

Ameloblastoma unicístico na mandíbula: relato de caso clínico

SARA MARQUES **AMARAL**¹ | LUIZ FELIPE CARDOSO **LEHMAN**² | FELIPE EDUARDO BAIRES **CAMPOS**³ |
JOANNA FARIAS **CUNHA**⁴ | RICARDO SANTIAGO **GOMEZ**⁵ | WAGNER HENRIQUES DE **CASTRO**⁶

RESUMO

O ameloblastoma é um tumor odontogênico benigno que envolve os maxilares e que tem um crescimento lento e invasivo, podendo causar grande destruição óssea, deslocamento e reabsorção de dentes. Há quatro subtipos de ameloblastoma: multicístico (sólido), desmoplásico, periférico e unicístico. O ameloblastoma unicístico acomete com maior frequência crianças. Clinicamente, caracteriza-se por um aumento de volume assintomático, que produz uma imagem radiográfica radiolúcida, unilocular e bem delimitada. É considerado um subtipo menos agressivo de ameloblastoma, tornando possível opções de tratamentos mais conservadoras, como a marsupialização e a enucleação, associadas ou não a terapias coadjuvantes, como a ostectomia periférica, crioterapia e cauterização térmica ou química. O objetivo do presente artigo é relatar um caso clínico de ameloblastoma unicístico em mandíbula e discutir os principais aspectos relativos ao seu diagnóstico e tratamento, realizado por meio da enucleação da lesão, associada à ostectomia periférica e cauterização química com solução de Carnoy.

Palavras-chave: Ameloblastoma. Criança. Neoplasias maxilomandibulares. Mandíbula. Terapêutica.

¹ Cirurgiã-dentista pela Universidade Federal de Minas Gerais.

² Especialista em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial pela EAP-ABO, Uberlândia/MG. Preceptor do Programa de Residência em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial do Hospital das Clínicas da Universidade Federal de Minas Gerais.

³ Doutor em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial pela Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Uberlândia. Preceptor do Programa de Residência em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial do Hospital das Clínicas da UFMG.

⁴ Ex-residente e Preceptora do Programa de Residência em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial do Hospital das Clínicas da Universidade Federal de Minas Gerais.

⁵ Doutor em Patologia Bucal pela Universidade de São Paulo. Professor titular em Patologia da Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Minas Gerais.

⁶ Doutor em Patologia Odontológica pela Faculdade de Medicina da UFMG. Coordenador do Serviço do Programa de Residência em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial do Hospital das Clínicas da Universidade Federal de Minas Gerais.

Como citar este artigo: Amaral SM, Lehman LFC, Campos FEB, Cunha JF, Gomez RS, Castro WH. Ameloblastoma unicístico na mandíbula: relato de caso clínico. J Braz Coll Oral Maxillofac Surg. 2016 jan-abr;2(1):61-7.
DOI: <http://dx.doi.org/10.14436/2358-2782.2.1.061-067.cre>

Enviado em: 15/08/2015 - **Revisado e aceito:** 09/12/2015

» Os autores declaram não ter interesses associativos, comerciais, de propriedade ou financeiros, que representem conflito de interesse, nos produtos e companhias descritos nesse artigo.

» O(s) paciente(s) que aparece(m) no presente artigo autorizou(aram) previamente a publicação de suas fotografias faciais e intrabucais, e/ou radiografias.

Endereço para correspondência: Sara Marques Amaral
Universidade Federal de Minas Gerais
Av. Presidente Antônio Carlos, 6627 - Pampulha, Belo Horizonte/MG - CEP: 31.270-901
E-mail: sarinhabocain@gmail.com

INTRODUÇÃO

O ameloblastoma é um tumor odontogênico benigno na região maxilofacial. Apesar de lento, o seu crescimento é localmente invasivo, podendo causar grande destruição das estruturas anatômicas adjacentes importantes, como tecido ósseo e dentes^{2,10}.

Considerando-se a sua apresentação clínica e histológica, o ameloblastoma pode ser classificado em quatro subtipos: multicístico (sólido), desmoplásico, periférico e unicístico⁹.

O ameloblastoma unicístico (AU) é uma variante que acomete com maior frequência crianças e adolescentes, sem preferência por um dos sexos. Classicamente, a sua apresentação clínica caracteriza-se por um aumento de volume endurecido à palpação, assintomático, com um conteúdo líquido de coloração amarelo citrino, localizado na região posterior da mandíbula^{6,2,10}.

Radiograficamente, essa lesão geralmente produz uma imagem radiolúcida, unilocular, bem delimitada, com insuflação das corticais ósseas, podendo causar deslocamento dos dentes associados ou reabsorção de suas raízes. Porém, raramente notam-se imagens sugestivas de destruição de cortical óssea^{6,2,10}.

O subtipo unicístico é considerado um ameloblastoma de comportamento menos agressivo e com menores possibilidades de recidiva ao tratamento. Por isso, modalidades terapêuticas mais conservadoras são preconizadas para essa neoplasia.

O objetivo do presente trabalho é discutir, a partir do relato de um caso clínico de um tumor que acometeu a mandíbula de uma criança, os principais aspectos relacionados ao diagnóstico e tratamento do AU.

RELATO DE CASO CLÍNICO

Paciente com 10 anos de idade, sexo feminino, melanoderma, foi referenciada ao ambulatório do Serviço de Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial do Hospital das Clínicas da Universidade Federal de Minas Gerais (HCUFG), oriunda de outra instituição hospitalar, com uma história de lesão assintomática na região posterior da mandíbula no lado direito

e tempo de evolução de cerca de três anos. Ela trazia o laudo de uma biópsia, realizada previamente, que descrevia um quadro histopatológico compatível com o diagnóstico de ameloblastoma. A paciente negou outras comorbidades.

Ao exame físico extrabucal, observou-se uma discreta assimetria mandibular à direita e ausência de enfiamento de gânglios linfáticos. O exame intrabucal revelou um pequeno aumento de volume, de consistência firme, recoberto por uma mucosa de aspecto e coloração normais, na região de molares inferiores direitos, além da ausência dos dentes 47 e 48.

A tomografia computadorizada de feixe cônico da mandíbula revelou uma imagem com expansão cortical, hipodensa, medindo 50,83 x 49,75 x 23,04mm, bem delimitada, unilocular, na região de ramo e ângulo direitos de mandíbula e associada aos dentes 46 (irrompido) e 47 e 48 (inclusos) (Fig. 1).

As lâminas do exame histopatológico do caso foram avaliadas por patologistas do Laboratório de Patologia da Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Minas Gerais (LPFO), que concordaram com o diagnóstico de ameloblastoma. A descrição clínica transoperatória do cirurgião que realizou a biópsia da lesão caracterizou o tumor como do subtipo unicístico (Fig. 2).

A neoplasia foi enucleada no HCUFG, sob anestesia geral, por meio de acesso intrabucal. O tumor apresentava-se encapsulado, com aspecto unilocular, contendo grande quantidade de líquido de coloração amarelo-citrino. Os dentes 46, 47 e 48, que se encontravam associados à lesão, foram removidos. Como tratamento coadjuvante à enucleação, a loja óssea cirúrgica foi tratada por meio de ostectomia periférica e cauterização química com solução de Carnoy (SC) por 5 minutos. A peça cirúrgica foi encaminhada ao LPFO que, por meio do exame anátomo-histopatológico do tumor, confirmou o diagnóstico de ameloblastoma unicístico, variante luminal. Após três anos de controle de tratamento pós-operatório, a paciente apresenta-se sem queixas importantes e sem sinais clínicos ou imagiológicos de recidiva da lesão (Fig. 3).

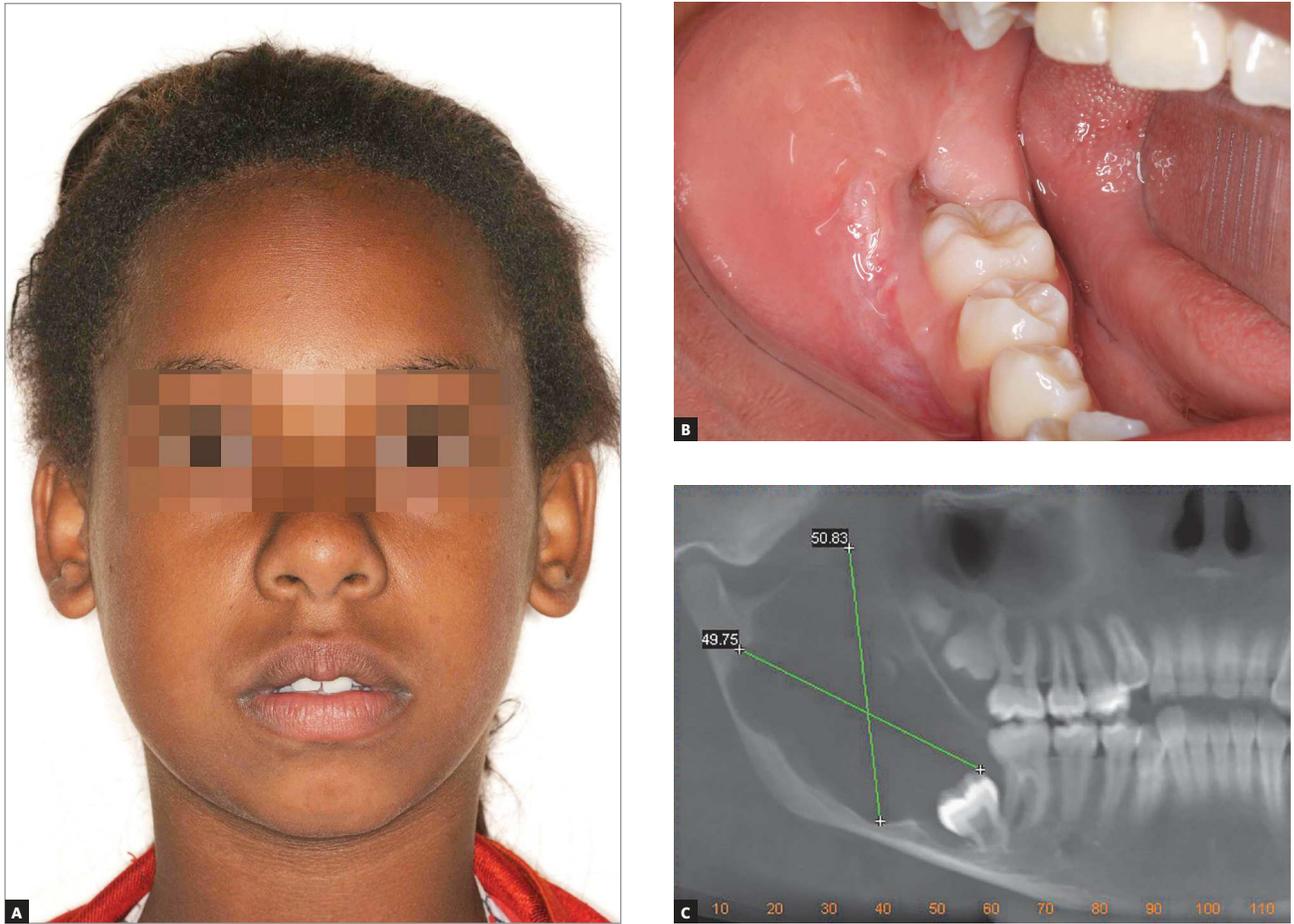


Figura 1: A) Exame extrabucal, mostrando discreta assimetria na região de mandíbula do lado direito. B) Exame intrabucal, mostrando aumento de volume na região de molares inferiores direitos. C) Tomografia computadorizada de feixe cônico da mandíbula, mostrando a extensão da lesão e a presença dos dentes 46, 47 e 48 associados à lesão.

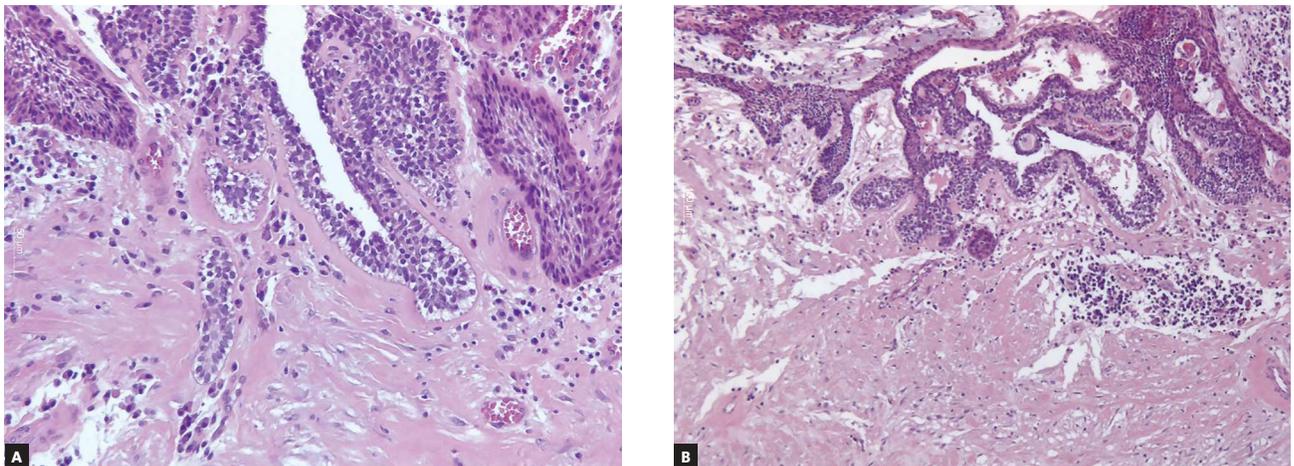


Figura 2: A) Corte histológico da lesão, mostrando células da camada basal semelhantes a ameloblastos. B) Corte histológico mostrando cápsula do tumor sem invasão.

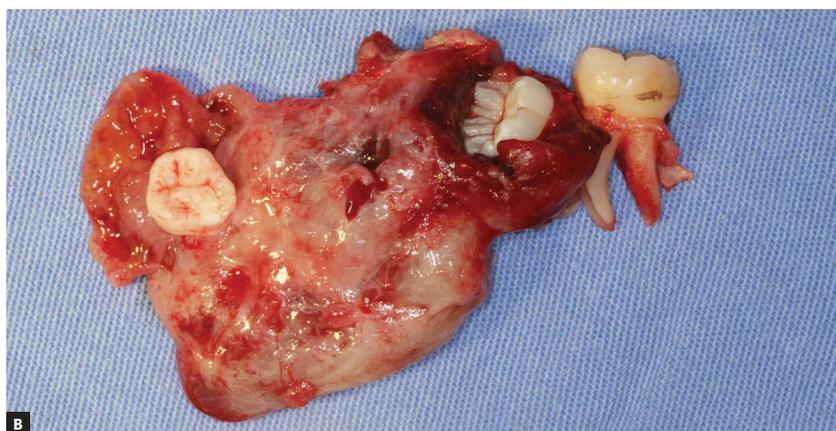
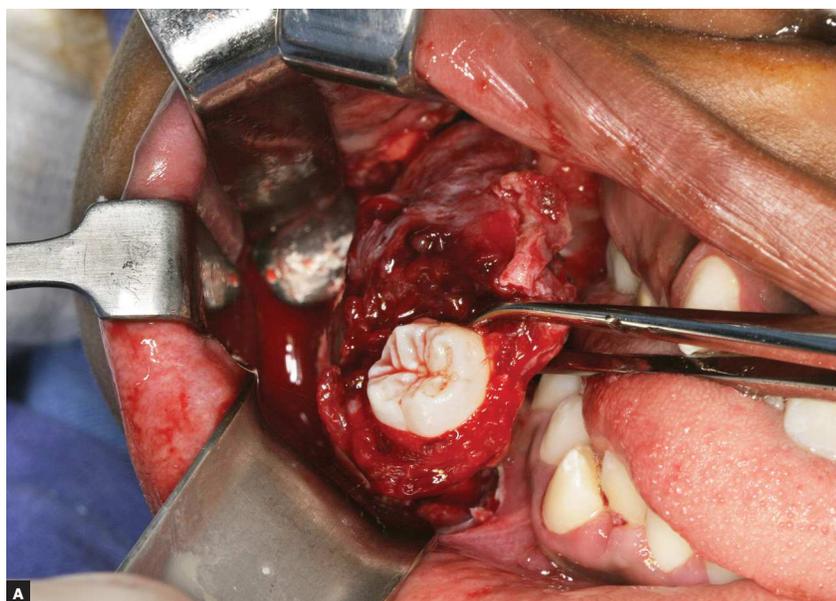


Figura 3: **A)** Imagem transoperatória mostrando o momento da enucleação do tumor, por meio de acesso cirúrgico intrabuca. **B)** Lesão encapsulada e dentes 46, 47 e 48 removidos. **C)** Radiografia panorâmica mostrando ausência de recidiva do tumor, após dois anos de controle pós-operatório.

DISCUSSÃO

O diagnóstico do AU deve ser baseado em aspectos clínicos, imaginológicos e histopatológicos. A lesão deve ser, clinicamente e radiograficamente, uniloculada e, histologicamente, mostrar uma lesão cística coberta por um epitélio de células ameloblásticas². O tumor relatado no presente trabalho apresentava todas as características supracitadas, confirmando o diagnóstico de AU.

Ackermann et al.¹, em 1988, sugeriram três variantes histopatológicas para os AUs. A primeira é a variante luminal, onde o tumor está confinado à superfície luminal da cápsula e a lesão tem uma parede cística fibrosa, revestido parcialmente ou totalmente de epitélio ameloblástico. A segunda variante é a intraluminal, na qual ao menos um nódulo da neoplasia se projeta da cápsula para o lúmen da lesão. Esses nódulos podem ser relativamente pequenos ou preencher largamente o lúmen da lesão. No terceiro tipo, a variante mural, a parede fibrosa do tumor está infiltrada por um típico ameloblastoma folicular ou plexiforme^{2,8}. As características histológicas da lesão relatada no presente artigo foram compatíveis com aquelas de um AU da variante luminal.

Antes da tomada de decisão quanto ao tratamento do AU, fatores como a apresentação clínica e histopatológica do tumor, o tamanho da lesão, o sítio anatómico envolvido, a idade do paciente, a taxa e a condição de recidiva projetada, além de possíveis impactos físicos, funcionais e psicológicos, devem ser considerados pelo cirurgião. O desejo do paciente e seus familiares, após o esclarecimento sobre as formas de tratamento possíveis ao caso, sempre deve nortear a escolha terapêutica¹⁰.

Quando comparado ao ameloblastoma multicístico ou sólido (AM/S), o AU é considerado uma neoplasia de comportamento menos agressivo e com menor potencial de recidiva ao tratamento¹⁰. Portanto, a abordagem terapêutica do tumor deverá ser compatível com a ameaça que ele representa ao paciente. Enquanto o AM/S é tratado, classicamente, pela ressecção com margem de segurança de 15 a 20mm além do limite imaginológico do tumor, modalidades mais conservadoras de tratamento, como a marsupialização e a enucleação, são preconizadas para o AU⁷.

Alguns autores descrevem a marsupialização como uma modalidade terapêutica aceitável para o AU, especialmente nos casos de variante histológica luminal e intraluminal. Eles justificam essa conduta

pela possibilidade da remissão da lesão como resposta ao tratamento. Isso viabilizaria a ressecção posterior do remanescente tumoral por meio de uma cirurgia de menor porte, com a preservação de estruturas anatómicas importantes. Entretanto, um AU com padrão histológico mural marsupializado poderá invadir o osso adjacente à lesão, passando a se comportar como um AM/S. Nesse caso, o cirurgião terá perdido a melhor oportunidade de cura do paciente, por meio da enucleação da neoplasia. É importante salientar que a biópsia incisional de um AU pode ser insuficiente para estabelecer a sua variante histopatológica. Uma vez que um mesmo tumor poderá apresentar, ao longo de sua cápsula, diferentes padrões histopatológicos. Portanto, o padrão histopatológico definitivo de um AU só poderá ser determinado a partir do exame de toda a cápsula do tumor^{5,6}.

A enucleação é uma forma de tratamento que implica na remoção do AU com um comprometimento mínimo de estrutura óssea, dentária ou neurovascular, sem aumentar de forma importante o índice de recidiva, especialmente quando terapias coadjuvantes são empregadas.

O AU, geralmente, apresenta um plano de clivagem bem definido entre a lesão e o osso adjacente, o que favorece a remoção do tumor na sua totalidade e em peça única.

As terapias coadjuvantes à cirurgia do AU mais comumente empregadas são a ostectomia periférica, crioterapia (nitrogênio líquido) e cauterização térmica ou química (solução de Carnoy)^{6,10}.

A solução de Carnoy (SC) é um potente fixador tecidual, que foi descrito pela primeira vez por Culter e Zollinger³, em 1933, para prevenção de recidiva de lesões císticas. O seu protocolo usual implica na sua aplicação na loja cirúrgica, após remoção da lesão, por três a cinco minutos⁵. Entretanto, em um estudo em modelo animal, Fredich et al.⁴ sugeriram que a aplicação de SC não deve exceder três minutos, para minimizar possíveis danos aos nervos próximos à área de cauterização.

A SC é também utilizada como terapia coadjuvante de vários tumores odontogênicos, inclusive o ameloblastoma. Alguns trabalhos demonstraram uma taxa de recidiva de AU após a enucleação, seguida da aplicação de SC, variando entre 10 e 16%^{5,6}. Segundo os autores, esses resultados sugerem um possível benefício no emprego dessa solução para tratamento dessas lesões.

A SC atua desvitalizando as células tumorais de uma neoplasia, cujos remanescentes tenham resistido ao procedimento cirúrgico. Todavia, essa substância tem uma capacidade de penetração de 1,54mm no osso adjacente ao tumor, enquanto tumores como o AU (subtipo mural) e o AM/S podem se estender por 2,3 a 8mm além da sua margem radiográfica. Portanto, essa terapia coadjuvante deverá ser combinada a outras estratégias, para minimizar a possibilidade de recidiva dessas lesões⁶.

Durante a enucleação, a extração dos dentes associados ao AU é recomendada. Essa conduta estabelecerá uma margem de segurança no tratamento^{5,10}. Na tentativa de se preservar dentes, remanescentes tumorais deixados entre as raízes determinarão a recidiva da neoplasia.

No caso relatado no presente artigo, a enucleação do tumor com a realização de ostectomia periférica e cauterização química com a SC na loja cirúrgica, além da remoção dos dentes associados à lesão, foi o tratamento de escolha. Acreditamos que essa seja a abordagem mais conservadora possível para o AU. Porém, apesar de tratar-se de uma forma mais branda de ameloblastoma, esse tumor pode manifestar características histológicas determinantes para um comportamento mais agressivo, tornando terapias ainda mais conservadoras — como a marsupialização — improficuas na cura da doença. Independentemente do potencial de recidiva da neoplasia, o

tratamento radical de ameloblastomas em crianças deve ser evitado. O resultado pós-operatório de uma ressecção marginal ou segmentar de um AU, invariavelmente, impõe ao paciente limitações funcionais e estéticas de menor ou maior impacto, muitas vezes tratadas por meio de cirurgias reconstrutivas de alta complexidade e grande morbidade trans e pós-operatória. Terapias cirúrgicas mais agressivas podem ser consideradas nos casos de recidiva ao tratamento inicial; porém, o sobretratamento deve ser evitado¹⁰.

A necessidade de um controle pós-operatório, em longo prazo, dos pacientes tratados de AU é imperiosa, independentemente da variante do tumor ou da modalidade de tratamento empregado. A paciente aqui apresentada se encontra sob estrito acompanhamento ambulatorial há três anos sem sinais de recidiva da lesão e deverá seguir sob rigoroso controle pós-operatório por, no mínimo, sete anos.

CONSIDERAÇÕES FINAIS

O AU é um tumor odontogênico benigno que acomete com maior frequência crianças e adolescentes. Quando comparado ao AM/S, o AU é considerado um tumor de comportamento menos agressivo e com menor potencial de recidiva. O tratamento dessas neoplasias geralmente é conservador, por meio da enucleação da lesão, emprego de terapias coadjuvantes e extração dos dentes associados ao tumor.

ABSTRACT**Unicystic ameloblastoma in the mandible: a case report**

Ameloblastoma is a benign odontogenic tumor affecting the jaws. Its growth is slow and invasive, and can lead to significant bone destruction, tooth resorption and displacement of teeth. There are four subtypes of ameloblastoma: multicystic (solid), desmoplastic, peripheral and unicystic. Unicystic ameloblastoma more frequently affects children. It is clinically characterized by an asymptomatic volume increase revealed by a radiolucent, unilocular and well defined radiographic image. It is

*considered a less aggressive subtype of ameloblastoma; thus, enabling conservative treatment to be carried out, namely: marsupialization and enucleation, associated or not with adjuvant therapy, such as peripheral ostectomy, cryotherapy and thermal or chemical cauterization. The objective of this study is to report a clinical case of a mandibular unicystic ameloblastoma and discuss the main aspects related to its diagnosis and treatment, performed by enucleation of the associated lesion with peripheral ostectomy and chemical cauterization with Carnoy solution. **Keywords:** Ameloblastoma. Child. Jaw neoplasms. Mandible. Therapeutics.*

Referências:

- Ackermann GL, Altini M, Shear M. The unicystic ameloblastoma: a clinicopathological study of 57 cases. *J Oral Pathol.* 1988 Nov;17(9-10):541-6.
- Bisinelli J, Loshii S, Retamoso L, Moysés S, Moysés S, Tanaka O. Conservative treatment of unicystic ameloblastoma. *Am J Orthod Dentofacial Orthod.* 2010 Mar;137(3):396-400.
- Culter E, Zollinger R. Sclerosing solution in the treatment of cysts and fistulae. *Am J Surg.* 1933;19(3):411-8.
- Frerich B, Cornelius CP, Wiethölter H. Critical time of exposure of the rabbit inferior alveolar nerve to Carnoy's solution. *J Oral Maxillofac Surg.* 1994 Jun;52(6):599-606.
- Lau SL, Samman N. Recurrence related to treatment modalities of unicystic ameloblastoma: a systematic review. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2006 Aug;35(8):681-90.
- Lee PK, Samman N, Ng IO. Unicystic ameloblastoma—use of Carnoy's solution after enucleation. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2004 Apr;33(3):263-7.
- Olaitan AA, Adeola DS, Adekeye EO. Ameloblastoma: clinical features and management of 315 cases from Kaduna, Nigeria. *J Craniomaxillofac Surg.* 1993 Dec;21(8):351-5.
- Philipsen HP, Reichart PA. Unicystic ameloblastoma. A review of 193 cases from the literature. *Oral Oncol.* 1998 Sept;34(5):317-25.
- Robinson L, Martinez MG. Unicystic ameloblastoma: a prognostically distinct entity. *Cancer.* 1977 Nov;40(5):2278-85.
- Scariot R, Silva RV, Silva Felix W Jr, Costa DJ, Rebellato NL. Conservative treatment of ameloblastoma in child: a case report. *Stomatologija.* 2012;14(1):33-6.