

Potencial de recidiva do ameloblastoma: relato de caso

Potential recurrence of ameloblastoma: a case report

Leonardo Costa de Almeida Paiva^I
Marconi Eduardo Souza Maciel Santos^{II}
Daniela Nascimento Silva^{III}
Cláiton Heitz^{III}
Manoel Sant'Ana Filho^{III}

Recebido em 14/01/2009
Aprovado em 18/03/2009

RESUMO

Os tumores odontogênicos são lesões complexas, que se originam do epitélio, mesênquima ou ambos, que também fazem parte do mecanismo biológico de formação dos dentes e estruturas peri-orais. Dessa forma, pode-se classificar o ameloblastoma como um tumor de origem odontogênica epitelial, que classicamente se apresenta com crescimento lento, infiltrativo e expansivo, com capacidade localmente invasiva - inclusive para os tecidos moles. Relata-se um caso clínico, de ameloblastoma, que recidivou quatro vezes em um período de 30 anos. Objetivamos demonstrar o potencial de recidiva do ameloblastoma frente a diferentes tipos de tratamento, ressaltando-se a importância das características morfológicas desse tumor para um correto diagnóstico e plano de tratamento.

Descritores: Ameloblastoma. Tumores Odontogênicos. Recidiva.

ABSTRACT

Odontogenic tumors are complex lesions originating in the epithelium, mesenchyme or both, which are also part of the biological mechanism of the formation of teeth and perioral structures. Ameloblastoma can thus be classified as a tumor of epithelial odontogenic origin that classically presents a slow, infiltrative and expansive pattern of growth, with a locally aggressive capacity, even for the soft tissues. A clinical case of ameloblastoma is reported that relapsed four times over a period of 30 years. The authors' intention is to demonstrate the potential of ameloblastoma to relapse in the face to different forms of treatment, emphasizing the importance of the morphological characteristics of this tumor for a correct diagnosis and plan of treatment.

Keywords: Ameloblastoma. Odontogenic Tumors. Recurrence.

INTRODUÇÃO

Os tumores odontogênicos são lesões complexas que se originam do epitélio, mesênquima ou ambos, que também fazem parte do mecanismo biológico de formação dos dentes e estruturas peri-orais. Há uma íntima relação entre a origem e o comportamento

biológico de um tumor e a embriogênese dentária, fato que segundo Clausen, Philipsen e Pindborg, em 1961, levou a afirmarem que "a maioria dos neoplasmas odontogênicos imitam algum estágio do desenvolvimento dos dentes (...)"².

Procurando explicar a participação de restos epi-

^I Residente em CTBMF do Hospital Regional do Agreste (HRA) – Caruaru/PE.

^{II} Especialista e Mestre em CTBMF pela PUCRS e doutorando em CTBMF pela FOP/UPE. Professor Assistente da ASCES.

^{III} Professores do Programa de Pós-Graduação em Odontologia da PUCRS, área de concentração em CTBMF.

teliais na gênese de certos neoplasmas, admite-se que as células conservam em estado de latência toda sua potencialidade tecidual e que são capazes de originar um tumor quando passam, por fatores desconhecidos, deste estado de latência para uma atividade proliferativa, semelhante à que apresentavam na época de formação da lâmina dentária e órgão do esmalte. As células dos tumores odontogênicos, portanto, mimetizam as células de uma fase da embriogênese dentária.

A agressividade do tumor dependerá da fase embriogênica em que estiver a célula copiada; células semelhantes àquelas das fases mais iniciais da embriogênese resultarão em um tumor mais agressivo, pois existe uma menor diferenciação celular. Um bom exemplo é o ameloblastoma, cujas células são semelhantes às células de uma fase inicial da embriogênese, o que torna este tumor localmente agressivo e invasivo, indicando uma terapia cirúrgica com margem de segurança a fim de evitar recidivas locais.

Dessa forma, pode-se classificar o ameloblastoma como um tumor de origem odontogênica epitelial, que classicamente apresenta-se com crescimento lento, infiltrativo e expansivo, com capacidade localmente invasiva - inclusive para tecidos moles³⁻⁶ que o torna agressivo e de alto potencial de recidiva⁷. Seu acometimento mais frequente ocorre em pacientes de meia-idade, na quarta década de vida e na mandíbula (75-80%), especialmente nas regiões de ângulo e ramo, enquanto apenas 15-20% são observados na maxila⁸. Os aspectos clínico-radiográficos ainda permitem classificar este tumor em multicístico/sólido, o unicístico e o extraósseo/periférico⁶. Além das formas benignas dos ameloblastomas, encontram-se as variantes malignas. Trata-se de entidades raras e com poucos casos relatados na literatura^{8,9}. De acordo com a origem embriológica e as características peculiares, é geralmente aceito que o tratamento cirúrgico deva ser a terapia primária

para os ameloblastomas¹⁰. Por apresentar comportamento agressivo, necessita-se de tratamento com margem de segurança, que poderá ser obtida por meio de ressecção parcial (envolvendo toda a espessura óssea) ou ressecção marginal (sem perda da continuidade do osso) com tratamento do leito com substâncias químicas (solução de Carnoy), físicas (ostectomia) ou térmicas (crioterapia)^{11,12}. A escolha do método terapêutico dependerá das características da lesão durante a realização do diagnóstico. Quando identificado em uma fase inicial (pouca destruição óssea), haverá possibilidade de uma ressecção marginal, com preservação da continuidade óssea, porém com tratamento químico ou crioterápico do leito cirúrgico.

O presente trabalho visa demonstrar o potencial de recidiva do ameloblastoma frente a diferentes tipos de tratamento, ressaltando a importância das características morfológicas desse tumor para um correto diagnóstico e plano de tratamento.

RELATO DE CASO

Paciente de 70 anos e do sexo feminino foi, durante muitos anos, paciente do ambulatório de cirurgia da Faculdade de Odontologia da PUCRS. Sua história teve início no ano de 1978, quando foi identificada pelo serviço de triagem uma lesão radiolúcida, envolvendo a região de corpo mandibular direito, causando aumento de volume e expansão das raízes dos dentes pré-molares inferiores (Figura 1). O diagnóstico clínico inicial fora de uma lesão cística de origem odontogênica com característica não-inflamatória, já que os dentes tinham vitalidade pulpar. A primeira cirurgia foi de enucleação cística simples, sem margem de segurança ou curetagem agressiva. O espécime cirúrgico revelou, ao exame anátomo-patológico (AP), se tratar de um tumor do tipo ameloblastoma.



Figura 1 - Aspecto radiográfico inicial 08.11.78.

Por se tratar de um tumor agressivo e com alta taxa de recidiva, proservou-se o caso com acompanhamentos clínicos e radiográficos frequentes. A primeira recidiva ocorreu 17 anos após a primeira intervenção, e, nesse momento, a lesão apresentava-se com aspecto radiolúcido multilocular, bem circunscrito e delimitado, envolvendo a mesma área anterior (Figura 2). Com o diagnóstico AP da biópsia anterior, decidiu-se intervir com uma curetagem agressiva, e, nessa segunda intervenção, a paciente ainda perderia o dente 45 como medida de segurança, haja vista a possibilidade de presença de células tumorais no ligamento periodontal. Ao exame AP desse novo espécime, confirmou-se o mesmo diagnóstico de ameloblastoma.

O caso fora novamente proservado (Figura 2) com acompanhamentos frequentes e tomadas radiográficas de controle, mas, em 1999, um novo sinal de recidiva fora notado. Uma imagem radiolúcida bem delimitada e circunscrita, com limites definidos e na mesma localização das lesões anteriores, sugeria a segunda recidiva (Figura 3). Um novo procedimento fora proposto, e, dessa vez, a enucleação foi escolhida por se tratar de uma lesão de tamanho menor, e uma abordagem mais conservadora seria o mais indicado para a paciente. Entretanto, como se tratava da segunda recidiva, o uso de crioterapia seria concomitantemente utilizado como margem cirúrgica térmica.

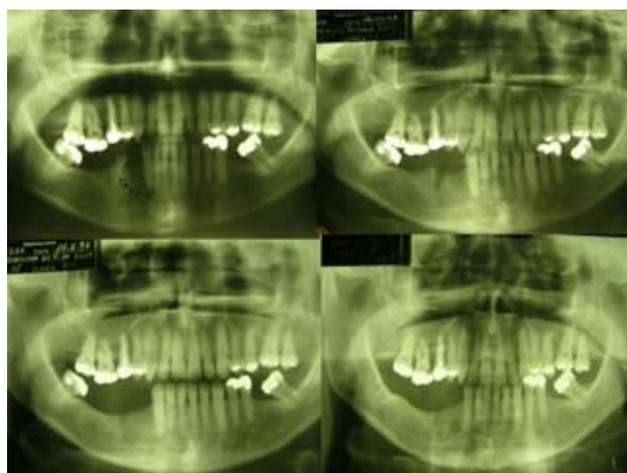


Figura 2 – **A)** Primeira recorrência 05.09.95; **B)** Proservação 27.09.95; **C)** Proservação 14.06.96; **D)** Proservação 04.08.97.

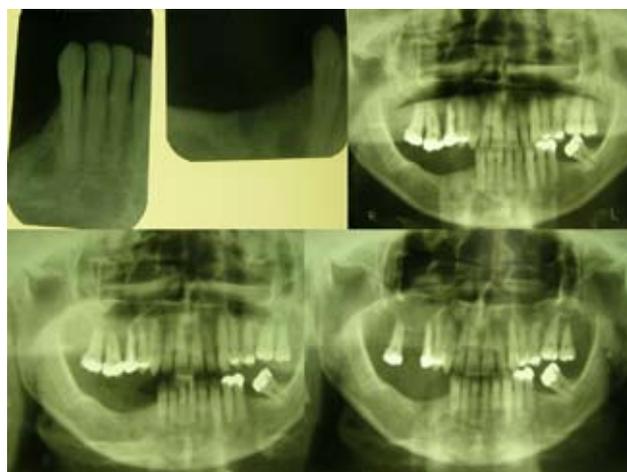


Figura 3 – **A)** Segunda recorrência 20.10.99; **B)** Proservação 03.05.00; **C)** Proservação 07.03.01; **D)** Proservação 05.06.02.

Novamente o caso fora proservado (Figura 3) com acompanhamentos rigorosos, até que, 6 anos depois da terceira intervenção, um novo indício de lesão reapareceu. Dessa vez, uma lesão de tamanho bem menor e com característica muito similar a um cisto era vista próxima à raiz do canino inferior direito, junto à crista óssea alveolar (Figura 4). Uma biópsia incisional local fora planejada para a confirmação diagnóstica, já que uma vez confirmada a recidiva do tumor, um tratamento radical seria instituído (Figura 4). Novo exame AP revelou a presença do ameloblastoma. Diante dessa terceira recidiva, optou-se pela ressecção em bloco (Figura 5) com margem de segurança tanto cirúrgica (envolvendo os dentes canino

e incisivo lateral inferiores direito e aproximadamente 1 cm de margem óssea) quanto térmica (crioterapia).



Figura 4 – A e B) Novo sinal radiográfico de recorrência 02.08.05; **C e D)** Biópsia incisional para confirmação diagnóstica.



Figura 5 – A e B) Ressecção em bloco com margem de segurança e aplicação de crioterapia; **C)** Aspecto clínico do leito cirúrgico; **D)** Aspecto clínico do espécime.

O caso fora novamente preservado por mais alguns anos e no momento em que se planejava uma reabilitação com enxertos e próteses implantossuportadas, a paciente relatou desconforto na região operada e aumento de volume local. À palpação, havia um discreto aumento de volume nodular, móvel e localizado na mesma área das lesões anteriores. Uma nova biópsia excisional local fora realizada para investigação AP, pois, ao exame clínico, tal característica assemelhava-se a um fenômeno de retenção de muco devido aos

múltiplos traumas na região. O resultado do exame AP surpreendeu por se tratar da quarta recidiva do ameloblastoma, desta vez, em tecidos moles.

DISCUSSÃO

O ameloblastoma é um tumor, que mimetiza células das fases mais iniciais da embriogênese dentária e, portanto, apresenta características de agressividade local. Embora haja diversas formas terapêuticas descritas na literatura, o tratamento de escolha deve considerar várias características, como o tamanho da lesão, localização, tipo histológico, aspectos clínicos do paciente, e principalmente, no comportamento biológico deste tumor^{3,11,12}. Corroborando isso, alguns autores acreditam que os casos de recidivas de ameloblastomas, mesmo após sua remoção, estão relacionados, a uma inadequada excisão e à infiltração de células do tumor no osso adjacente e nos tecidos moles¹³. Acreditamos que nos casos de ameloblastomas, uma primeira intervenção bem conduzida, mesmo que mais radical, torna-se mais importante para o prognóstico do caso do que uma muito conservadora, pois, a partir da primeira recidiva, há perda de limites e referências anatômicas e conseqüente contaminação de áreas adjacentes por células tumorais.

De fato, há duas formas clássicas de se tratar um ameloblastoma: tratamento conservador e tratamento radical. A modalidade conservadora inclui a enucleação, enucleação seguida de curetagem - enquanto que as formas radicais envolvem tratamento com margem de segurança, que poderá ser obtida por meio de ressecção parcial (envolvendo toda a espessura óssea) ou ressecção marginal (sem perda da continuidade do osso) com tratamento do leito com substâncias químicas (solução de Carnoy), físicas (ostectomia) ou térmicas (crioterapia)^{11,12}.

Enquanto os tratamentos conservadores podem apresentar-se como formas menos mórbidas para os pacientes, há os inconvenientes riscos de recidivas com

taxas bem variadas^{12,14}. Já os tratamentos radicais apresentam taxas de recidivas baixas e constituem na grande maioria dos casos, no tratamento definitivo, podendo, entretanto, acarretar problemas estético-funcionais além de altos custos e múltiplas cirurgias com finalidades reconstrutivas^{12,15,16}. Ainda em relação às taxas de recidivas, o tipo histológico do tumor pode influenciar na escolha do tratamento mais apropriado. O estudo de Huang et al.¹⁷, por exemplo, demonstra que para a modalidade terapêutica conservadora (enucleação com ostectomia periférica ou descompressão seguida de enucleação mais ostectomia periférica), o tipo histológico unicístico apresentou uma taxa de recidiva de 20%, comparado com 60% para aqueles tumores multicísticos ou multiloculares. Também utilizando tratamentos conservadores, Nakamura et al.¹⁴ demonstraram taxas de recidivas de aproximadamente 33% para tumores de ambos os tipos histológicos.

Independente do tipo histológico, os tratamentos mais radicais e com margens de segurança apresentam menores taxas de recidivas. No estudo de Vayvada et al.¹⁵, o tratamento de onze grandes ameloblastomas através de ressecção com margens de segurança de aproximadamente 1 cm e reconstrução imediata através de enxertos livres não mostrou nenhuma recidiva no período de preservação de dois anos. Hong et al.¹², analisaram 57 recorrências de ameloblastomas; em uma amostra de 174 casos, obtiveram uma recorrência de 4,5% nos pacientes tratados através de ressecção segmentar ou maxilectomia, 11,6% por ressecção marginal, e 29,3% através de tratamento conservador. Sammartino et al.¹⁶ relataram que dos quinze pacientes tratados inicialmente com uma terapia conservadora, sete tiveram recorrências, e estas foram posteriormente tratadas radicalmente através de ressecções marginais ou segmentares com nenhuma recorrência durante o período de preservação.

Variações nas técnicas de tratamentos dos ameloblastomas são observadas em virtude do melhor bene-

fício para os pacientes. Dessa forma, uma abordagem inicial conservadora, seguida de um tratamento mais radical após a descompressão ou recidiva em tamanho menor, é bem descrita na literatura. Protocolos como esse são preconizados especialmente para casos de ameloblastomas em crianças, adolescentes e adultos jovens em que a cirurgia definitiva é realizada entre 6 meses a 1 ano após a cirurgia conservadora¹⁸.

Outras formas de tratamento dos ameloblastomas envolvem cirurgias conservadoras de remoção tumoral com adicional aplicação de agentes esclerosantes que funcionariam como uma margem química ou térmica de segurança. Com essa finalidade, tanto a solução de Carnoy quanto a crioterapia com nitrogênio líquido podem eliminar possíveis restos celulares infiltrados nos tecidos ósseo e/ou moles em até 1,5 mm a 2 mm de profundidade, e com isso eliminariam os cistos "satélites", prevenindo a recorrência da neoplasia¹⁹.

Fica evidente que muitas variáveis estão envolvidas na escolha do tratamento ideal para os ameloblastomas e, portanto, haja tantas controvérsias e resultados conflitantes. O caso relatado demonstra o potencial de recidiva dos ameloblastomas frente às diferentes formas de tratamento e em períodos de tempo variados. Esse fato é bastante comum para tumores com esse comportamento biológico, especialmente nos casos em que o tratamento inicial fora realizado conservadoramente e sem agentes esclerosantes, como demonstrado anteriormente. Após o diagnóstico inicial, houve a preocupação de se manter um acompanhamento periódico rigoroso e por tempo indeterminado, haja vista que as possíveis recidivas poderiam ocorrer num período de até cinco anos após a cirurgia inicial¹⁶. Como o quadro clínico era assintomático, se os acompanhamentos não tivessem sido persistentes, não se detectaria a primeira recidiva 17 anos após, em tomadas radiográficas de controle. A partir da primeira e segunda recidivas que foram diagnosticadas precocemente e com lesões pequenas e circunscritas, optou-se por tratamentos mais conservadores a fim de

se evitarem ressecções extensas e morbidade acentuada. Este tipo de conduta é defendido por alguns autores consagrados^{14,18} assim como as formas de tratamento de enucleação com curetagem agressiva ou enucleação com crioterapia^{14,19}. A partir da terceira recidiva, optou-se por realizar um tratamento mais agressivo com ressecção em bloco seguida de crioterapia, entretanto mais uma vez houve recidiva e em tecidos moles. O potencial de recidiva deste tumor está diretamente ligado ao comportamento biológico que se caracteriza por infiltração local, inclusive em tecidos moles. Segundo Chen et al.¹³, boa parte das recidivas, inclusive em enxertos ósseos para reconstrução após ressecção óssea, está relacionada a células presentes em tecidos moles, como periósteo, músculos, ligamentos, que, em geral, estão fora do total controle do profissional no momento do tratamento.

CONSIDERAÇÕES FINAIS

A partir do conhecimento das características biológicas dos ameloblastomas, fica evidente que este tumor apresenta um alto potencial de recidivas frente a diversos tipos de tratamentos e em períodos de tempos não determinados. Apenas um diagnóstico precoce e um plano de tratamento inicial bem conduzido podem suprimir ou minimizar os riscos de recidivas. Dessa forma, a primeira intervenção torna-se talvez a mais importante, uma vez que haja a primeira recidiva, perdem-se referências anatômicas, aumenta a contaminação de áreas adjacentes e multiplicam-se as chances de novos tumores locais. De qualquer forma, seja o tratamento radical ou conservador, casos de ameloblastoma precisam ser acompanhados por muitos anos em consultas de controle, a fim de garantir um bom prognóstico aos pacientes.

REFERÊNCIAS

1. Clausen F, Philipsen HP, Pindborg JJ. Comparative histochemical investigations of ameloblastomas and enamel organs. *Acta Pathol Microbiol Scand Suppl.* 1961 ;51(Suppl 144):109-11.
2. Pindborg JJ, Clausen F. Classification of odontogenic tumors: a suggestion. *Acta Odontol Scand.* 1958;16:293-301.
3. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot HE. *Patologia oral & maxilofacial.* 2 ed. São Paulo: Santos; 2004.
4. Curtis NJ, Zoellner H. Surgical management of an ameloblastoma in soft tissues of the cheek. *Brit J Oral Maxillofac Surg.* 2006;44(6):495-96.
5. Ghandhi D, Ayoub AF, Pogrel MA, MacDonald G, Brocklebank LM, Moos KF. Ameloblastoma: a surgeon's dilemma. *J Oral Maxillofac Surg.* 2006;64(7):1010-14.
6. Gortzak RAT, Latief BS, Lekkas C, Slootweg PJ. Growth characteristics of large mandibular ameloblastomas: report of 5 cases with implications for the approach to surgery. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2006;35(8):691-695.
7. Jing W, Xuan M, Lin Y, Wu L, Liu L, Zheng X, Tang W, Qiao J, Tian W. Odontogenic tumours: a retrospective study of 1642 cases in Chinese population. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2007;36(1):20-25.
8. Zemman W, Feichtinger M, Kowatsch E, Karcher H. Extensive ameloblastoma of the jaws: surgical management and immediate reconstruction using microvascular flaps. *Oral Sur, Oral Med, Oral Pathol, Oral Radiol, Endodont.* 2007;103(2):190-96.
9. Akrish S, Buchner A, Shoshani Y, Vered M, Dayan D. Ameloblastic carcinoma: Report of a new case, literature review, and comparison to ameloblastoma. *J Oral Maxillofac Surg.* 2007;65(4):777-783.
10. Leibovitch I, Schwarcz RM, Modjtahedi S, Franzco DS, Goldberg RA. Orbital invasion by

- recurrent maxillary ameloblastoma. *Ophthalm.* 2006;113(7):12278-30.
11. Sujee C, Soumithran CS, Rajeev S. Infiltration of ameloblastoma into the clearance margin of resected tumor of mandible: a study. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2007;36(11):1034.
 12. Hong J, Yun PY, Chung LH, Myoung H, Suh JD, Seo BM, Lee JH, Choung PH. Long-term follow up on recurrence of 305 ameloblastoma cases. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2007;36(4):283-88.
 13. Chen WL, Song J, Yang ZH, Wang JG, Zhang B. Recurrent ameloblastoma of the anterior skull base: three cases treated by radical resections. *J Cranio-Maxillofac Surg.* 2006;34(7):412-14.
 14. Nakamura N, Higuchi Y, Mitsuyasu T, Sandra F, Ohishi M,. Comparison of long-term results between different approaches to ameloblastoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol End.* 2002;93:13-20.
 15. Vayvada H, Mola F, Menderes A, Yilmaz M. Surgical management of ameloblastoma in the mandible: segmental mandibulectomy and immediate reconstruction with free fibula or deep circumflex iliac artery flap (evaluation of the long-term esthetic and functional results). *J Oral Maxillofac Surg.* 2006;64(10):1532-39.
 16. Sammartino G, Zarrelli C, Urciuolo V, Lauro AE, Lauro F, Santarelli A, Giannone N, Muzio L. Effectiveness of a new decisional algorithm in managing mandibular ameloblastomas: a 10-years experience. *Brit J Oral Maxillofac Surg.* 2007;45(4):306-10.
 17. Huang LY, Lai ST, Chen CH, Chen CM, Wu CW, Shen YH. Surgical management of ameloblastoma in children. *Oral Surg, Oral Med, Oral Pathol, Oral Radiol, Endodont.* 2007;104(4):478-485.
 18. Ko EC, Chang LP, Chang CM, Kao JC, Chen MY, Takato T. Depression and debulking of mandibular ameloblastoma followed by the definitive surgical excision with peripheral ostectomy and chemical cautery with distilled water: a new concept especially for the growing patients. *Int J Oral MaxilloFac Surg.* 2007;36(11):1034-35.
 19. Freitas R. *Tratado de cirurgia bucomaxilofacial.* São Paulo: Santos. 2006

ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA

Av. Pedro Jordão, 1305/701 – Maurício de Nassau

Caruaru/PE – CEP 55014-320

E-mail: marconimaciell@hotmail.com

leonardocap@terra.com.br

