



## Tratamiento con descompresión de un queratoquiste odontogénico

Alejandro Alonso Moctezuma,\* Edmundo Santos Jaimes,\* Eric Zeta Castañeda,§  
Patricia González-Alva,† Javier Portilla Robertson\*

\* Departamento de Patología, Medicina Bucal y Maxilofacial. División de Estudios de Postgrado e Investigación. Universidad Nacional Autónoma de México.

§ Residente de la Especialidad en Patología Bucal. UNAM.

† División de Estudios de Postgrado e Investigación. Laboratorio de Bioingeniería de Tejidos.

### RESUMEN

**Introducción:** El tratamiento del queratoquiste, previamente conocido como tumor odontogénico queratoquistico, sigue siendo controversial. El queratoquiste es una lesión odontogénica que probablemente deriva de la lámina dental, de manera frecuente se localiza en la parte posterior del hueso mandibular y, seguramente, representa a la lesión antes denominada quiste primordial. El queratoquiste se considera una lesión benigna de comportamiento biológico agresivo. Una amplia variedad de técnicas se han reportado para su tratamiento, tales como la enucleación, la marsupialización y la resección en bloque, así como la combinación de varios métodos. En general, la resección quirúrgica se considera como la última opción para su tratamiento. **Objetivo:** Presentar el reporte de un caso de una paciente de 36 años con diagnóstico de queratoquiste odontogénico asociado a un proceso inflamatorio crónico. **Material y métodos:** El tratamiento de elección fue una descompresión de la lesión usando un tubo tipo Penrose, seguida de irrigación con clorhexidina al 2%. **Resultados:** Durante el seguimiento se observó una reducción de aproximadamente 80% del tamaño original del quiste. De igual manera, la cavidad aceptaba menos cantidad de irrigación; por último, se realizó una biopsia excisional junto con osteotomía periférica. La biopsia reveló un queratoquiste odontogénico con metaplasia escamosa. **Discusión:** En el presente caso el tratamiento conservador utilizado resultó exitoso; sin embargo, para este tipo de pacientes el seguimiento a largo plazo es recomendable. Además, la asociación con el síndrome del carcinoma basocelular debe considerarse en pacientes con lesiones extensas o múltiples. **Conclusiones:** El abordaje quirúrgico inicial dirigido a pacientes con tumores odontogénicos agresivos puede tener efectos importantes en la recuperación de los pacientes afectados y en su calidad de vida. Por lo tanto, un

adecuado plan de tratamiento requiere de la valoración multidisciplinaria de cada caso.

**Palabras clave:** Descompresión, marsupialización, metaplasia, queratoquiste, tumor odontogénico queratoquistico.

### INTRODUCCIÓN

El queratoquiste (KC) es descrito como una entidad con características clínicas e histológicas bien definidas, acompañadas de una alta tasa de recurrencia si es tratado con simple enucleación.<sup>1,2</sup> De manera frecuente, la lesión se localiza en la zona posterior del hueso mandibular.<sup>3,4</sup> Además, el comportamiento local agresivo de la lesión ha sido bien documentada.<sup>3</sup> El KC es una lesión quística odontogénica que probablemente deriva de la lámina dental y, seguramente, representa a la lesión antes denominada quiste primordial.<sup>5</sup>

El término KC fue utilizado por primera vez por Philipesen en 1953, en un artículo original escrito en danés, con un resumen en inglés.<sup>5-7</sup> La lesión atrajo interés por sus características histológicas específicas, y fue reconocida de manera individual entre 1970 y 1971, después de que Browne describiera sus características clínicas e histológicas.<sup>5</sup> Finalmente, en 1963, Pindborg y Hansen sugirieron una serie de criterios histológicos que describían las características esenciales de la lesión.<sup>4</sup>

La imagen histológica del KC odontogénico incluye un epitelio escamoso paraqueratinizado y una capa basal bien definida habitualmente corrugada. Las células de la capa basal son distintivas de esta entidad, de forma polarizada y empalizada, además de estar rodeadas por tejido conjuntivo fibroso denso. La pared del quiste suele ser de grosor uniforme y delgada, de entre seis y diez células de espesor; esta pared llega a engrosarse como consecuencia de un proceso inflamatorio crónico.<sup>8-11</sup>

Recibido: Mayo 2020. Aceptado: Julio 2020.

**Citar como:** Alonso MA, Santos JE, Zeta CE, González-Alva P, Portilla RJ. Tratamiento con descompresión de un queratoquiste odontogénico. Rev Odont Mex. 2020; 24 (2): 124-133.

© 2020 Universidad Nacional Autónoma de México, [Facultad de Odontología]. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Pese a los numerosos estudios publicados, los datos con respecto a la prevalencia de los queratoquistes no son consistentes, revelando la falta de consenso que existe entre los cirujanos. Por ejemplo, son pocos los estudios que utilizan la clasificación de la Organización Mundial de la Salud para el diagnóstico del queratoquiste; y es común que los trabajos previos a 1992 incluyan dentro del diagnóstico quistes con epitelio ortoqueratinizado.<sup>4</sup>

En un reciente metaanálisis en el que se revisaron un total de nueve artículos, el cual incluyó 49,846 quistes y tumores asociados a terceros molares impactados, Mello y colaboradores reportaron una prevalencia del 0.5% para el queratoquiste.<sup>12</sup>

La tasa de recurrencia para el KC odontogénico varía desde 0% hasta 62%.<sup>13-18</sup> Pogrel menciona que entre más tiempo se mantiene el seguimiento, la tasa de recurrencia aumenta, y concluye que la tasa de recurrencia exacta para el KC puede establecerse después de 20 años o más de seguimiento.<sup>5</sup>

La discrepancia relacionada con las tasas de recurrencia podría estar reflejando las diferencias entre los KC esporádicos y sindrómicos.<sup>18</sup> Al profundizar sobre esta misma idea, los pacientes con el síndrome de carcinoma nevoide de células basales (SCNCB) presentan múltiples anomalías esqueléticas, tales como costillas bifidas, calcificación de la hoz del cerebro y múltiples KC en mandíbula y maxila.<sup>4,18</sup> Además, se ha reportado que entre 60-85% de los pacientes presentan mutaciones en el gen supresor tumoral PTCH, por lo que llegan a desarrollar más de un KC a lo largo de su vida.<sup>19</sup>

Después de seis décadas, el tratamiento más apropiado para los KC odontogénicos sigue siendo controversial.<sup>5</sup> El propósito del presente reporte es presentar el caso de una paciente de 36 años con un queratoquiste asociado a un proceso inflamatorio en el ángulo mandibular izquierdo, y que fue tratado con marsupialización más descompresión. Asimismo, se incluyó una revisión de la literatura acerca del tratamiento del queratoquiste odontogénico.

## MATERIAL Y MÉTODOS

**Reporte de caso:** paciente femenino de 36 años de edad, se presentó en la Clínica de Medicina Bucal, de la División de Estudios de Postgrado e Investigación, en la Universidad Nacional Autónoma de México, por presentar un ligero aumento de volumen en la zona posterior inferior del lado izquierdo, con una evolución de entre ocho meses y un año aproximadamente. La paciente presentaba dolor en la zona sin presentar pérdida de la sensibilidad. A

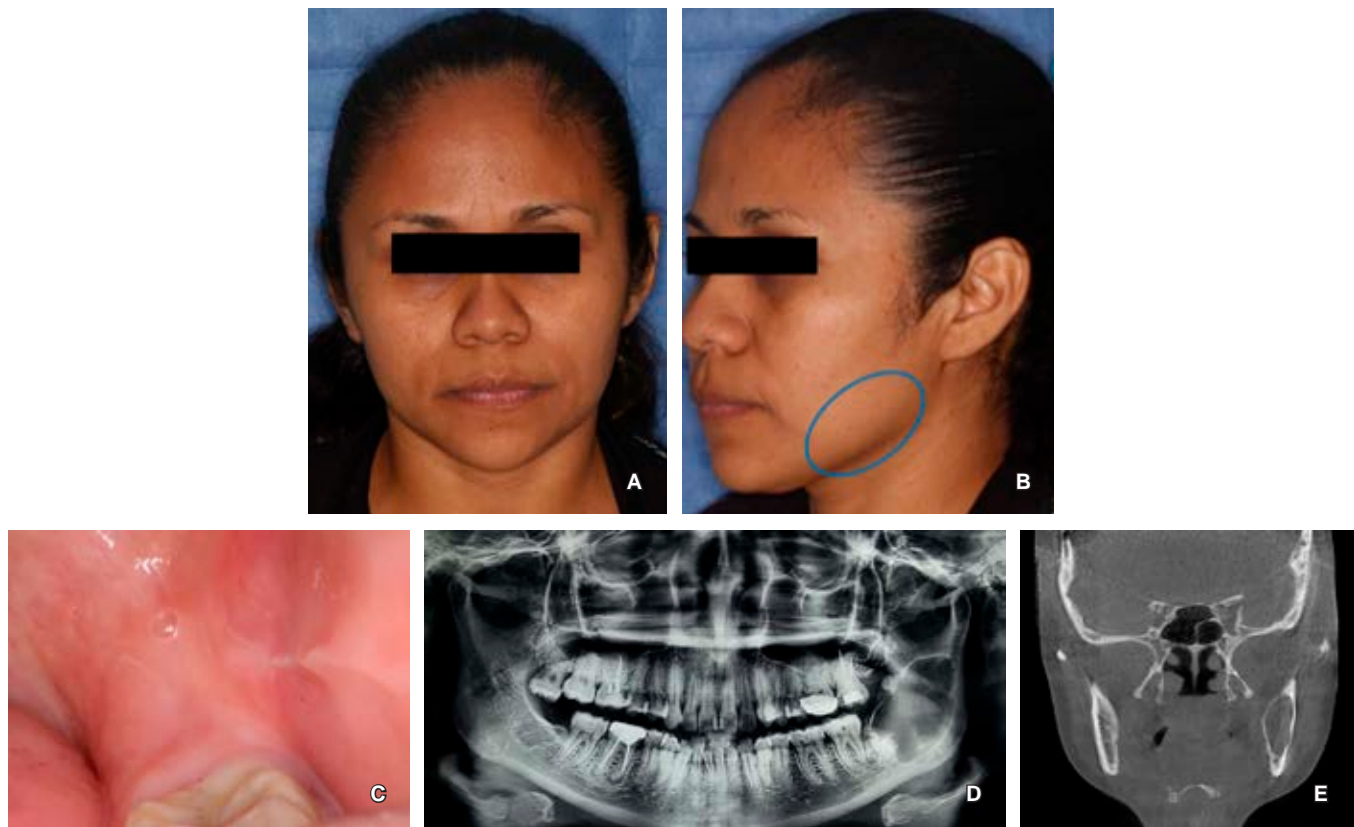
la exploración intraoral, los tejidos blandos eran de apariencia normal, acompañados de ausencia clínica del órgano dentario 38, en la zona retromolar izquierda se podía observar un aumento de volumen, de consistencia dura y doloroso a la palpación. La paciente refirió haberse sometido a la extracción quirúrgica del tercer molar inferior izquierdo 10 años atrás. No se encontró ningún otro padecimiento sistémico o antecedente de importancia para el padecimiento actual (*Figura 1 A-C*).

En el examen radiográfico se observó una área radiolúcida multilocular, la cual se extendía desde el cuerpo distal del segundo molar a la rama de la mandíbula, de aproximadamente 6 x 4 cm, con bordes bien definidos y escleróticos; junto con un fragmento radicular y coronal, probablemente del órgano dentario 38. La tomografía computarizada reveló una área hipodensa en el hueso mandibular, con expansión y adelgazamiento de las corticales lingual y vestibular (*Figura 1 D y E*). Para el plan de tratamiento se decidió realizar una biopsia incisional con el diagnóstico presuntivo de KC odontogénico versus ameloblastoma.

El estudio histopatológico reveló una cavidad revestida por epitelio plano estratificado, con algunas zonas del estrato basal en empalizada, hipercrómicas y otras con acantosis, exocitosis leucocitaria y áreas con hiperplasia arcoideal. Sin embargo, debido al severo infiltrado inflamatorio, las características distintivas del KC odontogénico se encontraban modificadas: la cápsula del tejido conjuntivo fibroso denso y bien vascularizado, también presentaba un infiltrado inflamatorio crónico linfoplasmocitario severo y difuso, con calcificaciones distróficas, cementículos y matriz osteoide. Por último, se emitió el diagnóstico de queratoquiste odontogénico con proceso inflamatorio crónico (*Figura 2 A y B*).

**Procedimiento quirúrgico:** el tratamiento consistió en realizar la descompresión de la lesión quística, seguida de marsupialización y enucleación con osteotomía controlada. Primero, bajo anestesia local se realizó una incisión en el borde anterior de la rama mandibular y se extendió hasta el segundo molar; en seguida, se realizó la extracción de los fragmentos del órgano dentario 38. A continuación, se observó una perforación de la cortical vestibular, y en esta zona se accedió a la luz del quiste y se colocó un tubo de látex tipo penrose, el cual fue suturado a la mucosa sana adyacente para dar seguimiento a la marsupialización (*Figura 2 C y D*). Finalmente, se realizaron lavados quirúrgicos con solución fisiológica.

Una vez concluido el procedimiento quirúrgico se le indicó a la paciente que irrigara y permeabilizara



**Figura 1: A y B)** Las fotografías extraorales iniciales muestran un ligero aumento de volumen en la región del ángulo mandibular. **C)** Intraoralmente se observó un discreto aumento de volumen en el área retromolar. **D y E)** Estudios de imagen previos a la biopsia. **E)** La tomografía computarizada reveló la expansión de las corticales óseas y el desplazamiento del conducto del nervio dentario inferior.

**A and B)** Initial clinical photographs. The images showed a slight swelling in the mandibular left area. **C)** Intraoral examination showed a slight swelling in the retromolar area. **D and E)** Image studies. **E)** The CT scan revealed an expansion of the cortical bone, and the displacement of the inferior dental nerve.

el tubo con clorhexidina al 0.12%, diariamente y dos veces por día. La paciente acudió a un seguimiento radiográfico mensual hasta que se observó un aumento de la radiopacidad de la lesión. Después de cinco meses, la radiografía mostró disminución de la lesión y una zona residual radiolúcida de aproximadamente 1 × 1 cm de diámetro (*Figura 2 E-G*), aproximadamente 80% menor al tamaño original de la lesión. En este punto se decidió realizar la biopsia excisional de la lesión con osteotomía periférica controlada.

## RESULTADOS

La *Figura 3 A y B* muestra clínica y radiográficamente el área de la lesión después de la segunda cirugía. No existe recurrencia después de 28 meses, y se ha programado el seguimiento clínico y radiográfico a largo plazo. Aunque la paciente no

presentaba macrocefalia, por su edad y tamaño de la lesión, fue examinada en busca de anomalías esqueléticas en el cráneo, y la presencia de depresiones en las palmas de las manos y las plantas de los pies. No se encontró ningún síntoma que pudiera asociarse con el síndrome de carcinoma de células basales nevoide.

Histológicamente se observó un fragmento de tejido blando compuesto de epitelio con metaplasia escamosa, rodeado por una cápsula de tejido conjuntivo fibroso denso, bien vascularizado y un moderado infiltrado inflamatorio de predominio linfocitario. Además, en el tejido conjuntivo adyacente a la lesión se encontró tejido mineralizado compatible con cemento, haces de tejido muscular de tipo estriado esquelético y acinos glandulares mucoserosos. Finalmente, se emitió el diagnóstico de queratoquiste odontogénico con metaplasia escamosa (*Figura 3C*).

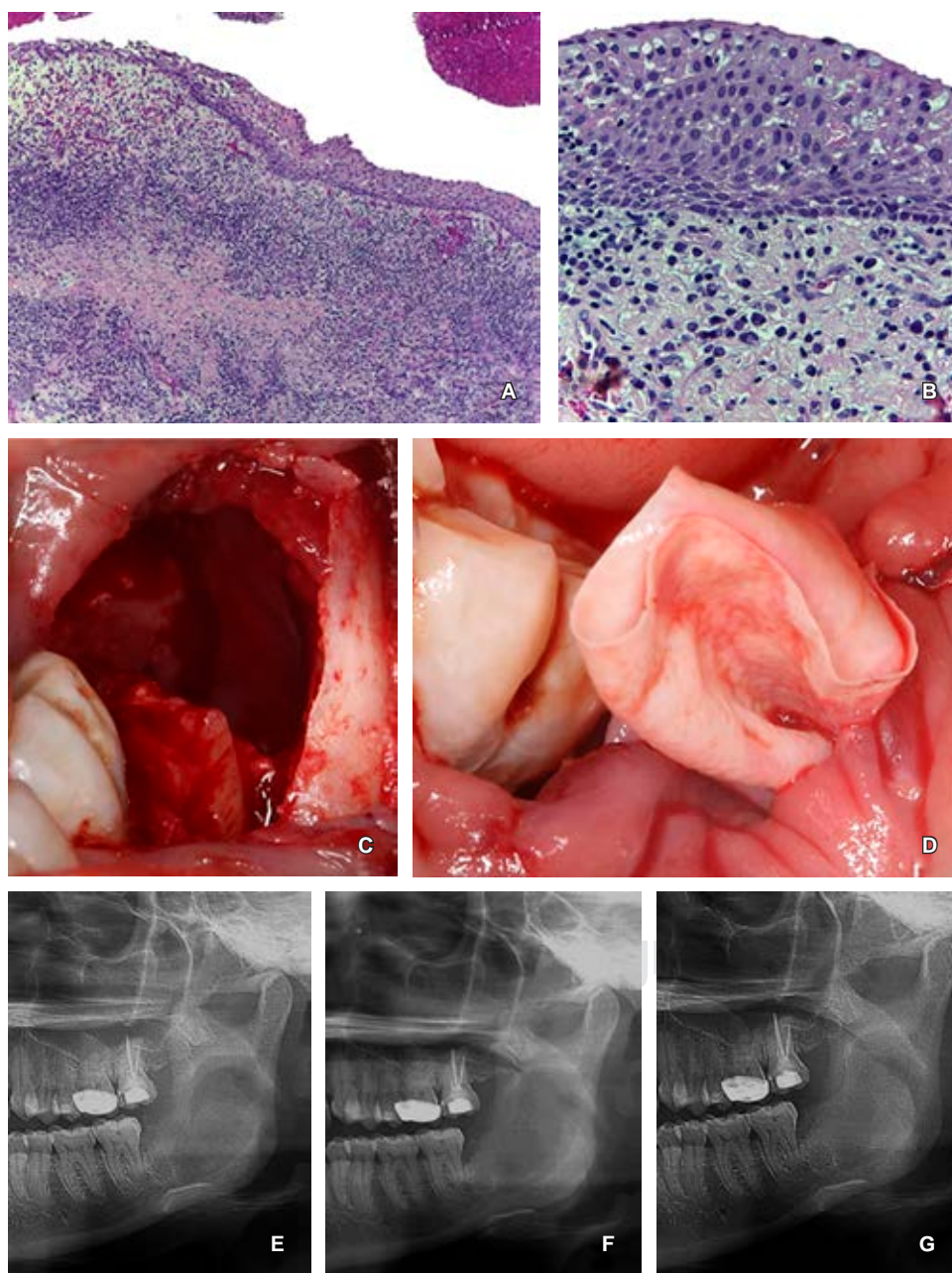


## DISCUSIÓN

En la más reciente clasificación de la Organización Mundial de la Salud para tumores de cabeza y cuello, el nombre de tumor odontogénico queratoquístico ha sido cambiado nuevamente por KC odontogénico. Lo anterior sigue causando controversias y confusiones, e inequívocamente disminuye la alerta que se tenía sobre el comportamiento localmente agresivo de la lesión.<sup>20</sup> Sin embargo, por sus características y su alto porcentaje de recidivas, el tratamiento de esta lesión

sigue siendo controversial.<sup>5,21</sup> Entre todas las opciones terapéuticas descritas, la más radical es la resección en bloque con márgenes de seguridad.<sup>22,23</sup>

En el presente caso, durante la evaluación de los cortes histológicos, se identificó una pérdida de la arquitectura clásica del KC en gran parte del tejido, debido al proceso inflamatorio crónico severo. Siempre que exista inflamación en una lesión de origen odontogénico se debe poner especial cuidado en el diagnóstico. Por ejemplo, las características histopatológicas del KC suelen traslaparse con las del ameloblastoma



**Figura 2:**

**A y B)** Microfotografías de la biopsia inicial, hematoxilina y eosina; **(A)** 100x; **(B)** se puede apreciar el epitelio quístico paraqueratinizado, con un estrato basal en empalizada y núcleos hiper cromáticos, una cápsula de tejido conjuntivo subyacente denso y fibroso, y un severo infiltrado inflamatorio, 400x. **(C)** Abordaje quirúrgico a la cavidad quística. **(D)** Colocación y fijación de drenaje tipo Penrose. **(E-G)** Ortopantomografías de seguimiento. **(E)** Un mes después del tratamiento quirúrgico. **(F)** Dos meses después. **(G)** Cuatro meses después.

**A and B)** Microphotographs of the initial biopsy, hematoxylin and eosin staining. **(A)** 100 X. **(B)** The image showed a cystic epithelium with palisading of the basal lamina and parakeratinization, the nuclei of the cells from basal lamina are hyperchromatic in appearance, and a capsule of dense connective tissue is present, as well as a severe inflammatory infiltrate, 400 X. **(C)** access to the cystic cavity. **(D)** positioning and fixation of the Penrose tube. **(E-G)** orthopantomography of the follow-up. **(E)** One month follow-up. **(F)** Two months' follow-up. **(G)** Four months' follow-up.



**Figura 3:** **A)** Fotografía de seguimiento posterior a la enucleación y osteotomía periférica, en la cual se observa una adecuada cicatrización. **B)** Ortopantomografía un mes después del segundo procedimiento quirúrgico, el hueso maxilar muestra mayor radiopacidad, sin evidencia de lesión quística. **C)** Microfotografía de la biopsia excisional con epitelio escamoso con metaplasia, hematoxilina y eosina, 100x.

**A)** Clinical image of the follow-up after the enucleation and peripheral osteotomy, with adequate healing. **B)** Orthopantomography of one month follow-up after enucleation, the mandibular bone showed an increase in radiopacity, and there is no evidence of the cystic lesion. **C)** microphotograph of the excisional biopsy, the lesion showed a lining of squamous epithelium with metaplasia, hematoxylin and eosin staining, 100 X.

o con las del carcinoma escamocelular. El análisis exhaustivo de las células de la capa basal en empalizada e hipercrómicas fueron determinantes para realizar el diagnóstico de KC, y a su vez, establecer un plan de tratamiento personalizado para la paciente.

Los términos descompresión y marsupialización suelen usarse de manera indistinta, pero técnicamente la descompresión denota cualquier tratamiento que permita eliminar la presión dentro de una lesión, con la finalidad de establecer una comunicación entre la luz del quiste y la cavidad oral.<sup>21,24,25</sup> Mientras que la marsupialización es una forma de descompresión que denota la creación de una abertura autosustentable, y que puede utilizarse para la completa resolución de una lesión quística.<sup>25</sup> Previamente, se han reportado las ventajas de la técnica de descompresión seguida de una marsupialización hasta confirmar radiográficamente que la lesión ha disminuido a un tamaño de 2-3 cm.<sup>5</sup> Posteriormente, se realiza una enucleación quirúrgica con osteotomía periférica para remover los remanentes del quiste.<sup>5</sup>

Los dispositivos utilizados por lo general incluyen tubos de catéteres intravenosos o para alimentación pediátrica, los cuales se fijan con alambres de ortodoncia a los dientes adyacentes o al hueso.<sup>2,5,23,25</sup> Esta técnica sugiere que el alambre de ortodoncia atraviese el tubo para evitar su compresión. Además, para mantener la permeabilidad del tubo se utilizan adyuvantes como la clorhexidina al 0.12% o solución

salina.<sup>21</sup> Este protocolo fue levemente modificado para el presente caso, en el cual se utilizó un tubo de Penrose suturado a la mucosa, con el orificio orientado hacia mesial y hacia la zona de las cúspides de los molares, lo que facilitó que la paciente pudiera encontrarlo y realizar su irrigación constante. Lo anterior funcionó eficientemente durante el tratamiento. Diversos reportes muestran que este protocolo disminuye de forma favorable los casos de recurrencia, ya que produce cambios en el epitelio quístico, reduce el tamaño de la lesión y disminuye el diámetro de la luz del quiste.<sup>9,26,27</sup>

Los KC tratados con simple enucleación tienen un alto porcentaje de recurrencia, entre 23.1 y 56%.<sup>28,29</sup> En un interesante metaanálisis realizado por Stoeltinga<sup>20</sup> se reportó que, comparada con la enucleación simple, la marsupialización acompañada de enucleación, retarda y reduce la tasa de recurrencia en los KC. Sin embargo, el mismo estudio reporta que la mayoría de los casos y los estudios sobre el KC carecen de información detallada sobre el tratamiento de la lesión. En el presente caso tratamos de incluir la mayor información posible. El diagnóstico apropiado en conjunto con el plan de tratamiento, que consistió en realizar una descompresión y marsupialización, seguida de la enucleación de la lesión más osteotomía periférica, resultó en una buena evolución clínica y después de 28 meses de seguimiento la paciente no ha tenido recurrencia.



## CONCLUSIONES

Acercas de la descompresión seguida de la marsupialización, se puede decir que la técnica no consiste sólo en un cambio físico durante la evolución del queratoquiste odontogénico; también modifica su comportamiento biológico.<sup>24</sup> En el presente caso, el análisis histológico de la biopsia final mostró cambios metaplásicos evidentes del epitelio de revestimiento, lo cual concuerda con los hallazgos de otros autores.<sup>21,24</sup> Es importante considerar que el tratamiento empleado deberá depender de las características de cada paciente y del propio quiste, entre ellos los hallazgos histopatológicos del mismo, su extensión, la localización y las infecciones asociadas a la lesión.<sup>21,20</sup>

La librería Cochrane (*Cochrane Database Systematic Review*) en 2010 evaluó las estrategias para el tratamiento del queratoquiste, concluyendo que no existen ensayos clínicos controlados aleatorizados que permitan evaluar la efectividad de cada uno de los tratamientos existentes. Por lo anterior, se recomienda que el personal clínico tome en cuenta las publicaciones de series retrospectivas y su propia experiencia para decidir el mejor plan de tratamiento para cada caso.<sup>11</sup> Con base en la literatura revisada sobre el KC, los autores concluimos que, por su alta tasa de recurrencia, la simple enucleación representa un riesgo innecesario para el paciente. Es recomendable que se realice una biopsia en todas las lesiones quísticas de la cavidad bucal. En los casos en los que no sea posible realizar una biopsia, y se sospeche de un posible KC, se recomienda utilizar tratamientos adyuvantes como nitrógeno líquido o solución de Carnoy para eliminar restos de epitelio quístico y prevenir futuras recurrencias.

## Clinical case

### Treatment with decompression of an odontogenic keratocyst

Alejandro Alonso Moctezuma,\*  
Edmundo Santos Jaimes,\* Eric Zeta Castañeda,§  
Patricia González-Alva,¶ Javier Portilla Robertson\*

\* Department of Pathology, Oral and Maxillofacial Medicine. Faculty of Dentistry. National Autonomous University of Mexico.

§ Resident at Oral Pathology Department. UNAM.

¶ Laboratory of Tissue Bioengineering. Division of Postgraduate Studies and Research. Faculty of Dentistry. National Autonomous University of Mexico.

## ABSTRACT

**Introduction:** The treatment of the odontogenic keratocyst (OKC), formerly known as keratocystic odontogenic tumor, remains controversial. The KC is an odontogenic cystic lesion that probably originates from the primitive dental lamina, commonly located in the posterior mandible, and could be what used to be known as primordial cyst. The KC is a benign lesion with an aggressive local biological behavior. A wide range of techniques has been proposed for the treatment of KC, including, enucleation, marsupialization, resection, and a combination of different methods. However, resection of the KC should be regarded as the last treatment option. **Purpose:** To present a case report of a 36-year-old female patient with a large lesion in the left inferior mandible, accompanied by chronic inflammation. **Material and methods:** The lesion was diagnosed as KC with a chronic inflammatory process. The treatment was marsupialization with decompression, followed by irrigation with 0.12% chlorhexidine. **Results:** The lesion reduced in size and was removed with secondary enucleation and peripheral osteotomy. Once the lesion had reduced by about 80% from its original size, and no signs of inflammation were present, an excisional biopsy was performed. The final histological specimen showed an OKC with squamous metaplasia. **Discussion:** In the present case, conservative treatment was successful. However, long-term follow-up is recommended for this type of lesion. The association with nevroid basal cell carcinoma syndrome should be considered in patients with extended or multiple lesions. **Conclusions:** The initial approach toward odontogenic lesions with local but aggressive behavior could have significant repercussions in the rehabilitation and the quality of life of the affected patients. Therefore, an adequate treatment plan should include the evaluation of a multidisciplinary team for each case.

**Keywords:** Decompression; odontogenic keratocyst; keratocystic odontogenic tumor; marsupialization, metaplasia.

## INTRODUCTION

The odontogenic keratocyst (OKC) is often described as an entity with specific clinical and histological features, with a high recurrence rate when treated with enucleation alone.<sup>1,2</sup> The lesion is frequently located in the posterior area of the mandibular bone.<sup>3,4</sup> The aggressive local behavior of the lesions has been well documented.<sup>3</sup> The KC is a cystic lesion probably derived from the dental lamina, and it probably represent the lesions previously known as a primordial cyst.<sup>5</sup>

The term KC was first introduced by Philipsen in 1953, in an article originally written in Danish, and with an English abstract.<sup>5-7</sup> The lesion attracted interest due to its histological features, and was later recognized as an individual entity between 1970 and 1971. Immediately after that, according to Pogrel,<sup>5</sup> Dr. Browne described its clinical and histological characteristics. Finally, in 1963, Pingborg and Hanse suggested histological guidelines that described the essential characteristics of the lesion.<sup>4</sup>

The histological image of the odontogenic KC includes a squamous parakeratinized epithelium, and

a well-defined basal lamina, often corrugated. The cells of the basal lamina are distinctively characteristic of this particular entity, with a polarized arrangement, basilar nuclear palisading and the production of parakeratin, surrounded by dense connective tissue. The cyst wall has a uniform width and is thin, between six and ten cells; this cystic wall could be enlarged due to a chronic inflammatory process.<sup>8-11</sup>

Extensive literature has been published regarding the KC; however, the data regarding its prevalence have produced contradicting results, and are not consistent, revealing a lack of consensus among surgeons. For example, there are few studies that used the classification of the World Health Organization (WHO) for the diagnosis of the KC, also, it is common that reports before 1992 include the orthokeratinized variant in the diagnosis of KC.<sup>4</sup>

Mello et al.<sup>12</sup> reported a prevalence of 0.5% for the KC, in their recent meta-analysis, which includes nine publications, and consisted of 49,846 cyst and tumors associated with impacted third molars.

The OKC has a wide range of recurrence rates, varying from 0% up to 62%, and an average rate of recurrence of 30.8%.<sup>13-18</sup> Pogrel suggested that the recurrence rate increased with the follow-up period, and concluded that the exact recurrence rate of OKC can only be established after 20 years of follow-up.<sup>5</sup>

The discrepancy related to the recurrence rates could reflect the differences between sporadic OKC and the OKC associated with the nevoid basal-cell carcinoma syndrome (NBCCS).<sup>18</sup> Patients associated with the NBCCS present multiple skeletal abnormalities, such as rib and vertebrae anomalies, intracranial calcification, and multiple OKCs in the mandible and in the maxilla.<sup>4,18</sup> In addition, it has been reported that between 60 and 85% of the patients that suffer from NBCCS have a mutation in the tumor suppressor gene PTCH, therefore they are likely to develop more than one OKC in their lifetime.<sup>19</sup>

After six decades, the appropriate treatment for OKC remains controversial.<sup>5</sup> The purpose of the present report is to present a case of a 36-year-old female patient, with a large OKC associated with a chronic inflammatory process in the angular area of the left mandibular bone. The lesion was treated with marsupialization and decompression. A review of the literature regarding the treatment options for the OKC is also included.

## MATERIAL AND METHODS

*Case report:* a 36-year-old female patient attended the Oral Medicine Clinic, at the Division of Postgraduate

Studies and Research of the Faculty of Dentistry, at the National Autonomous University of Mexico, with a slight swelling in the posterior and inferior zone of the left mandible, with an evolution of between 8 months and 1 year. The patient reported pain in the zone, without loss of sensitivity. The intraoral examination revealed that soft tissues were normal in appearance, and the absence of the #38, there was swelling in the left retromolar zone, with an increased volume. The swelling was hard in consistency, and painful to palpation. The patient mentioned the extraction of the third molar 10 years ago. There was no systemic conditions or backgrounds of importance for the lesion of the patient (*Figure 1 A-C*).

The radiographical examination revealed a radiolucid multilocular area, from the distal body of the second molar to the mandibular angle, approximately 6 × 4 cm, with well-defined and sclerotic borders, a tooth fragment, probably of the 38-dental organ was also observed.

The CT scan revealed a hypodense area in the mandibular bone, with expansion and thinning of the lingual and vestibular cortical (*Figure 1 D and E*). For the treatment plan, it was decided to perform an incisional biopsy with a presumptive diagnostic of OKC vs ameloblastoma.

The histopathological examination showed a cystic cavity of stratified epithelial lining, with an underlining basal cell layer composed of palisaded and hyperchromatic cuboidal and columnar epithelial cells, areas of acanthosis, leucocytic exocytosis and areas of hyperplasia. However, the extensive inflammatory infiltrate resulted in the loss of the typical histological image of the OKC. The capsule was formed of dense connective, well vascularized, and with the presence of a chronic and severe inflammatory infiltrate, as well as the presence of leukocytes and plasma cells. In addition, the presence of dystrophic calcifications, cement-like areas and osteoid matrix could be observed (*Figure 2 A and B*).

*Surgical procedure:* the treatment consisted of decompression of the cystic lesion, followed by marsupialization, and enucleation with controlled osteotomy. Briefly, under local anesthesia an incision over the border of the mandibular ramus was performed, and this was extended to the second molar. Then the fragments of the 38-dental organ were removed. Subsequently, a perforation of the vestibular cortical bone was found and from this area access to the lumen of the cyst was created. To achieve this, a latex Penrose tube was fixed with a suture to the healthy adjacent tooth and buccal mucosa, and the marsupialization of the cyst was

initiated (*Figure 2 C and D*). Finally, the cavity was washed with physiological buffered solution.

After the surgical procedure was concluded, the patient was instructed to irrigate and permeabilize the tube with 0.12% chlorhexidine solution daily, two times per day. The patient returned every month for a radiological follow-up, until the lesion increased in radiopacity. After 5 months, the radiological examination showed a decrease in the size of the lesion, with a radiolucid area of approximately 1 × 1 cm in diameter (*Figure 2 E-G*), which was equivalent to an 80% reduction from the lesion's original size. Subsequently, an excisional biopsy of the lesion was performed, accompanied with controlled osteotomy.

## RESULTS

*Figure 3 A and B* shows the clinical and the radiographic presentation of the lesion after the second surgery. There is no evidence of recurrence after 28 months, a long-term follow-up had been programmed. The patient did not present microcephalia – however, due to her age, and to the size of the lesion, an examination searching for skeletal anomalies in the skull, and pitting in the palms of the hands or on the feet was conducted. There were no symptoms associated with NBCCS.

The final histological examination of the lesion showed a fragment of soft tissue composed of epithelium with squamous metaplasia, surrounded by a capsule of dense connective tissue, well vascularized and with moderate inflammatory infiltrate of mainly leukocytes. Also, at the adjacent connective tissue there was cement-like mineralized areas, muscular tissue, and glandular acinus of mucoserous type. Finally, the diagnosis of odontogenic keratocyst with squamous metaplasia was made (*Figure 3C*).

## DISCUSSION

In the most recent WHO Classification of Head and Neck Tumors, the name keratocystic odontogenic tumor has been changed to OKC. The terminology for OKC is a current subject of debate and confusion; also, the term «OKC» unequivocally decreased alertness regarding the local aggressive behavior of the lesion.<sup>20</sup> Furthermore, the treatment of OKC remains controversial due to its clinical characteristics and high rate of recurrence.<sup>5,21</sup> Among the treatment modalities, the most radical is the complete resection with wide surgical margins.<sup>22,23</sup>

In the present case, and during the evaluation of the histological slides, a loss of the typical OKC

architecture was observed in most of the tissue examined, due to the inflammatory process. In the case of an odontogenic lesion with severe inflammation, it is important to examine all tissue areas to reach an accurate diagnosis. For example, the histopathological features of the OKC are often confused with those of the ameloblastoma, or with squamous cell carcinoma. The extensive and meticulous examination of the basal cells, presented with palisading and hyperchromatic nuclei, were of utmost importance in the diagnosis of the present case, and to establish a personalized treatment plan for the patient.

The terms «decompression» and «marsupialization» are often used interchangeably, but, in the technical sense, decompression means any treatment that allows the elimination of the pressure within the cystic lesion, with the aim of establishing a communication between the cyst's lumen and the oral cavity.<sup>21,24,25</sup> The term «marsupialization» refers to a form of decompression, and involves the creation of a self-sustained aperture; it can be used for the complete resolution of the cystic lesion.<sup>25</sup> The advantages of the decompression technique followed by marsupialization has been previously reported,<sup>5</sup> and is often continued until the lesion is about 2-3 cm. After the reduction of the cystic lesion, enucleation and peripheral osteotomy is performed to remove the remnants of the cyst.<sup>5</sup>

The devices generally used for marsupialization include intravenous catheter tubes, or pediatric feeding gauzes, fixed with orthodontic wires to the adjacent teeth or to the bone.<sup>2,5,23,25</sup> This technique requires that the orthodontic wire passes through the tube to prevent its compression. Also, to maintain the permeability of the tube, the use of adjuvants, such as 0.12% chlorhexidine solution or saline solution is necessary.<sup>21</sup> The former protocol was modified for the present case, in which a Penrose tube was sutured to the buccal mucosa, with the aperture oriented to the mesial area, and to the zone of the molar cuspid, making it easier for the patient to locate and facilitating constant irrigation. The Penrose tube worked efficiently during the treatment. Previous reports showed that this protocol reduced the recurrence rate, and produced changes in the cystic epithelium, reducing the lesion size and decreasing the lumen of the cyst.<sup>9,26,27</sup>

OKCs treated with simple enucleation have a high percentage of recurrence, varying from 23.1 to 56%.<sup>28,29</sup> Stoelinga,<sup>20</sup> in an interesting meta-analysis, reported that marsupialization accompanied by enucleation reduces and delays the recurrence rate compared to enucleation alone. However, the same study reported that most cases and studies made on OKC do not contain detailed information



regarding the treatment of the lesion. In the present case, we have tried to include the most information possible. The appropriate diagnosis and an adequate treatment plan, consistent decompression followed by marsupialization and enucleation with peripheral osteotomy, resulted in a good clinical evolution of the lesion, and after 28 months of follow-up the patient showed no signs of recurrence.

## CONCLUSIONS

With regard to decompression followed by marsupialization, the technique does not just effect a physical change during the OKC evolution, it also modifies its biological behavior.<sup>24</sup> In the present case, the histopathological analysis of the final biopsy showed metaplastic changes in the epithelial lining of the cystic lesion, similar to previously reported findings.<sup>21,24</sup> It is important to consider that, the treatment for the OKC will depend on the features of each patient and the cystic lesion, together with the histopathological characteristics, its extension, localization, and associated infections of the lesion.<sup>21,20</sup>

The Cochrane Database Systematic Review, in 2010 evaluated the treatment modalities for the OKC and concluded that there are no controlled clinical trials that allow the proper evaluation of the OKC treatment modalities. Therefore, it is recommended that clinical personnel consider retrospective series and their own experience to decide the best treatment plan for individual patients.<sup>11</sup> After the review of the literature on OKC, the present authors suggest that due to its high recurrence rate, simple enucleation represents a high unnecessary risk for the patient. The performance of a biopsy of all large cystic lesions is recommended. When a biopsy is not possible, and an OKC is suspected, adjuvant treatments should be employed, such as Carnoy solution, or liquid nitrogen, to eliminate all remnants of the cystic epithelium, and to prevent possible recurrences.

## REFERENCIAS / REFERENCES

1. El-Naggar AK, Chan JK, Grandis JR, Takana T, Slootweg PJ. *WHO classification of head and neck tumors*. 4th ed. Lyon, France: IACR; 2017. 347 p.
2. Pogrel MA, Jordan RC. Marsupialization as a definitive treatment for the odontogenic keratocyst. *J Oral Maxillofac Surg*. 2004; 62 (6): 651-655; discussion 5-6.
3. Chaisuparat R, Yodsanga S, Montaner S, Jham BC. Activation of the Akt/mTOR pathway in dentigerous cysts, odontogenic keratocysts, and ameloblastomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2013; 116 (3): 336-342.
4. González-Alva P, Tanaka A, Oku Y et al. Keratocystic odontogenic tumor: a retrospective study of 183 cases. *J Oral Sci*. 2008; 50 (2): 205-212.
5. Pogrel MA. The keratocystic odontogenic tumour (KCOT)--an odyssey. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2015; 44 (12): 1565-1568.
6. Gao L, Wang XL, Li SM et al. Decompression as a treatment for odontogenic cystic lesions of the jaw. *J Oral Maxillofac Surg*. 2014; 72 (2): 327-333.
7. Schlieve T, Miloro M, Kolokythas A. Does decompression of odontogenic cysts and cystlike lesions change the histologic diagnosis? *J Oral Maxillofac Surg*. 2014; 72 (6): 1094-1105.
8. Pazdera J, Kolar Z, Zboril V, Tvrdy P, Pink R. Odontogenic keratocysts/keratocystic odontogenic tumours: biological characteristics, clinical manifestation and treatment. *Biomed Pap Med Fac Univ Palacky Olomouc Czech Repub*. 2014; 158 (2): 170-174.
9. de Molon RS, Verzola MH, Pires LC et al. Five years follow-up of a keratocyst odontogenic tumor treated by marsupialization and enucleation: A case report and literature review. *Contemp Clin Dent*. 2015; 6(Suppl 1): S106-110.
10. Zhou J, Wang L, Chen Z, Qiu J, Dong Q. Giant keratocystic odontogenic tumor of the maxillary sinus and zygoma: a case report. *Oncol Lett*. 2014; 8 (6): 2675-2677.
11. Sharif FN, Oliver R, Sweet C, Sharif MO. Interventions for the treatment of keratocystic odontogenic tumours. *Cochrane Database Syst Rev*. 2015; (11): CD008464.
12. Mello FW, Melo G, Kammer PV, Speight PM, Rivero ERC. Prevalence of odontogenic cysts and tumors associated with impacted third molars: a systematic review and meta-analysis. *J Craniomaxillofac Surg*. 2019; 47 (6): 996-1002.
13. Telles DC, Castro WH, Gomez RS, Souto GR, Mesquita RA. Morphometric evaluation of keratocystic odontogenic tumor before and after marsupialization. *Braz Oral Res*. 2013; 27 (6): 496-502.
14. Kakarantza-Angelopoulou E, Nicolatou O. Odontogenic keratocysts: clinicopathologic study of 87 cases. *J Oral Maxillofac Surg*. 1990; 48 (6): 593-599; discussion 9-600.
15. Roopak B, Singh M, Shah A, Patel G. Keratocystic odontogenic tumor: treatment modalities: study of 3 cases. *Niger J Clin Pract*. 2014; 17 (3): 378-383.
16. Johnson NR, Batstone MD, Savage NW. Management and recurrence of keratocystic odontogenic tumor: a systematic review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2013; 116 (4): e271-276.
17. Bataineh AB, al Qudah M. Treatment of mandibular odontogenic keratocysts. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 1998; 86 (1): 42-47.
18. Noy D, Rachmiel A, Zar K, Emodi O, Nagler RM. Sporadic versus syndromic keratocysts-Can we predict treatment outcome? A review of 102 cysts. *Oral Dis*. 2017; 23 (8): 1058-1065.
19. Li TJ, Yuan JW, Gu XM, Sun LS, Zhao HS. PTCH germline mutations in Chinese nevoid basal cell carcinoma syndrome patients. *Oral Dis*. 2008; 14 (2): 174-179.
20. Stoelinga PJW. Keratocystic odontogenic tumour (KCOT) has again been renamed odontogenic keratocyst (OKC). *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2019; 48 (3): 415-416.
21. Zecha JA, Mendes RA, Lindeboom VB, van der Waal I. Recurrence rate of keratocystic odontogenic tumor after conservative surgical treatment without adjunctive therapies. A 35-year single institution experience. *Oral Oncol*. 2010; 46 (10): 740-742.
22. Ledderhof NJ, Caminiti MF, Bradley G, Lam DK. Topical 5-fluorouracil is a novel targeted therapy for the keratocystic odontogenic tumor. *J Oral Maxillofac Surg*. 2017; 75 (3): 514-524.
23. Pogrel MA. Decompression and marsupialization as a treatment for the odontogenic keratocyst. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am*. 2003; 15 (3): 415-427.
24. Ecker J, Horst RT, Koslovsky D. Current role of Carnoy's solution in treating keratocystic odontogenic tumors. *J Oral Maxillofac Surg*. 2016; 74 (2): 278-282.

25. Pogrel M. The keratocystic odontogenic tumor. *Oral and Maxillofacial Surgery Clinics*. 2013; 25 (1): 21-30.
26. Kinard BE, Chuang SK, August M, Dodson TB. For treatment of odontogenic keratocysts, is enucleation, when compared to decompression, a less complex management protocol? *J Oral Maxillofac Surg*. 2015; 73 (4): 641-648.
27. Lizio G, Sterrantino AF, Ragazzini S, Marchetti C. Volume reduction of cystic lesions after surgical decompression: a computerised three-dimensional computed tomographic evaluation. *Clin Oral Investig*. 2013; 17 (7): 1701-1708.
28. Al-Moraissi EA, Dahan AA, Alwadeai MS et al. What surgical treatment has the lowest recurrence rate following the management of keratocystic odontogenic tumor?: A large systematic review and meta-analysis. *J Craniomaxillofac Surg*. 2017; 45 (1): 131-144.
29. Blanas N, Freund B, Schwartz M, Furst IM. Systematic review of the treatment and prognosis of the odontogenic keratocyst. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontology*. 2000; 90 (5): 553-558.

*Dirección para correspondencia /  
Mailing address:*

**Mtro. Edmundo Santos**

Facultad de Odontología

Universidad Nacional Autónoma de México.

Circuito exterior s/n, Ciudad Universitaria, 04510,  
México City, México.

**E-mail:** patobu\_savage@hotmail.com