

Relato de caso

Ameloblastoma multicístico reabilitado com prótese tridimensional

Multicystic ameloblastoma rehabilitated with tridimensional prosthesis

Eurico Candido de Oliveira Junior¹
Victor Felipe Ferreira Catapreta²
Felipe da Silva Peralta²
Luis Felipe das Chagas e Silva de Carvalho²
Alexandre Prado Scherma²

Autor para correspondência:

Victor Catapreta
Departamento de Odontologia – Universidade de Taubaté
Rua dos Operários, n. 9 – Centro
CEP 12020-340 – Taubaté – SP – Brasil
E-mail: victor.catapreta@gmail.com

¹ Universidade Estadual Paulista “Júlio de Mesquita Filho”, Instituto de Ciência e Tecnologia, Faculdade de Odontologia de São José dos Campos, Programa de Pós-Graduação em Odontologia – São José dos Campos – SP – Brasil.

² Universidade de Taubaté, Programa de Pós-Graduação em Odontologia – Taubaté – SP – Brasil.

Data de recebimento: 10 jul. 2019. Data de aceite: 17 jun. 2020.

Palavras-chave:
ameloblastoma;
intervenção cirúrgica;
reabilitação.

Resumo

Introdução: O ameloblastoma é um tumor odontogênico epitelial benigno, localmente invasivo e de crescimento lento. Apresenta diversas opções de tratamento, podendo o tratamento conservador alcançar taxas de recorrência de até 90%. Diante desses casos, deve ser realizada ressecção cirúrgica com margens de segurança. A reabilitação pós-cirúrgica pode ocorrer de várias formas, e, por meio de avanços tecnológicos, introduziu-se recentemente uma nova técnica utilizando prótese customizada tridimensional de articulação temporomandibular (ATM) e corpo de mandíbula, que é instalada no momento cirúrgico de ressecção, permitindo assim melhores resultados no que se refere à anatomia e função. **Relato de caso:** O presente trabalho relata um caso de ameloblastoma multicístico, em paciente do sexo feminino, 55 anos, em que foi realizada reabilitação com prótese customizada de ATM e corpo de mandíbula, após intervenção cirúrgica de ressecção completa com margem de segurança. O primeiro acompanhamento deu-se com 15 dias, e foram observados apenas sinais compatíveis com o pós-operatório. **Conclusão:** O aprimoramento contínuo dessas técnicas permite ao cirurgião maior previsibilidade dos casos, melhor controle pós-operatório e a possibilidade de proporcionar uma condição ideal de saúde geral aos pacientes.

Keywords:

ameloblastoma;
surgical intervention;
rehabilitation.

Abstract

Introduction: Ameloblastoma is a benign odontogenic epithelial tumor, locally invasive with slow growing. It shows various treatment options, and the conservative ones can reach recurrence rates up to 90%. At these cases, surgical resection must be performed. Postoperative rehabilitation could be done in many ways, and recently there is a new technique using a customized ear-jaw articulation (EJA) prosthesis, installed in the resection moment, that provides better results in anatomy and function. **Case report:** The present work relates a multicystic ameloblastoma in a 55-year-old woman that has rehabilitated with EJA custom prosthesis, after resection with security margins. First recall was performed after 15 days, and the patient showed post-operative normal signs. **Conclusion:** The continuous development of the techniques provides dental-surgeon better predictability of the cases, better postoperative control and the possibility of an ideal general health for the patients.

Introdução

O ameloblastoma foi descrito pela primeira vez em 1827 por Cuzack e detalhado em 1868 por Broca, como citado por Almeida *et al.* [1]. Trata-se de um tumor odontogênico epitelial benigno, localmente invasivo e de crescimento lento. Representa cerca de 10% dos tumores odontogênicos epiteliais, sendo o de maior significado clínico e o de segunda maior prevalência, atrás apenas dos odontomas. A área de maior acometimento é a mandíbula, principalmente áreas de corpo e ramo [14].

Ameloblastomas são tumores benignos agressivos, podendo originar-se do órgão do esmalte, da lâmina dentária, do folículo de cistos odontogênicos (sobretudo dentígeros) ou, também, de células epiteliais da camada basal da mucosa oral [3]. A prevalência relatada na literatura varia entre 0,6 e 1,6 caso por milhão de habitantes, como descrito nos estudos de Intapa [6] e Oomens e Van der Wall [11].

Os ameloblastomas classificam-se em três diferentes situações clinicoradiográficas, que devem ser reconhecidas e diferenciadas, por envolver tratamento e prognóstico distintos: sólidos ou multicísticos, em 86% dos casos; unicísticos, em 13% dos casos; e periféricos, em 1% dos casos [5]. De acordo com os padrões histológicos, podem ser classificados como: foliculares, plexiformes, acantomatosos, de células granulares, basaloides e desmoplásicos [5]. Normalmente, são assintomáticos, sendo descobertos em exames radiográficos de rotina, porém podem transformar-se em lesões de grandes proporções, provocando deslocamento

ou perfuração de corticais ósseas e reabsorção dentária [1-4, 8, 10].

A variante de ameloblastomas de maior incidência é a multicística, compreendendo 86% dos casos, além de maior tendência de agressividade e maior taxa de recorrência. Apresenta aspecto radiolúcido multilocular com padrão de bolhas de sabão ou favos de mel, com bordas bem definidas, podendo estar associada ou não a dentes inclusos. Uma característica utilizada para diagnóstico diferencial é a presença de reabsorção dentária, comum nos casos de ameloblastoma [1, 3].

Há várias opções de tratamento de acordo com o tipo e a localização da lesão, como enucleação, curetagem, ou mesmo ressecção cirúrgica, principalmente nos casos de maior complexidade e agressividade [1, 14, 16].

A literatura mostra que o melhor prognóstico para esse tipo de lesão está relacionado à escolha de um tratamento mais radical, sendo a ressecção com ampla margem de segurança a melhor forma de tratamento para o ameloblastoma, pois assim se eliminam as células causadoras, as quais normalmente estão associadas à recorrência. Casos de tratamentos mais conservadores, entre os quais se destaca a enucleação, apresentam taxa de recorrência entre 60 e 90%. Já nos casos em que há uma abordagem cirúrgica com margens de segurança, as taxas de recorrência são menores. Logo, a recorrência está diretamente ligada à escolha do tratamento cirúrgico [1-3, 14].

Quanto ao tratamento reabilitador para reconstrução, estes são feitos com osso autógeno,

próteses em três dimensões (3D) fabricadas por tecnologia CAD/CAM e tecidos próprios do paciente. Posteriormente, são instalados implantes sobre a prótese óssea para reabilitar a função. Quando o tratamento é realizado imediatamente após a ressecção cirúrgica da lesão, mostra melhores resultados se comparado às reconstruções feitas em um segundo momento, pois nesses casos pode haver colapso dos tecidos e dificuldade de adaptação das peças protéticas [12, 16].

As próteses 3D são fabricadas mediante um *software* específico por meio de tecnologia CAD/CAM, utilizando tomografia prévia do caso para confecção de uma prótese que se aproxime o máximo possível da realidade do paciente [12, 14, 16]. O material usado é uma matriz metálica composta normalmente de titânio e de um componente de polietileno de alto peso molecular para a região da fossa glenoidea. O corpo da mandíbula inclui cavidades para estabilização de osso autógeno, o que facilita a reabilitação posterior com implantes dentários convencionais [14, 16].

Sendo assim, o objetivo do presente artigo foi apresentar um caso clínico de cirurgia de ressecção

de ameloblastoma por meio de hemimandibulectomia com reconstrução imediata por prótese customizada de ATM, obtida por meio de reconstrução 3D.

Relato de caso

Paciente sexo feminino, 55 anos de idade, apresentou-se ao consultório especializado com queixa principal de dificuldade mastigatória do lado esquerdo da mandíbula. Ao exame clínico, foi constatado aumento de volume em hemiface com assimetria facial acentuada. Sendo assim, a paciente foi encaminhada ao serviço radiográfico especializado, para realização de tomografia computadorizada de feixe cônico. Identificou-se lesão osteolítica em corpo de mandíbula, com multiloculações e expansão da cortical (Figuras 1 e 2). No levantamento da história clínica da paciente, foi relatado tratamento cirúrgico havia muitos anos de lesão mandibular prévia, o que levou à hipótese diagnóstica de recidiva de ameloblastoma, a qual foi confirmada posteriormente por meio de biópsia incisional.



Figura 1 - (A, B e C) Cortes axiais tomográficos do caso

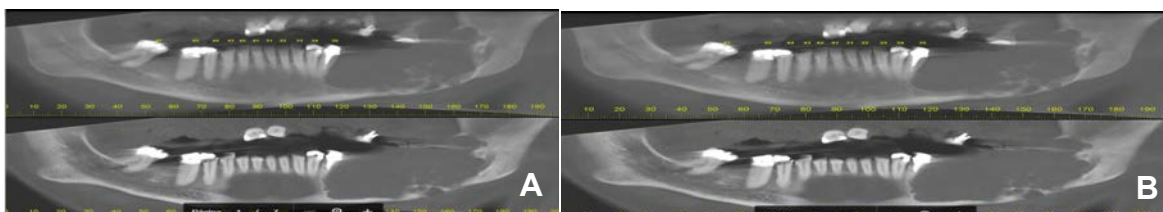


Figura 2 - (A e B) Cortes sagitais tomográficos do caso

Pelo fato de a lesão ser recorrente, com extensão para o ramo ascendente, a escolha de tratamento foi a ressecção cirúrgica por meio de hemimandibulectomia (Figuras 3 e 4), com reconstrução imediata por prótese customizada de ATM (Figuras 5 e 6). Usando um modelo virtual da prótese, foram confeccionados um componente metálico e uma cavidade glenoidea em polietileno para articulação do corpo.



Figura 3 - (A e B) Ressecção cirúrgica por meio de hemimandibulectomia



Figura 4 - (A e B) Peça cirúrgica



Figura 5 - Prótese customizada em posição



Figura 6 - Radiografia panorâmica mostrando a prótese customizada em posição

No 15.º dia de acompanhamento pós-cirurgia, a paciente não referiu queixa dolorosa, no entanto apresentou quadro de edema compatível com o procedimento cirúrgico realizado, além de parestesia e dificuldade de abertura bucal.

Discussão

O ameloblastoma é o tumor odontogênico mais comum. Logo, deve ser bem acompanhado, para que não haja falha em diagnóstico e também para que seja realizado o tratamento mais adequado para cada caso, pois, uma vez que essa lesão apresenta diferentes formas e comportamentos, saber o correto diagnóstico é essencial para um bom plano de tratamento [3].

Histologicamente, os ameloblastomas apresentam padrão celular plexiforme ou folicular, no entanto, em alguns casos, também podem apresentar células basais, granulares ou desmoplásicas. As células das regiões centrais têm um arranjo mais vago, mimetizando o retículo estrelado. O diagnóstico histopatológico é essencial para identificar-se a variante do ameloblastoma, pois com base na definição dessa variante é que se estabelece a correta estratégia de tratamento [2, 7]. Como é uma lesão decorrente do epitélio odontogênico ou ectomesênquima, tem como diagnósticos diferenciais cistos e tumores odontogênicos, como, por exemplo, o cisto dentífero. Os tumores odontogênicos são de difícil diagnóstico e requerem normalmente uma boa amostra de tecido, para que se evite interpretação inadequada por falta de material [8, 10].

O ameloblastoma apresenta, a longo prazo, risco de recorrência, sobretudo quando não passa por uma terapêutica inicial satisfatória, que na maioria dos casos consiste em um tratamento mais conservador. Em relação a esses tratamentos, Cossio *et al.* [3] afirmam que eles são mais aceitos em pacientes jovens, pois se minimizam assim os impactos psicológicos de uma ressecção agressiva e problemas futuros relativos a crescimento e função, porém, quando se comprova o potencial de expansão, principalmente em casos de recorrência, tais tratamentos se mostram ineficazes a médio e longo prazos, sendo necessária uma ressecção com margens de segurança. A ressecção nesses casos deve ser realizada com margens de segurança de pelo menos 1 cm adjacentes à lesão. Dependendo da localização do tumor, requer-se mandibulectomia ou hemimandibulectomia [1, 3, 14, 16, 17].

Mesmo nos dias de hoje, existem dificuldades para reabilitação dos pacientes que passam por tal processo, pois há dificuldade de recriar condições satisfatórias de forma, contorno e função, de maneira especial quando o processo cirúrgico envolve a região do côndilo. As opções de tratamento citadas pela literatura como padrão ouro incluem enxertos autógenos de fíbula ou crista ilíaca, combinados ou

não com a proteína morfogenética recombinante. Normalmente, essas reconstruções devem acontecer em dois momentos cirúrgicos [4, 14, 15, 17, 18].

Uma das opções de reconstrução das áreas afetadas é por meio de enxertos não vascularizados da crista ilíaca, porém tais enxertos são bastante complexos e possuem grande morbidade, pois necessitam de mais de um momento cirúrgico, além da dificuldade de obter um formato ideal para a reconstrução. Sendo assim, os autores sugerem a utilização de enxertos de fíbula microvascularizados, os quais permitem reconstrução mais adequada e previsível [3, 13].

A técnica de uso da fíbula para reconstrução foi proposta em 1989 e desde então vem sendo aprimorada para atingir resultados mais precisos. Um dos aprimoramentos dessa técnica foi relatado por Monaco *et al.* [9]. Os autores utilizaram modelos estereolitográficos baseados em tomografia, a qual permite o estudo da ressecção cirúrgica, de como serão posicionados os enxertos de fíbula e da inclinação e do tipo das barras que deverão ser utilizadas na reconstrução. Os autores ainda referem que a tomografia proporciona simulação virtual da cirurgia, o que ajuda a construir modelos que representam as ressecções a serem realizadas na área cirúrgica e na área de obtenção dos enxertos para reconstrução, possibilitando maior previsibilidade e, conseqüentemente, melhores resultados [4, 13, 18].

Já o enxerto livre de fíbula, segundo Monaco *et al.* [9] e Schepers *et al.* [15], é uma boa técnica de reconstrução, mas exige boa forma do osso a ser enxertado, para que se alcancem boas simetria facial e função. Avanços na técnica ao longo do tempo já propiciam, por meio de processos pré-operatórios, melhor adaptação e reconstrução durante a cirurgia. O avanço da técnica permitiu a criação de guias para que se alcancem melhores resultados morfológicos e funcionais, e suas variações possibilitam que a cirurgia seja guiada por modelos reconstruídos digitalmente, que conseguem mesmo antes do procedimento cirúrgico saber a localização dos enxertos e das placas de estabilização, assim como a curvatura necessária destas. Isso faz com que se tenha melhor previsão cirúrgica, bem como melhores aparência e função, que podem ser facilmente confirmadas por guias cirúrgicos. Entretanto, nesse tipo de reconstrução, é possível que haja deslocamento das placas personalizadas, em função do movimento de rotação natural do osso adjacente, o que pode fazer com que não se cheguem aos resultados desejados [4, 15].

Portanto, em razão de algumas limitações das técnicas existentes, foram realizados estudos visando desenvolver próteses que se adaptam melhor à realidade de cada paciente e que oferecem reconstruções mais fidedignas, tanto no aspecto estético como no funcional. Criaram-se, então, meios que permitissem que as próteses fossem confeccionadas mediante os cortes tomográficos do paciente por um *software* de computador (tecnologia CAD/CAM). A prótese para a região do corpo da mandíbula é confeccionada por uma liga de cromo-cobalto-molibdênio, e para reabilitação da região da fossa se utiliza polietileno de alto peso molecular. A prótese é jateada com partículas de titânio, para garantir melhor osseointegração. Segundo a literatura, esse tipo de prótese personalizada vem sendo usada no mercado por um período de aproximadamente 15 anos, sem que haja sinais até o momento de falhas de osseointegração ou fragilidade do material, mostrando dessa forma resistência e durabilidade [12, 14, 16].

Uma das vantagens das próteses customizadas é o reestabelecimento do contorno natural do paciente, sem que haja necessidade de remoção óssea autógena para reconstrução, o que ocasionaria risco de morbidade e, conseqüentemente, maior complexidade e tempo de recuperação. Outra vantagem associada à reabilitação com próteses customizadas é a de não se precisar de bloqueio maxilomandibular, por a fixação das próteses ocorrer na região condilar, o que permite adequada função, fato que se mostrava de grandes dificuldade e limitação quando da realização de enxertos livres, e, além disso, a possibilidade de reabilitação com implantes unitários em um segundo momento, pois na prótese há uma região para adaptação de enxerto ósseo autógeno [12, 14, 16].

Westermarck *et al.* [16] relatam em seu estudo que cabe ao cirurgião escolher a melhor técnica para reabilitação desses casos complexos, podendo até mesmo se fazer uma combinação entre as técnicas cirúrgicas, como entre implantes e osso autógeno, visando possibilitar a reabilitação com implantes unitários, para que assim se obtenham resultados os mais satisfatórios possíveis em relação à estética e à função.

A reconstrução com próteses aloplásticas, as quais simulam a articulação, hoje se mostra como a melhor opção quando comparada aos enxertos autógenos, pois a fixação metálica utilizada nos enxertos autógenos pode levar a problemas como erosão da fossa temporal, exposição da lâmina dura, ou até mesmo em alguns casos fratura das estruturas anexas [4, 7].

Conclusão

A reconstrução de casos complexos de ameloblastoma passou por grandes modificações ao longo dos anos. Busca-se o aprimoramento contínuo de técnicas reconstrutivas, levando assim ao desenvolvimento de opções de reabilitação que proporcionem menor morbidade e maiores conforto, função e estética, aliados a uma recuperação mais rápida. O aperfeiçoamento constante dessas técnicas permite ao cirurgião maior previsibilidade dos casos, melhor controle pós-operatório e a possibilidade de proporcionar uma condição ideal de saúde geral aos pacientes.

Referências

1. 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 Maxillofac Surg.* 2016;45(3):359-67.
2. Bachmann A, Linfesty R. Ameloblastoma, Solid/Multicystic Type. *Head Neck Pathol.* 2009;3:307-9.
3. Cossio PI, Golczer VP, Perez LMG, Caro RB, Fuentes RM, Carranza ET, et al. Treatment of recurrent mandibular ameloblastoma. *Exper Therap Med.* 2013;6:579-83.
4. Ferreti C, Polakow R, Coleman H. Recurrent Ameloblastoma: Report of 2 Cases. *Oral Maxillofac Surg.* 2000;58:800-4.
5. Gomes AC, Oliveira e Silva ED, Albert C, Andrade ESS. Conceito atual no tratamento dos Ameloblastomas. *Rev Cir Traumatol Buco-Maxillo-Fac.* 2006;6(3):9-16.
6. Intapa C. Analysis of Prevalence and Clinical Features of Ameloblastoma and its Histopathological Subtypes in Southeast Myanmar and Lower Northern Thailand Populations: A 13-Year Retrospective Study. *J Clin Diagn Res.* 2017;11(1):102-6.
7. Kumar H, Nishat R, Behura SS, Ramachandra S, Mohiddin G, Bandyopadhyay A. Multifarious Histological Patterns in Solid Multicystic Ameloblastoma: A Rare Presentation. *Int J Oral Health.* 2016;8(7):817-22.
8. Menezes J, Yaedú RYF, Valente AC, Oliveira M, Taveira LAA, Bullen IRFR. Recurrence of multicystic ameloblastoma: case report. *RFO.* 2015;20(3):355-60.

9. Monaco C, Stranix JT, Avraham T, Brecht L, Saadeh PB, Hirsch D, et al. Evolution of surgical techniques for mandibular reconstruction using free fibula flaps: The next generation. *Head Neck*. 2016;38(1):2066-73.
10. Muniz V, Freitas DJSM, Neri RFA, Dultra JA, Dultra FKAA. Características Clínicas, Radiográficas e Diagnóstico do Ameloblastoma: Relato de caso. *Rev Cir Traumatol Buco-Maxilo-Fac*. 2014;14(4):27-32.
11. Oomens M, Van der Wall I. Epidemiology of ameloblastomas of the jaws: A report from the Netherlands. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2014;19(6):581-3.
12. Rachmiel A, Shilo D, Blanc O, Emodi O. Reconstruction of complex mandibular defects using integrated dental custom-made titanium implants. *Brit J Oral Maxillofac Surg*. 2017;55(4):425-7.
13. Sannomiya E, Silva JVL, Brito AA, Saez DM, Angelieri F, Dalben GS. Surgical planning for resection of an ameloblastoma and reconstruction of the mandible using a selective laser sintering 3D biomodel. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2008;106:36-40.
14. Sarlabous M, Psutka D. Treatment of mandibular ameloblastoma involving the mandibular condyle: resection and concomitant reconstruction with a custom hybrid total joint prosthesis and iliac bone graft. *J Craniofacial Surg*. 2018;29(3):307-14.
15. Schepers R, Kraeima J, Vissink A, Lahoda LU, Roodenburg JLN, Reintsema H, et al. Accuracy of secondary maxillofacial reconstruction with prefabricated fibula grafts using 3D planning and guided reconstruction. *J Cranio-Maxillofac Surg*. 2016;44(4):392-9.
16. Westermarck A, Hedén P, Aagaard E, Cornelius C-P. The use of TMJ Concepts prostheses to reconstruct patients with major temporomandibular joint and mandibular defects. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2011;40(5):487-96.
17. Yang C, Shen S, Wu J, Zhang S. A New Modified Method for Accurate Mandibular Reconstruction. *J Oral Maxillofac Surg*. 2018;76(8):1816-22.
18. Zenha H, Azevedo L, Rios L, Pinto A, Barroso ML, Cunha C, et al. The application of 3-D biomodeling technology in complex mandibular reconstruction—experience of 47 clinical cases. *Eur J Plast Surg*. 2011;34:257-65.