenchymal tissue and odontogenic epithelium; it constitutes about 2% of odontogenic tumors in the oral and maxillofacial region. **Objective:** To present a case of a giant AF in the jaw with spontaneous bone regeneration after resection. **Case presentation:** An eight-year-old male patient who has a painless volume increase on the left side of the jaw. The imaging examination showed a unilocular radiolucent image, with irregular margins, which extended from the left mandibular angle to the right parasinfaryngeal area. An incisional biopsy revealed the presence of an AF, so a block resection was performed with a reconstruction plate adaptation. The specimen's biopsy confirmed the initial diagnosis. Postoperative radiographic control of the defect at six months showed spontaneous bone regeneration of the resected site, with no signs of recurrence. **Conclusion:** The block resection of an AF is the treatment of choice in extensive lesions reducing the possibility of recurrence; in this case, given the spontaneous regeneration observed in the defect, it was decided not to perform grafting limiting more aggressive surgical interventions.

Keywords: Odontogenic tumor Ameloblastic Fibroma; Mandibular odontogenic fibroma, Oral neoplasms; Spontaneous bone regeneration.

INTRODUCCIÓN

El fibroma ameloblasto (FA), tumor odontogénico mixto poco común, compuesto de tejido mesenquimatoso y epitelio odontogénico, constituye aproximadamente el 2% de los tumores odontogénicos¹⁻³. La primera referencia del FA fue descrita por Kruse en 1891⁴. Es un tumor benigno, de crecimiento lento, asintomático, excepto por la eventual expansión de la mandíbula y generalmente, es descubierto de forma accidental, durante la evaluación radiográfica⁵. El tamaño es variable y en ocasiones se pueden encontrar tumores grandes sin invasión más allá de su propia cápsula⁶.

El FA es esencialmente una proliferación hamartomatosa que ocurre en niños y adolescentes entre los seis y los 12 años de edad⁶. Sin embargo, se ha señalado que constituye una verdadera neoplasia, ocurriendo a una edad promedio de 14,6⁷ a 15,5 años⁸, en ocasiones se encuentra en pacientes de mediana edad después de los 25 años^{6,9}. La predilección por

sexo es variable^{6,11,12} y se ha reportado una proporción hombre/ mujer de 2: 1 a 4,4:3¹¹. El área posterior de la mandíbula es el sitio más común de presentación^{6,9}; con una frecuencia entre el 70%⁹ a 90%², pero este tumor puede desarrollarse en cualquier ubicación de los maxilares⁶.

Radiográficamente, la lesión se observa completamente radiolúcida, unilocular o multilocular con bordes bien delimitados. Se asocia con la corona de un diente impactado^{6,9,12,13}, que puede desplazarse^{8,11} y reabsorber las raíces desplazando el conducto mandibular⁶.

La Organización Mundial de la Salud incluye el FA en el subtipo de tumores odontogénicos con características histológicas definidas¹⁴. Histológicamente, el FA tiene una cápsula compuesta por un tejido mesenquimal rico en células que se asemeja a la papila dental primitiva mezclada con un epitelio odontogénico en proliferación que puede tener un patrón de cordón largo y estrecho compuesto por células cuboidales o columnares o células

epiteliales pequeñas y discretas que se asemejan a la etapa folicular del esmalte en desarrollo. Estas células columnares pueden tener áreas centrales que se parecen al retículo estrellado^{6,9}. La actividad mitótica es infrecuente. De hecho, si la actividad mitótica es evidente, particularmente en el elemento mesenquimatoso, el patólogo debe considerar una transformación maligna¹⁵.

El diagnóstico diferencial incluye el quiste dentígero, queratoquiste odontogénico, ameloblastoma, mixoma odontogénico, tumor de células gigantes, hemangioma central, fibro-odontoma ameloblástico y fibrosarcoma ameloblástico^{6,9,15,16}. No obstante, la correlación clínica radiográfica e histopatológica, es muy importante para el diagnóstico final, el pronóstico y el tratamiento de la lesión.

La evaluación a largo plazo ha mostrado recurrencias raras^{6,9,16,17}. Chen y col.¹⁸ mostraron una tasa de recurrencia general del 33,3% (41 casos) en los pacientes tratados con métodos conservadores (91,5%) y radicales (8,5%). Los autores concluyeron que la transformación maligna era evidente en 14 tumores recurrentes con una tasa de transformación global del 11,4%.

Entre las opciones de tratamiento para esta lesión se citan: la escisión simple, la enucleación, el legrado con preservación del nervio alveolar inferior y la resección de bloqueo en tumores grandes con placa de reconstrucción, colocadas en el borde inferior mandibular. Se ha reportado regeneración ósea completa espontánea en defectos óseos grandes en la mandíbula o en el maxilar^{6,11}. Se ha demostrado que células a nivel del periostio remanente, inducen a la formación ósea a nivel del defecto. Esto ocurre en todos los pacientes, principalmente en los jóvenes¹⁹.

Existen múltiples teorías que intentan explicar la regeneración ósea espontánea después de avulsión o resección de una gran parte de la mandíbula. Estas incluyen el desarrollo de hueso nuevo o de periostio o sus fragmentos, que sirven como fuente directa de células osteogénicas; de un periostio juvenil regenerado a partir de partículas óseas desvitalizadas

dispersas que sirven como osteoinductores para células mesenquimales en los tejidos blandos circundantes y de los muñones óseos mandibulares que sirven como fuente directa de células osteogénicas. Se ha sugerido que varias condiciones pueden influir en esta regeneración ósea, incluida la presencia de infección, estrés funcional o mecánico en los muñones remanentes mandibulares previamente estabilizados, protección de los tejidos blandos del hueso y posibles condiciones genéticas. La edad relativamente joven de los individuos, constituye uno de los factores mayormente asociado con esta patología, dada la capacidad regenerativa que presentan las células en estos pacientes²⁰.

El objetivo de este trabajo es presentar un caso inusual de FA en niño de ocho años, localizado en la mandíbula, en la cual se observó un proceso de regeneración ósea espontánea posterior a la resección.

Presentación del caso

Se trata de paciente masculino de nueve años de edad, de sexo masculino, quien acudió a la consulta en una clínica privada de cirugía bucal para la valoración y tratamiento de un aumento de volumen en el lado izquierdo de la mandíbula, de varios meses de evolución. El paciente no indicó la presencia de dolor o antecedente de trauma relacionado con la inflamación. Sus antecedentes médico-personales-familiares-quirúrgicos-alérgicos, no fueron relevantes durante el desarrollo de la historia clínica.

Al examen físico no se observó algún hallazgo relacionado con la lesión. El paciente no se encontraba bajo ningún tratamiento médico y farmacológico de importancia. Durante el examen extrabucal se evidenció una moderada asimetría facial izquierda (Figura 1A). Al examen intrabucal se observó una tumefacción en el vestíbulo izquierdo mandibular de masa firme, grande y expansible, sin movilidad dental de aproximadamente 5 cm x 2,5 cm. Sin evidencia de parestesia, pulsaciones o sonido anormal. Se denota un color similar en la mucosa bucal (Figura. 1B).

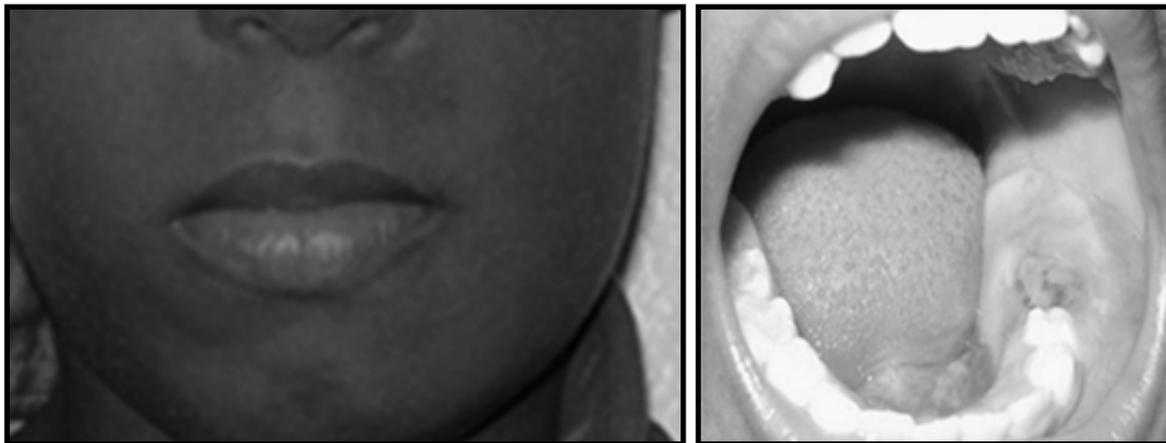


Figura 1. A. Vista extrabucal donde se denota la asimetría facial moderada del lado izquierdo del tercio inferior de la cara. B. Vista intrabucal mostrando masa expansible con aproximadas de 5 cm x 2.5 cm.

En la radiografía panorámica y tomografía computarizada multicorte preoperatorias, se observó una lesión radiolúcida extensa unilocular, con márgenes irregulares, que se extendía desde el ángulo izquierdo mandibular a la zona parasinfisiaria derecha. También se evidenció la expansión cortical con reabsorción de las raíces del primer y segundo molar deciduos, el premolar y molar permanentes se encontraban desplazados hacia el borde basal con osteolisis de las corticales vestibular y lingual, la compresión del conducto mandibular fue evidente (Figuras 2A y 2B).

El diagnóstico diferencial de la lesión incluyó:

quistes odontogénicos queratinizantes, ameloblastoma, mixoma odontogénico y el tumor de células gigantes.

El paciente se preparó siguiendo las directrices asépticas y utilizando 144 mgs. (cuatro carpules) de anestesia local de lidocaína al 2% con epinefrina 1:100.000. Previa punción y aspiración de la lesión, la cual fue improductiva, se realizó una biopsia incisional del área de la tumefacción y fue tomada una muestra irregular de tejido blando de 1,4 cm x 0,5 cm x 0,2 cm.

El examen histopatológico reveló múltiples secciones de un tejido neoplásico odontogénico constituido por delicados, y a menudo interconectados

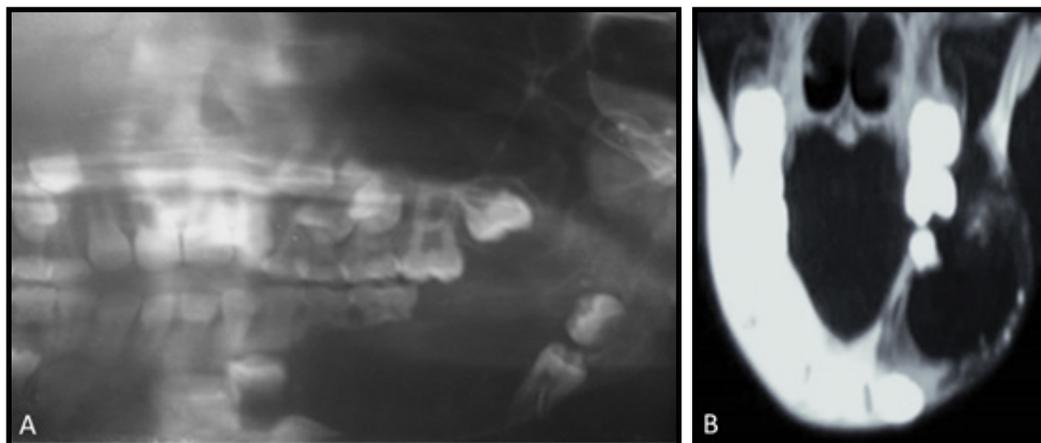


Figura 2. A. Detalle de radiografía panorámica preoperatoria en donde se observa una imagen radiolúcida, unilocular con márgenes irregulares, que se extiende desde el lado izquierdo del ángulo mandibular a zona parasinfisiaria derecha con reabsorción de las raíces del primer y segundo molar deciduos, y premolar y molar permanentes desplazados hacia el borde inferior de la mandíbula. B. Reconstrucción 3D de tomografía computarizada multicorte mostrando la expansión de las talas óseas.

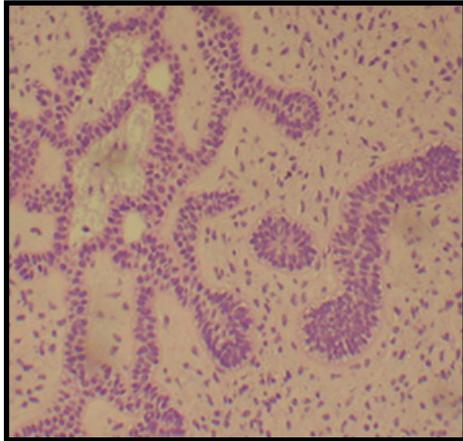


Figura 3. En la microfotografía, se observa interconexiones de proliferaciones epiteliales interdigitalizadas con tejido conectivo fibroso. El componente epitelial se organiza en pequeños cordones que a menudo terminan en ovoides, como los folículos primitivos. Aquí las células periféricas se organizan en empalizada y exhiben núcleos polarizados, mientras que las células centrales son citomorfológicamente similares al retículo estrellado (H&E, 40X).

de proliferaciones epiteliales interdigitalizadas con tejido conectivo fibroso. El componente epitelial se organiza en pequeños cordones que terminan en ovoides, como los gérmenes primitivos. Las células periféricas se organizaron en empalizada y exhibieron núcleos polarizados, mientras que las células centrales fueron citomorfológicamente similares al retículo estrellado. Una zona inductiva subepitelial de condensación del tejido conectivo fue evidente y característica. El tejido conectivo era delicado o frágil con poco colágeno. Esta última, es una similitud de la papila dental (Figura 3). Basado en lo reportado en las características histopatológicas el diagnóstico definitivo de la lesión resultó ser FA.

Una vez obtenido el diagnóstico definitivo de la lesión y de acuerdo a la presentación clínica en cuanto a tamaño y agresividad de la misma, se decide preparar al paciente para un nuevo procedimiento quirúrgico, el cual se realizó bajo anestesia general e intubación nasotraqueal, siguiendo las normas universales de asepsia y antisepsia. Se administró por

vía intravenosa Ampicilina-sulbactam 600 mg y 10 ml de lidocaína (1% con epinefrina 1:100.000) infiltradas intra y extra bucalmente con fines principalmente hemostáticos. Se realizó un abordaje intrabucal para el desprendimiento de la mucosa remanente y un abordaje extrabucal de Risdom, el cual permitió realizar una disección cuidadosa a través de los planos anatómicos hasta llegar al tumor. El nervio facial (VII par craneal) fue preservado y la vena y arteria facial se ligaron con seda 3-0. Se ejecutó la resección en bloque de la totalidad del tumor desde el ángulo izquierdo mandibular hasta parasífnis derecha. Los órganos dentarios involucrados se incluyeron en el segmento resecado. Se colocó una placa de reconstrucción de 2.4, la cual se adaptó y se fijó en su lugar con tres tornillos bicorticales tanto en el segmento proximal como en el segmento distal. Se realizó síntesis quirúrgica por planos de los tejidos con sutura Vycril subcuticular 3-0 ® y monocryl 3-0 ®. Macroscópicamente, la muestra tomada midió 5 cm x 3 cm x 3 cm y fue enviada nuevamente a estudio histopatológico cuyo resultados fueron compatibles con la biopsia previa y los márgenes estaban libres de tumor (Figura 4).

En el postoperatorio inmediato la radiografía panorámica reveló una buena adaptación de la placa de reconstrucción. Las cabezas condilares se encontraban

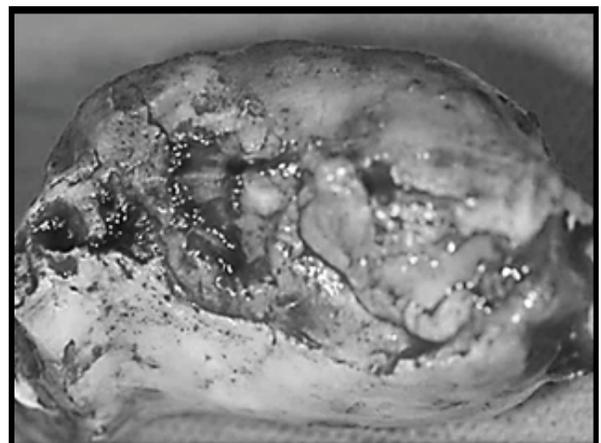


Figura 4. Especimen obtenido después de la resección en bloque de la lesión de aproximadamente 5 cm x 3 cm x 3 cm, mostrando una capsula bien definida.

simétricas y en sus respectivas fosas mandibulares (Figura 5). El paciente se recuperó sin complicaciones y fue dado de alta en el día cinco con instrucciones postoperatorias, antibiótico terapia y terapia analgésica por un periodo de cinco días adicionales. En los siguientes controles postoperatorios se observó

la cicatrización de la herida de los tejidos blandos con una adecuada función mandibular y simetría facial. Seis meses después de la cirugía, una radiografía panorámica fue tomada mostrando la regeneración ósea espontánea del sitio resecado y sin signos de recurrencia (Figura 6).

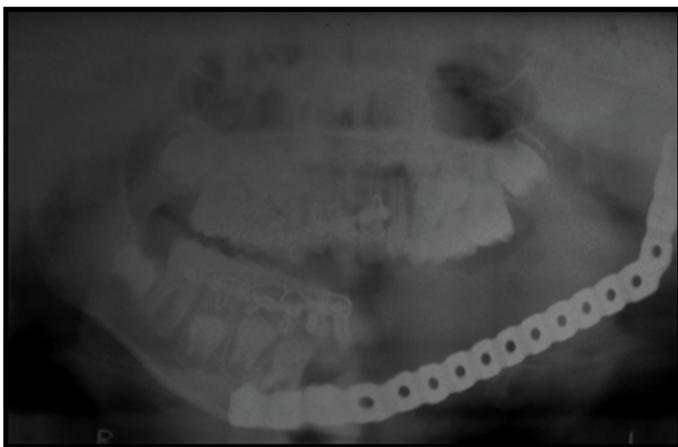


Figura 5. Radiografía panorámica postoperatoria inmediata donde se denota la resección del fibroma ameloblástico y reconstrucción con placa rígida de titanio 2.4, las cabezas condilares están simétricas.

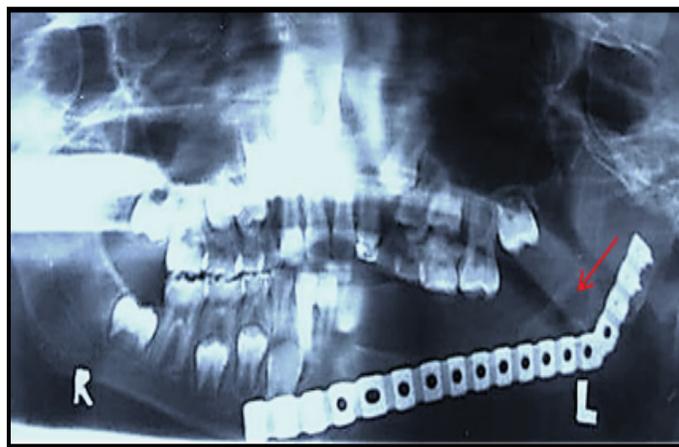


Figura 6. Radiografía panorámica postoperatoria tardía (seis meses) donde se observa regeneración ósea espontánea en el defecto resultante.

Discusión

El FA es un tumor odontogénico mixto poco frecuente compuesto por tejido mesenquimatoso y epitelio odontogénico, constituye alrededor del 2% de los tumores odontogénicos¹⁻³. Este tumor es benigno, de crecimiento lento, asintomático, excepto por la eventual expansión de la mandíbula⁵ y es descubierto accidentalmente durante la evaluación radiográfica. En el caso reportado, la inflamación y la asimetría facial en el área de la mandíbula izquierda, constituyeron los principales signos presentes en el paciente.

El tamaño del tumor puede variar y en ocasiones según el caso, pudieran encontrarse tumores grandes sin invasión más allá de su propia cápsula⁶. En este trabajo el paciente presentaba una gran lesión de 5x3x3 cm sin invasión de los tejidos circundantes.

El FA es esencialmente una proliferación hamartomatosa que ocurre con frecuencia en niños y adolescentes entre los 6 y los 12 años⁶ que aparece con frecuencia en la zona posterior de la mandíbula^{6,9}. En este caso, la lesión se presentó en un paciente varón de ocho años de edad en la mandíbula, que incluía el cuerpo izquierdo a la paráfisis derecha. Radiográficamente la lesión suele observarse radiolúcida, unilocular o multilocular con bordes bien delimitados y estar asociada con la corona de un diente impactado^{6,9,12,13} que puede desplazarse^{8,11}. El FA también puede reabsorber las raíces y desplazar el conducto mandibular. En el caso presentado, el tumor presentaba un aspecto radiolúcida, unilocular, asociado con dientes impactados, desplazados y adyacentes al borde mandibular inferior. También hubo reabsorción radicular y compresión del conducto mandibular.

Con relación a las características histológicas de la lesión, el caso presentado mostraba el perfil propio de un FA consistiendo de una cápsula definida, compuesta por un tejido mesenquimal rico en células, semejante a la papila dental primitiva, mezclada con un epitelio odontogénico en proliferación 6,9.

Las opciones de tratamiento para esta lesión son escisión simple, enucleación, legrado con preservación del nervio alveolar inferior y resección de bloqueo en tumores grandes, con placa de reconstrucción que debe colocarse en el borde inferior mandibular. La regeneración ósea completa espontánea, ha sido reportada sobre todo en pacientes jóvenes 6,11, 20. En el caso presentado, se realizó una resección en bloque, con adaptación de una placa de reconstrucción, para la fijación de los segmentos mandibulares remanentes. A los seis meses, la evaluación postquirúrgica, evidenció una regeneración ósea espontánea.

Consentimiento informado

Protegiendo la identificación del paciente, las fotos ilustrativas del caso presentado han sido autorizadas por escrito, omitiendo el nombre, y el número de historia clínica.

Conclusiones

La resección en bloque de un FA extenso, constituye una estrategia quirúrgica que puede contribuir con la reducción de la aparición de recidivas del tumor. En el caso presentado, fue la terapéutica implementada, sin embargo, ante la regeneración espontánea observada en el defecto, se decidió no realizar un injerto, con el propósito de limitar intervenciones quirúrgicas más agresivas. Dicha regeneración pudo estar favorecida por la edad del paciente. Estos resultados obligan a profundizar en el estudio y abordaje de las FA con el fin de contribuir a su erradicación, ofreciendo garantías de recuperación sin riesgos para el paciente.

Referencias

1. Azúa-Romeo J, Saura Fillat E, Usón Bouthelie T, Tovar Lázaro M, Azúa Blanco J. Fibroma Ameloblastico versus quiste follicular hiperplásico. *Rev Esp Cirug Oral y Maxilofac.* 2004; 26(3): 187-191
2. Bhaskar SN. *Synopsis of Oral Pathology* (ed 7). St Louis, MO: Mosby; 1996.
3. Olofsson J. Ameloblastic Fibroma. *Acta Otolaryngology.* 1972; 74(1-6): 302-306
4. Kruse A: *Über die Entwicklung Cystischen Geschwulste in Unterkiefer.* *Arch F Pathol Anat.* 1891; 124 (2): 137
5. Cawson RA, Binnie WH, Speight PM, Et al: *Luca's pathology of tumors of the oral tissues* (ed 5). Hong Kong: Churchill Livingstone; 1998.
6. Robert E. Marx, Diane Stern: *Oral and Maxillofacial Pathology a Rationale for Diagnosis and Treatment* (ed 1). Carol Stream, Ill: Quintessence Publishing Co.; 2003.
7. Sloopweg PJ. An analysis of the interrelationship of the mixed odontogenic tumors: Ameloblastic fibroma, ameloblastic fibro odontoma, and the odontomas. *Oral Surg Med Oral Pathol.* 1981; 51(3):226- 276
8. Trodahl JN. Ameloblastic Fibroma. Survey of cases from the Armed Forces Institute of Pathology. *Oral Surg Med Oral Pathol.* 1972, 33(4):547-558
9. Brad W. Neville, Douglas D. Damm, Carl M. Allen, Jerry E. Bouquot: *Oral and Maxillofacial Pathology.*

United State of America: Saunders Co; 1995.

10. Young AH. Ameloblastic Fibroma in an infant. *J.Oral Maxillofac Surg.* 1985; 43(4): 289-292
11. Zallen RD, Preskar MH, Mc Clary SA: Ameloblastic Fibroma. *J Oral Maxillofac Surg* 40(8) :513-517
12. Heringer WW: Ameloblastic Fibroma in the Anterior Maxilla: Report of a Case. *J Dent Child.* 1978; 45(X3):408-411.
13. VanWick CW, Van der Vyver PC. Ameloblastic Fibroma with dentinoid formation/immature dentinoma. *J Oral Pathol.* 1983; 12(1): 37-46
14. Granizo RM, Ortega L, González MA, Berguer A. Ameloblastic fibroma of the mandible. Report of two cases. *Med Oral.* 2003; 8(2):150-153
15. Su-Gwan Kim, Hyun-Seon Jand. Ameloblastic Fibroma: Report of a Case. *J Oral Maxillofac Surg.* 2002; 60(2): 216-218
16. Mosby EL, Russel D, Noren S, Baker B. Ameloblastic Fibromain a 7 weeks-old Infant: A case report and Review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 1998; 56(23): 368-372
17. Dallera P, Bertoni F,et al: Ameloblastic Fibroma: a Follow up of six cases. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 1996; 25(4):199-202
18. Chen Y, Wang JM, LI TJ: Ameloblastic fibroma: a review of published studies with special reference to its nature and biological behavior.*Oral Oncol.* 2007; 43(10): 960-969.
19. N.Ihan Hren, M.Miljavec. Spontaneous bone healing of the large bone defects in the mandible. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2008; 37(12): 1111-1116
20. Villa GH, Chen CT, Chen YR. Spontaneous bone regeneration of the mandible in an elderly Patient: A Case report and review of the literature. *Chang Gung Med J* 2003; 26(5):363-369