

Ameloblastoma unicístico mural com componente intraluminal revisão e relato de caso

Mural unicystic ameloblastoma with an intraluminal component: a review and case report

Tariza Gallicchio Moreira^I
Sérgio Luiz Melo Gonçalves^{II}
Martha Alayde Alcântara Salim^{III}
Roberto Prado^{IV}

Recebido em 03/06/2009
Aprovado em 30/07/2009

RESUMO

O ameloblastoma é, segundo a OMS, um tumor odontogênico de origem epitelial, benigno, que apresenta características de infiltração local e elevado índice de recidiva. Considerando a sua frequência, agressividade, diversidade histopatológica, capacidade de recidiva e controvérsia quanto às formas de tratamento, muitos têm sido os motivos para que esse tumor seja constantemente citado na literatura médica e odontológica. O ameloblastoma unicístico é uma variante do ameloblastoma que apresenta melhor prognóstico com baixo índice de recidiva, mesmo se tratado por cirurgias conservadoras, como enucleação e/ou curetagem da lesão. Clínica e radiograficamente pode se assemelhar a uma lesão cística, como um cisto folicular, sendo fundamental o diagnóstico preciso para que o tratamento adequado seja instituído com menor risco de recidiva da lesão. O caso clínico relatado é de uma paciente do gênero feminino, 20 anos, com aumento volumétrico na face, em região posterior de mandíbula. A punção aspirativa seguida de biópsia excisional e análise histopatológica confirmaram o diagnóstico de ameloblastoma unicístico. A paciente foi submetida à enucleação do tumor e curetagem óssea, ambas realizadas com sucesso. A paciente encontra-se em acompanhamento ambulatorial de 2 anos, sem sinais de recidiva do tumor.

Descritores: Ameloblastoma. Neoplasias Mandibulares. Mandíbula. Tumores Odontogênicos.

ABSTRACT

According to the World Health Organization, ameloblastomas are benign odontogenic tumors of epithelial origin that present characteristics of local infiltration and a high rate of recurrence. Considering their frequency, aggressiveness, histopathological diversity, capacity of recurrence and the controversy regarding forms of treatment, there are many reasons why they have been frequently mentioned in dental and medical literature. Unicystic ameloblastoma is a variant form that presents a favorable prognosis and low rate of recurrence, even when treated by conservative procedures such as enucleation or curettage. Clinically and radiographically, it may resemble a cystic lesion, such as a follicular cyst, demanding a precise diagnosis in order to ensure the correct treatment and prevent recurrence. The case reported here is that of a 20-year-old female with an increase in facial volume in the posterior region of the jaw. A diagnosis of unicystic ameloblastoma was confirmed by aspiratory puncture, followed by an excisional biopsy and histopathological analysis. The patient successfully underwent enucleation of the tumor and bone curettage. The patient has been followed up for two years with no signs of recurrence of the tumor.

Keywords: Ameloblastoma. Mandibular Neoplasms. Mandible. Odontogenic Tumors.

^I Especialista e Mestranda em Cirurgia Bucomaxilofacial – FO/Unigranrio.

^{II} Professor doutor em Cirurgia Bucomaxilofacial – FO/Unigranrio e UFF.

^{III} Professora doutora em Cirurgia Bucomaxilofacial – FO/Unigranrio e FAESA.

^{IV} Professor doutor em Cirurgia Bucomaxilofacial – FO/Unigranrio e UERJ.

INTRODUÇÃO

Ameloblastoma é uma neoplasia epitelial de origem odontogênica, agressiva, porém benigna, sem preferência quanto ao sexo ou raça, embora existam alguns estudos que mostram prevalência pela raça negra¹³; é indolor e tem crescimento lento. A sua patogênese ainda é controversa: pode surgir a partir do órgão do esmalte, dos restos epiteliais de Malassez, dos restos de Serres, do epitélio reduzido do órgão do esmalte, do revestimento epitelial dos cistos odontogênicos, de células basais do epitélio de revestimento dos maxilares, ou ainda, do epitélio heterotrópico. Microscopicamente, o ameloblastoma se assemelha ao padrão morfogenético do órgão do esmalte e é incapaz de sintetizar a proteína matriz de esmalte¹⁹. Radiograficamente, o tumor é radiolúcido, podendo ser uni ou multilocular, exceto a variante desmoplásica, que possui uma imagem mista radiolúcida e radiopaca, que, muitas vezes, se assemelha a uma lesão fibro-óssea. O ameloblastoma tem tendência à expansão.

De acordo com a nova classificação, segundo a Organização Mundial de Saúde apresentada em 2005, o ameloblastoma se classifica em : sólido ou multicístico; extraósseo ou periférico, desmoplásico e unicístico. Cada um apresenta um comportamento biológico próprio, devendo serem analisados em separado devido às diferentes considerações em relação à terapêutica e ao prognóstico³.

O ameloblastoma unicístico, unicístico mural, monocístico, intracístico, cistogênico ou ameloblastoma cístico é uma variante distinta com uma agressividade e comportamento clínico menor comparado ao ameloblastoma multicístico¹⁵. Representa 5 a 15% dos ameloblastomas, acometendo entre a 1ª e 3ª década e afeta em 90% a região posterior de mandíbula. É um tumor que tem associação com dentes não irrompidos, principalmente 3º molares inferiores, assintomático, apresenta aspecto clínico e radiográfico semelhantes a uma lesão cística. Possui radiotransparência unilocular bem definida, às vezes pericoronária. Apresentam 3

características histopatológicas: luminal, intraluminal e mural. Usualmente, o diagnóstico de ameloblastoma unicístico é dado pelo exame histopatológico de uma lesão removida ou submetida à biópsia incisiva sendo um cisto odontogênico. Os critérios histopatológicos, para se chegar a este diagnóstico, foram descritos por Vickers e Gorlin²¹ em 1970.

Quanto ao tratamento dos ameloblastomas, a variante unilocular é menos agressiva, tem baixos índices de recidiva, podendo ser tratada através de uma cirurgia mais conservadora, enquanto que lesões multiloculares deverão receber um tratamento mais agressivo através de uma ressecção do tumor com margem de segurança e adequada reconstrução óssea do segmento^{13-15, 20}.

Este trabalho teve por finalidade elucidar as peculiaridades dessa variante do ameloblastoma, a partir da revisão de literatura e do relato de caso do atendimento de uma jovem de 20 anos que teve o acometimento do tumor em região posterior de mandíbula, enfocando, principalmente, os aspectos relacionados com o diagnóstico clínico, radiográfico, histopatológico e o tratamento.

RELATO DE CASO

Paciente F.G.R., gênero feminino, 20 anos, melano-derma foi encaminhada para o ambulatório de cirurgia e traumatologia Bucomaxilofacial do Hospital Geral de Bonsucesso para avaliação de aumento volumétrico na face e região posterior de mandíbula intraoral. Durante a anamnese, foi relatado que inicialmente houve um aumento de volume em região posterior de mandíbula intraoral no lado direito, sintomático e que, após aproximadamente um mês, começou a notar um "inchaço" na face. A história médica não revelou nenhuma alteração digna de nota.

Ao exame físico facial, observou-se aumento de volume no terço inferior, lado direito da face. No exame clínico intrabucal, notou-se também evidente aumento volumétrico no rebordo alveolar mandibular,

eritematoso, que se iniciava na face distal do dente 46 e progredia posteriormente, acometendo a região vestibular, provocando apagamento do fundo de vestibulo na região dos elementos dentais segundo e terceiro molares direito.

No exame radiográfico panorâmico, observou-se uma imagem radiolúcida unilocular com expansão vestibular mandibular direita, podendo também ser identificado o terceiro molar inferior lado direito, que fora deslocado inferiormente até a basilar da mandíbula (Figura 1).



FIGURA 1: Radiografia panorâmica inicial.

Algumas hipóteses diagnósticas, baseadas no exame clínico e por imagem, foram levantadas, tais como: ameloblastoma unicístico, fibroma ameloblástico, cisto dentígero e tumor odontogênico ceratocístico.

A punção aspirativa com agulha hipodérmica, 40x12 (1,25mm x 38mm) 18G x 11/2" foi realizada com o intuito de verificar o conteúdo interno da lesão. Um líquido amarelado e bem fluido foi obtido, e, em seguida, foi realizada uma biópsia incisional do local e encaminhamento para análise histopatológica que atestou o diagnóstico de ameloblastoma unicístico.

A cirurgia foi planejada e realizada sob anestesia geral para enucleação do tumor e curetagem óssea, ambas realizadas com sucesso (Figuras 2). Em seguida, o material foi encaminhado para análise histopatológica, confirmando o diagnóstico de ameloblastoma

folicular, unicístico mural associado à massa intraluminal (Figura 3). A neoplasia forma volumosa massa intraluminal, que apresenta espaço cístico irregular, representado por fendas intercomunicantes. Próximo à mucosa oral, nota-se componente mural. O padrão histológico mostrou-se representado por maciços celulares poligonais que se assemelham o retículo estrelado do órgão do esmalte. As células colunares periféricas apresentam polaridade invertida dos seus núcleos. No centro dos seus ninhos epiteliais, percebem-se áreas de metaplasia escamosa.

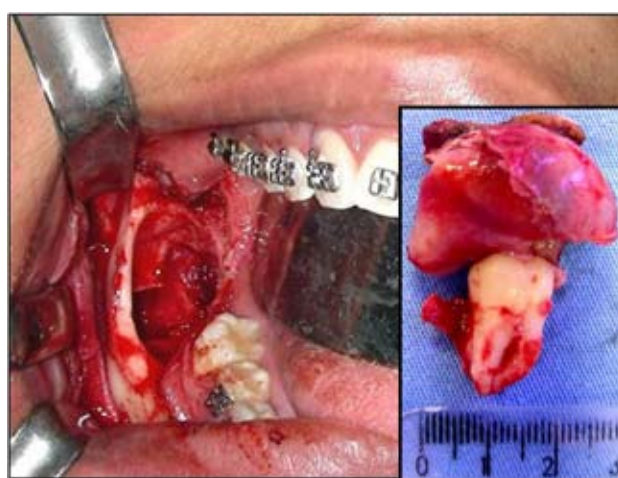


FIGURA 2: Aspecto transoperatório da loja óssea / aspecto macroscópico da lesão.

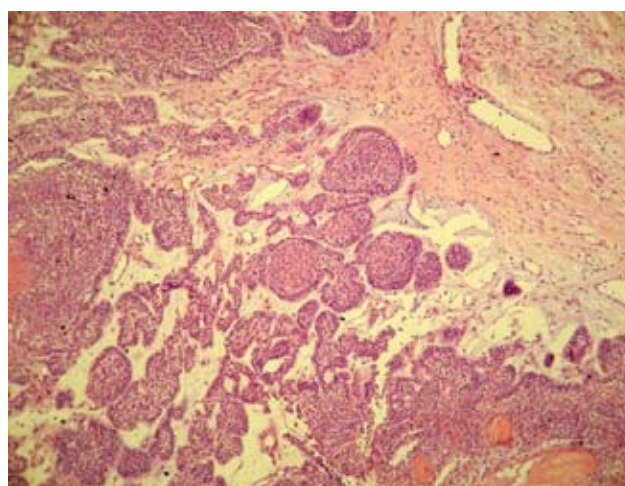


FIGURA 3: Cápsula fibrosa permeada na porção superior por maciços epiteliais do ameloblastoma folicular (forma mural). Os 2/3 inferiores são constituídos de massa neoplásica de componente intraluminal.

Um novo exame radiográfico panorâmico foi realizado cinco dias após a cirurgia, mostrando a ausência do dente diretamente envolvido com a lesão e basilar da mandíbula direita preservada (Figura 4).

Após 1 ano de proervação, observaram-se, em um novo exame radiográfico panorâmico, neoformações ósseas em andamento. Paciente negou sintomatologia dolorosa, e, ao exame clínico intraoral, foi observada mucosa gengival íntegra com abertura bucal preservada. Paciente encontra-se em acompanhamento ambulatorial e radiográfico de 2 anos (Figura 5).



FIGURA 4: Radiografia panorâmica pós-operatória.

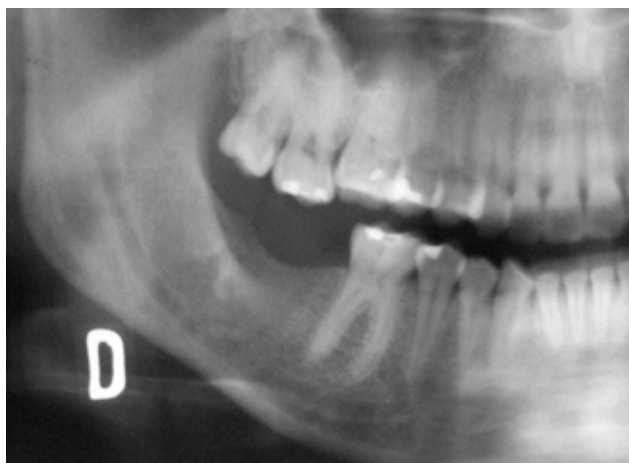


FIGURA 5: Radiografia panorâmica pós-operatória de 2 anos.

DISCUSSÃO

O ameloblastoma é o tumor odontogênico mais frequentemente encontrado nos maxilares, representando 1% destes encontrados na região maxilofacial⁴.

Diversos autores concordam que não há predileção significativa quanto ao sexo do paciente ^{4,12,14,17,18}. Quanto à idade e localização, o ameloblastoma unicístico acomete pacientes mais jovens (entre a 2ª e 3ª década de vida), e a maioria apresenta uma associação com um dente incluso, principalmente 2º e 3º molares inferiores ^{4,8,13,15}.

Os sinais clínicos mais frequentemente associados à presença do ameloblastoma unicístico são o aumento de volume da região onde a lesão ocorre e/ou ausência de um dente na arcada, na região do tumor. Crepitação pode surgir, se o tumor aumentar muito de volume. À punção, eles exibem um líquido amarelo-citrino, semelhante ao dos cistos odontogênicos¹⁹. Os sintomas são mínimos; em geral são indolores, sendo dificilmente percebidos pelo paciente nos estágios iniciais. Devido ao crescimento lento, geralmente é diagnosticado ao acaso, quando ainda de pequenas dimensões, através de exame radiográfico¹⁵.

Com relação aos aspectos radiográficos, a literatura consultada mostra a importância da tomografia computadorizada e da ressonância magnética na avaliação da extensão do tumor bem como a sua relação com estruturas anatômicas adjacentes, principalmente em lesões situadas na maxila, em que estruturas, como o seio maxilar, fossa nasal e tuberosidade maxilar, não são tão bem identificados em uma radiografia convencional^{4,7,10}.

Neville et al¹³, acreditam que o ameloblastoma unicístico possa apresentar três padrões histológicos: Luminal, Intraluminal e Mural. Ackermann e Shear² sugere que o tipo mural tenha um comportamento mais agressivo, devendo ser tratado de forma mais ampla.

Williams ²², em 1993, enfatiza que, após evidências clínicas e radiológicas de que uma lesão seja um ameloblastoma, é necessário um exame histológico para confirmação do diagnóstico.

Com relação ao tipo de tratamento, para os autores Robinson e Martinez ¹⁶, a enucleação (biópsia exci-

sional) é a terapia de escolha, de acordo com vários estudos. Eles salientaram que, para que o diagnóstico de um ameloblastoma unicístico seja realizado é necessária a presença de epitélio ameloblástico. Os autores Leider, Eversole e Barkin⁹ realizaram um estudo de 33 casos de ameloblastoma unicístico provenientes de cisto odontogênico, e os achados sugerem que o tratamento de escolha inicial deve ser a curetagem ou a enucleação com acompanhamento próximo. Moorthy¹⁰ discorda com esse tipo de tratamento e relata que a simples enucleação não garante a completa remoção de ameloblastoma unicístico, pois ficam remanescentes microscópicos no osso adjacente. Segundo Nakamura et al¹¹, ameloblastomas unicísticos, podem ser preconizados tratamentos conservadores de enucleação e curetagem, precedidos ou não por marsupialização, uma vez que esta leva a uma diminuição do tumor, com redução significativa das complicações e sequelas no pós-operatório. Por outro lado, autores, como Coleman e cols., afirmam que o tratamento para tais tumores é preciso ser mais radical.⁵

Barnes et al³, em 2005, consideram que o ameloblastoma unicístico é uma lesão expansível, que pode destruir uma porção significativa dos maxilares. A maioria dos ameloblastomas unicísticos são enucleados com o diagnóstico clínico, pré-operatório de cisto dentífero, e apenas no exame patológico é que a sua natureza real é determinada.

Abrams et al¹, enfatizam que é essencial para o patologista reconhecer as sutis mudanças morfológicas na linha cística. Essas características são importantes para selecionar o tratamento apropriado e evitar as chances de recorrência. Para os autores, a enucleação ou curetagem só é apropriada para ameloblastoma unicístico em que não exista evidência da extensão do tumor da cápsula cística para a periferia. Os autores Haug e cols⁶ concordam e ressaltam que, se ocorrer invasão através da parede cística, uma ressecção marginal deverá ser feita. Para os autores, somente 10% dos casos de ameloblastoma unicístico tratados

com enucleação têm recorrência. O acompanhamento deve ser feito bianualmente, de preferência durante 10 anos, devido à característica de crescimento lento do tumor.

CONSIDERAÇÕES FINAIS

O diagnóstico histopatológico do ameloblastoma unicístico é fornecido através de estudo da peça cirúrgica ou de material oriundo de biópsia incisional, quando em tratamento de suposto cisto odontogênico. Deve ser realizado, considerando-se as características clínicas e radiográficas, além da avaliação histopatológica da lesão.

Enucleação e/ou curetagem só é apropriada para ameloblastoma unicístico no qual não há evidência da extensão do tumor da cápsula cística para a periferia.

O laudo histopatológico é de fundamental importância na escolha do tipo de tratamento entre as várias modalidades do ameloblastoma.

REFERÊNCIAS

1. Abrams A M, Melrose R J, Handlers J P. Oral Pathology: Unicystic Ameloblastoma. CDA Journal 1990; 104-6.
2. Ackermann G I, Altini M, Shear M. The unicystic ameloblastoma: a clinicopathological study of 57 cases. J Oral Pathol 1988; 17 (9-10): 541-6.
3. Barnes L, Eveson J, Reichart P, Sidransky D. World Health Organization. Classification of tumours. Pathology&Genetics. Head and Neck Tumours.2005
4. Bezerra R A. Ameloblastomas intraósseos da mandíbula: considerações clínico-radiológicas. Dissertação. Rio de Janeiro: Universidade Federal do Rio de Janeiro, 2000, 136 p.
5. Cahn I. R. The dentigerous cyst is a potencial adamantinoma. Dent Cosmos,1933; 75: 889-893.
6. Haug R H, Hauer C A, Smith B, Indresano A T. Reviewing the unicystic ameloblastoma: report of two cases. J Am Dent Assoc. 1990;121(6):703-5.
7. Heath C. Case of cystic disease of the lower jaw.

- Brit M J 1876; 1: 466. Apud. Baden E. Terminology of the ameloblastoma: history and current usage. J Oral Surg. 1965; 23 (1): 40-9.
8. Houston G, Davenport W, Keaton W, Harris S. Malignant (metastatic) ameloblastoma: report of a case. J Oral Maxillofac Surg 1993; 51 (10): 1152-5.
 9. Leider A S, Eversole L R, Barkin M E. Cyst ameloblastoma: a clinicopathologic analysis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1985; 60 (6): 624-30.
 10. Moorthy A P. An unusual late recurrence of unicystic ameloblastoma. Br J Oral Maxillofac Surg. 1989; 27 (3) : 254-9.
 11. Nakamura N, Higuchi Y, Tashiro H, Ohishi M. Marsupialization of cystic ameloblastoma: a clinical and histopathologic study of the growth characteristics before and after marsupialization. J Oral Maxillofac Surg 1995; 53 (7): 748-54.
 12. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Oral & Maxillofacial Pathology. Philadelphia : Ed.W.B.Saunders Company 1995: 512-27.
 13. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Oral & Maxillofacial Pathology. 4 ed. Rio de Janeiro: Ed. Guanabara Koogan, 2004: 586-95.
 14. Olaitan AA, Adekeye EO. Unicystic ameloblastoma of the mandible: a long-term follow-up. J Oral Maxillofac Surg 1997; 55 (4): 345-8.
 15. Olaitan AA, Adeola D S, Adekeye E O. Ameloblastoma : clinical features and management of 315 cases from Kaduna, Nigeria. J Craniomaxillofac Surg 1993; 21 (8): 351-5.
 16. Robinson L, Martinez M G. Unicystic ameloblastoma: a prognostically distinct entity. Cancer 1977; 40 (5): 2278-85.
 17. Sampaio R K, Moreira L C. Tumores odontogênicos: aspectos clínicos, radiográficos e de tratamento. Rio de Janeiro: Ed. Revinter. 1992.
 18. Shafer W G, Hine M K, Levy B M. Tratado de Patologia Bucal. 4 ed. Rio de Janeiro: Ed. Guanabara Koogan, 1987: 255-94.
 19. Silveira H M, Medeiros P J, Sampaio R K, Vaz R D. Ameloblastoma unicístico: apresentação de um caso e revisão de literatura. RBO. 1993 jan./fev.; 50(1):23-8
 20. Stephen A. Sachs. Surgical excision with peripheral ostectomy: a definitive, yet conservative, approach to the surgical management of ameloblastoma. J Oral Maxillofac Surg. 2006; 64:476-83.
 21. Vickers R A, Gorlin R J. Ameloblastoma: delineation of early histopathologic features of neoplasia. Cancer. 1970; 26 (3): 699-709.
 22. Williams T P. Management of ameloblastoma: a changing perspective. J Oral Maxillofac Surg 1993; 51 (10): 1064-70.

ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA

Praia do Flamengo, 374 – bloco B / apt 602

Flamengo-Rio de Janeiro/RJ

Cep: 22210-030

Email: tarizabuco@yahoo.com.br