

Ameloblastoma: Relato de caso com recidiva extra-óssea após 32 anos.

Ameloblastoma: report of a case with recurrence after 32 years.

João Carlos B. Wagner *
 João Ephrain Wagner **
 Maurício Roth Volkweis ***
 Eduardo Gerhardt ****
 Hardy Ebling (in memoriam) #

Resumo

O ameloblastoma é um tumor odontogênico benigno mas de crescimento localmente infiltrativo, comportamento que justifica as constantes recidivas tardias que o tumor determina. Relata-se um caso clínico de ameloblastoma, em uma paciente do sexo feminino, branca, de 52 anos, operada inicialmente em março de 1965, quando sofreu ressecção mandibular e enxerto de acrílico. Em 1974 o enxerto ficou exposto ao meio bucal e nova cirurgia foi realizada, substituindo-o por crista ilíaca, o qual permanece funcional. Trinta e dois anos após a cirurgia inicial, a paciente solicitou atendimento junto ao Serviço de Cirurgia Bucomaxilofacial do Complexo Hospitalar da Santa Casa de Misericórdia de Porto-Alegre, com queixa de aumento de volume intra-bucal, relatando evolução de cinco anos, localizado sobre o enxerto. A lesão provocava apnéia e dificuldades de fonação e mastigação. Os exames por imagens mostravam uma área com radiopacidade discreta e com pontos mais radiopacos em seu interior. Observa-se também que não havia envolvimento da porção óssea do enxerto. Optou-se pela realização de biópsia total, sob anestesia geral. O exame microscópico revelou ameloblastoma, com áreas de metaplasia escamosa, degeneração cística e calcificação distrófica.

Unitermos

Cirurgia bucomaxilofacial; patologia bucal; ameloblastoma; tumores odontogênicos

INTRODUÇÃO

Conhecido há muitos anos, como um tumor odontogênico benigno de crescimento local invasivo, originado em remanescentes epiteliais envolvidos na formação dentária e com o primeiro caso publicado em 1827, segundo Bouquot et al. (1994) e Regezi et al. (1995). Este reconhecimento precoce gerou inúmeros relatos subseqüentes, como a primeira descrição histopatológica em 1853 e o primeiro desenho histopatológico em 1871. Tal abundância de informações permitiu traçar padrões para o comportamento da lesão. Neste sentido, 85 % dos casos de ameloblastoma ocorrem na mandíbula e 10 % acontecem na região posterior da maxila. (Bouquot et al. 1994; Nastri et al., 1995)

O tratamento do ameloblastoma é cirúrgico, porém existem controvérsias sobre a melhor técnica a ser empregada (Regezi et al., 1991; Kramer et al., 1992; Willians et al., 1992; Nastri et al., 1995)

Revisão de Literatura

O ameloblastoma é um tumor benigno odontogênico, que desenvolve-se a partir de

remanescentes epiteliais da embriogênese dentária. Apresenta um comportamento localmente agressivo. Microscopicamente observam-se estruturas que lembram o órgão do esmalte, no entanto não há a formação de estruturas mineralizadas. Este tumor é intra-ósseo tendo como origem para o seu desenvolvimento os remanescentes epiteliais aprisionados nos ossos maxilares, tais como os restos epiteliais de Mallassez, restos de Serres, epitélio reduzido do órgão do esmalte e o epitélio de cavidades císticas odontogênicas, especialmente o cisto dentífero. (Barbanchan et al., 1985; Regezi et al., 1991; Joseph et al., 1992; Hell et al., 1994; Nastri et al., 1995)

Historicamente esta patologia é conhecida há muito tempo, e os primeiros relatos no século passado referem sua capacidade de produzir deformidade acentuada, ressaltando, já naquela época, a importância do diagnóstico precoce. As discussões centram-se até hoje no seu comportamento localmente agressivo, elevada taxa de recidiva e baixo potencial para a metástase. (Bouquot et al., 1994; Regezi et al., 1991)

Joseph et al. (1992) afirma que aproximadamente 1 % de todos os cistos e tumores de

maxila e mandíbula são ameloblastomas, sendo que 80 % dos casos acontecem na mandíbula, contra 20 % na maxila. Neste percentual de casos na maxila, 47 % das lesões desenvolvem-se na região de molar, 15 % no seio maxilar e assoalho das fossas nasais, 9 % na região de pré-molares, 9 % na região de incisivos e caninos e 2 % no palato. Entretanto, Regezi et al. (1991) e Nastri et al. (1995) afirmam que dos 15 % de casos de ameloblastomas em maxila, 10 % são na região de molares superiores, 3 % em área de pré-molares superiores e 2 % em posição de caninos e incisivos superiores.

Clinicamente é uma lesão de adultos, predominando entre a quarta e quinta década de vida, admitindo porém, ampla variação. Parece não haver preponderância de sexo e os sintomas iniciais são mínimos ou ausentes (Joseph et al., 1995; Regezi et al., 1991). Porém, Nastri et al. (1995) avaliando uma série de treze casos cita que dor, perda de dentes e ulceração intra-bucal podem estar presentes e a média de idade para os pacientes foi 50 anos.

Os tumores maxilares são inerentemente mais complicados que os mandibulares porque,

* - Professor Titular de Cirurgia da ULBRA, Coordenador do curso de Especialização em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial do Complexo Hospitalar da Santa Casa de Misericórdia de Porto-Alegre e Chefe do Serviço de Cirurgia Bucomaxilofacial do Complexo Hospitalar da Santa Casa.

** - Professor do Curso de Mestrado em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial da ULBRA.

*** - Professor Adjunto de Cirurgia e Patologia Bucal da ULBRA, Professor do curso de Especialização em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial e cirurgião do Serviço de Cirurgia Bucomaxilofacial do Complexo Hospitalar da Santa Casa de Misericórdia de Porto-Alegre.

**** - Professor Assistente de Cirurgia da ULBRA, Professor do curso de Especialização em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial e cirurgião do Serviço de Cirurgia Bucomaxilofacial do Complexo Hospitalar da Santa Casa de Misericórdia de Porto-Alegre.

.# - Professor Titular de Patologia da Universidade Federal do Rio Grande do Sul e Consultor da Organização Mundial da Saúde.

embora histopatologicamente idênticos, o tecido ósseo mais delicado e a proximidade com estruturas como a base do crânio, o cérebro e a órbita dificultam a correta remoção do tumor. Esta relação com a base do crânio é responsável pela maioria das mortes atribuídas a ameloblastomas, o que justifica uma cirurgia o mais ampla possível nesta região com o intuito de evitar recidivas. Some-se a estes fatos um suprimento sanguíneo aumentado e a dificuldade de detecção precoce em exames radiográficos convencionais. (Barbachan et al., 1985; Regezi et al., 1991; Joseph et al., 1992; Willians, 1993; Nastri et al., 1995)

Radiograficamente, o tumor é descrito como uma lesão de imagem radiolúcida, com aspecto de "favos de mel" ou "bolhas de sabão", que representam as múltiplas cavidades císticas que o tumor pode apresentar. Poderá apresentar imagem unilocular ou multilocular. Ocasionalmente os ameloblastomas podem exibir uma área de esclerose óssea limitando a área da lesão. A reabsorção radicular dos dentes envolvidos na patologia pode aparecer em associação com o desenvolvimento da lesão. (Ebling, 1977; Barbachan et al., 1985; Regezi et al., 1991)

Diversos tipos histológicos são descritos para os ameloblastomas, podendo a mesma lesão apresentar um ou mais padrões. A Organização Mundial da Saúde (Kramer et al., 1992) descreve cinco tipos, a saber: folicular, plexiforme, acantomatoso, de células basais e de células granulosas.

Microscopicamente o ameloblastoma apresenta ilhas ou cordões de epitélio odontogênico, com as células da periferia cilíndricas altas, lembrando o pré-ameloblasto e as células da porção central semelhantes ao retículo estrelado. No interior das ilhas podem estar presentes filotes de ceratina, fenômeno denominado de metaplasia escamosa. O estroma é formado por tecido conjuntivo fibroso. A lesão pode sofrer degeneração cística, formando cavidades ou mesmo mostrar áreas de hialinização do tecido conjuntivo. (Barbachan et al., 1985; Regezi et al., 1991)

Os ameloblastomas são classificados em unicísticos, sólidos ou multicísticos, periféricos e subtipos malignos. Este tipo de distinção é importante, uma vez que a lesão unicística não necessita receber tratamento exagerado, porque apresenta um comportamento menos agressivo e tamanho menor que a variante sólida ou multicística. Há uma tendência de tratá-los por curetagem, com recidivas ao redor de dez por cento para algumas séries, mas evitando a mutilação do paciente.

Nas lesões que não são unicísticas, as recidivas podem atingir até 90 % dos casos tratados com curetagem, dependendo fundamentalmente do tempo de preservação. Logo, na variante sólida ou multicística a excisão cirúrgica radical é necessária, com ressecção do osso afetado com pelo menos 15 mm de tecido sa-

do como margem de segurança. A mucosa em contato com o tumor deve ser toda removida, pois poderá conter células ameloblásticas que podem contaminar o enxerto, quando da reconstrução. (Regezi et al., 1991; Hell et al., 1994; Nastri et al., 1995).

O diagnóstico do ameloblastoma passa, invariavelmente, por uma biópsia prévia que confirme os achados clínico e radiográfico (Ebling, 1977; Willians, 1992).

Williams (1993) revisando vários autores, constatou que com a opção cirúrgica radical, a cura situa-se entre 75 % a 100 % dos casos. Os trabalhos por ele analisados adotaram diferentes tempos de preservação.

É importante salientar a capacidade do ameloblastoma de desenvolver recidivas tardias. Este fato requer um acompanhamento a longo prazo, considerado crucial para o sucesso, fato que deve ser criticamente observado quando opções terapêuticas são apresentadas (Ebling 1977; Nastri et al., 1995; Willians, 1993). Ebling (1977) afirma "a preservação dos pacientes tratados de ameloblastoma só termina com a morte do paciente ou do profissional".

Integrado ao planejamento cirúrgico, obrigatoriamente deve-se pensar na reconstrução do paciente, devolvendo-lhe a capacidade funcional, anatômica e estética. Em função do tamanho do ameloblastoma e por consequência, do tamanho da ressecção, a reabilitação poderá necessitar de uma equipe multidisciplinar integrada.

RELATO DE CASO

Relata-se um caso clínico de ameloblastoma, em uma paciente do sexo feminino, branca, de 52 anos, operada inicialmente em março de 1965, quando sofreu ressecção mandibular e enxerto de acrílico.

Em 1974 o enxerto ficou exposto ao meio bucal e nova cirurgia foi realizada, substituindo-o por enxerto ósseo removido da crista ilíaca, o qual permanece funcional. No momento desta segunda cirurgia a paciente estava no quarto mês de gravidez, todavia não houve intercorrências.



Figura 1 - Aspecto clínico facial na consulta inicial. Observa-se a cicatriz submandibular das cirurgias anteriores.

Trinta e dois anos após a cirurgia inicial, em janeiro de 1997, a paciente solicitou atendimento junto ao Serviço de Cirurgia Bucomaxilofacial do Complexo Hospitalar da Santa Casa de Misericórdia de Porto-Alegre (figura 1), com queixa de aumento de volume intra-bucal, relatando evolução de cinco anos, localizado sobre o enxerto. A lesão provocava apnéia e dificuldades de fonação e mastigação devido ao deslocamento posterior da língua, em direção a via aérea.

Os exames por imagens mostravam uma área com radiopacidade discreta e com pontos mais radiopacos em seu interior. Observava-se também que não havia envolvimento da porção óssea do enxerto (figura 2). Optou-se pela realização de biópsia total, sob anestesia geral, preservando o enxerto ósseo existente.

As cirurgias anteriores determinaram uma deformação no trajeto da traquéia, impossibilitando intubação anestésica convencional, sendo necessário procedimento de intubação retrógrada para posicionamento do tubo anestésico.

O exame microscópico revelou tecido conjuntivo fibroso com ilhas e cordões de epitélio odontogênico onde as células da periferia lembravam os pré-ameloblastos e as células do interior o retículo estrelado (figura 3). Observou-se áreas de metaplasia escamosa, degeneração cística e calcificação distrófica, sendo o diagnóstico microscópico de ameloblastoma.

A paciente relata que não apresenta mais apnéia durante o sono e desapareceram as dificuldades mastigatórias e de fonação. A mesma está em preservação há 36 meses, permanecendo livre de nova recidiva até a última consulta de controle (figura 4).

DISCUSSÃO E CONCLUSÕES

O presente caso clínico concorda com Joseph et al. (1992) e Regezi et al. (1991) quanto a idade de maior ocorrência de ameloblastoma, situando-se na quinta década de vida, quando considera-se o aspecto da recidiva. Entretanto, a lesão inicial ocorreu em

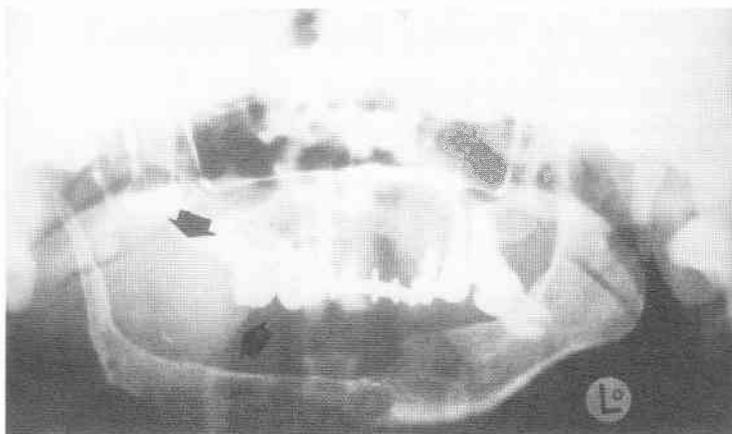


Figura 2 - Aspecto radiográfico onde observa-se o enxerto ósseo mandibular no lado direito e uma área de discreta radiopacidade (setas) com pontos mais radiopacos sobre o enxerto.

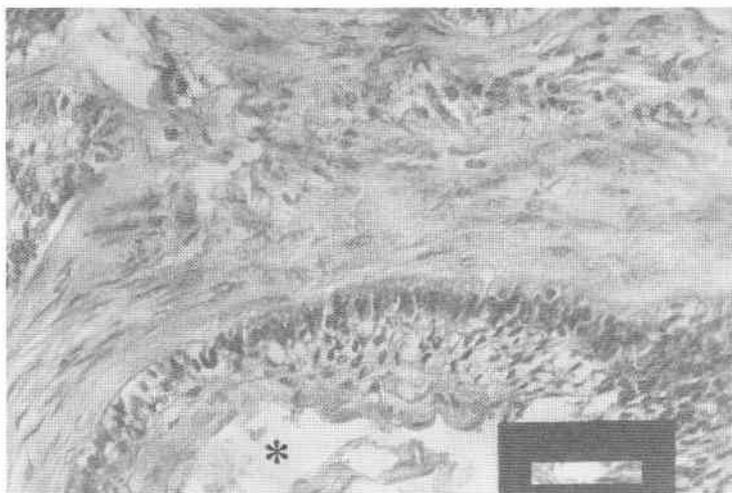


Figura 3 - Fotomicrografia da lesão revelando ilha de epitélio odontogênico (*) limitada por células colunares altas e presença de tecido conjuntivo fibroso. HE, 400x.

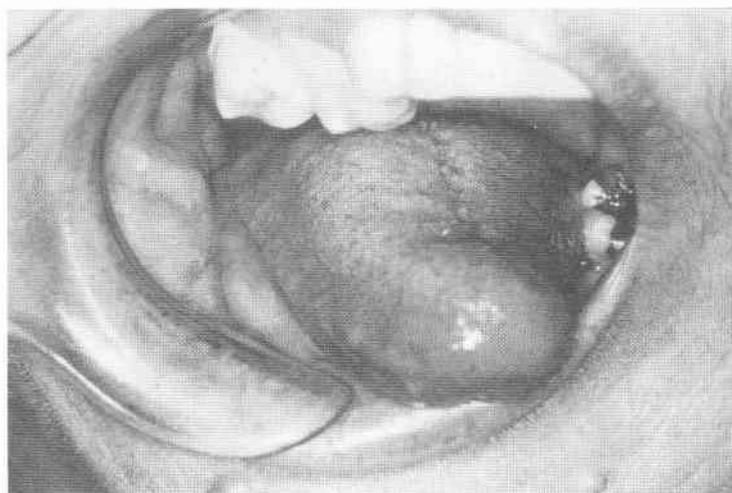


Figura 4 - Controle clínico pós-operatório.

idade bem mais prematura.

Relacionando o motivo da consulta dos pacientes com ameloblastoma citados por Nastri et al. (1995) e Joseph et al. (1992), este caso é concordante com este último autor que justifica como aumento de volume na gengiva o motivo para mais de 95 % das consultas de indivíduos com ameloblastoma e a paciente ainda apresentava como queixas a dificuldade de fonação, mastigação e apnéia do sono.

O diagnóstico de ameloblastoma deve es-

tar fundamentado em biópsia e não somente nos achados clínicos e imageológicos, segundo Ebling (1977) e Willians (1993), fato sustentado pelos autores deste trabalho.

As margens de segurança preconizadas por Hell et al. (1994), Nasty et al. (1995) e Regezi et al. (1991) com o objetivo de evitar recidivas foram obedecidas durante a realização da cirurgia inicial. Todavia, a observação destas margens no sentido inferior nesta última cirurgia resultaria na remoção do enxerto e a opção

foi pela sua preservação, fundamentando-se na imagem radiográfica favorável e no fato de ainda não ter-se a confirmação de tratar-se de recidiva tão tardia de ameloblastoma.

Concorda-se com Ebling (1977), Nastri et al. (1995) e Willians (1993) e tem-se como paradigma a preservação do paciente durante um longo período, preferentemente durante toda a vida do paciente ou do profissional. Este caso demonstra como é particularmente difícil estabelecer um limite para o acompanhamento do paciente.

Willians (1993) revisando muitos trabalhos sobre ameloblastoma concluiu que a opção por cirurgia radical promove a cura entre 75 % a 100 % dos casos. Contudo, um ponto importantíssimo devido as recidivas tardias como este trabalho demonstra, é a duração do período de preservação apresentado.

AGRADECIMENTO

Os autores agradecem ao Prof. Dr. Pantelis Varvaki Rados que permitiu o acesso e conferência dos dados e lâminas originais de 1965, através dos arquivos do Laboratório de Patologia Buco-Dentária da Universidade Federal do Rio Grande do Sul.

KEYWORDS

Oral surgery; oral pathology; ameloblastoma; odontogenic tumors.

ABSTRACT

Ameloblastoma is a benign odontogenic tumor with local, invasive growth and late recurrence. The aim of this paper is report a case with recurrence after 32 years. The patient was 52 year-old, female and presented to the Santa Casa Hospital Complex with a complain of oral swelling of 5 years duration, in the right mandibular body region. The area produced sleep apnea, mastigatory and speech problems. Microscopic exam reveled ameloblastoma with cystic degeneration and dystrophic calcification.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. BARBACHAN, J.J.; Considerações sobre o estudo dos ameloblastomas, *Rev. da Fac. de Odontol.*, Porto-Alegre, v. 27, p. 13-25, 1985.
2. BOUQUOT, J.E.; LENSE, E.C., The begining of oral pathology, part I: first dental reports of odontogenic tumors and cysts, 1839-1860. *Oral Surg. Oral Medi. Oral Pathol.* St. Louis, v. 78, n. 3, p.343-350, Sept. 1994.
3. EBLING, H.; **Cistos e tumores odontogênicos**, 3. ed. Porto-Alegre: Mc Grall Hill, 1977. Cap.4: Ameloblastoma (Adamantinoma), p. 39-82.

4. FEINBERG, S.E.; STEINBERG, B.,
Surgical management of
ameloblastoma - current status
of the literature, **Oral Surg Oral
Med Oral Pathol.** St. Louis, v. 81,
n. 4, p. 383-388, Apr., 1996.
5. GARDNER, D.G. Some current concepts
on the pathology of ameloblastomas.
Oral Surg Oral Med Oral Pathol.
St. Louis, v. 82, n. 6, p. 660-669,
Dec. 1996.
6. HELL, B., HEISLER, E.; GAZOUNIS,
G. et al., Microsurgical and
prosthetic reconstruction of patient with
recurrent ameloblastoma extending
into the skull base. **Int. J. Oral
Maxillofac. Surg.**, Copenhagen, v.
23, n. 2, p. 90-92, Apr., 1994
7. JOSEPH, B.K.; SAVAGE, N.W. Maxillary
ameloblastoma. Case report and
review of the literature. **Aust Dent
J.**, Sidney, v. 37, n. 2, p. 98-102,
Apr., 1992.
8. KRAMER, I.R.H.; PINDBORG, J.J.;
SHEAR, M. **Histological typing of
odontogenic tumors**, 2.ed., Wa-
shington: WHO, Springer-Verlag,
1992, 118 p.
9. NASTRI, A.L., WIESENFELD, D.,
RADDEN, G., et al., Maxillary
ameloblastoma: a retrospective study
of 13 cases. **Br. J. Oral Maxillofac.
Surg.**, Edinburgh, v. 33, n. 1, p. 28-
32, Feb., 1995.
10. REGEZI, J.; SCIUBBA, J.J. **Patologia
bucal: correlações clinicopatoló-
gicas**, Rio de Janeiro: Guanabara
Koogan, 1991, 390 p. Cap. 11: Tu-
mores odontogênicos, p. 248 - 271.
11. VASAN, N.T. Recurrent ameloblastoma
in an autogenous bone graft after 28
years: a case report., **New Zealand
Dent-J.**, Auckland, v. 91, n. 403,
p. 12-13, Mar., 1995.
12. WAGNER, J.C., SMIDT, R.,
VOLKWEIS, M.R., et al.,
Ameloblastoma de maxila: apre-
sentação de um caso. **Stomatos: Rev.
Odontol.**, Canoas, v. 1, n. 2, p 31-
35, Jan. / Jun., 1996.
13. WILLIAMS, R.W.; SPECULAND, B.,
ROBIN, P.E.; et al. Second
reconstruction of the posterior maxilla
with a free latissimus dorsi muscle
flap. **Int J. Oral Maxillofac. Surg.**,
Copenhagen, v. 21, n. 5, p. 284-286,
Oct., 1992.
14. WILLIAMS, T.P. Management of
ameloblastoma: a changing
perspective. **J Oral Maxillofac.
Surg.**, Philadelphia, v. 51, n. 10,
p. 1064-1070, Oct., 1993

Endereço para correspondência:

**Serviço de Cirurgia Bucomaxilofacial
Complexo Hospitalar da Santa Casa
Policlínica Santa Clara - Conjunto D
Rua Prof. Annes Dias, 285
Porto Alegre - RS - 90020-090
Fone: (51) 214.8055
E-mail: volkweis@aol.com**