

# Ameloblastoma Plexiforme em Maxila: Relato de um Caso

Ricardo Wathson Feitosa de Carvalho\*, José Carlos Pereira\*\*,

Edvaldo Dória dos Anjos\*, Artur de Oliveira Ribeiro\*\*\*, Rui Medeiros Júnior\*\*\*\*

**Resumo:** O ameloblastoma é um tumor ósseo benigno bastante estudado na literatura. Sua histogénese ainda é motivo de muita controversa, sendo a maxila uma localização topográfica raramente acometida. Caracteristicamente a evolução desta afecção é lenta, embora o tumor seja localmente invasivo e infiltrativo, com alto potencial de destruição. Ameloblastomas maxilares se comportam mais agressivamente que seus homólogos mandibulares e lesões proliferativas com transformações malignas têm sido documentados. O tratamento é variado, consistindo desde enucleação cirúrgica seguida de curetagem, passando por quimio ou radioterapia, até uma ressecção cirúrgica. Para que este seja bem sucedido, é necessário que se realize um diagnóstico precoce e que se detecte com exactidão os limites do tumor. Desta maneira, o objectivo do presente trabalho é relatar o caso de um ameloblastoma maxilar, com acompanhamento pós-cirúrgico de sete anos, em que alguns parâmetros como o diagnóstico precoce, boa delimitação espacial do tumor, bem como a cooperação do paciente justificaram uma abordagem adequada para a resolução.

**Palavras-Chave:** Ameloblastoma; Maxila; Recidiva

**Abstract:** Ameloblastoma is a benign osseous tumor fairly studied in the literature. The histogenesis is uncertain and upper jaw is an unusual site. The evolution is slow, in contrast with the high destruction's potential and capacity of infiltration. These kinds of ameloblastoma are more aggressive than mandible and malignance lesions are related. The treatment is varied, consisting since enucleation, khymio or radiotherapy, until bone resection. To obtain success, earlier diagnosis is essential. Thus, the aim of this study is explain a case of upper jaw ameloblastoma with a seven years follow-up that some parameters like spatial delimitation, earlier detection and the patient's co-operation, leaded to an appropriate resolution.

**Key-words:** Ameloblastoma; Upper jaw; Recurrence

(Carvalho RWF, Pereira JC, Anjos ED, Ribeiro AO. Ameloblastoma Plexiforme em Maxila: Relato de um Caso. Rev Port Estomatol Cir Maxilofac 2009;50:75-79)

\*Residente em Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial da Faculdade de Odontologia de Pernambuco – FOP/UPE. Recife, Pernambuco, Brasil.

\*\*MsC. Professor da Disciplina Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial da Faculdade de Odontologia da Universidade Tiradentes – UNIT. Aracaju, Sergipe, Brasil.

\*\*\*Graduando em Odontologia pela Universidade Federal de Sergipe – UFS. Aracaju, Sergipe, Brasil.

\*\*\*\*Residente em Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital da Restauração - HR. Recife, Pernambuco, Brasil.

## INTRODUÇÃO

Em se tratando de neoplasias odontogénicas, o ameloblastoma é uma entidade benigna que acomete os ossos do complexo maxilo-mandibular, constituindo o tumor odontogénico de maior significado clínico<sup>(1)</sup>. O termo ameloblastoma foi sugerido por Ivy e Churchill em 1934<sup>(2)</sup>, baseando-se na análise do epitélio odontogénico etiológico<sup>(3)</sup>.

O primeiro caso desta patologia descrito na literatura foi em 1868<sup>(2)</sup>, constituindo aproximadamente 11% dos tumores odontogénicos, sendo que em 80% dos casos o acometimento é

mandibular, mais frequentemente na região de molares e ramo, e em 20%, maxilar<sup>(4)</sup>. Em geral, a idade de aparição se dá pela quarta década de vida, não sendo observada predilecção por raça ou género<sup>(5,6)</sup>.

Sua apresentação clínica é semelhante à da maioria das lesões ósseas centrais: crescimento lento, progressivo, indolor e expansivo, sendo grande parte das vezes surpreendido em radiografias ocasionais de rotina<sup>(7)</sup>. Lesões muito avançadas podem manifestar dor, parestesia ou infecção secundária<sup>(8)</sup>.

Radiograficamente se apresentam radiolúcidos, uniloculares (imagem uniforme, podendo simular um cisto dentífero ou tumor odontogénico ceratinizante) ou multiloculares (aspecto

de favos de mel ou bolhas de sabão), com bordas relativamente bem definidas, provocando com frequência, deslocamento e reabsorção radicular dos dentes envolvidos pela lesão<sup>(1,9)</sup>.

De acordo com a OMS, é classificado como tumor odontogênico benigno sem participação de ectomesênquima odontogênico. Sua histogênese ainda é motivo de muita controversa, podendo estar relacionada à indução da reativação dos restos de Serres, remanescentes do epitélio reduzido do órgão do esmalte, restos epiteliais de Malassez, células do folículo dentário ou células do revestimento epitelial de cistos odontogênicos<sup>(4,5)</sup>, sendo a hipótese mais aceita aquela que aponta a lâmina dentária como provável tecido de origem<sup>(10)</sup>.

Com base nos aspectos histológicos, podem apresentar diversos padrões, tais como: folicular e plexiforme, estes os mais comuns, além de acantomatoso, de células granulares, desmoplásico e de células basais, sendo esses padrões menos frequentes<sup>(11,12)</sup>.

O diagnóstico definitivo indiscutivelmente é realizado através de exame histopatológico, mas os achados clínicos e imagi-nológicos apresentam características importantes para o estreitamento do diagnóstico diferencial<sup>(13,14)</sup>.

Assim, há uma diversidade de tratamentos empregados para o ameloblastoma, podendo ser classificados de forma global em uma abordagem radical ou conservadora. De maneira clássica, os ameloblastomas sólidos (ou multicísticos) são tratados por excisões cirúrgicas radicais, enquanto os unicísticos tendem a responder bem a uma abordagem mais conservadora, através de enucleação<sup>(15)</sup>. Independentemente de qual o tipo histológico ou tratamento instituído, o acompanhamento a longo prazo é indispensável.

Desta maneira, os autores relatam neste trabalho um caso incomum de ameloblastoma localizado na região posterior de maxila, conduzido através de uma abordagem segura e com um acompanhamento pós-cirúrgico de sete anos.

## CASO CLÍNICO

Paciente do gênero masculino, 59 anos, leucoderma, lavrador, procurou o serviço de Cirurgia Bucocomaxilofacial da Clínica Odontológica da Universidade Tiradentes – UNIT, Aracaju-SE, Brasil, queixando-se de aumento de volume tecidual assintomático, sangrante ao uso da prótese total, localizado na maxila direita, com evolução de três meses.

Ao exame físico extra-oral não observou-se sinais de assimetria facial (Figura 1). Intra-oralmente, apresentava lesão tecidual de aspecto fibroso, séssil, superfície lobulada e de consistência flácida à palpação, na região de tuberosidade de maxila direita (Figura 2). As imagens fornecidas pela radiografia pano-

râmica e tomografia computadorizada (TC) de face, demonstraram imagem radiolúcida unilocular circunscrita por um halo radiopaco (Figura 3) e hipoatenuante (Figura 4), respectivamente, limitando-se à região de tuberosidade de maxila direita.

Foi realizada biópsia incisional (Figura 5), sendo o material encaminhado ao Departamento de Histopatologia da Universidade Tiradentes, cujo relatório anatomopatológico revelou ameloblastoma plexiforme (Figura 6).

Como planejamento do tratamento, foi proposto e realizado osteotomia segmentar de tuberosidade de maxila direita com margem de segurança (Figuras 7 e 8) para remoção completa do tumor.

Com sete anos de acompanhamento, não foram observados sinais clínicos e radiográficos de recidiva (Figura 9), estando reabilitado proteticamente, apresentando satisfação funcional e estética.



Figuras 1 - Vista frontal, revelando ausência de assimetria facial

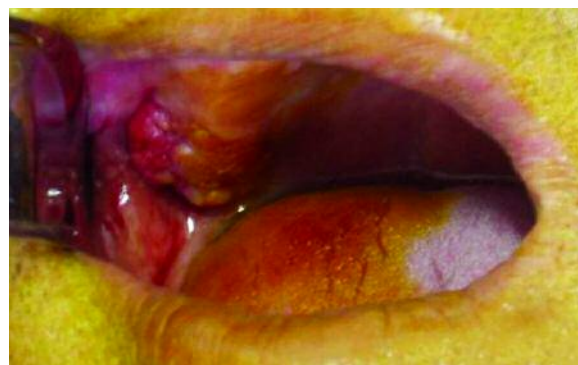


Figura 2 - Lesão tecidual de aspecto fibroso, séssil e superfície lobulada na região de tuberosidade maxilar direita.

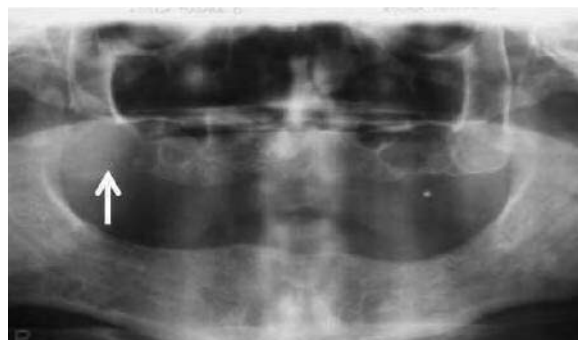


Figura 3 - Exame ortopantomográfico demonstrando imagem radiolúcida unilocular circunscrita por um halo radiopaco em região de tuberosidade maxilar direita.



Figura 4 - TAC em corte axial demonstrando imagem hipotenuante limitando-se à região de tuberosidade de maxila direita.



Figura 5 - Biópsia incisional

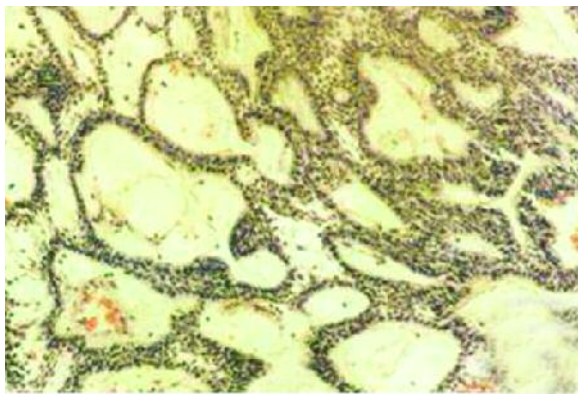


Figura 6 - Ameloblastoma Plexiforme - corte histológico onde se observa proliferação celular em cordões anastomosados delimitando porções de estroma (H/E - 100X).



Figura 7 - Exposição de massa tumoral

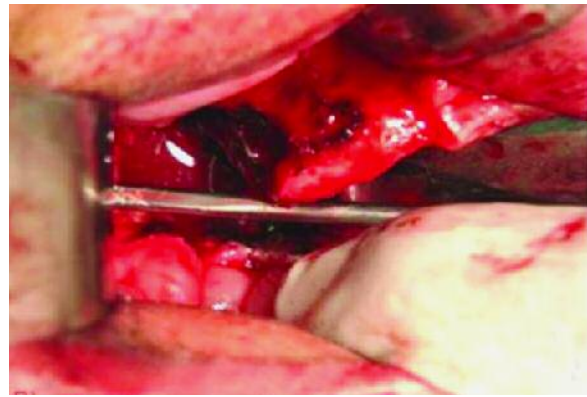


Figura 8 - Osteotomia segmentar de tuberosidade de maxila direita com margem de segurança.

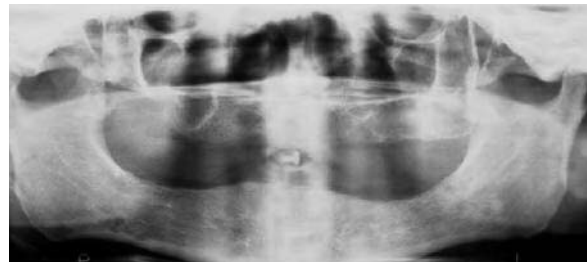


Figura 9 - Follow-up de 7 anos, sem sinais de recidiva

## DISCUSSÃO

O ameloblastoma é um tumor ósseo benigno bastante estudado na literatura, localmente invasivo, que requer, em geral, intervenções terapêuticas agressivas e, muitas vezes, mutilantes.<sup>(1,4)</sup> Apresenta grande variação histopatológica, bem como, em sua expressão clínico-radiográfica. A maxila é raramente acometida, sendo 4 vezes menos afectada que a mandíbula<sup>(16)</sup>.

São reconhecidos três padrões clínico-radiográficos que merecem considerações em virtude do tratamento e prognóstico. Tais situações são: sólido convencional ou multicístico (cerca de 86% dos casos), unicístico (13% dos casos) e periférico (em 1% dos casos)<sup>(5)</sup>.

No caso descrito, os exames imaginológicos da face, demonstraram imagem radiolúcida unilocular, limitando-se à região de tuberosidade de maxila direita. Com base no estudo histopatológico, foi confirmado que a variante unicística da lesão se tratava da forma plexiforme (também enquadrada no tipo unicístico intraluminal), em virtude de os cordões ou placas de epitélio odontogénico anastomosados projectarem-se para o centro da lesão<sup>(1)</sup>.

Apesar de ser um tumor benigno, de crescimento lento, assintomático e de preservar as características morfológicas da mucosa oral, a lesão é bastante agressiva apresentando como

característica peculiar uma expansão precoce da cortical óssea. Em virtude disto, o ameloblastoma maxilar tende a infiltrar áreas adjacentes como órbita, fossa infratemporal e até base de crânio, tornando-se incontrolável e, conseqüentemente, letal<sup>(17)</sup>.

Alguns factores fundamentais devem ser levados em conta na determinação do manejo cirúrgico no tratamento de ameloblastoma unicístico, tais como: o tipo de tumor, sua localização anatômica, características histológicas e radiográficas, bem como a idade e a cooperação do paciente<sup>(7)</sup>.

Um procedimento cirúrgico mais conservador para esta variante unicística, principalmente em se tratando de pacientes jovens e levando-se em conta o comportamento cístico do tumor, é amplamente defendido<sup>(8)</sup>.

Segundo a literatura, este tipo de ameloblastoma é melhor tratado cirurgicamente por enucleação porque se apresenta clinicamente como um cisto<sup>(7)</sup>. Assim, é conveniente optar, sempre que possível, por tal tratamento. Porém no caso apresentado, em virtude da localização topográfica da lesão e possível risco de infiltrar áreas adjacentes como órbita, fossa infratemporal e até base de crânio, foi instituído um tratamento mais invasivo mesmo sendo a lesão unicística, se mostrando uma abordagem adequada neste caso.

Embora a frequência de recorrência seja maior quando empregada a enucleação do que com o uso de cirurgias radicais e

muitas vezes mutilantes, deve-se levar em conta que estes tumores são de evolução lenta e apenas muito raramente estão envolvidos em processos de metástase<sup>(10,18)</sup>.

Formiga *et al.*<sup>(18)</sup> relatam um caso de ameloblastoma com nove episódios de recidiva envolvendo a região crânio-maxilo-cervical e metástase em sítio topográfico pulmonar, resultando em óbito após 25 anos do diagnóstico.

Apesar de a lesão localizar-se em uma região estruturalmente importante, o diagnóstico precoce possibilitou uma clara delimitação da lesão na sua abordagem, sem infiltrar áreas adjacentes, não sendo observando sinais de recidiva após sete anos de acompanhamento.

## CONCLUSÕES

Em virtude de um comportamento mais agressivo, o ameloblastoma maxilar pode se tornar potencialmente letal principalmente quando acomete a região posterior da maxila. Uma abordagem mais invasiva nestes casos mesmo sendo a lesão unicística, se mostra como tratamento adequado.

O diagnóstico prematuro associado a uma abordagem adequada evita um possível êxito letal, principalmente quando tendo a região posterior da maxila como sítio topográfico.

## BIBLIOGRAFIA

- 1 - Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Patologia Oral & Maxilofacial. 2 ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan, 2004.
- 2 - Pandya NJ, Stuteville OH. Treatment of ameloblastoma. *Plast Reconstr Surg*. 1972;50:242-8.
- 3 - Small IA, Waldron CA. Ameloblastoma of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1955;8:281-97.
- 4 - Gomes ACA, Silva EDO, Albert DGM, Lira MFC, Andrade ESS. Conceito atual no tratamento dos Ameloblastomas. *Rev Cir Traumatol Buco-Maxilo-Fac* 2006;6:9-16.
- 5 - Carini F, Riazoli G, Vignoletti F, Baldoni M. Ameloblastoma plexiforme del maxilar: manejo quirúrgico y protético. A propósito de un caso. *Avances en Odontoestomatología* 2007;23:11-20.
- 6 - Junior AFD, Loyola AM, Silva CJ, Cardoso SV, Guidi R, Henriques JCG, Macedo JH, Martins LT. A abordagem e o tratamento de um ameloblastoma unicístico na mandíbula. *RBPS* 2006;19:247-52.
- 7 - Iordanidis S, Makos Ch, Dimitrakopoulos J, Kariki H. Ameloblastoma of the maxilla. Case report. *Austr Dent J* 1999;44:51-5.
- 8 - García Reija MF, Izquierdo M, Blanco Rueda JA, García Cantera M, Verrier Hernández A. Ameloblastomas maxilares: a propósito de dos casos clínicos. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2001;52:261-5.
- 9 - Paikkatt VJ, Sreedharan S, Kannan VP. Unicystic ameloblastoma of the maxilla: a case report. *J Indian Soc Pedod Prev Dent* 2007;25:106-10.
- 10 - Barros SSLV, Freitas RA, Galvão HC, Souza LB. Avaliação imuno-histoquímica dantígeno nuclear de proliferação celular (pcna) e da proteína p53 em ameloblastomas tratados pela técnica da marsupialização. *Cienc Odontol Bras* 2006;9:32-7.
- 11 - Santos JN, Souza VF, Azevedo RA, Sarmento VA, Souza LB. Caracterização imunohistoquímica de lesão híbrida de ameloblastoma desmoplásico e convencional. *Rev Bras Otorrinolaringol* 2006;72:709-13.

- 12 - Ide F, Mishima K, Yamada H, Horie N, Saito I, Shimoyama T, Kusama K. Unsuspected small ameloblastoma in the alveolar bone: a collaborative study of 14 cases with discussion of their cellular sources. *J Oral Pathol Med* 2008; 37:221-7.
- 13 - Sá ACD, Zardo M, Paes Júnior AJO, Souza RP, Neme MP, Sabedotti I, Lovato AFGG, Costa KD, Rapoport A. Ameloblastoma da mandíbula: relato de dois casos. *Radiol Bras* 2004;37:465-8.
- 14 - Antunes AA, Silva PV, Antunes AP, Filho JR. Ameloblastoma: estudo retrospectivo. *Rev Bras Cir Cabeça Pescoço* 2006;35 70-3.
- 15 - Hong J, Yun PY, Chung IH, 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;36:283-8.
- 16 - 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 Endod* 2002;93:13-20.
- 17 - Shetever A. Discussion: ameloblastoma in children. *J oral Maxillofac Surg* 2002;60:770-1.
- 18 - Formiga MNC, Kohayagawa MH, Teixeira HM, Guimarães APG, Andrade VP, Gimenes DL. Ameloblastoma: A Case Report. *Applied Cancer Research* 2007;27:165-8.

