

UNIVERSIDAD NACIONAL
AUTÓNOMA DE MÉXICO

FACULTAD DE ODONTOLOGÍA

DIVISIÓN DE ESTUDIOS DE POSTGRADO
E INVESTIGACIÓN

“MARSUPIALIZACIÓN DE QUERATOQUISTE
ODONTOGÉNICO HEMIMANDIBULAR”

CASO CLINICO

PARA OBTENER EL GRADO DE LA ESPECIALIDAD EN:
CIRUGIA MAXILOFACIAL

PRESENTA:

ESTHER DIANA CAROLINA
FERRAEZ CASTAÑEDA

TUTOR DE TESIS:
DR. ARTURO GÓMEZ PEDROSO BALANDRANO

REVISOR DE TESIS:
DRA. FABIOLA SALGADO CHAVARRÍA

No. CVU CONACyT
966919

2019

16. Bo.
22/03/2019
Facultad de Odontología
Especialidad en Cirugía Oral y Maxilofacial
Dr. Alejandro Alonso Moctezuma
Coordinador

Marsupialización de Queratoquiste Odontogénico Hemimandibular

Esther Diana Carolina Ferraez Castañeda* Arturo Gómez Pedroso Balandrano**

Fabiola Salgado Chavarría***

Resumen

El queratoquiste odontogénico (QQO) es el tercer quiste más frecuente del maxilar y la mandíbula. Tiene un aspecto clínico, radiológico e histológico característico con una alta tendencia a la recidiva. Es importante identificarlo ya que pueden expandirse y alcanzar un tamaño impensable sin producir síntomas. En algunas ocasiones esta asociado con el síndrome del Gorlin-Goltz.

La resección ósea ha demostrado ser el tratamiento más predecible pero con mayor morbilidad asociada a la reconstrucción de los defectos. Aunque un tratamiento conservador puede aumentar las recurrencias pero es la mejor elección a largo plazo al ser menos invasivo.

Se presenta un caso clínico de un paciente femenino de 58 años de edad con un QQO hemimandibular tratado de manera conservadora, a pesar de su extensión. Se muestra su seguimiento y resultados satisfactorios a cuatro años.

Palabras Clave:

Marsupialización, queratoquiste odontogénico, descompresión, hemimandibular.

Abstract

The odontogenic keratocyst (QQO) is the third most frequent cysts of the maxilla and mandible. It has a clinical, radiological and histological characteristic with a high tendency to relapse. It is important to identify it since they can grow to an unthinkable size without producing symptoms. Sometimes it is associated with Gorlin Goltz syndrome.

Bone resection has proven to be the most predictable treatment but with greater morbidity associated with the reconstruction of the defects. Although a conservative treatment can increase recurrences but it is the best long-term choice to be less invasive.

We present a clinical case of a female patient of 58 years of age with a hemimandibular QQO treated conservatively, despite its extension. Its monitoring and satisfactory results are shown to four years.

Key Words:

Marsupialization, keratocyst odontogenic, decompression, hemimandibular.

*Residente de cuarto año de Cirugía Maxilofacial del H.R.L.A.L.M.- ISSSTE-ESCPONAV-SEMAR.

** Jefe de Servicio de Cirugía Maxilofacial del H.R.L.A.L.M.-ISSSTE

*** Catedrática de la especialidad de Cirugía Maxilofacial de la UNAM

Introducción

El queratoquiste odontogénico (QO) o tumor odontogénico queratoquístico ha sufrido varias modificaciones en cuanto a su clasificación por su variante comportamiento, pasando de quiste odontogénico a tumor y siendo reclasificado nuevamente como quiste odontogénico en el 2017 por la organización mundial de la salud.^{1-3.}

En 1956 Phillipsen publicó un artículo en donde sugirió el término QO por su alta presencia de queratina en su contenido y revestimiento. Posteriormente Gorlin en 1960 estableció su relación con otras anomalías conformando un síndrome que actualmente lleva su nombre.^{2, 4-6.}

Actualmente se define como un quiste caracterizado por un revestimiento delgado o regular de epitelio escamoso paraqueratinizado estratificado con células basales en empalizada.^{1-2, 7.} Es el tercer quiste odontogénico más frecuente representando entre el diez y veinte por ciento, con una incidencia de edad amplia pero con una propensión entre los diez y cuarenta años de edad. Existe una ligera predilección por el sexo masculino. La mandíbula está involucrada entre un sesenta y ochenta por ciento de los casos.^{1-2, 6, 8}

Durante muchos años ha sido reconocido como una lesión agresiva propensa a la recurrencia a menos que se elimine por completo quirúrgicamente, por lo que algunos autores la consideran una neoplasia quística benigna.^{9, 10.}

Los investigadores están de acuerdo en que el QO surge de los restos de la lámina dental y desde el momento que se estableció su relación con el carcinoma névico celular se sospechó también que

este quiste podría tener un determinante genético. Estudios inmunocitoquímicos y genéticos han confirmado su asociación con una mutación por la inactivación del gen PTCH1, que activa la vía de señalización *Sonic hedgehog* y los resultados en la proliferación celular aberrante del epitelio.^{3-5, 9, 10.}

Dentro de sus características clínicas el QO es usualmente asintomático aunque en algunas ocasiones puede asociarse con dolor e inflamación. Al ser habitualmente asintomáticos pueden ser extremadamente grandes al momento del diagnóstico, ya que generalmente se dan por serendipia radiográfica. El QO posee un crecimiento en sentido anteroposterior generalmente sin causar expansión cortical evidente, esta característica puede ser útil en la diferencia clínica y radiográfica entre otros quistes.^{11-13.}

El diagnóstico definitivo es histopatológico en el cual se observa una delgada pared fibrosa exenta de cualquier tipo de inflamación o tasa de infiltración, el revestimiento epitelial se compone de una capa uniforme de epitelio escamoso conformado de seis a ocho células de espesor. La superficie luminal muestra un epitelio paraqueratinizado de células aplanadas. La capa epitelial basal está compuesta por células epiteliales cuboidales o columnares que a menudo son hipercromáticas y pequeños quistes satélites.^{14-16.}

En comparación con otros quistes del maxilar y la mandíbula, el QO es inusual porque muestra características únicas y un comportamiento potencialmente agresivo. Además se relaciona con una alta tasa de recurrencia, la cual aumenta cuando está asociado con el síndrome de carcinoma névico celular. La presencia

de paraqueratina es una de sus características histológicas pero si muestra focos de ortoqueratina puede estar asociado con el síndrome de Gorlin-Goltz.^{16.}

Existen diversos tratamiento para el QGO, los cuales varían desde la marsupialización y enucleación simple hasta la resección ósea, pero se deben de considerar varios factores como: el tamaño, extensión, ubicación, presencia de perforación de corticales óseas, afección al tejido blando, edad del individuo, naturaleza primaria y recurrencia de la lesión. Se sugiere un seguimiento a largo plazo por su alta tasa de recurrencias tardías.¹⁷⁻²⁰

Existen muchas controversias en cuanto al uso de terapias químicas coadyuvantes como la solución de Carnoy convencional (SC) o modificada, nitrógeno líquido y recientemente el Topical 5-fluorouracil el cual no cuenta con estudios a largo plazo.^{21-22.}

Stoelinga y Voorsmit popularizaron el uso de la solución de Carnoy como fijador químico tisular. La SC es una mezcla de alcohol puro, ácido acético, cloruro férrico y cloroformo; este último altamente cancerígeno por lo que recientemente se eliminó de la solución dando como resultado la SC modificada. El mecanismo de acción de la SC durante una aplicación de 5 minutos es penetrar en el hueso eliminando la mayoría de las células residuales y quistes satélites; dicha aplicación alcanza una profundidad en el hueso de 1,54 mm, en estructuras nerviosas de 0,15 mm y en mucosa de 0,51 mm. Cabe recordar que los QGO recurrentes generalmente se encuentran adyacentes a la lesión inicial, por lo que al eliminar las células residuales disminuye su recidiva.²²

Caso Clínico

Se trata de paciente femenino de 58 años de edad la cual inició padecimiento en octubre del 2015 al presentar parestesia en labio inferior y odontalgia asociada al tercer molar inferior izquierdo. En su Unidad Medico Familiar le realizaron extracción de dicho diente y durante el transoperatorio presentó secreción tipo ámbar a través del alvéolo. Continuó con aumento de volumen en zona de cuerpo y rama mandibular izquierda, por lo que el odontólogo prescribió en múltiples ocasiones esquemas farmacológicos a base de antibióticos sin remisión y decidió solicitar ortopantomografía en la cual se observan zonas radiolúcidas multiloculadas desde la raíz del canino inferior izquierdo, cuerpo mandibular y extendiéndose hasta la rama ascendente mandibular izquierda. (Fig. 1A)

En diciembre del 2015 se envió al servicio de cirugía maxilofacial del Hospital Regional Lic. Adolfo López Mateos. Al ingreso de la paciente se realizó interrogatorio refiriendo como antecedentes de importancia coxartrosis degenerativa de cuarto grado actualmente en protocolo prequirúrgico, quirúrgicos previos de importancia: excresis de cálculo y drenaje de absceso retroperitoneal, nefrectomía de lado derecho; antecedentes traumáticos: accidente en transporte público con fractura de cóccix y artrosis en vertebrae L4, L5. Se toman estudios de laboratorio con valores dentro de los parámetros normales. Se realizó biopsia por aspiración con aguja fina obteniendo un líquido amarillo claro o ámbar, el cual es colocado en laminillas realizando un frotis para llevarlo a estudio citológico obteniendo como resultado quiste odontogénico. Consecutivamente como tratamiento inicial se realizó marsupialización y descompresión de la lesión bajo anestesia local, previo

consentimiento del paciente y familiares. Así mismo colocamos un aditamento fabricado con el extremo distal o soporte del cuerpo de una jeringa de insulina fijado con puntos simples de nylon, se tomó muestra para envío a estudio histopatológico corroborando diagnóstico clínico de QOQ. (Fig. 2A y 2B).

Se realizaron lavados diarios con enjuague bucal diluido y agua potable con jeringa a través de aditamento por paciente o familiar, y en consulta por parte de nuestro servicio una vez a la semana y sucesivamente cada quince días hasta seis a ocho semanas. Igualmente se solicitaron controles radiográficos estrechos (Fig. 1 B, C).

En abril del 2016 se decide realizar enucleación, extracción de dientes involucrados y aplicación de solución Carnoy modificada en zona de cuerpo mandibular ya que se observó reducción de la lesión con la marsupialización y descompresión previa. Posteriormente se cambia posición de aditamento a la zona de rama mandibular izquierda, continuamos con lavados antes descritos, estudios radiográficos y tomográficos eventuales. (Fig. 3 y Fig. 4).

En julio del 2017 la paciente acude sin aditamento por lo que se decidió no recolocar y continuamos con mismo manejo. Cuatro años después el sitio de la lesión se muestra neoformación ósea, restauración del contorno facial y ausencia de signos clínicos o radiográficos de recurrencia. (Fig. 3C y 4C)

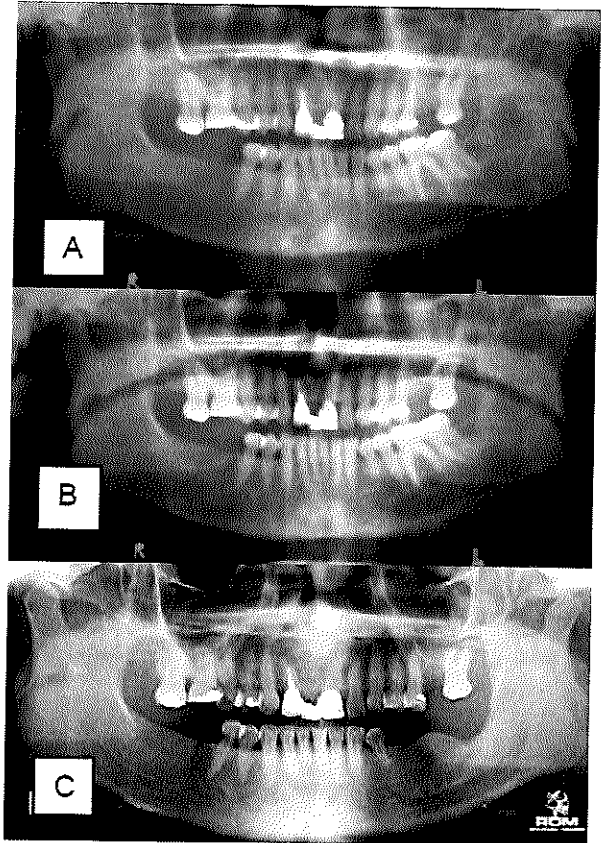


Fig. 1. Ortopantomografías: 2015 (A) 2016 (B) 2018 (C)

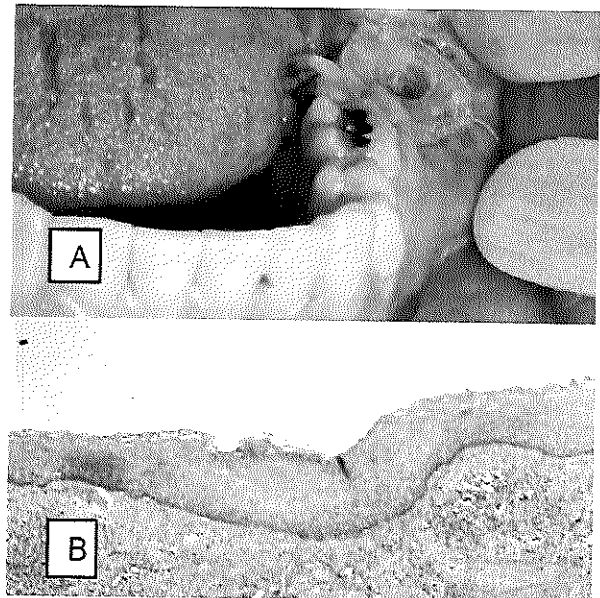


Fig. 2 Marsupialización mediante aditamento (A) y microfotografía en tinción hematoxilina-eosina de la muestra obtenida (B).

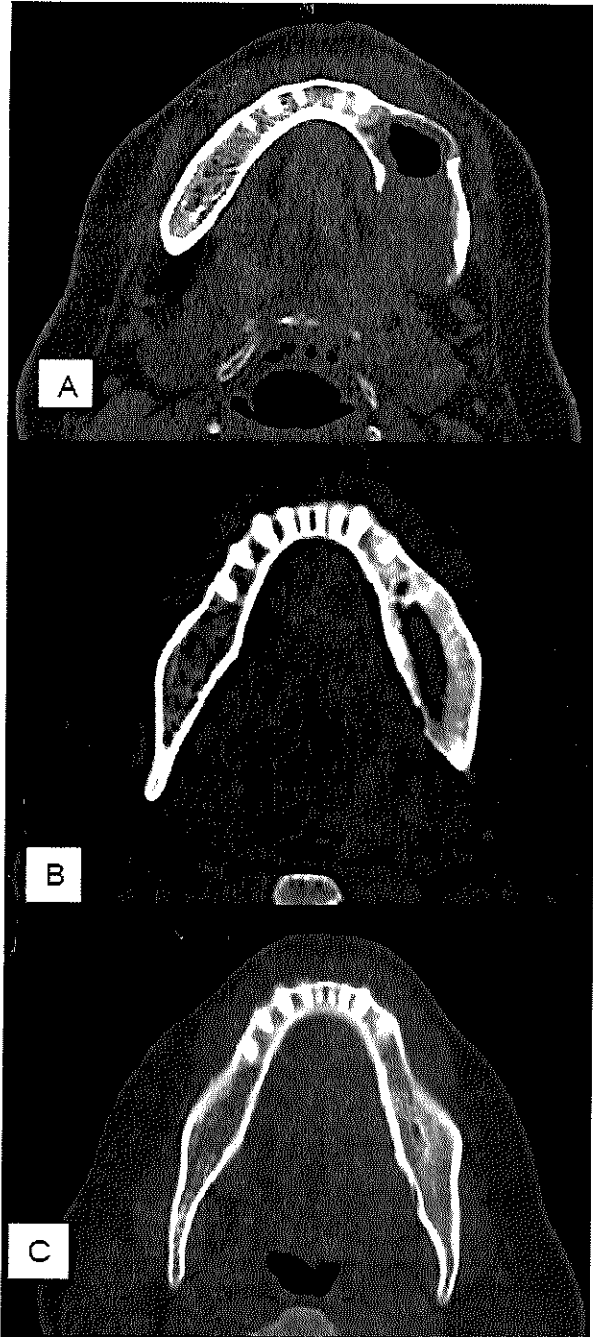


Fig. 4 Tomografía en corte axial del 2015 (A), 2017 (B) y 2018 (C).

Discusión

La descompresión y marsupialización de los quistes del maxilar y la mandíbula fueron sugeridas por primera vez por Dr. Partsch en la literatura alemana. Todavía se describen bajo el principio de dismi-

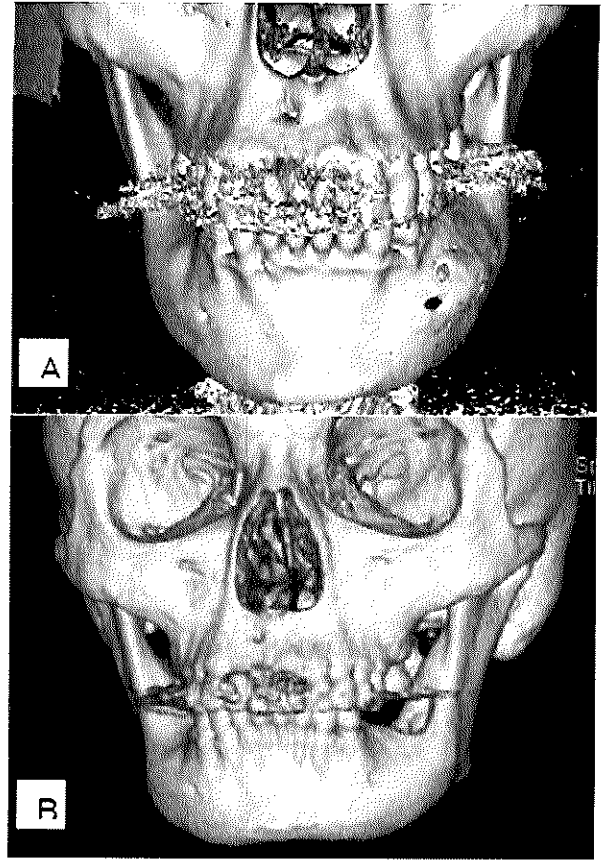


Fig. 5. Reconstrucción volumétrica inicial con perforación de cortical ósea mandibular izquierda del 2015 (A) y reconstrucción volumétrica actual del 2018 (B)

nuir y aliviar la presión dentro del quiste y esto detiene el crecimiento dentro del mismo, bajo este fundamento decidimos este tipo de tratamiento conservador considerando la extensa dimensión de la lesión.²³

Alves Caixeta²⁴ en Brasil realizó el mismo aditamento que nuestro hospital con excelentes resultados sin recurrencia actual a los cinco años. Algunas desventajas de esta técnica es que se requiere demasiada cooperación para los continuos lavados por lo que se debe de concientizar al paciente sobre la importancia de su participación para los continuos lavados por parte de nuestra paciente.²⁴

La Dra. Awni²⁵ refiere un aumento en el número de quistes satélite después de la descompresión pero no parece alterar el comportamiento biológico de esta neoplasia por lo que se utilizó SC modificada con terapia química coadyuvante. Al-Moraissi²⁶ en una revisión sistemática sobre la enucleación con o sin terapia adyuvante *versus* marsupialización con enucleación secundaria encontró lo siguiente: después del tratamiento con enucleación sola o con soluciones de Carnoy, crioterapia u osteotomía periférica existe una recurrencia que osciló entre el 14,3% y el 22,8% y en combinación general con una tasa de recidiva fue 18,2%. En cambio la descompresión / marsupialización con o sin remoción secundaria ya sea sola o combinada su tasa de recurrencia ponderada osciló entre el 18% y el 38,5%. Por lo tanto es mejor siempre utilizar alguna terapia química coadyuvante con la descompresión, siendo la SC la más estudiada y menos agresiva, sobre todo en su presentación modificada.²⁵⁻²⁶

Essam Ahmed²⁷ realizó la mayor revisión sistemática y meta-análisis sobre las diferentes modalidades quirúrgicas y sus recidivas, los principales porcentajes son los siguientes: enucleación sola 23.1%, enucleación con legrado 17.4%, enucleación más Solución de Carnoy 11.5%, enucleación más crioterapia con nitrógeno líquido 14.5%, marsupialización sola 32.3%, descompresión seguida de enucleación 14.6% y las resecciones óseas 8.4%. Con base en estos resultados se eligió el uso de la SC modificada en combinación con un tratamiento conservador como lo es la marsupialización y descompresión para aumentar su efectividad.²⁷

Kaczmarzyc²⁸ en su revisión sistemática encontró que en relación a las recidivas

según el tratamiento, las resecciones óseas obtuvieron un cero por ciento de recidivas pero igualmente los tratados con enucleación, osteotomía periférica y la solución de Carnoy obtuvieron un cero por ciento, ambos con un seguimiento medio de 5,25 años. Alimujiang²⁹ menciona que es de vital importancia para evitar la recidiva retirar la mucosa adyacente del QGO con el uso de la solución de Carnoy, por lo tanto en nuestro servicio de cirugía maxilofacial realizamos un curetaje posterior al inicio de la marsupialización y posterior colocación de SC modificada. Stoeltinga³⁰ refiere que aunque las resecciones están asociadas con bajas tasas de recurrencia, es importante mencionar que un tratamiento más agresivo no debe ser utilizado en áreas de difícil manejo por estructuras vasculares o compromiso como lo sería el maxilar en la zona posterior cuando se extiende en dirección a la órbita y al espacio esfenopalatino, así como la rama ascendente de la mandíbula aumentando la morbilidad del paciente, motivo por el cual nuestro abordaje conservador fue el de mejor elección para nuestra paciente²⁸⁻³⁰.

Conclusión.

El QGO es considerado por varios autores como una patología agresiva y aunque se encuentra clasificada en el rubro de quistes odontogénicos, se trata de una lesión agresiva. Sin embargo, no por esto significa que el tratamiento deba de ser extenso e invasivo, sobre todo cuando este incluye una gran resección ósea, la cual aumentaría la morbilidad del paciente. Por el contrario al realizar tratamientos más conservadores con un estrecho seguimiento, además de la aplicación de una terapia química coadyuvante como lo es la SC modificada pueden obtenerse mejores resultados. Cabe mencionar que el tiempo de control

- Maxillofac Surg Clin North Am. 2003 Aug;15(3):347-62.
10. Berge TI, Helland SB, Sælen A, Pattern of recurrence of nonsyndromic keratocystic odontogenic tumors, *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2016 Jul;122(1):10-6.
 11. Leon Janse van Rensburg, Correlative MRI and CT imaging of the odontogenic keratocyst: a review of twenty-one cases, *Oral Maxillofacial Surg Clin N Am* 15 (2003) 363–382.
 12. Mervyn Shear, Odontogenic keratocysts: clinical features, *Oral Maxillofacial Surg Clin N Am* 15 (2003) 335–345.
 13. Georgios N, George K. Sándor, Non-syndromic and syndromic keratocystic odontogenic tumors: Systematic review and metaanalysis of recurrences, *Journal of Cranio-Maxillo-Facial Surgery* 42 (2014)364-371.
 14. Martin Kauke, Ali-Farid Safi, Andrea Grandoch, Volumetric analysis of keratocystic odontogenic tumors and nonneoplastic jaw cysts e Comparison and its clinical relevance, *Journal of Cranio-Maxillo-Facial Surgery* 46 (2018) 257-263.
 15. Pogrel MA, The keratocystic odontogenic tumour (KCOT)—an odyssey, *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2015 Dec;44(12):1565-8.
 16. Pogrel MA, The keratocystic odontogenic tumor, *Oral Maxillofac Surg Clin North Am.* 2013 Feb;25(1):21-30.
 17. Ledderhof NJ, Caminiti MF, Bradley G, Lam DK, Topical 5Fluorouracil is a Novel Targeted Therapy for the Keratocystic Odontogenic Tumor, *J Oral Maxillofac Surg.* 2017 Mar;75(3):514-524.
 18. Bruno Ramos Chrcanovic a, Ricardo Santiago Gomez, Recurrence probability for keratocystic odontogenic tumors: An analysis of 6427 cases, *Journal of Cranio-Maxillo-Facial Surgery* 45 (2017) 244-251.
 19. Sharif FN, Oliver R, Sweet C, Sharif MO, Interventions for the treatment of keratocystic odontogenic tumours, *Cochrane Database Syst Rev.* 2015 Nov 5;(11).
 20. Brian L. Schmidt, The use of liquid nitrogen cryotherapy in the management of the odontogenic keratocyst, *Oral Maxillofacial Surg Clin N Am* 15 (2003) 393–405.
 21. G.E. Ghali, Surgical management of the odontogenic keratocyst, *Oral Maxillofacial Surg Clin N Am* 15 (2003) 383–392.
 22. Bryan Bell, Treatment options for the recurrent odontogenic keratocyst, *Oral Maxillofacial Surg Clin N Am* 15 (2003) 429–446.
 23. Anthony Pogrel, Decompression and marsupialization as a treatment for the odontogenic keratocyst, *Oral Maxillofacial Surg Clin N Am* 15 (2003) 415–427.
 24. Clenivaldo Alves Caixetaa, Cínthia Magallanes & Cols, Decompression of an extensive Keratocystic Odontogenic Tumor in an elderly patient, *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery, Medicine, and Pathology* 2017.(29): 284–287.
 25. Awni S, Conn B, Decompression of keratocystic odontogenic tumors leading to increased fibrosis, but without any change in epithelial proliferation, *Oral Surg*

- Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.
2017 Jun;123(6):634-644.
26. Al-Moraissi E, Pogrel MA, Ellis E, Enucleation with or without adjuvant therapy versus marsupialization with or without secondary enucleation in the treatment of keratocystic odontogenic tumors: A systematic review and meta-analysis, J Craniomaxillofac Surg. 2016 Sep;44(9):1395-403.
 27. Essam Ahmed, Ayed Ali, Dahan What surgical treatment has the lowest recurrence rate following the management of keratocystic odontogenic tumor?: A large systematic review and metaanalysis, Journal of CranioMaxillo-Facial Surgery 45 (2017) 131-144.
 28. Kaczmarzyc, Mojsa, A systematic review of the recurrence rate for keratocystic odontogenic tumour in relation to treatment modalities. Int J Oral Maxillofac Surg. 2012 Dec;41(12):1585-6.
 29. Alimujiang Wushoua, Ya-Jun Zhao, Marsupialization is the optimal treatment approach for keratocystic odontogenic tumour, Journal of Cranio-Maxillo-Facial Surgery 42 (2014) 1540-1544
 30. Paul J.W. Stoelinga, Excision of the overlying, attached mucosa, in conjunction with cyst enucleation and treatment of the bony defect with carnoy solution, Oral Maxillofacial Surg Clin N Am 15 (2003) 407-414.

de evolución no está ligado al tipo de tratamiento, es decir que aunque decidiéramos utilizar un tratamiento agresivo como una resección ósea, esto no eliminaría el estrecho seguimiento del paciente por más de cinco años y con base en esto se debería de considerar un tratamiento conservador como primera elección.

Agradecimientos

A los residentes del servicio de Cirugía Maxilofacial por estar al cuidado y pendientes del estrecho control que exige este tipo de patologías por el bienestar del paciente y los nuevos casos similares que se encuentran en seguimiento.

Referencias

1. Adel K El-Naggar, John KC Chan, Jennifer R Grandis, WHO Classification of Head and Neck Tumours. Fourth edition, World Health Organization 2018.
2. Brad Neville Douglas D. Damm Carl Allen Jerry Bouquot, Oral and Maxillofacial Pathology, Saunders 2009.
3. Paul J.W. Stoelinga, Etiology and pathogenesis of keratocysts, Oral Maxillofacial Surg Clin N Am 15 (2003) 317–324.
4. Robert J. Gorlin, M. Michael Cohen, Syndromes of the Head and Neck, Oxford University Press Inc, USA, 2001.
5. Randy Todd, Molecular approaches to the diagnosis of sporadic and nevoid basal cell carcinoma syndrome-associated odontogenic keratocysts, Oral Maxillofacial Surg Clin N Am 15 (2003) 447–461.
6. M. Anthony Pogrel, The history of the odontogenic keratocyst, Oral Maxillofacial Surg Clin N Am 15 (2003) 311–315.
7. Richard C.K. Jordan, Histology and ultrastructural features of the odontogenic keratocyst, Oral Maxillofacial Surg Clin N Am 15 (2003) 325–333.
8. Mohammed I, Ajaz A, Keratocystic odontogenic tumors related to Gorlin–Goltz syndrome: A clinicopathological study, Journal of oral biology and craniofacial research 6 (2016) 93–100.
9. Shear M, Odontogenic keratocysts: natural history and immunohistochemistry, Oral