



Octubre - Diciembre 2024
Vol. 4, núm. 4 / pp. 139-143

Ameloblastoma periférico de tipo plexiforme y folicular, presentación de un caso clínico

Plexiform and follicular peripheral ameloblastoma, a clinical case report

Shirley Yucra,^{*‡} Pamela Laguna,^{*§} Huáscar Aillón^{*¶}

Palabras clave:
ameloblastoma,
ameloblastoma
periapical, plexiforme,
folicular.

Keywords:
ameloblastoma,
periapical
ameloblastoma,
plexiform, follicular.

RESUMEN

Introducción: el ameloblastoma es un tumor odontogénico benigno de estirpe epitelial. Según la quinta edición de la «Clasificación de tumores de cabeza y cuello» de la Organización Mundial de la Salud (OMS) 2022, se reconocen cuatro tipos de ameloblastomas: convencional, periférico, unicístico y adenoides. Puede dividirse en los siguientes tipos histológicos: folicular, plexiforme, acantomatoso, de células basales y granulares. Clínicamente se presenta como un tumor exofítico que surge del tejido blando del diente y por lo general se interpreta erróneamente como un éupulis fibroso o un granuloma piógeno. El ameloblastoma periférico (AP) es un tumor indolente que no invade el hueso subyacente; sin embargo, de forma ocasional, una leve erosión puede invadir el hueso cortical sin llegar a la médula ósea. **Objetivo:** presentar la evolución de un paciente con ameloblastoma periférico después de haber sido tratado mediante un acto quirúrgico. **Caso clínico:** paciente femenino de 63 años acude a consulta con un cuadro clínico de seis meses de evolución, con antecedentes de exodoncia del molar, posterior a este procedimiento presenta dolor en el alveolo, al examen intraoral lesión en zona molar inferior izquierda, coloración rojiza, sangrante, dolorosa a la palpación. Como exámenes complementarios se solicitó análisis de laboratorio, una radiografía panorámica y biopsia incisional. La paciente llega a ingresar a dos intervenciones quirúrgicas, una bajo anestesia local y la otra bajo anestesia general. **Conclusión:** en este tipo de neoplasia, no existe un tratamiento estandarizado y cada caso tendría que analizarse por separado. No siempre es fácil mediar entre una actitud terapéutica de tipo conservador o radical.

ABSTRACT

Introduction: ameloblastoma is a benign odontogenic tumor of epithelial origin. According to the fifth edition of the World Health Organization (WHO) Classification of Head and Neck Tumors 2022, four types of ameloblastomas are recognized: conventional, peripheral, unicystic and adenoid. It can be divided into the following histological types: follicular, plexiform, acanthomatous, basal cell and granular. Clinically it presents as an exophytic tumor arising from the soft tissue of the tooth and is generally misinterpreted as a fibrous epulis or a pyogenic granuloma. AP is an indolent tumor that does not invade the underlying bone; However, occasionally, slight erosion can invade the cortical bone without reaching the bone marrow. **Objective:** to present the evolution of a patient with peripheral ameloblastoma after being treated by surgery. **Clinical case:** a 63-year-old female patient comes to the consultation with a clinical picture of six months of evolution, with a history of molar extraction, who after that presents pain in the socket, on intraoral examination lesion in the lower left molar area, reddish, bleeding, painful on palpation. Laboratory tests, a panoramic X-Ray and incisional biopsy were requested as complementary tests. The patient is admitted to two surgical interventions, one under local anesthesia and the other under general anesthesia. **Conclusion:** in this type of neoplasia, there is no standardized treatment and each case would have to be analyzed separately. It is not always easy to mediate between a conservative or radical therapeutic attitude.

INTRODUCCIÓN

En 1827, el médico irlandés y maestro en cirugía, James William Cusack describió una lesión tumo-

ral expansiva con características clínicas similares al ameloblastoma; después, en 1885, el médico francés Louis Charles Malassez la clasificó como una neoplasia odontogénica y la denominó «ada-

Citar como: Yucra S, Laguna P, Aillón H. Ameloblastoma periférico de tipo plexiforme y folicular, presentación de un caso clínico. Lat Am J Oral Maxillofac Surg. 2024; 4 (4): 139-143. <https://dx.doi.org/10.35366/119507>

* Práctica Privada,
Sucre-Bolivia.
‡ Odontóloga.

§ Cirujana y Patóloga Oral.
¶ Cirujano Maxilofacial.

Recibido: 26/04/2024
Aceptado: 07/10/2024

doi: 10.35366/119507



mantinoma», que en la actualidad es un término obsoleto y se emplea únicamente para nombrar una forma rara de cáncer en el hueso. Finalmente, en 1930, los médicos Ivey y Churchill establecieron el epónimo de ameloblastoma (AM).¹

Los tumores odontogénicos son neoplasias derivadas de las células responsables de la odontogénesis, de acuerdo con el tejido que les da origen, se clasifican en epiteliales, mesodérmicos o mixtos.² El ameloblastoma es una neoplasia odontogénica de estirpe epitelial. Puede originarse a partir del órgano del esmalte, de los remanentes de la lámina dental, del epitelio de quistes dentígeros o posiblemente, de las células basales del epitelio de la mucosa oral.³

El ameloblastoma es un tumor odontogénico benigno que afecta principalmente a la mandíbula, con un comportamiento localmente agresivo y fuerte tendencia a la recurrencia.⁴ Aproximadamente 80% de todos los ameloblastomas se encuentran en la mandíbula, con mayor frecuencia en la región posterior, seguida por el sector anterior, maxilar posterior y sector anterior.⁵ El ameloblastoma representa sólo 1% de todos los tumores orales y entre 13 y 58% de todos los tumores odontogénicos.⁶ La mayoría de los pacientes se presentan por primera vez entre los 30 y 40 años de edad, aunque los individuos de ascendencia africana a menudo se presentan a una edad más temprana, se ha informado que los ameloblastomas son más prevalentes en individuos asiáticos-caribeños.⁷

Según la quinta edición de la «Clasificación de tumores de cabeza y cuello» de la Organización Mundial de la Salud (OMS) 2022, edición conceptualmente similar a la clasificación anterior de lesiones odontogénicas, la única entidad recientemente definida en las lesiones odontogénicas es el ameloblastoma adenoide⁸ y se reconocen cuatro tipos de ameloblastomas: convencional, periférico, uniuístico y adenoide.⁶ Puede dividirse en los siguientes tipos histológicos: folicular, plexiforme, acantomatoso, de células basales y granulares. La característica común a casi todos los subtipos es la polarización de las células que rodean los islotes de proliferación, de una manera similar a como sucede en el ameloblastoma del órgano del esmalte. Considerando que el curso histológico de estas lesiones varía, se pueden diferenciar distintos subtipos, el más común es el folicular; ocasionalmente, las células neoplásicas proliferan en el contexto del epitelio, dando origen al ameloblastoma plexiforme.⁹

Los ameloblastomas se definen en acantomatosos o fusiformes si el área central de los folículos se constituye por células escamosas o alargadas y de células basales si poseen las características histológicas similares al carcinoma de células basales cutáneo. Finalmente, el subtipo de células granulares posee una granulación citoplásmica de las células centrales del folículo.⁹

El término «ameloblastoma periférico (AP)» fue acuñado por primera vez por Kuru en 1911 y hasta 2014 se han notificado menos de 200 casos de AP.¹⁰ Es una variante rara e

inusual de tumores odontogénicos con una prevalencia de 1-5%. Clínicamente se presenta como un tumor exofítico que surge del tejido blando del diente y por lo general se interpreta de manera errónea como un éupulis fibroso o un granuloma piógeno. El AP es un tumor indolente que no invade el hueso subyacente; sin embargo, ocasionalmente, una leve erosión puede invadir el hueso cortical sin llegar a la médula ósea.¹¹

El ameloblastoma periférico, también conocido como ameloblastoma extraóseo, ameloblastoma de tejidos blandos, ameloblastoma de origen mucoso o ameloblastoma de la encía, es un tumor con varias de las características histológicas de un ameloblastoma intraóseo infiltrante, pero se presenta en los tejidos blandos que recubren las áreas que contienen dientes en el maxilar y la mandíbula.¹²

El AP es indoloro, sésil, firme y exofítico, de crecimiento lento cuya superficie suele ser relativamente lisa, pero en varios casos se ha descrito como «granular» o «guijarrosa», en otros, la superficie presenta un aspecto «papilar» o «verrugoso». El color de la lesión varía entre «normal», «rosa» y «rojo» o «rojo oscuro»;¹² puede variar en tamaño de 0.2 a 4.5 cm de diámetro y por lo general no tiene evidencia radiográfica de afectación ósea. Generalmente se limita a la encía o mucosa alveolar y no invade el hueso subyacente. Sin embargo, puede causar una depresión del hueso subyacente o exhibir una «saucerización» o efecto de «ahuecamiento» debido a la reabsorción de la presión causada por la lesión. El AP es microscópicamente similar a un ameloblastoma intraóseo y es menos agresivo que su contraparte intraósea, se cree que surgen de restos del epitelio reducido del esmalte, restos de células de la lámina dental, o de células basales del epitelio superficie. El AP es más común en varones (2:1) y las lesiones tienen mayor frecuencia en la mandíbula que en el maxilar (2.4:1).¹³

DESCRIPCIÓN DEL CASO

Paciente femenino de 63 años acude a consulta con un cuadro clínico de seis meses de evolución, con antecedentes de exodoncia del molar, posterior a esto, presenta dolor en el alveolo. Al examen intraoral presentó lesión de forma irregular de superficie granular con bordes definidos, de consistencia firme, de coloración eritematosa, tamaño 15 mm en zona molar inferior izquierda, sangrante, dolorosa a la palpación (*Figura 1A*). Como exámenes complementarios se solicitó análisis de laboratorio con rango en límites normales, una radiografía panorámica (*Figura 1B*) y biopsia incisional, la cual nos reveló un granuloma piógeno (*Figura 1C*), por lo cual se decidió realizar la enucleación del granuloma piógeno con fresado marginal (*Figura 1D*), que llegaría a ser la primera intervención quirúrgica de la paciente, se realizó la incisión de la mucosa para posteriormente realizar el levantamiento del colgajo mucoperióstico y así realizar la enucleación del granuloma con fresado marginal realizando un cierre con puntos discontinuos. El contenido que fue enucleado se envió

a estudio histopatológico que arrojó como resultado un ameloblastoma periférico de tipo plexiforme y folicular (*Figura 1E*), razón por la cual se decidió un tratamiento quirúrgico bajo anestesia general (segunda intervención) procediendo a la resección del ameloblastoma con márgenes se hizo una incisión de Wassmund, posteriormente una osteotomía con resección marginal de dicho ameloblastoma (*Figura 1F*) teniendo como margen de seguridad 1 cm, posteriormente se realizó la síntesis con cierre de puntos discontinuos.

Microscópicamente se manda al análisis histopatológico la resección realizada en el segundo acto quirúrgico confirmando

que se trataba de un ameloblastoma periférico. Las muestras se mandaron de la siguiente manera (*Figura 1G*):

1. Frasco 1: pieza operatoria ameloblastoma periférico con patrón plexiforme y folicular.
2. Frasco 2: margen óseo y dentario hiperplasia gingival y proceso inflamatorio.
3. Frasco 3: margen lingual normal.

Teniendo como resultado la confirmación de dicho ameloblastoma periférico de tipo plexiforme y folicular (*Figura 1H*).

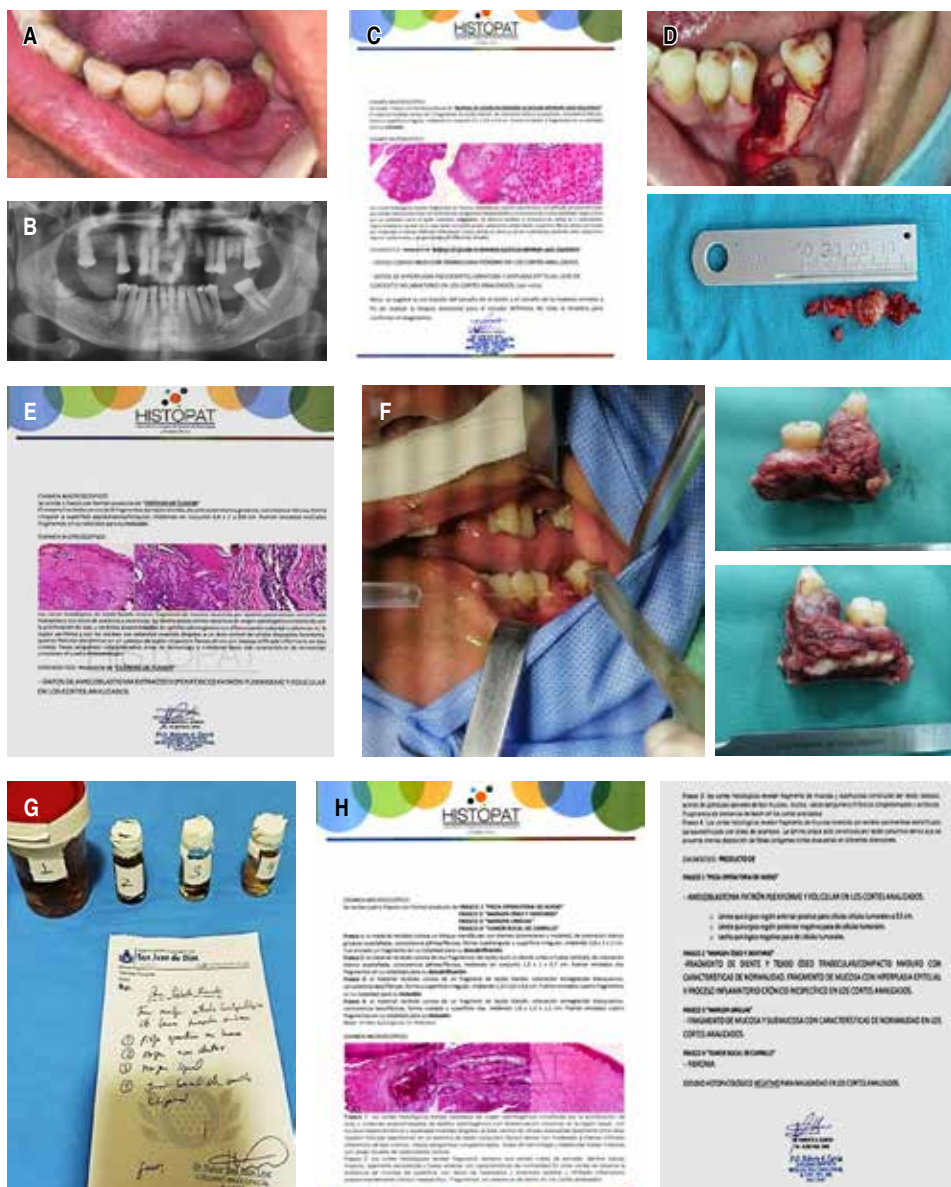


Figura 1:

A) Lesión de forma irregular de superficie granular con bordes definidos, de consistencia firme, de coloración eritematosa en zona molar inferior izquierda. **B)** Radiografía panorámica. **C)** Biopsia incisional que reveló un granuloma piógeno. **D)** Enucleación del granuloma piógeno. **E)** Estudio histopatológico que arrojó un ameloblastoma periférico de tipo plexiforme y folicular. **F)** Resección del ameloblastoma con márgenes de seguridad. **G)** Frascos de muestras mandadas a histopatología. **H)** Estudio histopatológico confirmando el ameloblastoma.

DISCUSIÓN

Zhu y colaboradores hicieron una revisión exhaustiva de 43 casos japoneses e informaron que la AP es común en las décadas quinta a séptima. En su estudio, 70% de las lesiones ocurrieron en varones y el sitio común es la región premolar mandibular. Su estudio también reveló que la mayoría de los casos mostraban diferenciación acantomatosa, seguida de tipo plexiforme, folicular y mixto. El presente caso está en consonancia con las variables demográficas anteriores y muestra histológicamente un patrón mixto que consiste en diferenciación plexiforme y folicular.¹⁴

El diagnóstico del ameloblastoma puede llegar a ser un reto debido no sólo a su clínica silente, sino también a que puede tener un alto grado de crecimiento producido por la mitosis, lo que implica una mayor probabilidad de malignización. Aunque esto último es más difícil que se produzca, nunca se debe olvidar la gran tendencia a la recidiva, a pesar de llevar a cabo un tratamiento de gran agresividad.¹⁵

El ameloblastoma es normalmente asintomático en sus fases iniciales y a menudo se observa ocasionalmente durante una exploración radiográfica de rutina. En las fases más avanzadas aparece como una lesión de lento crecimiento capaz de determinar una progresiva tumefacción del segmento óseo interesado.¹⁴ El manejo quirúrgico es un reto por los márgenes de seguridad exigidos, además por el abordaje quirúrgico amplio. Debe realizarse seguimiento postquirúrgico a largo plazo. El pronóstico es favorable aun cuando los índices de recurrencia son altos.

Entre los diagnósticos diferenciales se incluyen el granuloma periférico de células gigantes, el granuloma piógeno, el fibroma periférico osificante, los papilomas o verrugas por VPH, el hemangioma central y el épulis.²

Sin embargo, la mejor opción para el tratamiento quirúrgico de los ameloblastomas sigue siendo un tema controvertido, ya que el tumor tiene una alta tasa de recurrencia si no se extirpa adecuadamente, aunque el potencial metastásico es bajo. En la literatura, se ha observado una tasa de recurrencia de 55 a 90% después del tratamiento conservador, con una tasa de 15 a 25% después de un tratamiento más radical.³

CONCLUSIÓN

En este tipo de neoplasia, no existe un tratamiento estandarizado y cada caso tendría que analizarse por separado. No es siempre fácil mediar entre una actitud terapéutica de tipo conservador o radical, pero la opción debe siempre dirigirse principalmente a preservar la salud del paciente, no sólo a corto y mediano plazo, sino que también a largo plazo.

A pesar de que el ameloblastoma periférico es poco frecuente es necesario tener en cuenta su diagnóstico diferencial, considerando que pueden ser confundidos y que sólo el estudio histopatológico nos mostrará un diagnóstico definitivo.

Debemos utilizar medios diagnósticos tales como radiografías e imágenes especiales (la tomografía y la resonancia magnética) en casos necesarios, una biopsia representativa con suficiente tejido que permita un correcto diagnóstico por el patólogo oral, para lograr una adecuada planificación del tratamiento. Se recomienda un seguimiento radiográfico periódico de los pacientes con ameloblastomas tratados quirúrgicamente al menos durante los primeros 10 años para evitar lesiones recidivantes.

AGRADECIMIENTO

Agradecimiento especial al Dr. Roberto García Rejas, Patólogo Bucocomaxilofacial quien hizo el estudio histopatológico de este caso, de practica privada en Cochabamba, Bolivia.

REFERENCIAS

1. Landa RC, Gómez PFJ. Ameloblastoma uniuístico con patrón plexiforme. Revisión de la literatura a propósito de un caso clínico. *Rev ADM*. 2023; 80 (3): 151-159. Disponible en: <https://dx.doi.org/10.35366/111433>
2. Otero Espino, Rodríguez Pose, Otero Casal, Rodríguez Romero. Ameloblastoma periférico. Reporte de caso clínico y revisión bibliográfica. *Rev RCOE*. 2018; 23 (1): 255-260. Disponible en: <https://rcoe.es/articulo/9/ameloblastoma-periferico-reporte-de-caso-clinico-y-revision-bibliografica>
3. Valls A, Montané E, Bescós C, Saez M, Munill M, Alberola M. Manejo quirúrgico del ameloblastoma. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac* [Internet]. 2012;34(3):98-104. Disponible en: <https://www.elsevier.es/es-revista-revista-espanola-cirugia-oral-maxilofacial-300-articulo-manejo-quirurgico-del-ameloblastoma-S1130055812000342>
4. Landa RC, Gómez PFJ. Ameloblastoma uniuístico con patrón plexiforme. Revisión de la literatura a propósito de un caso clínico. *Rev ADM*. 2023; 80 (3): 151-159. Disponible en: <https://dx.doi.org/10.35366/111433>
5. Bolados Ávila, Gissella Opazo Ortiz, Javiera Pará I, Constanza. Uso e indicaciones de la técnica de descompresión en las distintas lesiones de huesos maxilares: una revisión sistemática [Internet]. [Chile]: Universidad de Valparaíso; 2019. Disponible en: <http://repositoriobibliotecas.uv.cl/handle/uvsc1/8442>
6. Hashemi H, Nasman A, Farzad P. Peripheral ameloblastoma presenting as a solid mass in the temporal fossa: A case report and review of the literature. *Oral Maxillofac Surg Cases*. 2022; 8 (4): 100284. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.omsc.2022.10.0284>
7. Anpalagan A, Tzortzis A, Twigg J, Wotherspoon R, Chengot P, Kanatas A. Current practice in the management of peripheral ameloblastoma: a structured review. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2021; 59 (1): e1-8. Available in: <http://dx.doi.org/10.1016/j.bjoms.2020.08.084>
8. Soluk-tekkesin M, Wright JM. The world health organization classification of odontogenic lesions: a summary of the changes of the 2022 (5th) edition. *Turk Patoloji Derg* [Internet]. 2022; Available in: <http://dx.doi.org/10.5146/tjpath.2022.01573>
9. Carini F, Riazoli G, Vignoletti F, Baldoni M. Ameloblastoma plexiforme del maxilar: manejo quirúrgico y protético. A propósito de un caso. *Av Odontoestomato*. 2007; 23 (1): 11-20. Disponible en: https://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0213-12852007000100002
10. Zhang X, Tian X, Hu Y, Zhang C, Wei C, Yang X. Oral peripheral ameloblastoma: a retrospective series study of 25 cases. *Med*

- Oral Patol Oral Cir Bucal. 2018; 23 (3): e277-281. Available in: http://www.medicinaoral.com/medoralfre_e01/v23i3/medoralv23i3p277.pdf
11. Vezhavendhan N, Vidyalakshmi S, Muthukumaran R, Santhadevy A, Sivaramakrishnan M, Gayathri C. Peripheral ameloblastoma of the gingiva. *Autops Case Rep.* 2020; 10 (1): e2019127. Available in: <https://doi.org/10.4322/acr.2019.127>
 12. Philipsen HP, Reichart PA, Nikai H, Takata T, Kudo Y. Peripheral ameloblastoma: biological profile based on 160 cases from the literature. *Oral Oncol.* 2001; 37 (1): 17-27. doi: 10.1016/s1368-8375(00)00064-6. Available in: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/11120479/>
 13. LeCorn DW, Bhattacharyya I, Vertucci FJ. Peripheral ameloblastoma: a case report and review of the literature. *J Endod.* 2006; 32 (2): 152-154. doi: 10.1016/j.joen.2005.10.028. Available in: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/16427467/>
 14. Ghattamaneni S, Nallamala S, Guttikonda VR. Unicystic ameloblastoma in conjunction with peripheral ameloblastoma: a unique case report presenting with diverse histological patterns. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2017; 21 (2): 267-272. doi: 10.4103/jomfp.JOMFP_115_15. Available in: https://journals.lww.com/jpat/fulltext/2017/21020/unicystic_ameloblastoma_in_conjunction_with.17.aspx
 15. Rojas FJB. Ameloblastoma: papel de los biomarcadores inmunohistoquímicos en el diagnóstico precoz, tratamiento, recurrencia y malignización [Internet]. [Sevilla]: Universidad de Sevilla; 2018. Disponible en: <https://idus.us.es/bitstream/handle/11441/77368/TFG%20FRANCISCO%20JOS%C3%89%20BEN%C3%8DTEZ%20ROJAS.pdf?sequence=1>

Correspondencia:

Dra. Shirley Verónica Yucra Aguilar

E-mail: dra.veronicayucra22@gmail.com