

Tumor odontogénico epitelial calcificante (tumor de Pindborg)

AUTORES/AUTHORS

Rodolfo Belmonte Caro (1), Daniel Torres Lagares (3), Francisco Mayorga Jiménez (4), Alberto García-Perla García (2), Pedro Infante Cossío (5), José Luis Gutiérrez Pérez (6).

- (1) Médico Interno Residente. Médico Estomatólogo. Servicio de Cirugía Maxilofacial. Hospital Universitario "Virgen del Rocío" de Sevilla. España.
- (2) Médico Interno Residente. Servicio de Cirugía Maxilofacial. Hospital Universitario "Virgen del Rocío" de Sevilla.
- (3) Odontólogo. Alumno del Master de Cirugía Bucal. Universidad de Sevilla.
- (4) Médico Adjunto. Cirujano Maxilofacial. Servicio de Cirugía Maxilofacial. Hospital Universitario "Virgen Macarena" de Sevilla.
- (5) Médico Adjunto. Cirujano Maxilofacial. Servicio de Cirugía Maxilofacial. Hospital Universitario "Virgen del Rocío" de Sevilla. Profesor Asociado de Cirugía Bucal. Facultad de Odontología de Sevilla.
- (6) Cirujano Maxilofacial. Jefe de Sección de Cirugía Craneofacial. Servicio de Cirugía Maxilofacial. Hospital Universitario "Virgen del Rocío" de Sevilla. Profesor Titular Vinculado de Cirugía Bucal. Facultad de Odontología de Sevilla.

Belmonte R, Torres D, Mayorga F, García-Perla A, Infante P, Gutiérrez JL. Tumor odontogénico epitelial calcificante (tumor de Pindborg). *Medicina Oral* 2002; 7: 309-15.
© Medicina Oral. B-96689336
ISSN 1137-2834.

RESUMEN

En este artículo presentamos y discutimos el caso clínico de una paciente de 41 años afecta de un tumor de Pindborg que asentaba en el ángulo mandibular izquierdo. La detección de la lesión de forma casual o rutinaria y la frecuente relación que ésta tiene con un diente incluido pueden hacer difícil la diferenciación principalmente con un quiste odontogénico. Pese a la existencia de una tasa de recurrencias del 14% tras un tratamiento conservador, pensamos que un tratamiento de calidad exige la práctica de una exéresis de la lesión con márgenes óseos sanos.

Palabras clave: tumor odontogénico epitelial calcificante, tumor de Pindborg, tumores odontogénicos.

Recibido: 16/06/01. Aceptado: 24/03/02.

Received: 16/06/01. Accepted: 24/03/02.

INTRODUCCIÓN

Pindborg introdujo en 1955 el término tumor odontogénico epitelial calcificante (TOEC), término que ha sustituido al de adamantoblastoma adenoide, ameloblastoma atípico u odontoma quístico (1) y que ya ha sido ampliamente aceptado en la literatura científica, así como el epónimo tumor de Pindborg, que introdujeron Shafer y cols. en 1963 (2, 3). Se admite que deriva de los elementos epiteliales del órgano del esmalte, pero hay controversias sobre en qué parte de éste exactamente, pudiendo originarse a partir del epitelio externo o del estrato intermedio del órgano del esmalte. Para otros autores, derivaría de remanentes celulares de la lámina basal o a partir del estrato basal del epitelio gingival (lo que justificaría la existencia de formas periféricas o extraóseas) (4). Supone aproximadamente el 1% de todos los tumores odontogénicos (incluyendo los odontomas), y clínicamente presenta un crecimiento lento pero con carácter invasivo local y tendencia a la recidiva. Según Junquera y cols. (5) se publican mundialmente unos 4 casos anuales de este tumor en la literatura científica, siendo las series de casos más importantes las publicadas por Franklin y Pindborg en 1976 (6) y por Pindborg y cols. en 1982 (7). En la literatura nacional que hemos revisado utilizando el Índice Médico Español desde 1971 a 1998, hemos encontrado seis casos publicados (4, 5, 8-11).

El propósito de este trabajo es presentar un caso clínico de una paciente afectada de un tumor de Pindborg en ángulo mandibular, realizando una revisión de la literatura y discutiendo las principales características clínicas, diagnósticas y terapéuticas.

CASO CLÍNICO

Mostramos el caso de una paciente de 41 años que es remitida a las consultas externas del Hospital Universitario "Virgen del Rocío" de Sevilla (sin antecedentes médicos de interés) por una lesión radiolúcida a nivel del ángulo mandibular izquierdo, en relación con el último molar inferior izquierdo (Fig. 1), encontrada de forma casual en un estudio radiográfico hacía cinco meses. Se le realizó una Tomografía Axial Computerizada, que mostró una imagen radiolúcida de 18 mm de diámetro a nivel posterior de la rama mandibular izquierda, que insuflaba la cortical interna sin destruirla. No existían calcificaciones interiores ni signos de malignidad (no afectaba al músculo masetero, ni al espacio graso parafaríngeo, ni al parotídeo interno y tampoco existían adenopatías) (Fig. 2).

El diagnóstico de sospecha clínico y radiológico fue de quiste periodontal lateral, sin descartar la posibilidad de un tumor odontogénico, al no presentar la lesión una imagen regular y no observarse contenido líquido en ella. Se citó a la paciente para biopsiar la lesión bajo anestesia local, realizándose su enucleación. La lesión macroscópicamente era una formación quística constituida por un tejido blanquecino de consistencia elástica rodeado de tejido adiposo, y que fue diagnosticada histológicamente como "compatible con tumor

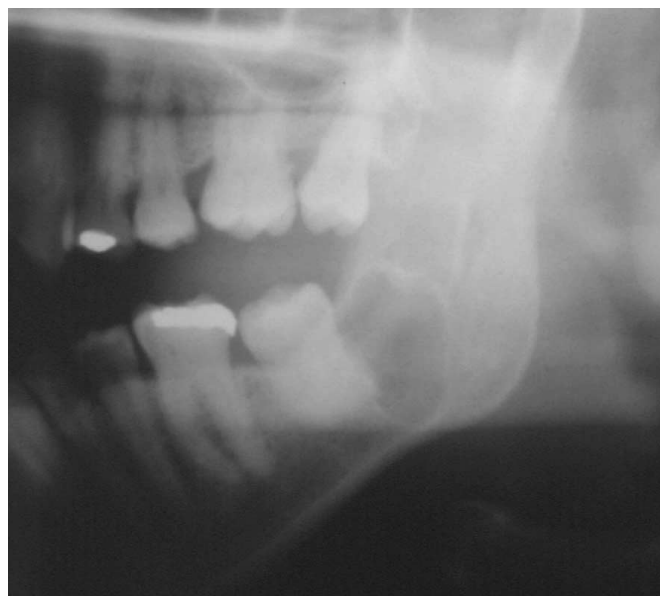


Fig. 1.

Ortopantomografía inicial de la paciente. Se observa una lesión radiolúcida, sin calcificaciones, en el ángulo mandibular, en relación con el último molar inferior.

The patient's initial Ortopantomography. A radiolucent lesion is observed, without calcifications, in the mandibular angle, in connection with the second molar.

odontogénico epitelial calcificante." Microscópicamente la lesión presentaba depósitos pálidos, parecidos al amiloide, entre células claras o de citoplasma eosinófilo y contornos poliédricos, propios del tumor de Pindborg.

Dada la tasa de recidivas de estos tumores cuando se realiza el legrado simple de la lesión, se decidió realizar una extirpación con ampliación de márgenes bajo anestesia general. En tanto llegaba el momento de la intervención, realizamos un seguimiento de la paciente para detectar precozmente una posible recidiva mediante tomografía axial computarizada, cosa que ocurrió a los tres meses.

A los seis meses, la paciente fue intervenida bajo anestesia general, realizándose exodoncia del segundo molar inferior izquierdo, eliminación de la lesión recurrente, osteotomía periférica con fresa y relleno de la cavidad con hidroxiapatita reabsorbible. El informe anatómico-patológico fue concluyente, ratificando el diagnóstico de tumor odontogénico epitelial calcificante (Fig. 3). En los primeros días postoperatorios presentó disminución de la sensibilidad en el territorio dependiente del nervio dentario inferior, que desapareció progresivamente en un mes. La paciente no ha presentado recidiva alguna de esta lesión hasta la fecha (18 meses en revisión) (Fig. 4).

DISCUSIÓN

El tumor odontogénico epitelial calcificante es una lesión extremadamente rara. En el Servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital Universitario "Virgen del Rocío de Sevilla", que



Fig. 2.

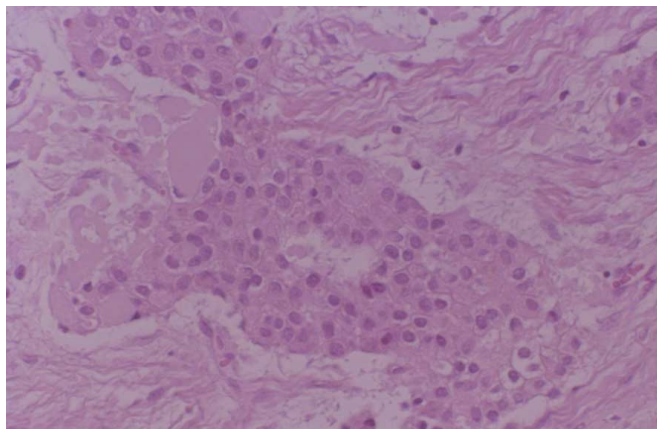
Tomografía Axial Computarizada que muestra la lesión situada en el ángulo de la mandíbula. Se aprecia cómo la lesión insufla la cortical interna mandibular.

On-line axial tomography that shows the lesion located in the mandibular angle. The lesion breathe into the internal mandibular cortical.

atiende a una población de 725.000 habitantes, se han intervenido tan sólo dos casos en los últimos cinco años. La presentación más característica coincide en la mayor parte con nuestro caso: una masa o tumoración intraósea, generalmente mandibular, indolora, prácticamente asintomática, de crecimiento lento y progresivo pero con carácter invasivo local, que causa expansión de la región maxilar afecta y por tanto tumefacción local. Salvo este último detalle, puesto que nuestra paciente presentaba escasa hinchazón de la zona y ausencia de dolor, el resto de signos y síntomas fueron observados. El 95% de las lesiones son centrales, intraóseas, y tres de cada cuatro lesiones son mandibulares, mostrando preferencia por los sectores posteriores. Aunque más raramente, otros autores han descrito formas extraóseas, que aparecen sobre todo a nivel anterior, y son menos agresivas que las formas centrales (12). Hemos encontrado 11 casos publicados de este tipo, de los que más de la mitad, seis, presentaban una predominancia de células claras, hablándose ya de una variante de células claras dentro del TOEC (13, 14). También se ha descrito la afectación bimaxilar y la afectación bilateral (11, 15). Un 52% de los casos se relaciona con un diente incluido.

Con respecto al intervalo de edad en que se presenta el tumor de Pindborg, éste va desde los 8 hasta los 92 años, aunque la edad media de manifestación clínica ronda los 40 años para las formas centrales (como en nuestro caso), y los 31 años para las periféricas, sin que exista predilección por ningún sexo.

Histológicamente, el tumor consta de masas de células epiteliales grandes, poliédricas, de núcleos hiper cromáticos, separadas por un escaso tejido conjuntivo, localizándose entre

**Fig. 3.**

Cuerpos amiloide-like entre grupo de células epiteliales de contornos poliédricos y citoplasmas eosinófilos (Hematoxilina-Eosina, x 40).

Amyloid-like bodies among a group of epithelial cells of polyhedric environs and eosinophil cytoplasm (Hematoxilina-Eosina, x 40).

ambos componentes unos cuerpos homogéneos eosinófilos de naturaleza amiloide que se calcifican progresivamente y que se denominan anillos de Liesegang. Nuestro caso cumple con estos requisitos. Las células epiteliales están estrechamente unidas y a veces muestran disposición cribiforme con las células unidas por puentes intercelulares, en relación con la expresión de e-caderina y α -catenina (16). Con respecto a la naturaleza de la sustancia amiloide, existe controversia acerca de si ésta tiene un origen degenerativo o se segrega activamente, y se han realizado distintos estudios a este respecto. Los trabajos de el-Labban (17) y de Slootweg (18) parecen indicar que el material calcificado amiloide ejerce un estímulo sobre el estroma tumoral que lo lleva a segregar una matriz de colágeno posteriormente calcificable. Distintos autores han descrito hasta cinco patrones histológicos dentro del TOEC (19-21).

Clínicamente, presenta en su evolución un crecimiento lento expansivo. Sin embargo, en algunos casos, la lesión se acompaña de dolor, obstrucción nasal, epistaxis y cefalea, así como se han descrito casos en que el tumor presentaba un sangrado importante, y en uno de ellos se realizó una angiografía que puso de manifiesto un tumor altamente vascularizado (5, 9). Krolls y Pindborg, y Basu y cols. han referido casos de tumores con comportamiento maligno y afectación ganglionar (22, 23).

Todos estos casos son excepcionales, y lo usual es descubrir el tumor de forma rutinaria a partir de una exploración radiológica ocasional. Se observa entonces una lesión radiolúcida, que puede presentar distintas características, puesto que el tumor atraviesa por tres fases evolutivas: en un primer momento es totalmente radiolúcida, asemejando un quiste dentígero (semejanza que aumenta cuando el tumor asienta en vecindad con un diente incluido). La lesión que presentamos en este artículo puede incluirse en esta primera fase evo-

**Fig. 4.**

Radiografía panorámica postoperatoria de control, tras 12 meses de la intervención bajo anestesia general, donde se aprecia la adecuada incorporación del relleno óseo.

Panoramic postoperative X-ray control, after 12 months of the operation under general anaesthesia, where the appropriate incorporation of the bony filler is appreciated.

lutiva, dado que no se evidenciaron calcificaciones intralesionales en los estudios radiográficos. Seguidamente, aparecen pequeñas calcificaciones intratumorales; ésta es la imagen más característica, si bien nunca patognomónica. En la última fase, el tumor presenta una imagen en panal de abeja, causada por la destrucción ósea y la calcificación tumoral (24). Las lesiones grandes pueden ser multilobuladas, asemejando un ameloblastoma, sobre todo si no observamos calcificaciones intratumorales.

El diagnóstico diferencial de este tumor en sus dos formas (intraósea y extraósea) debe hacerse con el ameloblastoma (debido a lo indicado anteriormente), el granuloma de células gigantes, el fibroma osificante-cementificante, el mixoma, el fibroodontoma ameloblástico y el fibroma ameloblástico (25). También debe realizarse con el angioma central mandibular, si la lesión presenta gran sangrado (5, 9). A nivel radiológico, deberemos incluir en nuestro diagnóstico diferencial el quiste odontogénico, el tumor odontogénico adenomatoide y el quiste odontogénico calcificante. El diagnóstico diferencial de los tumores de Pindborg extraóseos con presencia de células claras (más de la mitad de los tumores de Pindborg extraóseos son de este tipo) debe incluir a los tumores de glándulas salivares de células claras, las metástasis del carcinoma de células renales, el carcinoma odontogénico de células claras, el ameloblastoma periférico, el oncocitoma y el carcinoma mucoepidermoide (13).

En nuestro caso, la sospecha inicial, tal y como ocurrió en otros casos publicados (4), recayó en un primer momento en

un quiste odontogénico. Debido a la relación con el último molar inferior se pensó en un quiste periodontal lateral. Este diagnóstico de presunción basado en la clínica y la radiología fue corroborado por una enucleación fácil de la lesión. Fue el estudio anatomopatológico posterior el que avisó de nuestro error, y ante el cual rectificamos nuestra actitud terapéutica. Por tanto, y como una de las conclusiones más importantes que podemos extraer de nuestra experiencia, es la absoluta pertinencia, fuera de toda duda, de enviar a analizar todo aquel material que se haya extirpado de la cavidad oral o sus anejos. Una vez advertido el error de diagnóstico de sospecha, y en contra de la opinión de otros autores (3), preferimos programar una intervención bajo anestesia general para realizar una escisión con márgenes de seguridad, evitando así la aparición de recidivas posteriores, que varían en función del tratamiento efectuado.

Tras un tratamiento conservador (enucleación o curetaje) la tasa de recidiva se sitúa en el 14%. Si el tratamiento es agresivo (resección marginal o segmentaria) no debería producirse recidiva, aunque éstas se han descrito (5). La baja tasa de recidivas parece propugnar un tratamiento conservador de la lesión (25), aunque algunos autores, como Junquera, difieren de esta opinión y abogan por un tratamiento agresivo del TOEC, escogiendo entre la resección marginal y segmentaria según las características individuales del caso. Otras actitudes distinguen según el tamaño de la lesión; para las lesiones pequeñas bastaría con la enucleación, mientras que en las más grandes una actitud más radical o agresiva mejoraría el pro-

nóstico. En nuestra opinión, dada la baja tasa de recidivas, sólo propugnamos un tratamiento quirúrgico no conservador cuando el comportamiento local indica agresividad o nos encontramos ante un tumor recidivado. En estos casos defendemos la realización de una escisión completa con márgenes amplios en tejido óseo sano, o de resecciones óseas marginales o segmentarias, si el tamaño de la lesión así lo exige.

Actualmente la predicción del comportamiento del TOEC es imposible. Se han intentado valorar distintos factores pronósticos, como la reactividad inmunohistoquímica de las células tumorales frente a anticuerpos monoclonales y policlonales para las queratinas (21), o la cantidad de sustancia amorfa y zonas calcificadas en el tumor (22), si bien no han encontrado aún resultados concluyentes (18).

CONCLUSIONES

- El tumor odontogénico epitelial calcificante o tumor de Pindborg es un tumor odontogénico benigno, raro, de origen aún no bien determinado, que puede aparecer como un hallazgo radiológico casual y puede confundirse sobre todo, por frecuencia, con los quistes dentígeros y con otros tumores óseos, siendo obligado establecer un diagnóstico de certeza anatomopatológico.
- Este tumor es de comportamiento clínico aún impredecible, y puede obligar a un tratamiento quirúrgico agresivo cuando el comportamiento local no es benigno, o estamos ante una lesión recidivada.

Calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg tumor)

SUMMARY

We report a clinical case of a 41-year-old female patient affected by a Pindborg tumor located in the left mandibular angle. The accidental detection of the lesion and its frequent relationship with an impacted tooth can difficult its differential diagnosis, mainly with an odontogenic cyst. In spite of the existence of a recurrence rate of 14% after conservative treatment, we think that a quality treatment would require the practice of a block excision including healthy bony margins.

Key words: calcifying epithelial odontogenic tumor, Pindborg tumor, odontogenic tumors.

INTRODUCTION

In 1955 Pindborg introduced the term calcifying epithelial odontogenic tumor (CEOT). This term has substituted other terms as adenoid adamantoblastoma, atypical ameloblastoma or cystic odontoma (1) and that has already been broadly accepted in the scientific literature, as well as the eponym Pindborg tumor, which was introduced by Shafer et al. in 1963 (2, 3). It is accepted that it derives from the epithelial elements of the enamel organ, but there are controversies about which part it derives exactly from, being able to originate from the external epithelium or from the stratum intermedium of the enamel organ. For other authors, it would derive from the cellular remnants of the basal sheet or from the basal stratum of the gingival epithelium (what would justify the existence of the peripheral or extraosseous forms) (4). CEOT assumes 1% of all odontogenic tumors (including the odontomas). It clinically shows a slow growth but with local aggressive behavior and a tendency to recurrence. According Junquera et al. (5), there are 4 annual cases of this tumor published worldwide in the scientific literature, the most important of which were those published by Franklin and Pindborg in 1976 (6) and Pindborg et al. in 1982 (7). In the national literature, that we had revised using the Spanish Medical Index since 1971 until 1998, we found six published cases (4, 5, 8-11).

The purpose of this article is to report a clinical case of a female patient affected by a Pindborg tumor in the mandibular angle. And in the process we accomplish a review of the literature and likewise, discuss the main clinical, diagnostic and therapeutic characteristics of the tumor.

CLINICAL CASE

We report a case of a 41 year-old female patient who was referred to the outpatient clinic of the "Virgen del Rocío" University Hospital in Seville. She had no serious medical

antecedents. She had a radioluscent lesion located on the left mandibular angle, affecting the second molar (Fig. 1). This lesion was found in a casual way in an X-ray study five months earlier. The CT scan showed a radioluscent image of 18-mm in diameter at the posterior level of the left mandibular ramus, spreading into the inner table of the mandible without destroying it. Neither interior calcifications nor signs of malignancy appeared: the lesion did not affect the masseter muscle, or the parapharyngeal fatty space, or the internal parotid space. There are no apparent adenopathies (Fig. 2).

The clinical and radiological primary diagnosis was a lateral periodontal cyst. We didn't reject the possibility of an odontogenic tumor, because the lesion did not show any regular image nor liquid inside was observed. The patient was appointed for a biopsy of the lesion under local anaesthetics, and enucleation was performed. Macroscopically the lesion was a cystic formation constituted by a whitish tissue of elastic consistency surrounded by adipose tissue, histologically described as "compatible with calcifying epithelial odontogenic tumor." Microscopically, the lesion presented pallid deposits, resembling the amyloid, among clear cells or of eosinophil cytoplasm and polyhedric environs, characteristic of the Pindborg tumor.

Due to the high recurrence rate of these tumors upon simple curettage, we decided to perform total extirpation including marginal extensions, under general anaesthesia. A strict follow-up was done for early detection of possible recurrence. CT scan showed positive recurrence after three months.

Six months later, the patient was operated on under general anaesthesia. The operation consisted of the extraction of the left second molar, excision of the recurrent lesion, periperal osteotomy with drill and filling the cavity with reabsorbable hydroxiapatite. The pathological report was conclusive, ratifying the diagnosis of calcifying epithelial odontogenic tumor (Fig. 3). In the first postoperative days the patient experienced decrease in sensitivity on the inferior alveolar nerve territory, which disappeared progressively in one month. The patient has not had any recurrence of this lesion to this date (18 months after surgery) (Fig. 4).

DISCUSSION

The calcifying epithelial odontogenic tumor is an extremely rare lesion. The Maxillofacial Surgery Service of the "Virgen del Rocío" University Hospital from Seville, that assists a population of 725.000 inhabitants, only operated on two cases of this lesion within the last five years. Characteristic presentation coincides mostly with our case: a mass or intraosseous tumoration, generally mandibular, painless or practically asymptomatic, of slow and progressive growth but with local aggressive behavior, causing expansion of the affected maxillary region and therefore local swelling. Except for this last detail, our patient hardly felt swelling nor pain in the area, all the other signs and symptoms were observed. 95% of the lesions are central and intraosseous, and three out of every four lesions are mandibular, sho-

wing preference in the posterior areas. Although more rarely, other authors have described extraosseous forms that appear mainly in the anterior areas, and are less aggressive than the central forms (12). We have found 11 reported cases of this type, six of which showed a predominance of clear cells. Hence, we can speak about a variant of clear cells of the CEOT (13, 14). Bimaxillary and bilateral affectation has also been described (11, 15). A 52% of the cases are associated with an impacted tooth.

Pindborg tumor affects the age range of 8 to 92, although the mean age for clinical manifestation ranges around 40 years for the central forms (like in our case), and the peripheral ones around 31 years old. There is no sex predilection.

Histologically, the tumor consists of masses of polyhedral, giant epithelial cells, with hyperchromatic nuclei, separated by a scarce conjunctive tissue. Lying between both components are some eosinophil homogeneous bodies of amyloid nature progressively calcifying and are named Liesegang rings. Our case fulfils these requirements. The epithelial cells are closely united and sometimes show cribiform disposition with the cells joined by intercellular bridges, in relation with *e-caderina* and α -*catenina* expression (16). With respect to the nature of the amyloid substance, there is some controversy about if it has a degenerative origin or it is segregated actively, and different studies have been done to this respect. El-Labban's (17) and Slootweg's (18) reports seem to indicate that the calcified amyloid material exerts a stimulus on the tumoral stroma resulting to the segregation of a collagen matrix which is posteriorly calcifyable. Different authors have described up to five histological patterns inside the CEOT (19-21).

Clinically its evolution shows an expansible slow growth. However, in some cases, the lesion is accompanied by pain, nasal obstruction, epistaxis and headache, cases have been described where the tumor showed excessive bleeding, and in one of them the patient underwent an angiography that showed a highly vascularized tumor (5, 9). Krolls and Pindborg, and Basu et al., have reported cases of tumors with malignant behavior and ganglionar affectation (22, 23).

All these cases are exceptional, and it is common to discover this tumor in a routine way starting from an occasional radiological exploration. A radioluscent lesion is observed which may show different characteristics, since the tumor crosses three evolutionary phases: At first it is totally radioluscent, simulating a dentigerous cyst (a likeness that increases when the tumor is seated within the vicinity of an impacted tooth). The lesion that we present in this article could be included in this first evolutionary phase, since there is no evidence of calcifications within the lesion upon radiographic examination. In the second phase, small intratumoral calcifications appear, which is the most characteristic image of the lesion although never pathognomonic. In the last phase, the tumor shows an image of a honeycomb, caused by the osseous destruction and the tumoral calcification (24). The bigger lesions can be multilobulated, imitating an ameloblastoma, mainly if we do not observe intratumoral calcifications.

Differential diagnosis of this tumor, in its two varieties (intraosseous and extraosseous), should be made with ameloblastoma (due to the previous indication), giant cell granuloma, osifying-cementifying fibroma, myxoma, ameloblastic fibro-odontoma and ameloblastic fibroma (25). Likewise if there is bleeding we should exclude the possibility of central mandibular angioma, (5, 9). Radiologically we should differentiate it from odontogenic cyst, the adenomatoid odontogenic tumor and the calcifying odontogenic cyst. The differential diagnosis of extraosseous Pindborg tumors with the presence of clear cells (more than half of the extraosseous Pindborg tumors are of this type), has to include tumors of salivary glands of clear cells, metastasis of the carcinoma of renal cells, odontogenic carcinoma of clear cells, peripheral ameloblastoma, oncocytoma and mucoepidermoid carcinoma (13).

In our case, the initial diagnosis was an odontogenic cyst, as in other reported cases (4). Due to the relationship with the last mandibular molar it was thought to be a lateral periodontal cyst. This diagnosis of presumption based on clinical and radiographical inspection was corroborated by an easy enucleation of the lesion. The later histological study was what warned us about our error, and therefore we rectified our therapeutic attitude. Therefore one of the most important conclusions we can extract of our experience is the absolute relevancy, without any doubt, of sending to analyze the entire material that has been extirpated of the oral cavity or its annexes. Once the error of primary diagnosis has been recognized, and against the opinion of other authors (3), we decided to operate under general anaesthesia, performing an excision with wide safety margins, avoiding in this way the appearance of later relapses that vary in function of the treatment.

After a conservative treatment (enucleation or curettage) the recurrence rate is located in 14%. If the treatment is aggressive (marginal or segmental resection), recurrence should not take place, although these have been described (5). The low rate of recurrences seems to propose a conservative treatment of the lesion (25), although some authors, as Junquera, differ from this opinion and they plead for an aggressive treatment of the CEOT, choosing between the marginal and segmental resection according to the individual characteristics of the case. Other attitudes distinguish according to the size of the lesion; for the small lesions a simple enucleation would suffice, while in the biggest ones, a more radical or more aggressive attitude would improve the prognosis. In our opinion, given the low rate of recurrence, we only propose a non-conservative surgical treatment. When the local tumoral behavior indicates aggressiveness we find a recurrent tumor. In these cases we defend the realization of a complete excision with wide margins in healthy osseous tissue, or of marginal or segmental osseous resections, if the size of the lesion demands this way.

At the moment, the prediction of the CEOT behavior is impossible. It has been tried to value different prognosis factors, as the immunohistochemical reactivity of tumoral cells

facing monoclonal and policlonal antibodies for the keratins (21), or the quantity of amorphous substance and calcified areas in the tumor (22), although conclusive results yet haven't been found (18).

CONCLUSIONS

• *The calcifying epithelial odontogenic tumor or Pindborg tumor is a rare and benign odontogenic tumor, of still uncertain origin that can appear as a casual radiological finding and can frequently be confused, with dentigerous cyst and with other osseous tumors, being forced to establish an anatomopathological diagnosis of certainty.*

• *This tumor still has an unpredictable clinical behavior, and can force an aggressive surgical treatment when the local behavior is not benign, or we have a recurrent lesion.*

CORRESPONDENCIA/CORRESPONDENCE

Dr. Rodolfo Belmonte Caro
Servicio de Cirugía Maxilofacial.
Hospital Universitario "Virgen del Rocío"
Avda. Manuel Siurot s/n Sevilla CP 41013
Tfno. personal: 954 577836
E-mail: rbelmonte@interbook.net

BIBLIOGRAFÍA/REFERENCES

- MacDaniel RK. Odontogenic cyst and tumors. En: Thawley SE, Panje WR, Batsakis JG, Lindberg RD, eds. Comprehensive management of head and neck tumors. WB Saunders Comp, Editores; 1987. p. 1465-7.
- Pindborg JJ. A calcifying epithelial odontogenic tumor. Cancer 1958; 11: 838-43.
- Shafer WG, Hine MK, Levy BM, eds. A textbook of oral pathology. WB Saunders Comp, Editores; 1983. p. 286-9.
- Gallardo M, Patrón M, Pascual A. Tumor odontogénico epitelial calcificante o tumor de Pindborg. A propósito de un caso. Rev Esp Cirug Oral y Maxilofac 1989; 11: 1-4.
- Junquera LM, Lombardía E, Albertos JM, Floriano P, López-Arranz, JS. Tumor odontogénico epitelial calcificante (tumor de Pindborg). Arch Odontoestomatol 1995; 11: 28-34.
- Franklin Cd, Pindborg JJ. The calcifying epithelial odontogenic tumor. A review and analysis of 113 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1976; 42: 753-6.
- Pindborg JJ, Vedtofte P, Reibel J, Praetorius F. The calcifying epithelial odontogenic tumor. A review of recent literature and report of a case. APMIS Suppl 1991; 23: 152-7.
- Gómez de la Mata J, Casana J, González D, Espinar E. Tumor odontogénico epitelial calcificante. Tumor de Pindborg. A propósito de un caso. Rev Esp Cirug Oral y Maxilofac 1988; 10: 94-7.
- González J, Torrades M, Hueto JA, Malet D. Hemorragia como forma de presentación del tumor odontogénico epitelial calcificante. Rev Esp Cirug Oral y Maxilofac 1991; 13: 175-8.
- Rabell J, Castiella JL, Peña JP, Arzoz E, Martín J, Palomero R. Tumor odontogénico epitelial calcificante (tumor de Pindborg). Presentación de un caso. Rev Esp Cirug Oral y Maxilofac 1992; 14: 7-9.
- Arguero M, Gay Escoda C. Presentación del tumor de Pindborg de forma mandibular doble. A propósito de un caso. Rev Eur Odontoestoma 1993; 3: 169-74.
- Kramer IR, Pindborg JJ, Shear M. Histological typing of odontogenic tumors. Berlin, Springer; 1992.
- Houston GD, Fowler CB. Extraosseous calcifying epithelial odontogenic tumor. Report of two cases and review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1997; 83: 577-83.
- Kumamoto H, Sato I, Tateno H, Yokoyama J, Takahashi T, Ooya K. Clear cell variant of calcifying epithelial odontogenic tumor (CEOT) in the maxilla: report of a case with immunohistochemical and ultrastructural investigations. J Oral Pathol Med 1999; 28: 187-91.
- Chomette G, Auriol M, Guilbert F. Tumeur épithéliale odontogène calcifiée bifocale (tumor de Pindborg). Étude morphologique et ultrastructurale. Rev Stomatol Chir Maxillofac 1984; 85: 329-36.
- Kumamoto H, Ooya K. Expression of E-cadherin and α -catenin in epithelial odontogenic tumors: an immunohistochemical study. J Oral Pathol Med 1999; 28: 152-7.
- el-Labban NG. Cementum-like material in a case of Pindborg tumor. J Oral Pathol Med 1990; 19: 166-9.
- Slootweg PJ. Bone and cementum as stromal features in Pindborg tumor. J Oral Pathol Med 1991; 20: 93-5.
- Ai-Ru L, Jian S. Calcifying epithelial odontogenic tumors: a clinicopathologic study of nine cases. J Oral Pathol 1982; 11:399-406.
- Asano M, Takahashi T, Kusama K, Iwase T, Hori M, Yamanoi H, et al. A variant of calcifying epithelial odontogenic tumor with Langerhans cell. J Oral Pathol Med 1990; 19: 430-4.
- Mori M, Tatemoto Y, Yamamoto N, Okada Y. Immunohistochemical localization of intermediate filament proteins in calcifying epithelial odontogenic tumors. J Oral Pathol 1988; 17: 236-40.
- Krolls SO, Pindborg JJ. Calcifying epithelial odontogenic tumor. A survey of 23 cases and discussion of histomorphologic variations. Arch Pathol 1974; 98: 206-10.
- Basu MK, Matthews JB, Sear AJ, Browne RM. Calcifying epithelial odontogenic tumor: a case showing features of malignancy. J Oral Pathol 1984; 13: 310-9.
- Chaudry AP, Holte NO, Vickers RA. Calcifying epithelial odontogenic tumor: report of a case. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1962; 15: 843-7.
- Bagán JV, Ceballos A, Bermejo A, Aguirre JM, Peñarocha M, eds. Tumores Odontogénicos, en Medicina Oral. Barcelona: Masson, Editores; 1995.