

Journal of Oral Pathology and Medicine.

Revisión de Octubre 2002 a Enero 2003

Autores:

*Concepción Recio Lora
Alumna del Master de Cirugía Bucal de la Universidad de Sevilla*

*Dr. Daniel Torres Lagares
Profesor del Master de Cirugía Bucal de la Universidad de Sevilla
Becario de Docencia e Investigación de la Universidad de Sevilla*

*Dr. José Luis Gutiérrez Pérez
Director del Equipo Docente de Cirugía Bucal de la Universidad de Sevilla
Profesor Titular de Cirugía Bucal de la Universidad de Sevilla
Jefe del Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial del Hospital Universitario
Virgen del Rocío*

*Dr. Pedro Infante Cossío
Profesor Asociado de Cirugía Bucal de la Universidad de Sevilla
Facultativo Especialista del Área del Servicio de Cirugía Oral y
Maxilofacial del Hospital Universitario Virgen del Rocío*

*Dirección de contacto:
Facultad de Odontología de la Universidad de Sevilla
C/ Avicena s/n Sevilla 41009
Tlfn - Fax 954481129*

Journal of Oral Pathology and Medicine. Revisión de Octubre 2002 a Enero 2003.

Recio C, Torres D, Gutiérrez JL, Infante P

Revista Secib On Line 2004; 2: 14-25

ISSN 1697-7181



De entre los números revisados en esta revista hemos seleccionado diez artículos que consideramos los más interesantes. El primero de ellos lleva por título “LA MARSUPIALIZACIÓN INHIBE LA EXPRESIÓN DE LA INTERLEUQUINA-1 α Y LA PROLIFERACIÓN CELULAR EN LOS QUERATOQUISTES ODONTOGÉNICOS” (Marsupialization inhibits interleukin-1 α expression and epithelial cell proliferation in odontogenic keratocysts. - Tomohiro Ninomiya; Yasutaka Kubota; Takehiko Koji; Kanemitsu Shirasuna. J Oral Pathol Med 31: 526-33.)

Los queratoquistes odontogénicos se caracterizan histológicamente por un epitelio escamoso estratificado y queratinizado con una alta actividad proliferativa de las células epiteliales y un crecimiento más agresivo que otros tipos de quistes odontogénicos, junto con una alta tendencia a la recidiva. Se ha detectado que la IL-1 α estimula la proliferación de las células epiteliales, lo cual está directamente relacionado con la agresividad expansiva de los queratoquistes odontogénicos. Además se ha observado inmunohistiquímicamente que la IL-1 α y la IL-6 se expresan en el epitelio de estos quistes, por lo que parece ser que estas citoquinas juegan un papel crucial en su crecimiento dentro de los maxilares.

La marsupialización es una técnica que se recomienda en el tratamiento de los queratoquistes con idea de evitar los grandes defectos que dejaban los tratamientos quirúrgicos radicales. En este trabajo se propugna que la descompresión intraquistica, que se consigue con la marsupialización, afecta a la expresión genética de la IL-1 α y, por tanto, a la proliferación de células epiteliales y al crecimiento de los queratoquistes odontogénicos. Se estudia la expresión de IL-1 α mRNA y la actividad proliferativa de las células epiteliales antes y después de realizar una marsupialización en este tipo de quistes.

Se tomaron 25 queratoquistes odontogénicos (9 hombres y 16 mujeres) y 18 quistes dentígeros (13 hombres y 5 mujeres). Las muestras de tejido se obtuvieron de una primera intervención donde se realizó la marsupialización y una segunda de quistectomía, realizando, para control de la disminución de tamaño, radiografías panorámicas. Estas muestras fueron tratadas para diagnóstico histológico. Se aspiró el fluido quístico de 9 queratoquistes y 16 quistes dentígeros, tomando como control sangre venosa del mismo paciente tomada antes de la cirugía.

Las concentraciones de IL-1 α , IL-6 y TNF- α se midieron con el método ELISA. Las muestras se sometieron a pruebas inmunohistoquímicas, pruebas de ADN, hibridación in situ y los resultados se trataron mediante un análisis estadístico. Los niveles en el fluido intraquistico de IL-1 α eran



significativamente más altos que de IL-6 y TNF- α en los queratoquistes odontogénicos. Estos niveles también eran más altos que en los quistes odontogénicos, mientras que los de IL-6 y TNF- α eran más bajos en los queratoquistes.

La intensidad de la tinción de la IL-1 α en el epitelio disminuyó drásticamente después de la marsupialización. No se detectó señal de IL-1- α mRNA en las células epiteliales después de la marsupialización, así como también se vio que éstas disminuían su capacidad proliferativa.

Este estudio demuestra que en las células epiteliales de los queratoquistes odontogénicos se expresa IL-1- α mRNA así como la proteína y que la descompresión que se consigue mediante la marsupialización reduce tanto esta expresión como la actividad proliferativa de las células epiteliales de una forma proporcional. Es por ello que se sugiere que la IL-1 α juega un papel esencial en la regulación del crecimiento de los queratoquistes en los maxilares.

Un segundo artículo seleccionado trata de la presentación de un caso clínico de esparganosis (“ESPARGANOSIS: UN RARO CASO EN LA CAVIDAD ORAL” Sparganosis: a rare case of the oral cavity. Anak Iamaroon; Kom Sukontason; Kabkaew Sukontason. J Oral Pathol Med 31: 558-60).

Se presenta el caso de una paciente mujer de 21 años, tailandesa, con un nódulo redondeado y móvil de aproximadamente 1 x 1 cm en la mucosa del labio superior izquierdo, de unos 10 años de evolución. El diagnóstico clínico fue de mucocele. El nódulo se extirpó sin complicaciones y se envió a anatomía patológica donde se vieron cavidades con una larva de gusano blanca. Los hallazgos histológicos dieron el diagnóstico de esparganosis. La paciente negó haber comido serpiente cruda, carne de rana o el contacto con algún vertebrado, pero admitía la posibilidad de haber bebido agua contaminada. Después de 3 años de seguimiento no había aparecido recurrencia del cuadro.

La esparganosis es una infección por parásito causada por la larva de Spirometra. Cuando se da en humanos, a éste se le considera un huésped accidental y es endémica en el Este y el Sureste asiático, incluyendo Tailandia. Los modos de transmisión son la ingestión del parásito desde carne de anfibio o reptil o por contacto con carne de algún vertebrado. Como el hombre se encuentra en la cumbre de la cadena alimenticia se le considera un huésped accidental.



En este caso, el modo de transmisión está poco claro, aunque se puede pensar que la paciente se infectara al beber agua contaminada con el parásito, así la larva migró desde el tubo digestivo hasta el labio donde se desarrolló. El diagnóstico clínico es difícil debido a la rareza del cuadro y porque la apariencia puede ser compatible con la de un mucocele. El diagnóstico definitivo debe establecerse con la identificación macroscópica de la larva y con los hallazgos histológicos. El tratamiento de elección es quirúrgico.

En el artículo “TUMOR LIPOMATOSO ATÍPICO DEL LABIO CON ÁREA MIXOIDE PSEUDOLIPOMATOSA, COMPATIBLE CLÍNICAMENTE CON MUCOCELE” (Atypical lipomatous tumor of the lip with pleomorphic lipoma-like myxoid area, clinically simulating mucocele. Hideo Hattori J Oral Pathol Med 31: 561-4.) se presenta el caso de un paciente varón de 81 años que llega al hospital con una masa en labio inferior de 12 mm de diámetro, redondeada y de consistencia dura y que no había crecido en los últimos dos meses. Era sólido, firme, mixomatoso y translúcido con una foco central amarillo.

La lesión era circunscrita y bien encapsulada con un área mixoide y un área lipomatosa correspondiente a la zona central y compuesta por células grasas maduras y abundantes lipoblastos. El área mixoide presentaba un patrón capilar plexiforme y también lipoblastos.

Los tumores lipomatosos, benignos o malignos, pueden aparecer en la cavidad oral, pero su incidencia es rara. Para los autores de este artículo es el primer caso de tumor lipomatoso atípico que encuentran en la superficie del labio. Este tumor puede ser indistinguible de un lipoma pleomórfico, pero en este caso, se distingue por la localización, no típica de lipoma pleomórfico (mejilla o espalda), y por las características que presenta en la porción central.

También hay que hacer un diagnóstico diferencial con el liposarcoma mixoide por el patrón mixomatoso que presenta la lesión, el cual se descarta por el pleomorfismo celular. En un estudio anterior se usa el término lipoma atípico para definir a los tumores lipomatosos superficiales con atipia citológica, incluyéndose en esta categoría tanto el lipoma pleomórfico como el liposarcoma bien diferenciado. En este caso el tumor presentaba histología parecida a la de un lipoma pleomórfico y se diagnosticó como liposarcoma bien diferenciado debido al exceso de adipocitos. El tratamiento es esencialmente quirúrgico, pudiendo asociarse o no a radioterapia.

El cuarto artículo rescatado en nuestra revisión se trata de “HEMANGIOMA PAPILAR ENDOVASCULAR DEL LABIO” (Endovascular papillary



hemangioma of the lip. Fumio Ide; Kaoru Kusama J Oral Pathol Med 31: 565-6). Se presenta el caso de una paciente mujer de 10 años, con un nódulo de 1,5 cm, suave y no doloroso que ocupaba la cara vestibular del labio superior. La lesión tenía una evolución de 2 años y generaba una decoloración púrpura de la mucosa suprayacente. No había historia de trauma. Se extirpó de forma incompleta pero no aparecieron recidivas después de 10 años.

La lesión estaba mal delimitada y compuesta por numerosos espacios vasculares irregulares alineados sobre una capa de endotelio liso. Las venas individuales contenían conglomerados de capilares, que recordaban al glomérulo renal, extendiéndose desde la mucosa superficial hasta la profundidad del músculo. No se observó evidencia histológica de daño tisular, hemorragia o inflamación.

La proliferación intravascular benigna de células endoteliales muestra una fuerte predilección por el labio, incluyéndose la hiperplasia endotelial papilar intravascular, el granuloma piógeno intravenoso y la proliferación vascular intravenosa atípica. El tumor presentado coincide morfológicamente con estas lesiones pero presenta características singulares, como la proliferación en forma de papila, similar al angioendotelioma papilar endovascular.

El patrón glomerular lo hace similar al hemangioma glomerular pero este tumor es una lesión descrita en la enfermedad de Castleman y asociado al síndrome de POEMS. Como el término hemangioendotelioma está restringido a los tumores vasculares con características histológicas y clínicas intermedias entre hemangiomas y angiosarcomas, los autores designan a la lesión del caso como hemangioma papilar endovascular. El tratamiento de elección es quirúrgico.

En el siguiente artículo se presenta una nueva variante del fibroma odontogénico central ("FIBROMA ODONTOGÉNICO CENTRAL AMELOBLASTOMATOIDE: UNA VARIANTE EPITELIAL" (Ameloblastomatoid, central odontogenic fibroma: an epithelium-rich variant - Fumio Ide; Hideaki Sakashita; Kaoru Kusama - J Oral Pathol Med 31: 612-4). Se presentan dos casos de fibroma odontogénico (FO) central en mandíbula de mujeres de edad media y con un complicado diagnóstico microscópico, ya que ambos presentaban características de ameloblastoma.

El primer caso es el de una mujer de 74 años con una lesión de 21x21 mm mixta (zonas radiolúcidas y radiopacas) entre premolares mandibulares derechos. Histológicamente se observaron islotes de epitelio odontogénico activo y fibromatosis. No había matriz mineralizada. En el epitelio se



observaron células periféricas, cuyo núcleo mostraba polaridad contraria y vacuolación apical (característico de ameloblastoma). También se vieron depósitos hialinos en contacto con folículos ameloblásticos.

El segundo caso afectó a una mujer de 41 años con lesión asintomática de 20x15 mm, radiolúcida y firme, en la zona del segundo premolar inferior derecho. Se distinguieron dos tejidos distintos. Una zona periférica con proliferación fibroblástica y con restos de epitelio odontogénico inactivo, y una zona central con islotes epiteliales que aumentaban en número y tamaño. Aquí había grandes folículos ameloblásticos con células claras rodeadas de tejido fibroso maduro.

La presencia de un componente epitelial y mesenquimal es necesaria para el diagnóstico microscópico del FO y en los casos descritos el componente epitelial era muy prominente, lo cual los hacía histológicamente indistinguibles de un ameloblastoma. Se ha aceptado que la proliferación de epitelio odontogénico en el FO, sobre todo en la forma periférica, es tan abundante que la lesión parece ser, primariamente epitelial y no mesenquimal. De hecho, algunos FO periféricos se han descrito como ameloblastomas periféricos.

Uno de los casos se diagnosticó 12 años después de haber realizado una extracción en la misma zona, pero no está claro si el tumor estaba ya presente cuando se extrajo el diente. En otros trabajos se han presentado casos de FO central en áreas donde se realizaron previamente extracciones.

Es probable que los casos que se presentan deban ser considerados como tumores odontogénicos mixtos. Sin embargo, la posibilidad de que puedan interpretarse como un ameloblastoma no debe ser desdeñada.

El dolor facial crónico supone un 40% de todos los dolores crónicos en USA y Europa, siendo los desórdenes temporomandibulares (DTM) la causa más común, con una prevalencia dos veces mayor en mujeres que en hombres. Éste es el tema del artículo "DOLOR FACIAL, DEPRESIÓN Y ESTRÉS: CONEXIONES Y DIRECCIONES" (Facial pain, depression and stress- connections and directions - Ania Korszun. J Oral Pathol Med 31: 615-9).

Está ampliamente aceptado que la etiología y patogénesis de estos DTM es multifactorial y que la depresión y el estrés juegan un papel importante en el dolor facial crónico. DTM, fibromialgia, depresión y estrés; según los autores es posible entender por qué una condición predispone a la otra y así poder tomar la alternativa terapéutica más acertada.



Parece ser que el agente estresante, físico o psíquico, interacciona con los factores predisponentes que presentan algunos individuos para enfermar. Se ha reconocido que eventos estresantes en la vida del paciente preceden a los síntomas de dolor facial crónico y depresión y es evidente que una gran proporción de pacientes crónicos pueden desarrollar una depresión. Existen teorías fisiológicas y biológicas para explicar por qué algunos individuos son más vulnerables que otros, aplicándolas en su tratamiento.

Para entender esta teorías debemos recordar la función del eje hipotalámico-pituitario-adrenal (HPA). El cortisol es el principal glucocorticoide circulante y depende del buen funcionamiento del eje HPA. Como respuesta al estrés se produce una hiperactividad de este eje y una mejora en la habilidad del organismo para sobrevivir bajo condiciones de estrés. Sin embargo, la activación crónica de este sistema puede causar daño. Un exceso en la producción de cortisol contribuye a la pérdida de densidad ósea produciendo osteoporosis y aumenta la susceptibilidad de padecer problemas coronarios en pacientes con depresión. Por tanto, los niveles altos de cortisol, que se dan en la depresión y en el dolor facial, no sólo pueden indicar su etiología, sino que tienen importantes secuelas patológicas.

La depresión es un desorden del sistema nervioso central en el que se da hiperactividad del eje HPA, al igual que ocurre en pacientes con fibromialgia y con dolor facial, siendo aquí donde se dan los niveles más altos de cortisol.

Tanto el dolor facial como la fibromialgia como la depresión son desórdenes con etiología multifactorial, siendo más frecuentes en el sexo femenino. Una experiencia traumática aumenta el riesgo de depresión pero también existe una predisposición genética. Existen estudios que han demostrado que el papel que juega un acontecimiento traumático está condicionado por el control genético. La evidencia sugiere que esos individuos vulnerables con predisposición a sufrir alteraciones en la respuesta al estrés pueden desarrollar en un amplio rango dolor facial y depresión.

Muchos pacientes con dolor facial son tratados con antidepresivos independientemente de que padezcan o no una depresión simultánea. Estos fármacos modulan la actividad del eje HPA y aumentan los receptores de glucocorticoides, aunque el mecanismo para ello se desconoce. Se han usado otras estrategias como el uso de dehidroepiandrosterona (que posee actividad antiglucocorticoide) o inhibidores de la síntesis de cortisol (ketoconazol).

Un procedimiento prometedor es el uso de antagonistas de la hormona productora de corticotropina. También están los antagonistas de los



receptores de cortisol. Seguramente, drogas diseñadas específicamente para modular la actividad del eje HPA serán importantes en el tratamiento de la depresión y, vistos los mecanismos fisiopatológicos, también para el tratamiento del dolor facial.

En el trabajo “REMODELACIÓN DEL HUESO MANDIBULAR POR LA INVASIÓN DEL CARCINOMA DE CÉLULAS ESCAMOSAS GINGIVAL” (Jaw Bone remodeling at the invasion front of gingival squamous cell carcinomas - Masahiro Hito; Naoya Izumi; Jun Cheng; Hideaki Sakai; Susumu Shingaki; Tamio Nakajima; Kimimitsu Oda; Takashi Saku. - J Oral Pathol Med 32: 10-7.) se estudia el estado histopatológico actual de la remodelación del hueso mandibular inducida por la invasión de un carcinoma gingival de células escamosas en secciones de muestras quirúrgicas. Se pretende dilucidar qué condiciones son necesarias para la formación y reabsorción ósea en el proceso de invasión cancerígena.

El nivel de hueso depende de la reabsorción y formación del mismo, regulado por la coordinación de osteoblastos, osteocitos y osteoclastos. El carcinoma gingival de células escamosas es el segundo más frecuente en la cavidad oral y se caracteriza porque invade fácilmente el hueso mandibular siguiendo un modelo de remodelación patológica del hueso poco conocido. Se ha visto que el aspecto mixoide del tejido conectivo es una marca del estroma lo suficientemente fértil como para que varias estirpes celulares participen en esta remodelación. Se cree que el estroma mixoide contiene heparan-sulfato-proteoglicano (HSPG), lo cual puede jugar un papel importante en la inducción de los osteoclastos.

Se tomaron 12 casos de muestras quirúrgicas de carcinoma gingival de células escamosas de pacientes que no habían recibido radioterapia previa a la cirugía. Se usaron anticuerpos (Ac anti HSPG de ratón; Ac anti tenascina humana; Ac contra CD31; Ac contra CD68; Ac de conejo contra la catepsina K de ratón; Ac anti ALPase humana) y se realizaron pruebas de inmunohistoquímica. Posteriormente, se procedió a la evaluación histológica y se obtuvieron los datos estadísticos.

Histopatológicamente, el hueso invadido por el tumor se clasificó en tres tipos: áreas con reabsorción, áreas con nueva formación y superficie de hueso lisa. En el área de reabsorción ósea, los nidos de células tumorales se localizaron dentro de un estroma neoplásico con fibroblastos. El estroma era mixoide con fibras de reticulina y escaso colágeno. Inmunohistoquímicamente, el estroma neoplásico fue difusamente positivo a HSPG y a la tenascina. En el foco carcinomatoso se vieron células mononucleares (macrófagos) positivas a la catepsina K y al CD68. También se



vieron células precursoras de osteoclastos. Como las células tumorales no atacan la superficie ósea directamente, no se observó reabsorción mediada por ellas. No se vieron osteoblastos y sí abundantes capilares sanguíneos cerca de los osteoclastos, además de infiltración de células inflamatorias, principalmente macrófagos.

En el área de formación ósea se vio un estroma mixoide de aspecto similar al de la zona de reabsorción, salvo que no se vieron osteoclastos. Sí se

visualizaron células precursoras de osteoblastos y osteocitos. También había capilares sanguíneos, aunque en menor número y células inflamatorias sin tanta predominancia de macrófagos.

En la zona de hueso liso el estroma neoplásico era más fibroso. No había actividad osteoblástica ni osteoclástica y la actividad de las células inflamatorias estaba disminuída. También había menos capilares.

Ante el objetivo de demostrar que las características del estroma que se da en las zonas de remodelación ósea debida a la invasión por un carcinoma gingival de células escamosas, cosa en la que no se habían detenido en los estudios anteriores sobre el tema, el artículo concluye que existen tres tipos distintos de tejidos: con reabsorción ósea, con formación ósea y hueso liso, cada una con un estroma característico.

Como no hay evidencia de reabsorción directa de hueso por las células tumorales en este estudio, se concluye que éstas sólo inducen la formación de un estroma neoplásico conveniente para que se dé la remodelación ósea. El estroma de la zona de reabsorción y el de la zona de formación de hueso se caracterizan por la retención de sustancia mixoide y poco colágeno pero, en cuanto a componentes vasculares y actividad celular son diferentes.

Según los resultados, los osteoclastos, que son los que juegan el papel fundamental en la invasión carcinomatosa, parecen depender de las características vasculares que se den en el estroma, cosa que no ocurre con los osteoblastos.

Niissalo y cols, en su artículo "SENSACIÓN TÉRMICA Y DOLOROSA EN EL LIQUEN PLANO ORAL Y REACCIONES LIQUENOIDES" (Thermal sensation and pain in oral lichen planus and lichenoid reactions - Sirkku Niissalo; Göran Hampt; Jarkko Hietanen; Maria Malmström; Svetlana Solovieva; Antti Pertovaara; Yrjö T. Konttinen - J Oral Pathol Med 32: 41-5.) afirma que el liquen plano oral (LPO) y las reacciones liquenoides (RL) son desórdenes



inflamatorios crónicos de la mucosa mediados por una etiología autoinmune desconocida con períodos intermitentes de malestar y dolor.

En un estudio previo de los autores se muestran desórdenes topológicos específicos y cambios funcionales en el patrón de inervación y en la expresión de neuropéptidos en el LPO y RL comparándolos con tejidos sanos, particularmente los pacientes con RL presentan una denervación simpática de la mucosa oral. Esto les hace cuestionarse si éstos cambios en la inervación producen alteraciones sensoriales en la mucosa oral. En este estudio se determina el dolor espontáneo y el umbral del dolor para detectar una posible hipersensibilidad de la mucosa afectada por LPO o RL.

Se examinaron 19 pacientes (10 con LPO y 9 con RL relacionada con amalgama) y 15 individuos sanos como grupo control (GC). Los pacientes no presentaban enfermedades sistémicas (salvo un paciente con diabetes tipo II bien controlada) y no recibieron medicación entre las dos investigaciones. No presentaban candidiasis, DTM ni dolor facial. Se realizaron mediciones salivares en todos los pacientes.

La exploración térmica se realizó usando el Termotest Sensorial Cuantitativo (TSC) estimulando con un metal y comparando con la eminencia tenar de la mano derecha. En la primera sesión se determinaron los umbrales de dolor con estimulación cálida, fresca, caliente y fría (mano derecha y mucosa oral afectada bilateralmente) y se realizó una biopsia de la mucosa, y en la segunda, se midió el umbral doloroso al frío y al calor.

El umbral del dolor a la presión se determinó con dos mediciones en la mano derecha y en la mucosa bucal anterior al músculo masetero. El dolor espontáneo se valoró mediante una escala visual analógica (EVA). Se realizó un análisis estadístico.

Los pacientes con LPO tenían más dolor espontáneo que los pacientes con RL. 9 de los pacientes del GC también presentaron dolor. En general, la mucosa oral parecía ser relativamente insensible al calor, tanto en LPO, en RL y en GC, por lo que no se encontraron diferencias significativas. Lo mismo ocurrió con la sensibilidad al frío, pero se dieron umbrales más altos en pacientes que habían desarrollado candidiasis. Tampoco se hallaron diferencias significativas en cuanto al umbral doloroso ante la presión, ni entre los distintos grupos, ni entre las distintas zonas ni en las dos evaluaciones que se hicieron.

Los test cuantitativos de sensibilidad dolorosa en la mucosa oral son un nuevo e interesante procedimiento para el estudio de los desórdenes orales y



el dolor en esta región. Sin embargo, las medidas intraorales son difíciles de valorar por varios factores (saliva, candidiasis). En el presente estudio el síntoma sensorial más pronunciado fue el aumento del dolor espontáneo en pacientes con LPO (no en RL) pero no se observaron cambios significativos en cuanto a la sensibilidad térmica, lo cual contrasta con los efectos de la inflamación cutánea, que siempre produce hiperalgesia. Esto sugiere que pueden darse diferencias en el efecto de la inflamación en la mucosa oral y en la piel y, dentro de la mucosa oral, dependiendo del proceso patológico que se esté produciendo.

El último de los artículos seleccionados se titula “UN CASO DE MÚLTIPLES LESIONES EN EL HUESO DE LOS MAXILARES COMPATIBLES CON TUMOR ODONTOGÉNICO ADENOMATOIDE EN UN PACIENTE JOVEN: ¿UNA NUEVA

ENTIDAD ODONTOGÉNICA?” (A case of multiple AOT-like jawbone lesions in a young patient- a new odontogenic entity? - A. Larsson; K. Swartz; K. Heikinheimo - J Oral Pathol Med 32: 55-62.) A los 10 años de edad, los dientes temporales de la niña del caso que se presenta estaban malformados (pequeño tamaño, ausencia de contactos interproximales y raíces cortas), al igual que los primeros molares permanentes (taurodónticos).

A los 12 años, como hallazgo casual, se le vio una imagen radiolúcida, redondeada y asintomática de 4 cm en el maxilar izquierdo. Se eliminó junto al segundo premolar malformado y al canino deciduo. La lesión se identificó como un tumor odontogénico adenomatoide (TOA). Dentro de la lesión se vio una estructura parecida a un diente cercana al ápice del incisivo lateral permanente sin erupcionar. Después de 9 meses se descubrieron otras imágenes radiolúcidas asociadas a otros dientes, de igual tamaño y forma que la primera. En los 5 años siguientes aparecieron más lesiones en múltiples localizaciones que se intervinieron hasta en 7 ocasiones. Aproximadamente 12 lesiones radiolúcidas y 20 gérmenes dentarios fueron eliminados, todos asociados con lesiones patológicas. La paciente no presentaba ninguna enfermedad sistémica.

Después de un estudio histológico e inmunohistoquímico se obtuvieron los siguientes resultados. Los dientes de la niña del caso problema estaban malformados (cemento anormal o inexistente, coronas atriccionadas, ausencia de LAC) incluso los no erupcionados. La formación radicular era anormal con láminas de tejido parecido a dentina mezclado con epitelio como el del TOA, el cual estaba en íntimo contacto con las raíces malformadas más que con las coronas.



Histológicamente todas las lesiones extirpadas fueron similares. La dentina asociada al epitelio se identificó como displásica. El patrón general era compatible con un TOA pero faltaban algunas características típicas de estos tumores (canales redondeados bien definidos, pequeños elementos quísticos alineados sobre células cuboidales o cilíndricas, patrón cribiforme o calcificaciones distróficas). Las lesiones presentaban una cápsula periférica que facilitaba su extirpación. Inmunohistoquímica-mente también se encontraron diferencias.

La primera lesión descubierta se designó como un probable TOA. Para las demás se consultaron a otros patólogos orales especializados. La mayoría estaba de acuerdo con el diagnóstico de TOA y unos pocos no descartaban la posibilidad de que se tratara de una entidad poco conocida de origen odontogénico. Las lesiones diferían histológica e inmunohistoquímicamente de un TOA clásico, presentado una composición celular menos compleja. Se puede especular que las lesiones puedan haber coincidido con la actividad del epitelio del esmalte y la vaina radicular de Hertwigs interfiriendo en la formación normal del diente. La tinción con p53, ausente en el TOA clásico, es bastante significativa. Se necesitan más casos para aclarar si la propensión a desarrollar lesiones múltiples que expresan un perfil de citoqueratina específico (característica de TOA) puede reflejar un aumento potencial en la proliferación de células dando lugar a tumores con aspecto de TOA o dentinoma adenomatoide.