

Caso Clínico

Tratamento cirúrgico de uma condição rara de ameloblastoma sólido em maxila – relato de caso



**Cristovão Marcondes de Castro Rodrigues^a, Danyella Carolyn Soares dos Reis^{b,*},
Flávio de Freitas Bueno^c, Marco Túllio Brazão-Silva^d, Maiolino Thomaz Fonseca Oliveira^e**

^a Departamento de Cirurgia e Traumatologia Bucocomaxilofacial - Hospital de Clínicas da Universidade Federal de Uberlândia (HC-UFU), Uberlândia, Minas Gerais, Brasil.

^b Clínica Odontológica da Universidade Federal de Uberlândia, Uberlândia, Minas Gerais, Brasil.

^c Instituto de Educação IMED Montes Claros, Montes Claros, Minas Gerais, Brasil.

^d Departamento de Patologia Bucal e Semiologia da Universidade Estadual de Montes Claros, Montes Claros, Minas Gerais, Brasil.

^e Hospital de Urgências de Goiânia, Goiânia, Goiás, Brasil.

INFORMAÇÃO SOBRE O ARTIGO

Historial do artigo:

Recebido a 10 de março de 2020

Aceite a 29 de novembro de 2020

On-line a 20 de dezembro de 2020

Palavras-chave:

Ameloblastoma

Curetagem

Maxila

Neoplasia maxilomandibulares

Tratamento conservador

R E S U M O

O ameloblastoma é uma neoplasia benigna originada do tecido epitelial odontogénico localmente invasivo, com alta tendência a recidiva. Aproximadamente 85% dos ameloblastomas ocorrem na região do ângulo e ramo da mandíbula, enquanto 15% dos casos ocorrem na região posterior maxilar. Há diversas variações deste tumor, sendo os tipos sólidos/multicísticos e unicístico os mais recorrentes. Os sinais são discretos e raramente percebidos pelo paciente nos estágios iniciais. Existem diversos métodos de tratamento para o ameloblastoma descritos na literatura, desde a enucleação e curetagem à abordagens mais agressivas, como resseções com ou sem perda da continuidade óssea.

O objetivo deste trabalho é relatar um caso clínico de ameloblastoma sólido abordado de forma cirúrgica conservadora por meio da enucleação da lesão, localizada em região posterior de maxila, em um paciente jovem de 15 anos do sexo masculino. (Rev Port Estomatol Med Dent Cir Maxilofac. 2020;61(4):203-209)

© 2020 Sociedade Portuguesa de Estomatologia e Medicina Dentária.

Publicado por SPEMD. Este é um artigo Open Access sob uma licença CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

* Autor correspondente.

Correio eletrónico: danyellacsoares@gmail.com (Danyella Carolyn Soares dos Reis).

<http://doi.org/10.24873/j.rpemd.2020.12.725>

1646-2890/© 2020 Sociedade Portuguesa de Estomatologia e Medicina Dentária. Published by SPEMD.

This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Surgical treatment of a rare condition of solid ameloblastoma in the jaw – a case report

A B S T R A C T

Keywords:

Ameloblastoma
Curettage
Maxilla
Maxillomandibular neoplasia
Conservative treatment

Ameloblastoma is a benign neoplasm originating from locally invasive odontogenic epithelial tissue, with a high tendency to relapse. Approximately 85% of the ameloblastomas occur in the angle and branch of the mandible, while 15% occur in the posterior maxillary region. Among the several variations of this tumor, the most recurrent are the solid/multicystic and unicystic types. The signs are discreet and rarely perceived by the patient in the early stages. Several treatment methods for ameloblastoma have been described in the literature, from enucleation and curettage to more aggressive approaches, such as resections with or without loss of bone continuity. The objective of this work is to report a clinical case in a 15-year-old male patient of solid ameloblastoma approached in a conservative surgical way through enucleation of the lesion, located in the posterior region of the maxilla. (Rev Port Estomatol Med Dent Cir Maxilofac. 2020;61(4):203-209)

© 2020 Sociedade Portuguesa de Estomatologia e Medicina Dentária.

Published by SPEMD. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introdução

O ameloblastoma é um tumor odontogénico epitelial benigno, localmente invasivo e de crescimento lento.¹ Dentre os tumores odontogénicos que acometem os ossos gnáticos, é o tumor de maior significado clínico, representando cerca de 1% de todos os tumores e cistos odontogénicos.^{2,3} O ameloblastoma é encontrado em grande variação etária, com prevalência dos 30 aos 70 anos e sem predileção por género.^{2,4}

O sítio anatómico geralmente acometido pelo tumor se dá em região posterior da mandíbula.² Em estudos clínicos retrospectivos, a incidência de ameloblastomas na maxila foi excepcionalmente baixa, variando de 1:8,8 a 1:5,8 na maxila e mandíbula, respetivamente.^{5,6} Do ponto de vista imagiológico, o ameloblastoma apresenta-se como lesões císticas, uniloculares ou multiloculares, sendo comum que a lesão esteja associada a um dente incluso e provoque reabsorções.⁷

De acordo com a classificação da OMS em 2017, existem formas distintas de ameloblastomas: (1) tipo sólido, multicístico ou convencional, (2) tipo unicístico, (3) tipo extraósseo ou periférico, e (4) tipo metastático. O tipo sólido é a variante mais comum, respondendo por 75% a 86% de todos os casos.^{2,8}

Histologicamente a classificação se baseia em uma maior diversidade de subtipos de acordo com o padrão morfológico das proliferações epiteliais tumorais: folicular, plexiforme, acantomatoso, granular, basaloide, e o desmoplásico, podendo ser gerenciado pelo método conservador, curetagem associado a ostectomia periférica ou radical por meio da ressecção, dependendo do tipo, localização, tamanho e idade do paciente.^{9,10}

O objetivo desse artigo é relatar caso de ameloblastoma sólido em localização anatómica atípica, região posterior de maxila, em paciente jovem do sexo masculino de 15 anos de idade, ao qual foi adotado abordagem cirúrgica conservadora por meio da curetagem e segue em acompanhamento em ambulatório.

Caso clínico

Paciente de 15 anos, do sexo masculino, compareceu a clínica odontológica com queixa de aumento volumétrico região posterior de maxila esquerda. Realizada anamnese paciente não associou o aumento volumétrico a nenhuma sintomatologia dolorosa de origem dentária, negou alergias, comorbidades e intervenções ou tratamentos anteriores. O exame clínico extraoral foi realizado por meio de inspeção visual e palpação, notando aumento volumétrico em terço médio esquerdo da face, de consistência endurecida rígida sem alteração de coloração da pele da região. No exame clínico intraoral notou-se aumento volumétrico região posterior de maxila, indolor palpação, consistência endurecida, ausência de fistula e do elemento 14 (Figura 1). Realizado exame radiográfico panorâmico pode-se observar uma lesão radiolúcida de aproximadamente 30X37 mm de extensão localizada entre elementos 13 e 15 com deslocamento do elemento 14 em direção ao seio maxilar (Figura 2). Como hipóteses de diagnóstico foi dada cisto dentífero ou tumor odontogénico adenomatóide.

Paciente foi medicado com 1 g de amoxicilina (Amoxil®, Rio de Janeiro-RJ, Brasil) e 8 mg de dexametasona (Decadron®, Guarulhos-SP, Brasil) pré-operatório. O procedimento cirúrgico foi realizado sob anestesia local, incisão sulcular, rebatimento do retalho trapezoidal (Figura 3), ostectomia periférica (Figura 4), cuidadoso descolamento da capsula lesional com auxílio de uma cureta (Figura 5) e o aparecimento do elemento 14 associado a lesão (Figura 6), posteriormente foi realizada curetagem vigorosa e ostectomia de todo sítio cirúrgico e irrigação abundante com soro fisiológico, como tentativa de minimizar as possíveis invasões epiteliais no osso adjacente. Aspetto da lesão após completa enucleação (Figura 7). O retalho foi reposicionado e suturado com fio nylon 5-0 Procure® (Hualan Jiangsu China) e prescrita a medicação analgésica pós-operatória domiciliar se houvesse dor. O material coletado foi colocado



Figura 1. Aspetto clínico intraoral evidenciando aumento volumétrico vestibular na região posterior de maxila e ausência do dente 14.



Figura 2. Radiografia panorâmica onde pode-se observar a lesão radiolúcida localizada entre elementos 13 e 15 com deslocamento do elemento 14 em direção ao seio maxilar.

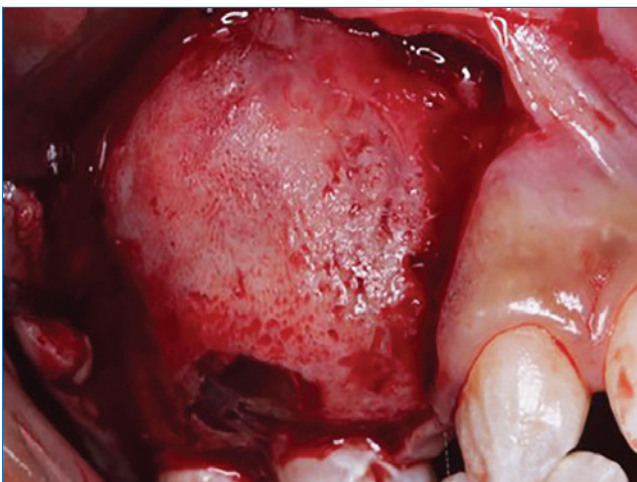


Figura 3. Procedimento cirúrgico para curetagem da lesão. Exposição do osso na região da lesão.

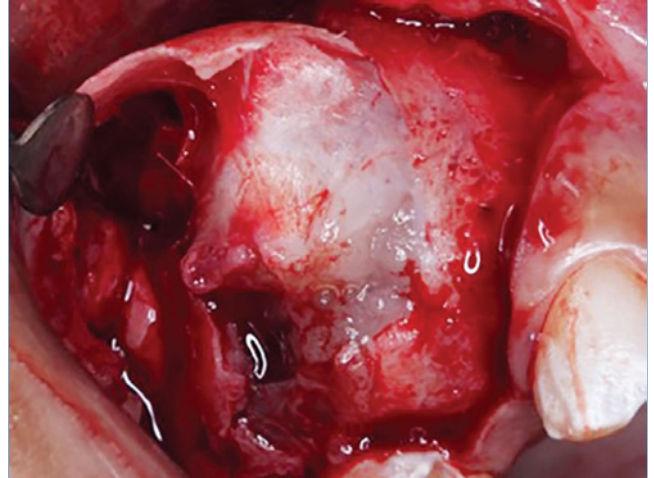


Figura 4. Remoção da cortical óssea e exposição da lesão.

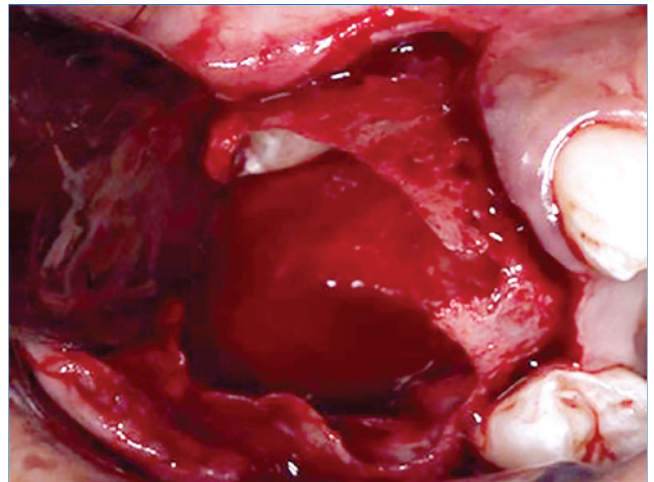


Figura 5. Curetagem do sitio da lesão.

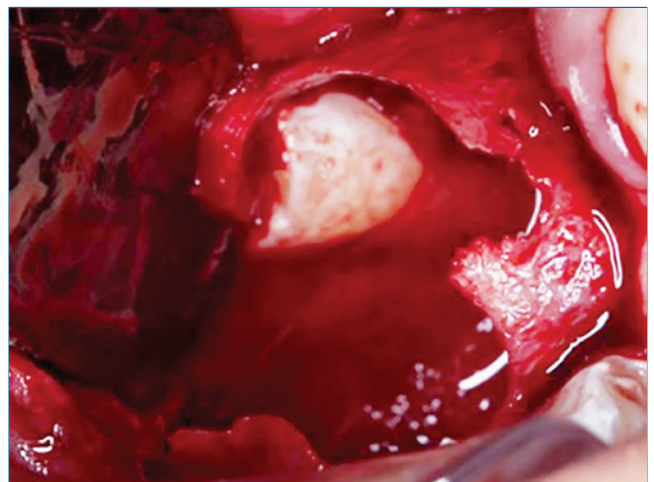


Figura 6. Aspetto clínico após remoção da lesão.

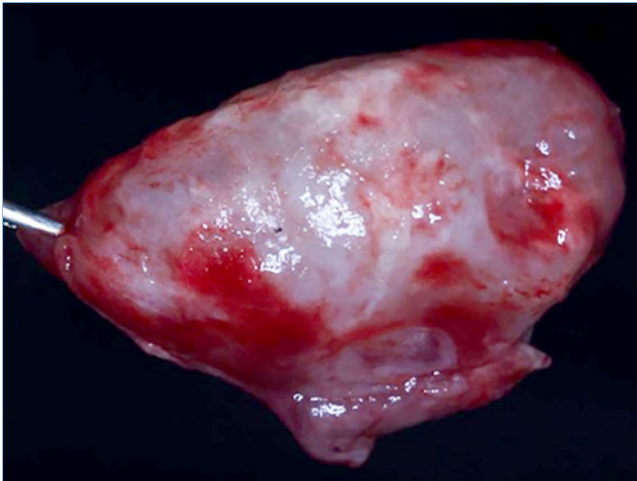


Figura 7. Lesão enucleada.

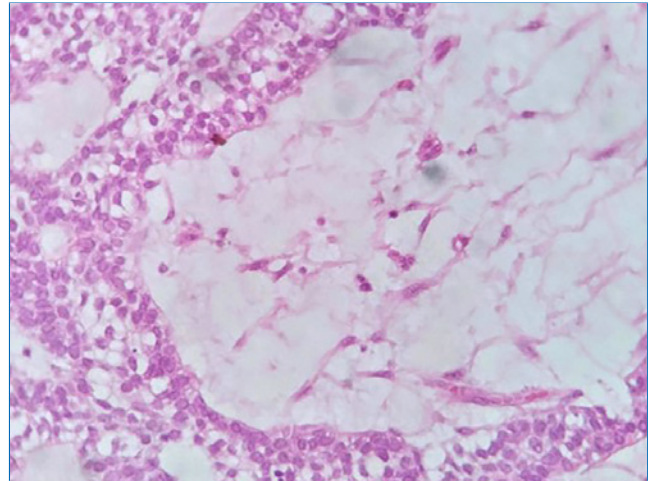


Figura 10. Em uma aumento de 40X região demonstrando padrão mixomatoso encontrando entre as proliferações epiteliais.

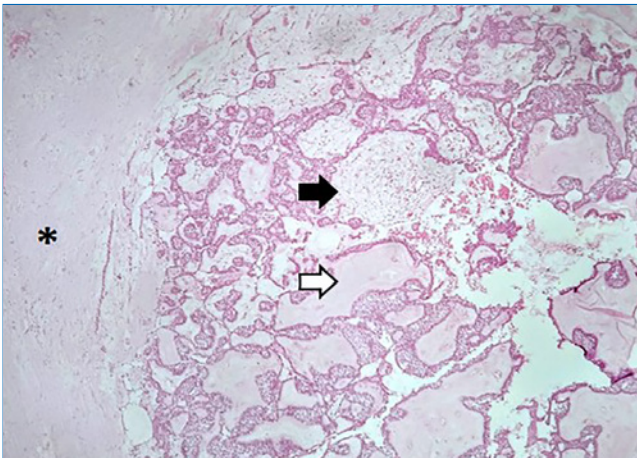


Figura 8. Lâminas preparadas com coloração hematoxilina-Eosina em um aumento de 10X com aspecto histopatológico revelando proliferação epitelial com células de aspecto ameloblástico faceando o tecido mesenquimal e células de citoplasma claro e núcleo ovoide ou alongado nas porções internas mimetizando retículo estrelado do órgão do esmalte. O asterisco demarca tecido conjuntivo em forma de cápsula que circundava toda a lesão.



Figura 11. Aspecto intraoral da região em retorno de 28 meses de pós-operatório.

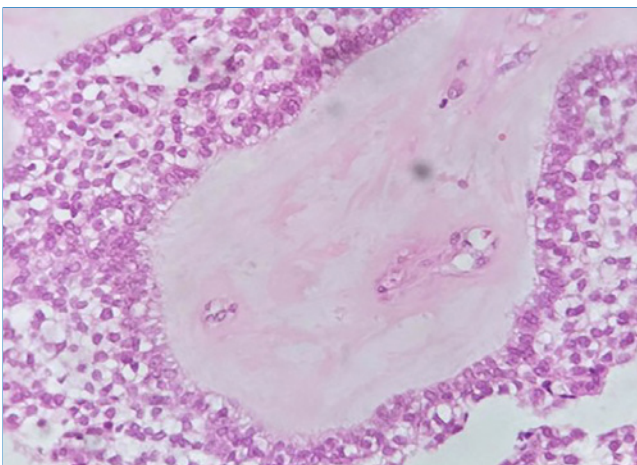


Figura 9. Em um aumento de 40X a região demonstrando matriz hialina entremeando as proliferações epiteliais.



Figura 12. Radiografia panorâmica de acompanhamento em retorno de 28 meses de pós-operatório.

em formol 10% e enviado ao laboratório de patologia bucal para análise. O material foi processado seguindo a técnica de rotina, começando por soluções de álcool para desidratação, seguida de bateria de xilol para diafanização, finalizando com parafina fundida para formar o bloco e seguir para o corte no micrótomo. A coloração de rotina foi a hematoxilina-eosina (H.E.). As fotomicrografias foram realizadas na câmara DIGILAB DI-5.0 HD acoplada a um microscópio Digilab Modelo DICAM-136T.

Paciente retornou à consulta após sete dias sem queixas para remoção de sutura. Resultado histológico apontou uma lesão encapsulada caracterizada por proliferação de células epiteliais em arranjo plexiforme, onde as células periféricas frequentemente apresentavam morfologia colunar, núcleo ovoide, vesicular e vacúolos citoplasmáticos (Figura 8). Nas porções internas das proliferações epiteliais as células separam-se por líquido intercelular, com citoplasma ora amplo e claro ora escasso e alongado, e núcleos variando em coloração entre vesicular e hiperromáticos e variando em formato entre ovoides e poligonais/achatados (Figura 9). O tecido conjuntivo que embebe a proliferação mostra áreas acelulares hialinas eosinofílicas e outras celularizadas em aspecto mixoide, contendo células fusiformes semelhantes a fibroblastos. A conclusão dos achados é de um ameloblastoma sólido com achados não usuais de matriz mixoide e hialina (Figura 10).

Paciente em acompanhamento pós-operatório de trinta e quatro meses e segue em retornos ambulatoriais trimestrais, para avaliação clínica e radiográfica periódicas. (Figuras 11 e 12)

Discussão e conclusões

O ameloblastoma foi descrito, pela primeira vez em 1930 por Ivey e colaboradores,^{3,11} sendo que correspondem, aproximadamente, a 1% de todos os cistos e tumores odontogênicos, possuindo maior incidência na mandíbula e na terceira ou quarta décadas de vida.^{2,4,12}

É um tumor benigno agressivo, podendo ser originado do órgão do esmalte, lâmina dentária, folículo de cistos odontogênicos (principalmente dentígero) ou, possivelmente, de células epiteliais da camada basal da mucosa oral.¹²

Essa alteração patológica em pessoas jovens é considerada pouco frequente e corresponde a aproximadamente 10 a 15% de todos os casos relatados de ameloblastoma.² A primeira peculiaridade do caso descrito a se destacar é que o paciente se encontra fora da faixa etária de prevalência da doença, como descrito na literatura.

A classificação mais recente da Organização Mundial da Saúde (2017) distingue comparativamente o ameloblastoma sólido, mais frequente agressivo e recidivante, de suas variantes clínicas que são: o ameloblastoma periférico, situado em tecidos moles, e ameloblastoma unicístico.¹³

Na maioria das vezes o diagnóstico se dá durante realização de exames de rotina; sendo que clinicamente apresenta-se com crescimento lento expansivo, indolor, ao exame de imagem o ameloblastoma sólido apresentar-se como uma lesão de aspecto semelhante a “bolhas de sabão” ou aspecto de “favo de mel”, com divergência, reabsorção radiculares e fenação das tábuas ósseas.^{14,15}

O exame de imagem dito padrão ouro para avaliação de lesões como ameloblastoma é a tomografia computadorizada *cone-beam*, por ser um exame de imagem de maior precisão, o que facilita a interpretação de imagens seccionais, evitando, desta forma, erros de interpretação e a necessidade de repetição e permiti uma avaliação tridimensional das estruturas anatómicas e como duas desvantagens do uso desse tipo de exames frente as radiografias convencionais é dose de radiação exposta ao paciente e custo mais elevado.^{11,14} Adoção do uso da radiografia panorâmica convencional no caso discurrido, se deu por unicamente por questões econômicas, uma vez que o paciente não podia arcar com os custos de um exame de imagem como tomografia computadorizada.

Com relação ao aspecto microscópico, o caso relatado aqui mostra aspectos não usuais para o ameloblastoma, destacando o aspecto mixoide e substância hialina presentes em sua estrutura de estroma mesenquimal, além de células de núcleo predominantemente ovoide e claras e sua estrutura epitelial neoplásica. Esse padrão mesenquimal pode surgir no fibroma ameloblástico, tendo alguns autores inclusive sugerido que este tumor poderia se transformar em ameloblastoma, como considerado quando há achados típicos de fibroma ameloblástico e ameloblastoma simultaneamente, o que não ocorreu no presente caso.¹⁶ A presença de proliferação plexiforme proeminente contendo regiões com formação microcística também foi importante para afastar essa possibilidade de diagnóstico no presente caso.² Assim tem-se aqui um ameloblastoma não usual, com presença de componente mixoide, que pode representar transformação mucosa (ou degeneração) ocorrida em um ameloblastoma sólido plexiforme convencional ou ainda representar uma variante histológica de ameloblastoma ainda não elucidada na literatura. As células de aspecto mucoso quando abundantes caracterizam um ameloblastoma descrito por alguns autores como ameloblastoma mucoso, mas o estroma mixoide não foi destacado nesses relatos.¹⁷ A formação marginal em aspecto de cápsula do presente caso também foi interpretada na condução do caso como um indicativo de um comportamento brando dessa forma incomum de ameloblastoma.

A localização anatômica dos ameloblastomas sólidos acometem preferencialmente a mandíbula particularmente a região posterior, com proporções entre os ossos mandíbula e maxila de 1:5.4.¹⁴ E como segunda singularidade do caso referido, lesão se apresentava em região posterior de maxila, um sítio anatômico pouco comum, conforme pormenorizado na literatura.

O tratamento do ameloblastoma coloca o cirurgião bucomaxilofacial em um dilema quanto à escolha da melhor opção cirúrgica. Apesar de várias formas de tratamento já terem sido largamente debatidas na literatura, ainda não há um consenso sobre qual seria a mais indicada.¹⁵

O tratamento dito como conservador seria a enucleação seguida de curetagem associado a terapia coadjuvante como ostectomia periférica, uso de crioterapia ou solução de Carnoy. Entretanto, apesar de ser considerado um tumor benigno, o ameloblastoma sólido apresenta comportamento agressivo, podendo haver recorrência local e até transformação maligna. A literatura mostra que o melhor prognóstico para este tipo de lesão está associado à escolha de um tratamento mais radical,

sendo a ressecção com margem de segurança de 1,0 a 1,5 cm é a melhor forma de tratamento com índices de recidivas abaixo de 5%.^{18,19}

A escolha do tratamento adequado deve sempre ser baseada no tipo, tamanho, no local da lesão, na chance de recidiva, e deve-se avaliar imagiologicamente se há perfuração da cortical óssea. A literatura sugere tratamentos cirúrgicos agressivos, como ressecção com ou sem reconstrução. No entanto, um tratamento radical pode causar deformidades faciais, e ter consequências psicológicas no paciente, especialmente em pacientes jovens.^{20,21} No caso apresentado mesmo sabendo que a variante clínica tipo sólido tem uma taxa maior de agressividade e recorrência, fizemos a opção por tratamento mais conservador por meio da curetagem vigorosa associada a ostectomia periférica visto que a lesão acometia o seio maxilar e dentes vitais e adoção de soluções químicas adjuvantes para tratamento da lesão não teriam uma indicação absoluta neste caso, além desses fatores locais foi considerado também a idade da paciente, na qual uma cirurgia mais agressiva poderia trazer maiores transtornos funcionais, estéticos e ao psicológico do adolescente.

Mesmo que atualmente as características clínicas e radiográficas dos ameloblastomas já estarem bem sedimentadas na literatura, devemos lembrar que se tratam de tumores benignos com padrões histológicos e radiográficos variados, ainda mais como no caso descrito, onde a localização anatômica em que a lesão se encontrava tratava-se de uma exceção, onde sua taxa de ocorrência é mínima. Na literatura o tratamento para o ameloblastoma, na maioria dos casos, é a ressecção cirúrgica. Essa opção de tratamento é a mais preconizada devido ao alto índice de recidiva, entretanto é de fundamental importância o cirurgião levar em consideração diversas variáveis, tais como o tipo macroscópico, histológico, a idade, histórico médico do paciente, dimensões e localização da lesão, para determinação de qual terapêutica ser empregada, visando uma reabilitação no futuro, seja por meio dos enxertos livres ou microvascularizados. O acompanhamento minucioso e de longo prazo por no mínimo 5 anos é de fundamental importância, visto que maior incidência de recidiva ocorre nesse intervalo de tempo.

Responsabilidades éticas

Proteção de pessoas e animais. Os autores declaram que para esta investigação não se realizaram experiências em seres humanos e/ou animais.

Confidencialidade dos dados. Os autores declaram que não aparecem dados de pacientes neste artigo.

Direito à privacidade e consentimento escrito. Os autores declaram ter recebido consentimento escrito dos pacientes e/ou sujeitos mencionados no artigo. O autor para correspondência está na posse deste documento.

Conflito de interesses

Os autores declaram não haver conflito de interesses.

REFERÊNCIAS

- Montes CL, Taylor AM, Bregni RC, León ER, Palma-Guzmán JM, Valencia CP. Ameloblastomas: a regional Latin-America multicentric study. *Oral Dis.* 2007;13:303-7.
- Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquet JE. *Patologia Oral e Maxilofacial.* 4.ª Ed. Rio de Janeiro: Elsevier, 2016.
- França LJJ, Curioni OA, Paiva DL, Vianna DM, Dedivitis RA, Rapoport A. Ameloblastoma demographic clinical and treatment study – analysis of 40 cases. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2012;78:38-41.
- Gomes ACA, Silva EDO, Albert DGM, Lira MFC, Andrade ESS. Conceito atual no tratamento dos ameloblastomas. *Rev Bras Cir Traumatol Buco-maxilo-fac.* 2006;6:9-16.
- Osterne RL, Brito RG, Alves AP, Cavalcante RB, Souza FB. Odontogenic tumors: a 5 years retrospective study in a Brazilian population and analysis of 3406 cases reported in literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2011;111:474-81.
- Selvamani M, Yamunadevi A, Basandi P, Madhushankari G. Analysis of prevalence and clinical features of multicystic ameloblastoma and its histological subtypes in South Indian sample population: a retrospective study over 13 years. *J Pharm Bioallied Sci.* 2014;6:S131-4.
- Laborde A, Nicot R, Wojcik T, Ferri J, Raoul G. Ameloblastoma of the jaws: Management and recurrence rate. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2017;134:7-11.
- McClary AC, West RB, McClary AC, Pollack JR, Fischbein NJ, Holsinger CF, et al. Ameloblastoma: a clinical review and trends in management. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2016;273:1649-61.
- Giraddi GB, Arora K, Saifi AM. Ameloblastoma: a retrospective analysis of 31 cases. *J Oral Biol Craniofac Res.* 2017;7:206-11.
- Almeida RAC, Andrade ESS, Barbalho JC, Vajgel A, Vasconcelos BCE. Recurrence rate following treatment for primary multicystic ameloblastoma: systematic review and meta-analysis. *Int J Oral Max Surg.* 2016;45:359-67.
- Bisinelli JC, Ioshii S, Retamoso LB, Moyses ST, Moyses SJ, Tanaka OM. Conservative treatment of unicystic ameloblastoma. *Am J Orthod Dentofacial Orthop.* 2010;137:396-400.
- Muddana K, Pasupula AP, Dorankula SPR, Thokala MR, Muppalla JNK. Pediatric Odontogenic Tumor of the Jaw – A Case Report. *J Clin Diagn Res.* 2014;8:250-2.
- AK El-Naggar, KCJ Chan, Grandis JR, Takat T, Slootweg PJ. *World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours.* 4th ed. Lyon: IARC; 2017.
- Mendonça JC, Santos AA, Lopes HB. Hemimaxilectomia associada à crioterapia no tratamento de ameloblastomas: relato de caso. *Rev Soc Bras Cir Craniomaxilof.* 2011;14:63-6.
- Melo RB, Carneiro NCM, Fonseca WLM, Lima JF, Araujo HPS, Pontes HAR. Tratamento cirúrgico de ameloblastoma sólido convencional: relato de caso clínico. *Revista Faculdade de Odontologia.* 2016;21:246-50.
- Chen SH, Katayanagi T, Osada K, Hamano H, Inoue T, Shimono M, et al. Ameloblastoma and its relationship to ameloblastic fibroma: their histogenesis based on an unusual case and review of the literature. *Bull Tokyo Dent Coll.* 1991;32:51-6.
- Gataa IS, Garib BT, Rashid NH (2015) New Features in Mucous-Ameloblastoma. A Case Report of rare Entity. *Int J Oral Craniofac Sci.* 2015;1:001-5.
- Chae MP, Smoll NR, Hunter-Smith DJ, Rozen WM. Establishing the natural history and growth rate of ameloblastoma with implications for management: systematic review and meta-analysis. *PLoS One.* 2015;10:e0117241.

-
19. Wright JM, Vered M. Update from the 4th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours: Odontogenic and Maxillofacial Bone Tumors. *Head Neck Pathol.* 2017;11:68-77.
 20. Chouinard AF, Peacock ZS, Faquin WC, Kaban LB. Unicystic Ameloblastoma Revisited: Comparison of Massachusetts General Hospital Outcomes With Original Robinson and Martinez Report. *J Oral Maxillofac Surg.* 2017;75:2369-78.
 21. Kumar V. Conservative surgical approach to aggressive benign odontogenic neoplasm: a report of three cases. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg.* 2015;41:37-42.