

Tumor de Pindborg relacionado con trauma facial

Pindborg's tumor in relationship with facial traumata

Niorgy Rodríguez Rodríguez,^I Mara Isabel Morales Pardo^{II} Enrique Rodríguez Moreno,^{III} Yoselín Ruíz Collado,^{IV} Diana Ayup García,^V Yaneisis Álvarez Blanco^{VI}

^I Máster en Salud Bucal Comunitaria. Especialista de I Grado en Cirugía Máxilo Facial. Instructor. Hospital Provincial General Docente "Roberto Rodríguez", Morón, Ciego de Ávila, Cuba.

^{II} Máster en Salud Bucal Comunitaria. Especialista de I Grado en Estomatología General Integral. Asistente. Facultad de Ciencias Médicas de Ciego de Ávila, Cuba.

^{III} Especialista de I Grado en Cirugía Máxilo Facial. Instructor. Hospital Provincial General Docente "Roberto Rodríguez", Morón, Ciego de Ávila, Cuba.

^{IV} Especialista de I Grado en Anatomía Patológica. Instructor. Hospital Provincial General Docente "Roberto Rodríguez", Morón, Ciego de Ávila, Cuba.

^V Máster en Atención Integral a la Mujer. Especialista de I Grado en Imagenología. Instructor. Hospital Provincial General Docente "Roberto Rodríguez", Morón, Ciego de Ávila, Cuba.

^{VI} Licenciada en Atención Estomatológica. Hospital Provincial General Docente "Roberto Rodríguez", Morón, Ciego de Ávila, Cuba.

RESUMEN

El tumor de Pindborg es una neoplasia benigna, rara, con carácter invasivo local y tendencia a la recidiva, que representa entre el 0,17 y el 1,8 % de todos los tumores odontogénicos, del cual tan solo se han publicado unos 200 casos, con una media de 4 casos nuevos por año en el mundo. Se presentó el caso de un hombre de 39 años de edad que acudió a la consulta de cirugía maxilofacial remitido de neurocirugía postraumatismo craneofacial, por presentar un aumento de volumen en el ángulo mandibular derecho. Se tuvo como objetivo publicar la existencia de esta infrecuente neoplasia por lo interesantes que resultan estos tumores por su evolución, dificultad en el diagnóstico, variantes de tratamiento y tendencia a la recidiva. Después de realizar exámenes de laboratorio, radiografías, tomografía axial computarizada y biopsia de fragmento óseo, se obtuvo extensión y diagnóstico de tumor de Pindborg en hemimandíbula derecha. Se realizó la técnica quirúrgica de hemimandibulectomía derecha y reconstrucción con injerto óseo de cresta ilíaca. La evolución del paciente fue satisfactoria.

Palabras clave: tumor, odontogénico, epitelial calcificante, Pindborg.

ABSTRACT

The Pindborg's tumor is a benign and uncommon neoplasm with a local invasive character and a trend to relapse accounting for the 0.17 and the 1.8 % of all odontogenic tumors with only 200 cases published in the literature and a mean of four cases per year at world scale. This is the case of a man aged 39 came our consultation of Maxillofacial Surgery referred from Neurosurgery Service after a craniofacial trauma and an increase of volume in right mandibular angle with the aim to publish the existence of this uncommon neoplasm due to the interesting of this type of tumor by its evolution, difficulty for diagnosis, variants of treatment and trend to relapse. After carry out laboratory examinations, X-rays, axial tomography computerize and biopsy of bone fragment, it was possible the extension and diagnosis of Pindbog's tumor in right hemi-mandible. The right hemimandibulectomy is performed as surgical technique and the reconstruction using bone graft of iliac crest. Evolution of patient is satisfactory.

Key words: tumor, odontogenic, calcifying epithelial, Pindborg.

INTRODUCCIÓN

El tumor de Pindborg es una neoplasia benigna de origen epitelial, muy rara, con carácter invasivo local y recidivante de baja frecuencia que suele asentar en la mandíbula.^{1,2} También se conoce como tumor odontogénico epitelial calcificante, adamantoblastoma adenoide, ameloblastoma atípico u odontoma quístico.³ Este tumor representa aproximadamente el 1 % de todos los tumores odontogénicos, de los cuales tan solo se han reportado unos 200 casos, con una media de 4 casos nuevos por año en el mundo.⁴⁻⁶

Se han descrito 2 variantes según su localización: intraósea o central para el 94,0 % de los casos y extraósea, periférica o de tejidos blandos para un 6,0 % de los casos.² Actualmente no hay consenso acerca del origen del tumor y se cree que deriva de elementos epiteliales del órgano del esmalte, aunque otros autores³ creen que deriva de remanentes celulares de la lámina basal o a partir del estrato basal del epitelio gingival.

La afectación mandibular es, en frecuencia, el doble de la maxilar y suele asentar a nivel premolar-molar,⁴ aunque se ha descrito una predilección en el maxilar en asiáticos.¹ Frecuentemente esta afectación se asocia a dientes no erupcionados, especialmente molares mandibulares (52,0 %) y quistes odontógenos.^{4,5} También se ha descrito la afectación bimaxilar y la afectación bilateral.³ En la variante central no hay una predilección de sexo y más de dos tercios de las lesiones aparecen entre la tercera y la quinta década de vida,² con una media de edad de 40,3 años en el central y 31,8 en el periférico.⁴ El propósito de este trabajo fue publicar la existencia de esta infrecuente neoplasia, por lo interesante que resultan estos tumores por su evolución, dificultad en el diagnóstico, variantes de tratamiento y tendencia a la recidiva.

Presentación del caso

Se presentó el caso de un paciente masculino de 39 años de edad, blanco, que no mostró antecedentes médicos ni odontológicos de interés para su padecimiento actual. Dicho paciente acudió a la consulta de cirugía maxilofacial del Hospital Provincial General Docente de Morón "Roberto Rodríguez", de la provincia de Ciego de Ávila, Cuba, remitido desde neurocirugía con el antecedente de traumatismo craneofacial antiguo, por presentar aumento de volumen en ángulo mandibular derecho interpretado como fractura mandibular.

Al realizarle el interrogatorio se recogieron antecedentes de trauma al caerle en la cabeza y en la cara una portería de *football* durante un juego. El paciente relató que le era posible realizar una buena apertura bucal, con ausencia de dolor en la zona donde recibió el golpe desde hacía aproximadamente 2 años atrás. El aumento de volumen fue lento y progresivo.

Al examen físico extrabucal se observó asimetría del tercio inferior facial, por aumento de volumen localizado en el ángulo mandibular derecho (Fig. 1). Intrabucalmente presentó aumento de volumen duro, no doloroso, que provocaba borramiento del surco vestibular y expansión de cortical ósea lingual, pero en ningún momento se evidenció signo clínico de fractura mandibular. Los exámenes de laboratorio presentaron cifras normales.



Fig. 1. Paciente en el momento que acudió a la consulta de maxilofacial, con aumento de volumen en el ángulo mandibular derecho.

Se indicó entonces un estudio radiográfico con vistas Watters, lateral oblicua de mandíbula derecha y panorámica. En las vistas radiográficas se constató una lesión osteolítica que se extendía desde el ángulo mandibular derecho hasta la zona de las bicúspides. Se decidió entonces realizar una tomografía axial computarizada (TAC) para precisar los límites y las características de la lesión. La TAC mostró una imagen tumoral radiolúcida con zonas radiopacas en su interior, que generó la expansión de ambas corticales óseas con solución de continuidad vestibular (Fig. 2).

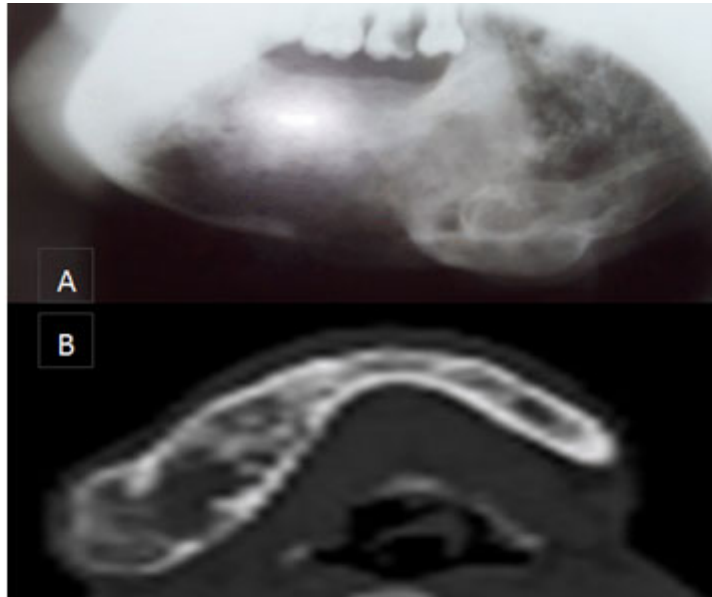


Fig. 2. A. Rx de vista lateral oblicua de la hemimandíbula derecha. Obsérvese que la lisis ósea afectó tanto al cuerpo como a la rama. **B.** Imagen de tomografía donde se aprecia extensión tumoral en la hemimandíbula derecha desde la rama hasta la zona parasinfisaria.

Se decidió realizar biopsia de la lesión bajo anestesia local y se tomó una muestra de ventana ósea en el surco vestibular, a nivel del tercer molar. El informe del Departamento de Anatomía Patológica indicó un tumor odontogénico epitelial calcificante. El paciente fue sometido a una hemimandibulectomía derecha (Fig. 3) y reconstrucción con injerto de cresta ilíaca (Figs. 4 y 5). La pieza quirúrgica fue analizada por Anatomía Patológica y se corroboró el diagnóstico de tumor de Pindborg. El paciente ha tenido buena evolución clínica hasta este momento, 6 meses después del tratamiento quirúrgico.

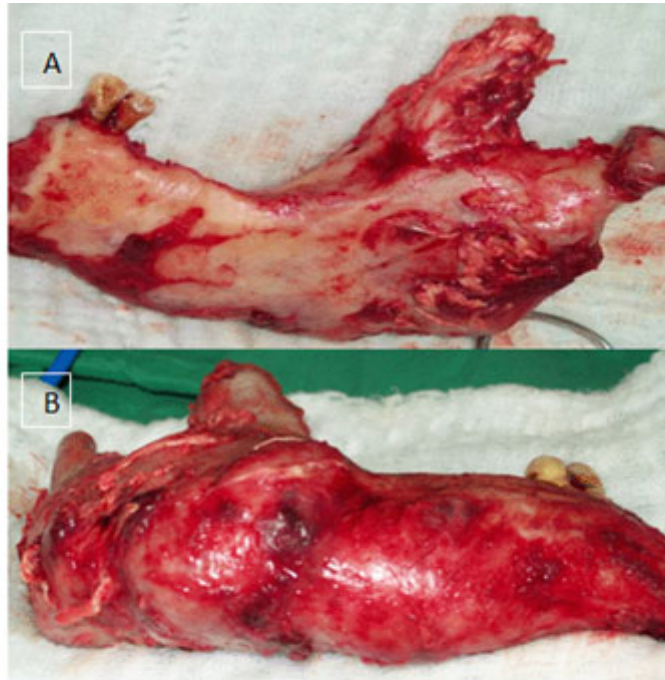


Fig. 3. Pieza quirúrgica de la hemimandíbula derecha. **A.** Vista superointerna. Véase el ensanchamiento tumoral que afectó ambos procesos mandibulares. **B.** Vista inferior. Nótese la expansión tumoral vestibulo-lingual.

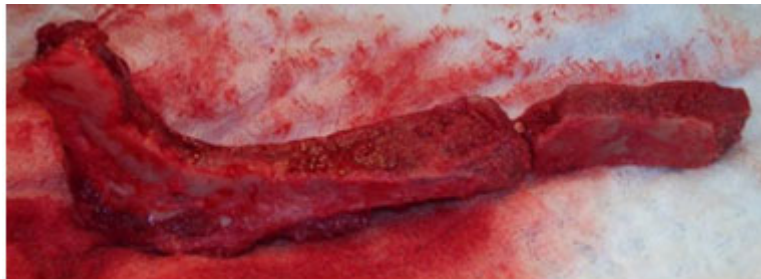


Fig. 4. Injerto óseo de cresta ilíaca antes de ser colocado en la región mandibular derecha.

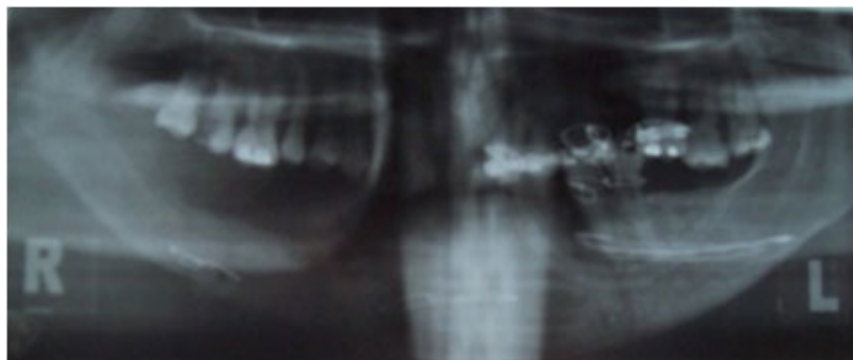


Fig. 5. Ortopantomografía que muestra el injerto óseo de cresta ilíaca en la hemimandíbula derecha con osteosíntesis alámbrica.

DISCUSIÓN

El tumor de Pindborg es un tumor que como toda neoplasia, tiene un origen no bien determinado.^{7,8} Se admite que deriva de los elementos epiteliales del órgano del esmalte, pero existen controversias sobre en qué parte de este exactamente, ya que podría originarse a partir del epitelio externo o del estrato intermedio del órgano del esmalte. Para otros autores³ deriva de remanentes celulares de la lámina basal o a partir del estrato basal del epitelio gingival, lo que justifica la existencia de formas periféricas o extraóseas. La edad media de presentación son la tercera y cuarta décadas de la vida, sin predilección por el sexo; pero es 2 veces más frecuente en la mandíbula que en el maxilar pero en ambas hay predilección por la zona de molares^{3,4} como es el caso que se ocupa en este estudio.

Se han descrito 2 variantes principales según su localización: intraósea o central en más del 90 % de los casos y extraósea o periférica que ocurre en las regiones anteriores como una tumefacción gingival.^{1,3} En otras ocasiones aparece asociado a dientes no erupcionados, a quistes odontógenos y también se ha descrito afectación bimaxilar y bilateral.⁹ La variante periférica es menos agresiva que la central, lo que permite realizar un tratamiento más conservador.^{10,11}

Clínicamente, estos tumores se caracterizan por ser asintomáticos y son diagnosticados por exploración radiológica de rutina, a pesar de ello en muchas ocasiones presentan un crecimiento lento, progresivo y expansivo como sucedió en el caso que nos ocupa, que puede generar expansión de las corticales, movilidad dentaria, reabsorción de raíces dentarias y dolor.^{4,8}

Desde el punto de vista radiográfico se observa una lesión radiolúcida que puede presentar distintas características, pues el tumor atraviesa por 3 fases evolutivas. En un primer momento es totalmente radiolúcida con semejanza a un quiste dentífero, sobre todo cuando el tumor se desarrolla en la vecindad con un diente retenido. Seguidamente aparecen pequeñas calcificaciones intratumorales, esta es la imagen más característica, aunque no es la imagen patognomónica. En la última fase el tumor se presenta en forma de panal de abejas, causado por la destrucción ósea y la calcificación tumoral.

Las lesiones grandes pueden ser multilobuladas, con semejanza a un ameloblastoma, sobre todo si no se observan calcificaciones intratumorales.⁷ Se recomienda la realización de una TAC para precisar los límites del tumor y la extensión del tratamiento quirúrgico.^{1,9} Histológicamente presenta masas de células epiteliales con bordes bien definidos y puentes intercelulares, con citoplasma abundante y eosinófilo y no suele haber mitosis.

A nivel extracelular suele haber acumulación de un material amiloide que en ocasiones tiene calcificación concéntrica y que forma anillos de Liesegang, patognomónicos del tumor. Se han descrito variantes de células claras, mioepiteliales y de Langerhans.¹² El tratamiento de este tumor es la cirugía exéresis. Debido a la ausencia de cápsula que lo delimite, al carácter agresivo local y a su capacidad de recidivar (de 15 a 30 %), se recomienda la exéresis completa con margen oncológico de seguridad.⁶

En el caso presentado, la sospecha inicial recayó en ameloblastoma, tumor odontógeno adenomatoideo y tumor de Pindborg, este último resultó ser el diagnóstico definitivo. El diagnóstico diferencial de este tumor en sus 2 formas, intraósea y extraósea, debe hacerse con el ameloblastoma, el granuloma de células gigantes, el fibroma osificante-cementificante, el mixoma, el fibroodontoma

ameloblástico y el fibroma ameloblástico. También debe realizarse con el angioma central mandibular si la lesión presenta gran sangrado.

En el diagnóstico diferencial imaginológico se debe incluir al quiste odontogénico, el tumor odontogénico adenomatoide y el quiste odontogénico calcificante. Los tumores de Pindborg extraóseos presentan células claras, más de la mitad de los tumores de Pindborg extraóseos son de este tipo. En este último caso el diagnóstico diferencial debe incluir a los tumores de glándulas salivales de células claras, a la metástasis del carcinoma de células renales, al carcinoma odontogénico de células claras, al ameloblastoma periférico, al oncocitoma y al carcinoma mucoepidermoide.⁸

Actualmente no se puede predecir el comportamiento del tumor de Pindborg. Se debe realizar tratamiento quirúrgico con margen oncológico de seguridad y seguimiento evolutivo por al menos 5 a 10 años, pues, aunque raramente, se ha registrado metástasis y malignidad en este tipo de tumor.^{7,8}

Se puede concluir que el tumor odontogénico epitelial calcificante o tumor de Pindborg, es un tumor odontogénico benigno, raro, de origen aún no bien determinado, que puede aparecer como un hallazgo radiológico casual y puede confundirse sobre todo con los quistes dentígeros y con otros tumores óseos, lo que obliga a establecer un diagnóstico anatomopatológico. Este tumor es de comportamiento clínico impredecible a la realización de un tratamiento quirúrgico agresivo cuando el comportamiento local no es benigno o estamos ante una lesión recidivante.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Akhtar K, Khan N, Zaheer S, Sherwanik K, Abrar S. Pindborg tumor in adolescent. An atypical presentation. JK Science. 2009;11(3):35-9.
2. Rubio Palau J, Bescos Atín J. Tumor de Pindborg. Presentación de un caso. Rev Esp Cirug Oral y Maxilofac. [serie en internet]. 2007 [citado: 13 ene 2011];29(5): [aprox. 6 p.]. Disponible en: http://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1130-05582007000500007&lng=es&nrm=iso&tlng=es
3. Sedghizadeh PP, Wong D, Shuler CF, Linz X, Kalmar IR, Allen CM. Multifocal calcifying epithelial odontogenic tumor. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 2007;104(2):30-4.
4. Ramias Romero J, Sáez Romero M, Rspall Martín P. Tumor de Pindborg. Rev Esp Cirug Oral y Maxilofac. 2007;29(5):19-24.
5. Germanier Y, Bornstein MM, Stauffer E, Buser D. Calcifying epithelial odontogenic Pindborg tumor of the mandible with clear cell component treated by conservative surgery: report of a case. J Oral Maxilofac Surg. 2005;63:1377-82.
6. Ungari C, Paladas G, Giovanotti F, Carnavale C, Iannetti G. Pindborg tumor in children. J Craniofac Surg. 2006;17(2):365-9.

7. Patiño B, Fernández-Alba J, García-Rozado A, Martín R, López-Cedrun JL, Sanroman B. Calcifying epithelial odontogenic Pindborg tumor: a series of 4 distinctive cases and a review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 2005;63:1361-8.
8. Casalots A, López D. Tumor odontogénico epitelial calcificante (tumor de Pindborg): a propósito de un caso. *Rev Esp Patol.* 2000;33(4):319-25.
9. Belmonte-Caro R, Torres-Lagares D, Mayorga-Jiménez F, García-Perla García A, Infante-Cossio P, Gutiérrez-Pérez JL. Calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg tumor). *Med Oral.* 2002;7(4):309-15.
10. Maiorano E, Renne G, Tradati N, Viale G. Cytological features of calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg tumor) with abundant cementum-like material. *Virchows Arch.* 2003;44(2):107-10.
11. Bridle C, Visson K, Ali N. Maxillary calcifying epithelial odontogenic (Pindborg) tumor presenting with abnormal eye signs: case report and literature review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2006;102(4):12-5.
12. Cicconetti A, Tallarico M, Bartoli A, Ripari A, Maggiani F. Calcifying epithelial odontogenic (Pindborg) tumor. A clinical case. *Minerva Stomatol.* 2004;53(6):379-87.
13. Ching AS, Pak MW, Kew J, Metreweli C. Imaging appearances of an extraosseous calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg Tumor). *Am J Neuroradiol.* 2006;21:343-5.

Recibido: 27 de junio de 2011.

Aprobado: 15 de agosto de 2011.

Dra. *Mara Isabel Morales Pardo*. Facultad de Ciencias Médicas de Ciego de Ávila, Morón. Correo electrónico: maraisabelmp@fcs.cav.sld.cu