

Tratamento conservador de ameloblastoma unicístico variante plexiforme: relato de caso

Conservative treatment of unicystic ameloblastoma, plexiforme variation: Case report

RESUMO

Introdução: O ameloblastoma é uma neoplasia benigna, localmente invasiva, originada do epitélio odontogênico que ainda não possui sua etiologia esclarecida. Este tumor pode ser identificado radiograficamente como unicístico ou multicístico e geralmente, está relacionado com um dente incluso. O tratamento desta patologia do complexo maxilofacial que acomete tanto a maxila quanto a mandíbula, é baseado no diagnóstico clínico, imagens (raios x (RX), tomografia computadorizada (TC) e histopatológico. O objetivo deste trabalho é descrever e avaliar através de tomografia computadorizada (TC), o tamanho do tumor durante o período em que foi submetido à descompressão, para que as dimensões do mesmo possam ser mensuradas e comparadas em intervalos, dessa forma, comprovar a efetividade dos métodos de descompressão e marsupialização quando bem indicados. **Relato de caso:** No presente relato de caso, o paciente apresenta ameloblastoma unicístico de variante histológica plexiforme, conforme o exame histopatológico e está sendo tratado por meio de descompressão com a finalidade de se obter a diminuição do volume da lesão cística e consequente neoformação óssea, uma vez que a descompressão possibilita este processo. **Considerações finais:** O tratamento conservador pode surtir efeito tal como nesse caso em que se evidenciou a regressão do tamanho do tumor e a neoformação de estruturas ósseas antes acometidas pela patologia.

Palavras-chaves: ameloblastoma unicístico; tratamento conservador; marsupialização; descompressão.

ABSTRACT

Introduction: Ameloblastoma is a benign neoplasm, locally invasive, originating from the odontogenic epithelium that still does not have a clear etiology. This tumor can be radiographically identified as unicystic or multicystic and is usually related to an included tooth. The treatment of this pathology of the maxillofacial complex that affects both the maxilla and the mandible is based on clinical diagnosis, images (x-rays (X-rays), computed tomography (CT) and histopathology. The objective of this work is to describe and evaluate using computed tomography (CT), the size of the tumor during the period in which it was subjected to decompression, so that its dimensions can be measured and compared at intervals, thus proving the effectiveness of the methods of decompression and marsupialization when well indicated. **Case report:** In the present case report, the patient has unicystic ameloblastoma of a plexiform histological variant, according to the histopathological examination and is being treated by means of decompression in order to obtain a decrease in the volume of the

Leonardo Begalles de Souza
Cirurgião Dentista.

Jamil Elias Dib
Cirurgião Bucomaxilofacial; Mestre
Professor da Universidade de Gurupi-
UNIRG.

Vinicius Branco Elias Dib
Médico, Cirurgião Geral e Residente em
Cirurgia plástica.

Matheus Branco Elias Dib
Cirurgião Bucomaxilofacial.

**ENDEREÇO PARA
CORRESPONDÊNCIA**
Matheus Branco Elias Dib
Rua T 36, nº 3675, Edifício Dom
Lourenço, Ap 304, Setor Bueno. Goiânia
– Goiás. CEP 74 E-mail: jamil_dib1@
hotmail.com

cystic lesion and consequent bone neoformation, once that decompression makes this process possible. **Final considerations:** The conserved treatment or it can have an effect as in this case, in which the regression of the tumor size and the new formation of bone structures that were previously affected by the pathology were evidenced.

Key-words: unicystic ameloblastoma; conservative treatment; marsupialization; decompression.

INTRODUÇÃO

O ameloblastoma é um tumor benigno do epitélio odontogênico, que representa 11% das neoplasias odontogênicas do complexo maxilo-mandibular, possui crescimento lento, de característica localmente invasiva e assintomática, apresenta predisponência pela região posterior da mandíbula e é associado a dentes inclusos, e afeta pacientes jovens entre a 1^o e 4^o décadas de vida.¹

Esta patologia inicialmente foi descrita por Broca 1868 e teve seu nome sugerido por Churchill em 1934², mas sua etiologia ainda não está completamente elucidada, contudo, há várias teorias que têm sido propostas como as de que o tumor pode evoluir de células do epitélio de um cisto não neoplásico odontogênico ou de células residuais do órgão do esmalte.^{3,4}

Clinicamente, o ameloblastoma possui três classificações; multicístico ou segundo a nova classificação da OMS (Organização Mundial da Saúde) 2017, (1) ameloblastoma, (2) extra ósseo/periférico e (3) unicístico.⁵ O termo ameloblastoma unicístico foi introduzido na literatura por Robinson e Martinez em 1977⁶, descrito como lesão de comportamento biológico diferente dos demais ameloblastomas, menos agressivo e com menor invasão dos tecidos adjacentes.

O ameloblastoma unicístico representa de 10% a 46% de todos os ameloblastomas intraósseos, possui aspecto radiográfico radiolúcido e circunscrito que envolve a coroa de um terceiro molar inferior não erupcionado, que o faz lembrar clinicamente, um cisto dentígero. Além disso, outros cistos e tumores podem ser citados como radiograficamente semelhantes: queratocistoodontogênico, mixoma, fibroma ameloblástico, lesão central de células gigantes e cisto odontogênicocalcificante, ainda em alguns casos, a área radiolúcida pode apresentar margens festonadas. “É discutível se um ameloblastoma unicístico pode se apresentar radiograficamente

como uma lesão verdadeiramente multicística”.^{1,7}

A literatura relata que existem três variantes histológicas do ameloblastoma unicístico, (1) luminal o qual o tumor está confinado à superfície luminal do cisto sem proliferação, descrito muitas vezes apenas como cístico; (2) Intraluminal, descrita por Gardner em 1984. Esta classificação histológica, exibe casos em que a microscopia demonstra proliferações epiteliais em direção ao lúmen do cisto, muitas vezes é chamada de plexiforme por lembrar os padrões histológicos do ameloblastoma plexiforme e ser de difícil diagnóstico pelos possíveis pontos de inflamação, (3) mural, a cápsula fibrosa do cisto apresenta projeções de células ameloblásticas que, ao contrário da variante intraluminal, tem seu crescimento extra luminal infiltrando-se em tecidos adjacentes (osso esponjoso e tecido conjuntivo) com padrões de crescimento tanto foliculares quanto plexiformes. Além disso, podem existir variantes histológicas dentro da mesma neoplasia caracterizando padrão histopatológico misto.^{1,8}

Pelo fato de existirem vários padrões de crescimento e tipos histológicos, o exame histopatológico é essencial para o diagnóstico preciso, pois este é um dos alicerces para determinar o tipo de tratamento que será utilizado em cada caso. Os padrões de crescimento (1) luminal e (2) intraluminal, possuem respostas favoráveis ao tratamento conservador pelo fato de não apresentarem projeções para os tecidos adjacentes e estarem confinadas pela parede cística, diferentemente do padrão de crescimento; (3) mural que dependendo do grau de invasão aos tecidos adjacentes, deverá ser submetido a tratamento mais radical com margens de segurança.⁹

Além do padrão de proliferação, as células que fazem parte da camada basal do epitélio do cisto também podem influenciar no tipo de tratamento e na capacidade de invasão dos tecidos. Os tumores que apresentam células cuboides possuem tendência expansiva que não emitem projeções em tecidos adjacentes apenas expandindo corticais ósseas mostrando padrão citológico menos agressivo. Já os tumores que apresentam células colunares ou basais mostram crescimento difuso com infiltração nos tecidos e maior taxa de proliferação celular.¹⁰ Portanto, os tipos celulares dessa patologia deverão ser considerados para determinar o tipo de tratamento, pois quando apresentam células cuboides, o tratamento conservador terá maior taxa de sucesso do que quando células colunares ou

basais são encontradas no tumor pelo fato destas serem mais invasivas.¹¹

Além disso, a localização anatômica do tumor tem influência sobre a severidade desta patologia, visto que os ameloblastomas na maxila tendem a ser mais agressivos e mais invasivos pois o tipo ósseo é mais poroso e esponjoso propiciando a proliferação celular entre as lamelas ósseas ao contrário da mandíbula onde o osso é mais compacto o que gera dificuldade na disseminação.^{7,9}

Contudo, a escolha do tratamento não é baseada somente no exame histopatológico, nem mesmo no padrão de crescimento e sim em um conjunto de dados clínicos juntamente com os exames radiográficos.¹² A idade do paciente é fator essencial, pois quanto mais jovem for submetido a procedimentos conservadores como marsupialização, descompressão seguidos ou não por enucleação e curetagem, maior será a chance de sucesso no tratamento, pelo fato de que o paciente jovem possui resposta óssea mais ativa, permitindo formação e remodelação óssea mais rápida e eficaz.^{9,13}

O tratamento conservador por meio de técnicas de marsupialização que se refere a opção de esvaziamento onde o epitélio cístico e a mucosa oral são suturados obtendo uma janela entre o lúmen cístico e a cavidade oral de cistos ou tumores. Já a descompressão utiliza dreno ou dispositivo que mantém essa comunicação evitando fechamentos prematuros da janela de descompressão. Esses procedimentos seguidos ou não por enucleação e curetagem, têm como objetivo drenar e diminuir a pressão interna causada pelo líquido de cistos e tumores causando inversão da fisiopatologia da formação dos mesmos, dessa forma facilitando a neoformação óssea abaixo do epitélio cístico.^{14,15}

RELATO DE CASO

Paciente L.R.M de 12 anos, gênero feminino, compareceu ao ambulatório de patologia oral e maxilo facial da Universidade Regional de Gurupi (UNIRG), com queixa de inchaço na região de ramo e corpo mandibular direito. Ao exame clínico foi possível constatar o que foi relatado pela paciente, e ainda notar sinais como o aumento de volume intra-oral na região de triângulo retro molar. Não havia queixa de dor e nem outro sintoma, ou sinal, exceto assimetria facial. Ao exame radiográfico (radiografia panorâmica), foi detectada lesão extensa e bem

delimitada, com halo radiopaco envolvendo o terceiro e segundo molares inferiores homolateral.

A lesão observada, mostrava-se aproximadamente com área de 6cm X 3cm (figura 1) que se estendia desde o segundo molar inferior até o início da formação do processo condilar (cabeça da mandíbula), e com severo acometimento da incisura mandibular até à totalidade do processo coronoide, comprometendo também o bordo inferior da mandíbula e a linha oblíqua externa com um padrão radiolúcido e imagem com áreas de aspecto em bolhas de sabão, sendo observado ainda a presença do terceiro molar com rizogênese incompleta (5º estágio de Nolla), situado logo a baixo do colo do processo condilar.

Como o tipo de lesão descrito pode assemelhar-se a várias patologias orais como cistos ou tumores dos ossos maxilares, ceratocisto, ameloblastoma, cisto dentígero, lesão central de células gigantes, o exame histopatológico, como em todas os tumores (OMS) faz-se necessário a biópsia e, nesse caso, foi instituída a forma incisiva (devido à extensão da lesão) como técnica de escolha. Este procedimento foi realizado no próprio ambulatório sob anestesia local, no qual foi coletada amostra da região de mucosa oral no triângulo retromolar direito em profundidade, com intuito de coletar parte da mucosa e parte da cápsula e do conteúdo da lesão.

Como etapa do procedimento de diagnóstico, foi inicialmente realizada punção do conteúdo cístico da lesão (líquido amarelo âmbar) e, a seguir, deu-se o procedimento para a remoção do espécime para análise.

O espaço criado pela remoção da amostra foi aproveitado como janela para empregar a técnica de marsupialização e, por conseguinte, a descompressão, seguindo o método descrito por Yokobayashi et al.¹⁶

O material foi acondicionado em solução de formol a 10% e encaminhado para análise de acordo com os parâmetros a seguir: dois fragmentos de tecidos moles, sendo o maior, de coloração esbranquiçada, de consistência firme, superfície regular, resistente ao corte e o menor de coloração escura, contorno irregular.

Segundo a descrição do laudo microscópico (Figura 1), as amostras são constituídas por tecido conjuntivo que exibe no seu interior intensa proliferação epitelial arranjada em cordões que se anastomosam, formados por células epiteliais com a membrana basal constituídas por células alongadas ou cúbicas, por vezes com vacúolos semelhantes aos

ameloblastos, com diagnóstico de ameloblastoma plexiforme, tal como em Neville et al.¹, tanto em descrição histológica quanto em achado radiográfico.

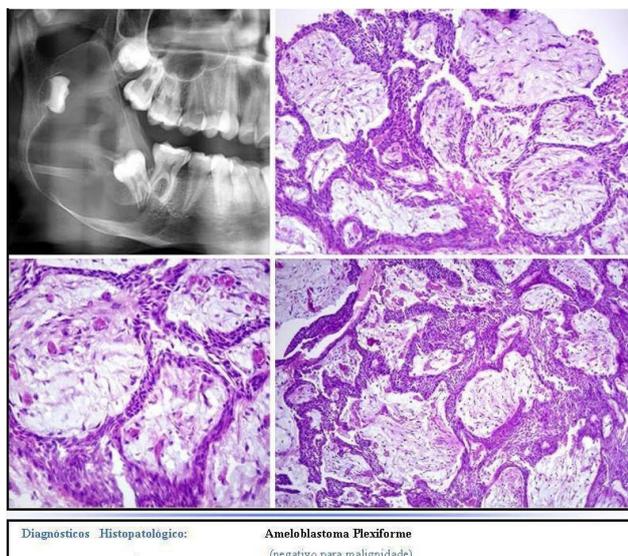


Figura 1 - Laudo histológico e radiografia inicial.

Com diagnóstico estabelecido, a técnica adotada para o tratamento foi no sentido de ser o mais conservador possível devido à idade da paciente, condições econômico-financeiras, o que inviabilizou a ressecção e a confecção de prótese customizada, e também pela condição de fragilidade óssea da região da base da mandíbula severamente comprometida pela expansão do tumor, a qual poderia sofrer fratura patológica.

Com o objetivo de prevenir o fechamento prematuro da janela criada para marsupialização visando a descompressão, utilizou-se um dispositivo de silicone, o qual foi suturado às margens da mucosa com o plugue que se inseria na cavidade cística para manter comunicação entre essa e a cavidade oral. A paciente foi orientada a irrigar o dispositivo com clorexidina 0,12% duas vezes ao dia. Depois desse procedimento, a mesma compareceu regularmente para realizar o acompanhamento clínico e imageológico por meio de tomografia computadorizada (Figura 2).



Figura 2 - Exames de imagem. Legenda: A, controle após 9 meses; B, controle após 14 meses.

Após o período de descompressão uma cirurgia para remoção da massa tumoral e da cápsula

foi realizada e a paciente será acompanhada para verificar a formação óssea e também a possibilidade de recidivas.

DISCUSSÃO

De acordo com a literatura consultada, o ameloblastoma unicístico é uma patologia que se difere das demais pois pode ser tratado de forma menos invasiva, conforme os métodos que vêm sendo empregados a partir de Robinson e Martinez⁶ que, inicialmente, utilizaram técnicas de enucleação e curetagem em ameloblastomas com aparência radiográfica de cisto dentífero e observaram índices de 25% de recidiva, sem empregar técnicas de descompressão prévia, diferentemente de Yokobayachi et al.¹⁶ que relataram o uso de marsupialização com fins diagnósticos e também como terapia prévia à enucleações, em casos seletos de ameloblastomas, assemelhando aos estudos de Gardner¹⁸, realizados em 28 pacientes tratados com enucleação e curetagem aonde obtiveram taxa de 10% de recidiva em ameloblastomas unicístico da variante histológica plexiforme, contrariando dados da época que relatam taxas de 60% a 80% de casos de recidiva.

Ainda Nakamura et al.¹⁰, descreveram os tipos de ameloblastomas como invasivos ou expansivos e diferenciaram os tipos citológicos, obtendo resultados satisfatórios quando a técnica de marsupialização empregada de forma correta, e Nakamura et al.¹⁷ obtiveram índice de 33,3% de recidiva em casos tratados com marsupialização ou apenas enucleação e curetagem. Em uma revisão sistemática de casos Lau e Samman¹⁸ chegaram à conclusão de que a técnica de marsupialização empregada com uma cirurgia em segundo tempo, obteveram uma taxa de 18% de recidiva, além de empregarem uma técnica menos agressiva nesta cirurgia em segundo tempo pela diminuição da área do tumor. No caso em estudo, optamos pela técnica de marsupialização e descompressão no intuito de também evitar um método mais radical tal como a ressecção da mandíbula, tendo em vista a idade da paciente, e também promover maior resistência óssea tanto para evitar possível fratura patológica ou iatrogênica e em época futura realizar o tratamento definitivo, minimizando assim, as possibilidades de recidivas.

Segundo Meshram et al.⁹ entre os métodos de tratamento conservador mais indicados e empregados entre os anos de 2010 e 2015, a

enucleação foi mais comum com 66,71% dos casos e a marsupialização seguida de enucleação, sendo que a segunda foi mais usada com 10,8% em amostra de 74 casos. Os autores ainda afirmam que o método de tratamento para ameloblastomas unicístico deve ser adotado em crianças e adolescentes em fase de crescimento deve ser a marsupialização seguida de enucleação. Estes princípios foram também empregados neste caso por se tratar de uma adolescente que ainda não finalizou suas etapas de crescimento e desenvolvimento, embora a literatura relate que o tratamento conservador do ameloblastoma unicístico pode apresentar um índice de recidiva entre 10% a 25% sendo esta, uma alternativa concreta para o tratamento desse tumor.^{12, 19}

Os dados confirmam que o exame histológico é essencial para determinar o diagnóstico de forma abrangente e também necessário para detectar os tipos de crescimento e padrão citológico envolvido para que possa ser traçado um protocolo de tratamento concreto baseado em evidências científicas, pois se as técnicas conservadoras forem indicadas de forma errônea ou indiscriminada, o tumor poderá se disseminar ainda mais entre os tecidos adjacentes, tornando o tratamento mais complexo até mesmo se forem empregadas técnicas de ressecções ósseas radicais, pois as células afetadas da primeira tentativa de tratamento se disseminam através do osso esponjoso^{3, 17}. No caso ora descrito, os dados histopatológicos foram decisivos para direcionar as formas de tratamento, estando em consonância com a maioria dos autores no que se refere aos ameloblastomas unicísticos.

O tratamento conservador realizado por meio do esvaziamento inicial da cavidade cística com técnica de marsupialização ou descompressão, tem a vantagem de evitar a morbidade ao paciente, que seria causada por um estresse cirúrgico de uma ampla cirurgia de ressecção óssea que geraria um período de convalescência, além dos danos estéticos e funcionais ao paciente com um agravante em pacientes jovens que sofreriam com a descontinuidade do crescimento ósseo normal gerando assimetria patológica da face.²⁰ O caso clínico em questão está em consonância com a literatura consultada no que tange aos objetivos do tratamento conservador que visou ainda evitar danos psicológicos em uma paciente adolescente.

O paciente que for submetido a esse tipo de tratamento menos invasivo deverá ser acompanhado pela possível ocorrência de recidiva da patologia,

como acontece com o ameloblastoma unicístico no qual o indivíduo deverá ser acompanhado por um longo período de tempo. Estudos relatam tempos de 5 a 10 anos de acompanhamento, apesar de que em pacientes que apresentaram recidivas foram notados sinais a partir de 2 anos pós enucleação⁹. Isto também está de acordo com a literatura referenciada neste trabalho tal como o de Isolanet al.¹⁹No sentido de minimizar a possibilidade de recidiva no caso em questão, foram propostos a exodontia dos elementos 38 e 47 que estão estritamente envolvidos com a lesão tumoral, já que há evidências de tecido ósseo neoformado, o que garante em tese, maior resistência óssea, o que previne uma fratura iatrogênica e que possibilita a remoção do conteúdo residual da lesão.

CONSIDERAÇÕES FINAIS

Conforme descrito, o ameloblastoma deve ser diagnosticado e tratado de forma precoce, por causar expansões ósseas que comprometem a estética e a função, embora o diagnóstico na fase inicial seja difícil de se estabelecer pois são nesse período, assintomáticos. O tipo de tratamentodepende do tipo histológico de tumor e da extensão da lesão conforme o grau de envolvimento das estruturas, ainda que a literatura enfatize que em adultos, o tratamento conservador não apresenta o mesmo índice de sucesso.O tratamento conservador pode surtir efeito tal como nesse caso em que se evidenciou a regressão do tamanho do tumor e a neoformação de estruturas ósseas antes acometidas pela patologia.O estabelecimento do diagnóstico é fundamental para a elucidação do padrão histológico e radiográfico, o que sedimenta a teoria de que em casos específicos pode-se limitar os danos que seriam causados em tratamentos radicais principalmente em pacientes jovens em fase de crescimento.

REFERÊNCIAS

1. NEVILLE, B.W.; DAMM, D.D.; ALLEN, C.M.; BOUQUOT, J.E. Patologia Oral e Maxilofacial. Trad.3a Ed., Rio de Janeiro: Elsevier, 2009.
2. SADDY, Mario Sergio et al. Aspectos clínicos, radiográficos e terapêuticos do ameloblastoma. RPG Rev Pós Grad, v. 12, n. 4, p. 460-5, 2005.

3. GHANDHI, Dinaz et al. Ameloblastoma: a surgeon's dilemma. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, v. 64, n. 7, p. 1010-1014, 2006.
4. KALASKAR, Ritesh et al. Conservative management of unicystic ameloblastoma in a young child: Report of two cases. *Contemporary clinical dentistry*, v. 2, n. 4, p. 359, 2011.
5. SOUZA TOLENTINO, Elen. Nova classificação da OMS para tumores odontogênicos: o que mudou? *Revista da Faculdade de Odontologia-UPF*, v. 23, n. 1, 2018.
6. ROBINSON, Leonard; MARTINEZ, Mario G. Unicystic ameloblastoma. A prognostically distinct entity. *Cancer*, v. 40, n. 5, p. 2278-2285, 1977.
7. OLIVATI, Fabrício Narciso et al. Tratamento conservador e preservação de oito meses de Ameloblastoma de mandíbula: Relato de Caso. *Odonto*, v. 19, n. 38, p. 61-69, 2010.
8. GARDNER, David G.; CORIO, Russell L. Plexiform unicystic ameloblastoma: A variant of ameloblastoma with a low recurrence rate after enucleation. *Cancer*, v. 53, n. 8, p. 1730-1735, 1984.
9. MESHARAM, Mitsu et al. Conservative management of unicystic ameloblastoma in young patients: a prospective single-center trial and review of literature. *Journal of maxillofacial and oral surgery*, v. 16, n. 3, p. 333-341, 2016.
10. NAKAMURA, Norifumi et al. Marsupialization of cystic ameloblastoma: a clinical and histopathologic study of the growth characteristics before and after marsupialization. *Journal of oral and maxillofacial surgery*, v. 53, n. 7, p. 748-754, 1995.
11. ACKERMANN, G. L.; ALTINI, M.; SHEAR, M. The unicystic ameloblastoma: a clinicopathological study of 57 cases. *Journal of Oral Pathology & Medicine*, v. 17, n. 9-10, p. 541-546, 1988.
12. KIM, Se-Won et al. Conservative surgical treatment for ameloblastoma: a report of three cases. *Journal of the Korean Association of Oral and Maxillofacial Surgeons*, v. 44, n. 5, p. 242-247, 2018.
13. LAUREANO FILHO, J. R.; CAMARGO, I. B. O uso de descompressão no tratamento de ameloblastoma cístico—relato de caso. *Rev de Cir e Traumatol Buco-Maxilo-Facial*, v. 3, n. 2, p. 9-15, 2003.
14. OLIVEIRA JÚNIOR, Hélio Chagas Chaves de et al. Descompressão cirúrgica no tratamento de lesões císticas da cavidade oral: Surgical decompression in the treatment of cystic lesions of the oral cavity. *Revista de Cirurgia e Traumatologia Bucodental*, v. 14, n. 1, p. 15-20, 2014.
15. HUPP, James R.; TUCKER, Myron R.; ELLIS, Edward. *Cirurgia oral e Maxilofacial contemporânea*. 6. ed. Rio de Janeiro: Elsevier, 2015.
16. YOKOBAYASHI, Yasuo et al. Marsupialization as a possible diagnostic aid in cystic ameloblastoma: Case report. *Journal of maxillofacial surgery*, v. 11, p. 137141, 1983.
17. NAKAMURA, Norifumi et al. Comparison of long-term results between different approaches to ameloblastoma. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontology*, v. 93, n. 1, p. 13-20, 2002.
18. LAU, S. L.; SAMMAN, N. Recurrence related to treatment modalities of unicystic ameloblastoma: a systematic review. *International journal of oral and maxillofacial surgery*, v. 35, n. 8, p. 681-690, 2006.
19. ISOLAN, Cristina-Pereira et al. Successful conservative treatment of a mandibular unicystic ameloblastoma: 13-year follow-up. *Journal of clinical and experimental dentistry*, v. 10, n. 11, p. e1123, 2018.
20. SCARIOT, Rafaela et al. Conservative treatment of ameloblastoma in child: a case report. *Stomatologija*, v. 14, n. 1, p. 33-36, 2012.