



Carcinoma mucoepidermoide intraóseo en mandíbula: Reporte de caso y revisión de la literatura

Intraosseous mucoepidermoid carcinoma in mandible: Case report and literature review

Sandro Alexander Lévano Loayza, Universidad Peruana Cayetano Heredia, Lima, Perú, sandro.levano.l@gmail.com
Alfredo Yupanqui Pellanne, Universidad Peruana Cayetano Heredia, Lima, Perú, alfredo.yupanqui@upch.pe

RESUMEN

Introducción: El carcinoma mucoepidermoide intraóseo es una neoplasia maligna muy rara de las glándulas salivales, posee la capacidad de desarrollarse en cualquier parte de la boca, siendo la zona de molares-premolares y ángulo mandibular los sitios más frecuentes de su hallazgo. **Objetivo:** Reportar el caso de un carcinoma mucoepidermoide intraóseo de bajo grado en mandíbula, de una paciente adulta mayor que fue diagnosticada en un Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial después de ser referida por un odontólogo particular general. **Métodos:** Se le realizó un examen clínico e indicó la toma de radiografía panorámica, tomografía y biopsia incisional. **Resultados:** La biopsia dio como resultado carcinoma mucoepidermoide intraóseo y posteriormente fue transferida al Servicio de Oncología. **Conclusión:** El carcinoma mucoepidermoide intraóseo es una patología infrecuente, de pronóstico favorable cuando es detectado a tiempo y posee características similares a otras patologías no tan agresivas.

PALABRAS CLAVE

Carcinoma mucoepidermoide, mandíbula, glándulas salivales, patología oral, diagnóstico, neoplasias de la boca. (DeCS)

ABSTRACT

Introduction: Intraosseous mucoepidermoid carcinoma is a very rare malignant neoplasm of the salivary glands, it has the ability to develop in any part of the mouth, being the molar-premolar area and mandibular angle the most frequent sites of its finding. **Objective:** To report the case of a low grade intraosseous mucoepidermoid carcinoma in the jaw, in an older adult patient who was diagnosed in an Oral and Maxillofacial Surgery Service after being referred by a general private dentist. **Methods:** A clinical examination was carried out and indicated the taking of panoramic radiography, tomography and incisional biopsy. **Results:** The biopsy resulted in intraosseous mucoepidermoid carcinoma and was later transferred to the Oncology Service. **Conclusion:** Intraosseous mucoepidermoid carcinoma is an infrequent pathology, with a favorable prognosis when it is detected early and has similar characteristics to other not so aggressive pathologies.

KEYWORDS

Mucoepidermoid carcinoma, mandible, salivary glands, oral pathology, diagnosis, mouth neoplasms. (MeSH)

Recibido: 17 agosto 2020

Revisado: 6 diciembre 2020

Aceptado para publicar: 16 enero 2021

INTRODUCCIÓN

Los carcinomas de las glándulas salivales son patologías muy poco frecuentes, representan entre el 3 a 4% de todos los tumores malignos de la cabeza y el cuello. El Carcinoma Mucoepidermoide (CME) representa el 30% de estas neoplasias malignas, siendo el más frecuente (Coca-Pelaz *et al.*, 2015; Rapidis *et al.*, 2007) y afecta mayormente a la glándula parótida; seguido de glándulas salivales menores del paladar, glándulas submandibulares y glándulas sublinguales (Eversole, 1970). Un tipo muy raro de Carcinoma Mucoepidermoide es el que se encuentra en los huesos maxilares, el cual presenta las mismas características que otros carcinomas mucoepidermoides. Sin embargo, se asienta en tejido óseo, y toma por nombre Carcinoma Mucoepidermoide intraóseo (CMEI), también conocido como Carcinoma Mucoepidermoide central y representa únicamente entre el 2 a 3% de todos los carcinomas mucoepidermoides reportados (Nallamilli *et al.*, 2015; Bishop *et al.*, 2014). En Perú no existen datos epidemiológicos concisos que den mayor conocimiento sobre la prevalencia e incidencia del CMEI. Sin embargo, podemos pensar en cifras menores al 1.7% o 2.5% ya que estos valores representan al Carcinoma Mucoepidermoide (García, 2017; Mejía, 2020). El Carcinoma Mucoepidermoide intraóseo tiene una proporción de 2:1 con predominancia en sexo femenino sobre el masculino y 3:1 en donde se observa con mayor frecuencia en mandíbula que en maxila. El sub-sitio mandibular más afectado es la región de molares - premolares y ángulo mandibular (Tucci *et al.*, 2009). Puede aparecer en todas las edades, aunque generalmente ocurren entre la cuarta y quinta década de vida (Bell *et al.*, 2015).

Su presentación clínica es variable, usualmente se aprecia como

una masa indolora con o sin deformidad facial, con la asociación de sintomatología dolorosa, parestesia, disfagia, trismos o adenopatías. Sin embargo, también puede presentarse de forma asintomática (Holsinger *et al.*, 2002). Radiográficamente se aprecia como lesiones radiolúcidas uni o multiloculares de límites poco definidos (Bell *et al.*, 2015). Histológicamente se clasifican en tumores de bajo grado (lesiones quísticas, ricas en células mucosas, bien circunscriptas), de grado intermedio (generalmente más sólidos y menos circunscriptas) y de alto grado (anaplasia nuclear, necrosis, índice mitótico aumentado e invasión ósea, perineural y linfovascular) (El-Naggar *et al.*, 2017).

El tratamiento de elección es quirúrgico pudiendo ser desde una resección local o resección en bloque, seguido de una hemimandibulectomía y la disección del cuello cuando hay metástasis en los ganglios linfáticos regionales y el uso de la radioterapia como adyuvante. No se recomiendan terapias conservadoras como el legrado y la enucleación, ya que presentan un 40% de tasa de recurrencia frente al 4% de los tratamientos más radicales. El pronóstico del Carcinoma Mucoepidermoide intraóseo es generalmente bueno, con una tasa de supervivencia a 5 años para los de bajo grado de un 95% y para los de alto grado de 40%. La metástasis ocurre aproximadamente en el 9% de los casos, principalmente a los ganglios linfáticos regionales, clavícula, pulmones y cerebro. Por lo cual, se debe realizar un seguimiento al paciente de hasta 10 años, debido a la alta recurrencia y metástasis. (Rathore *et al.*, 2014; Bell *et al.*, 2015; Başaran *et al.*, 2018).

El objetivo del presente artículo es reportar un caso de Carcinoma Mucoepidermoide intraóseo de bajo grado en mandíbula, en una

paciente adulta mayor que fue diagnosticada en un Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, después de ser referida por un odontólogo particular general. Se le realizó una biopsia y posteriormente fue transferida al Servicio de Oncología.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente de sexo femenino, de 81 años de edad, sin antecedentes sistémicos, originaria de la provincia de Arequipa. Acudió al Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial del Hospital Cayetano Heredia, por referencia de un odontólogo particular general. El profesional observó una lesión tumoral a nivel del reborde alveolar inferior derecho, luego de realizale exodoncias en piezas dentarias remanentes anteroinferiores. La paciente refirió que hace aproximadamente 10 años presentaba sintomatología dolorosa a nivel del ángulo mandibular, por lo cual se sometió a tratamiento de exodoncias en aquella zona, los subsiguientes años persistió el dolor de forma leve. No obstante, no se realizó otra evaluación, además refirió tener el hábito nocivo de masticar tabaco desde hace 30 años.

Al examen clínico extraoral, se evidenció simetría facial conservada, facies no característica, piel y anexos de características normales (Fig. 1). Al examen clínico intraoral, presentaba una lesión de aspecto tumoral localizada en el IV cuadrante a nivel retromolar de 2.5x2x2 cm de diámetro, de forma indefinida y de superficie lisa con bordes parcialmente definidos, de consistencia firme y con rompimiento de la tabla lingual, acompañado de secreción mucosa. Además, presentaba edentulismo total tanto en la maxila, como en la mandíbula (Fig. 2).

Se solicitó la toma de una radiografía panorámica, en la cual se evi-



Figura 1: Fotografía extraoral frontal de características normales.

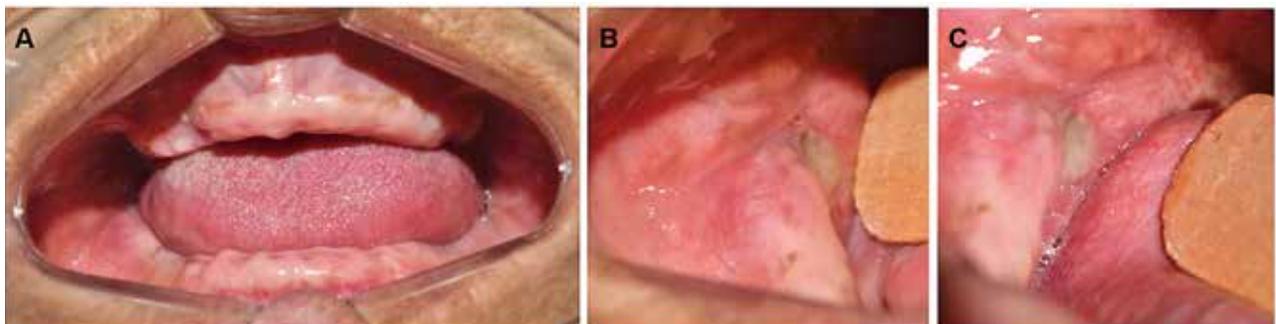


Figura 2: Fotografías intraorales. A: Vista frontal de los tejidos edéntulos de la cavidad oral con características normales. B, C: Vista de la lesión en región retromolar.

denció una imagen radiolúcida localizada en la rama ascendente de lado derecho de la mandíbula. Esta se extendía desde la altura del lecho alveolar de la pieza 4.7, hasta la rama mandibular con límites parcialmente definidos y bordes parcialmente corticalizados. Su forma era festoneada y con presencia de seudotabiques, borramiento de la cima de reborde alveolar, línea oblicua externa y borde anterior de la rama mandibular. Adicionalmente, se observaron cambios de estructura ósea circundante de aspecto apolillado (Fig. 3). Posteriormente, se indicó una tomografía ConeBeam. En ésta se evidenció un desplazamiento hacia caudal del conducto dentario inferior, borramiento de la tabla lingual abarcando cuerpo y ángulo mandibular con bordes parcialmente corticalizados (Fig. 4). Se concibieron diagnósticos presuntivos, como el quiste odontogénico glandular, ameloblastoma y carcinoma mucoepidermoide intraóseo, por lo que se procedió a realizar una biopsia incisional de la lesión.

El resultado del análisis anatomopatológico concluyó con el diagnóstico de Carcinoma Mucoepidermoide Intraóseo de bajo grado. Luego de informar a la paciente del resultado de su biopsia, se realizó interconsulta y transferencia inmediata al Servicio de Oncología para su posterior reevaluación y tratamiento.

DISCUSIÓN

El Carcinoma Mucoepidermoide Intraóseo fue por primera vez descrito como carcinoma epidermoide central (Loos., 1913). La primera edición de la clasificación de la Organización Mundial de la Salud (OMS) de los tumores odontogénicos, le acuñó el nombre de carcinoma intraóseo primario (PIOC), y la OMS lo definió como un carcinoma de células escamosas intraóseo, por no tener conexión inicial



Figura 3: Radiografía Panorámica. Se observa una zona ósea de aspecto apolillado a nivel retromolar y ángulo mandibular.



Figura 4: Tomografía Computarizada Cone Beam. A. Corte Axial: Se observa borramiento de tabla lingual y ángulo mandibular. B. Corte Sagital: Se observa desplazamiento del conducto dentario inferior hacia caudal. C. Corte Coronal.

Tabla I. Clasificación de la OMS del Carcinoma Primario intraóseo (PIOC) modificada por Waldron y Mustoe

Tipo 1	PIOC exquiste odontogénico
Tipo 2a	Ameloblastoma maligno
Tipo 2b	Carcinoma ameloblástico surgiendo de novo, ex ameloblastoma o exquiste odontogénico
Tipo 3	PIOC surgiendo de novo
Tipo 3a	Tipo queratinizado
Tipo 3b	Tipo no queratinizado
Tipo 4	Carcinoma mucoepidermoide intraóseo

Tabla II. Estadificación del CMEI por Brookstone y Huvos

Estadio 1	Cortical intacta sin expansión ósea
Estadio 2	Ruptura de cortical con expansión ósea
Estadio 3	Ruptura de cortical y afección ganglionar

con la mucosa oral y se afirmó que probablemente se desarrolla a partir de restos de epitelio odontogénico (Pindborg *et al.*, 1971).

Posteriormente, se incluyó al carcinoma mucoepidermoide intraóseo en la clasificación de los PIOC (carcinomas intraóseos primarios) como el tipo 4 (Tabla I). Esto se basó en el hecho de que el carcinoma mucoepidermoide de los maxilares era similar histológicamente al carcinoma mucoepidermoide salival y se pensaba que surgía de los restos epiteliales del quiste odontogénico (Waldron & Mustoe., 1989). De modo que, se han propuestos múltiples teorías para explicar su origen como (Johnson y Velez, 2008):

- Tejido de glándulas salivales ectópicas: restos de glándulas salivales embrionarias incluidos dentro de la mandíbula; atrapamiento de glándulas mucosas dentro del hueso.
- Transformación de células mucosas encontradas en quistes odontogénicos.

- Glándulas mucosas del seno maxilar o submucosas con extensión intraósea.

Debido a su baja ocurrencia y a su carácter intraóseo, el diagnóstico de CMEI (Carcinoma Mucoepidermoide intraóseo) puede significar un desafío. Las biopsias convencionales de tipo incisional o por aspiración pueden ser difíciles de realizar, inclusive podría ser necesario que éstas sean ejecutadas a través del tejido óseo que cubre el tumor (Basaran *et al.*, 2018). Por lo tanto, los criterios para su diagnóstico incluyen: paredes corticales intactas en tabla cortical, evidencia radiográfica de destrucción ósea, exclusión de otro tumor primario cuya metástasis podría imitar histológicamente al tumor central, exclusión de un tumor odontogénico, confirmación anatomopatológica, mucina intracelular detectable (Waldron & Koh, 1990; Alexander *et al.*, 1974). Sin embargo, existen algunas contraindicaciones en estos criterios, ya que se han reportado casos de perforación de la tabla cortical e invasión

de tejido cercano (Rathore *et al.*, 2014). Además, los hallazgos radiográficos del CMEI son más uniloculares o multiloculares que pueden asociarse con dientes impactados o quistes en el 50% de los casos (Eversole, 1970). Por otro lado, para determinar el pronóstico del CMEI se le clasificó en tres estadios (Tabla II), basado en la condición del tejido óseo subyacente (Brookstone & Huvos., 1992).

No obstante, el análisis anatomopatológico sigue siendo el método más certero para poder diferenciarlo, debido a que con frecuencia el Carcinoma Mucoepidermoide intraóseo (CMEI) es erróneamente confundido por sus características clínicas y radiográficas similares a algunos quistes y tumores odontogénicos benignos. Como son el ameloblastoma, quiste odontogénico glandular, queratoquiste odontogénico, carcinoma adenoides quístico (Costa *et al.*, 2017). En el presente caso, el diagnóstico inicial fue de quiste odontogénico glandular, seguido de ameloblastoma y por último el CMEI, que llegó a ser el diagnóstico definitivo gracias al uso del análisis anatomopatológico, motivo por el cual se debe resaltar nuevamente el uso y relevancia de este.

El Carcinoma Mucoepidermoide intraóseo (CMEI) tiene predilección por el sexo femenino, afecta mayormente a la mandíbula, y, con frecuencia, suele desarrollarse en su región posterior, específicamente en la zona de molares-premolares y ángulo mandibular (Tucci *et al.*, 2009). En este caso se puede evidenciar que, según el sexo, éste coincide con lo anteriormente mencionado y la patología se desarrolló tanto en la zona de molares-premolares como ángulo mandibular.

Con relación a la edad de aparición, se sabe que se puede pre-

sentar en cualquier rango de edad, reportándose casos desde 1 hasta los 78 años de edad, pero son más afectadas las personas que se encuentran entre la cuarta y quinta década de vida (Bell *et al.*, 2015). La edad es el factor primario para el desarrollo de neoplasias. Sin embargo, se considera relevante aclarar que el Carcinoma Mucoepidermoide intraóseo (CMEI) es diagnosticado con mayor frecuencia entre la cuarta y quinta década de vida. En el caso reportado en este artículo, la paciente presentaba 81 años, posicionándose en la novena década de vida, de este modo supera el rango de edad en que los CMEI se reportan. No obstante, éste no es un criterio de exclusión de la patología. De modo que esta paciente es la más longeva en presentar este tipo de lesión según la literatura científica.

CONCLUSIONES

El carcinoma mucoepidermoide intraóseo es una patología muy infrecuente, que se puede desarrollar en cualquier década de vida, y debido a que sus características imagenológicas son similares a las de otras enfermedades puede ser diagnosticado erróneamente.

Para toda lesión en la parte posterior de la mandíbula, que se acompañe de secreción mucosa sin causa aparente, debe considerarse al CMEI (Carcinoma mucoepidermoide intraóseo) como un posible diagnóstico diferencial. Sobre todo, cuando cumple con otras características pertenecientes a esta afección. Este manejo podría evitar retrasos en su diagnóstico y procurar la remisión inmediata a un centro o servicio especializado en el tratamiento de esta patología.

Cuando se detecta a tiempo el pronóstico es bueno y el riesgo de metástasis es poco, sobre todo hacia la zona de los ganglios linfáticos.

De modo que es posible afirmar que un correcto diagnóstico clínico, sumado a los datos que proporcionan los exámenes auxiliares (imagenológicos e histopatológicos) desempeña una importancia evidente.

Limitaciones: Una de las limitaciones que presenta este manuscrito es la ausencia de la imagen histopatológica de la lesión. Ésta se encuentra dentro del centro particular donde se analizó, y, por motivo de la pandemia, este permanece cerrado. Otra limitación es que no fue posible dar seguimiento del caso cuando la paciente fue transferida al servicio de oncología. ■■■

Autores.

Sandro Alexander Lévano Loayza1
Alfredo Yupanqui Pellanne2

1.- Cirujano Dentista y Diplomado en Cirugía Oral, Facultad de Estomatología, Universidad Peruana Cayetano Heredia.
2.- Especialista en Cirugía Oral y Maxilofacial y Docente, Departamento Académico de Medicina y Cirugía Bucal Maxilofacial, Facultad de Estomatología, Universidad Peruana Cayetano Heredia.

Autor para correspondencia:
Sandro Lévano Loayza
E-mail: sandro.levano.l@gmail.com
<https://orcid.org/0000-0002-2603-989X>

PERÚ

BIBLIOGRAFÍA

Alexander RW, Dupuis RH, Holton H. Central mucoepidermoid tumor (carcinoma) of the mandible. *J Oral Surg.* 1974;32:541–7.

Başaran, B.; Doruk, C.; Yılmaz, E.; Sünnetçio lu, E.; Bilgiç, B. Intraosseous mucoepidermoid carcinoma of the jaw: report of three cases. *Turk Arch Otorhinolaryngol*, 56(1):42-6, 2018.

Bell, D.; Lewis, C.; El-Naggar, A. K.; & Weber, R. S. Primary intraosseous mucoepidermoid carcinoma of the jaw: Reappraisal of The MD Anderson Cancer Center experience. *Head & Neck*, 38(S1), E1312–17, 2015.

Bishop, J. A.; Yonescu, R.; Batista, D.; Yemelyanova, A.; Ha, P. K.; & Westra, W. H. Mucoepidermoid carcinoma does not harbor transcriptionally active high risk human papillomavirus even in the absence of the MAML2 translocation. *Head and Neck Pathology*, 8(3), 298–302, 2014.

Brookstone, M. S.; Huvos, A. G. Central salivary gland tumors of the maxilla and mandible: a clinicopathologic study of 11 cases with an analysis of the literature. *J Oral Maxillofac Surg*, 50: 229-36, 1992.

Coca-Pelaz, A.; Rodrigo, J. P.; Triantafyllou, A.; Hunt, J. L.; Rinaldo, A.; Strojan, P.; Haigentz, M.; Mendenhall, W.; Takes, R.; Vander Poorten, V.; Ferlito, A. Salivary mucoepidermoid carcinoma revisited. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 272, 799–819, 2015.

Costa, A. L. F.; Ferreira, T. L. D.; Soares, H. A.; NahasScocate, A. C. R.; Montesinos, G. A. P.; and Braz-Silva, P. H. “Cone beam computed tomography diagnostic imaging of intraosseous mucoepidermoid carcinoma in the mandible,” *Journal of Clinical and Experimental Dentistry*, 1158–61, 2017.

El-Naggar, A. K.; Chan, J. K. C.; Grandis, J. R.; Takata, T.; Slootweg, P. J. WHO Classification of Head and Neck Tumors 4th Edition. IARC, 2017.

Eversole, L. R. Mucoepidermoid carcinoma: review of 815 reported cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 28:490-5, 1970.

García A. Frecuencia de pacientes con cáncer oral y orofaríngeo atendidos en el Hospital Belén y Hospital Víctor Lazarte Echegaray en la ciudad de Trujillo durante el periodo 2009 – 2015. Tesis de Título Profesional. Universidad Católica Los Ángeles de Chimbote. Trujillo, Perú. 2017.

Holsinger, C.; Owens, J.; Raymond, K.; Myers, J. Central mucoepidermoide carcinoma of the mandible: Tumorigenesis within a keratocyst. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*, 128:718-20, 2002.

Johnson, B.; & Velez, I. Central Mucoepidermoid Carcinoma With an Atypical Radiographic Appearance *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 106(4): e51-3, 2008.

Kechagias, N.; Ntomouchtsis, A.; Mavrodi, A.; Christoforidou, B.; Tsekos, A.; & Vahtsevanos, K. Central mucoepidermoid carcinoma of the anterior region of the mandible: report of an unusual case and review of the literature. *Oral and Maxillofacial Surgery*, 19(3), 309–13, 2015.

Loos, D. Central mucoepidermoid carcinoma of the jaw. *Dtsch Monatschr Zahnheik*, 31:308, 1913.

Mejía P. Análisis comparativo del diagnóstico presuntivo y el diagnóstico definitivo en informes anatomopatológicos de pacientes con diagnóstico de cáncer bucal del laboratorio de patología de la clínica estomatológica de la Universidad Peruana Cayetano Heredia, periodos 2016 – 2019. Tesis de Segunda Especialidad. Universidad Peruana Cayetano Heredia. Lima, Perú. 2020.

Nallamilli, S. M.; Tatapudi, R.; Reddy, R. S.; Ravikanth, M.; Rajesh, N. Primary intraosseous mucoepidermoid carcinoma of the maxilla. *Ghana Med J*, 49(2):120-3, 2015.

Pindborg, J. J.; Kramer, I. R.; Torloni H. Geneva: World Health Organization; Histologic Typing of Odontogenic Tumors, Jaw Cysts and Allied Lesions; 1971.

Rapidis, A. D.; Givalos, N.; Gakiopoulou, H.; Stavrianos, S. D.; Faratzis, G.; Lagogiannis, G. A.; & Patsouris, E. Mucoepidermoid carcinoma of the salivary glands: Review of the literature and clinicopathological analysis of 18 patients. Oral oncology, 43(2):130-6, 2007.

Rathore, A. S.; Ahuja, P.; Chhina, S.; Ahuja, A. Primary intraosseous mucoepidermoid carcinoma of maxilla. J Oral Maxillofac Pathol, 18(3):428-31, 2014.

Tucci, R.; Matizonkas-Antonio, L. F.; de Carvalhosa, A. A.; Castro, P. H. S.; Nunes, F. D.; & Pinto, D. S., Jr. Central mucoepidermoid carcinoma: report of a case with 11 years evolution and peculiar macroscopical and clinical characteristics. Medicina Oral, Patologia Oral Y Cirugia Bucal, 14(6), E283-6, 2009.

Waldron, C. A.; Mustoe, T. A.; Primary intraosseous carcinoma of the mandible with probable origin in an odontogenic cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 67:716-24, 1989.

Waldron, C. A, Koh M. Central mucoepidermoid carcinoma of the jaws: report of four cases with analysis of the literature and discussion of the relationship to mucoepidermoid, sialodontogenic, and glandular odontogenic cysts. J Oral Maxillofac Surg. 1990;48:871-7.