

Épulis congénito

H. Braga-Tavares¹, H. Santos¹, I. M-Pinto², M. Ramos¹, P. de Sousa¹

¹Unidad de Cirugía Pediátrica, Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia/Espinho, EPE;

²Laboratorio de Anatomía Patológica Doctora Isabel Macedo Pinto Lda

RESUMEN

El épulis congénito (EC) o tumor gingival de células granulares es un tumor benigno, poco frecuente, que se diagnostica en el recién nacido como una masa vegetativa localizada sobre la encía. A pesar de la descripción de algunos casos de regresión espontánea el manejo actualmente defendido es la escisión quirúrgica, con excelente pronóstico y resultado estético. Los autores describen un caso clínico y hacen una breve revisión de la literatura de esta patología.

PALABRAS CLAVE: Recién nacido; Épulis congénito; Tumor de encía.

CONGENITAL EPULIS

ABSTRACT

Congenital epulis or gingival granular cell tumor is an uncommon benign tumor, usually diagnosed at birth as a pediculated maxillary gingival mass. Although some cases of spontaneous regression have been described, most of the lesions are surgically removed with excellent prognosis and cosmetic final result. The authors describe a case report as well as a short revision on this pathology.

KEY WORDS: Congenital epulis; Newborn; Benign gingival tumor lesion.

INTRODUCCIÓN

El épulis congénito (EC) o tumor gingival de células granulares⁽¹⁻⁴⁾ se describió por primera vez en 1871 por Neumann⁽⁵⁾. Es una patología pediátrica muy rara, con menos de 1.000 casos comunicados en todo el mundo⁽³⁾. El EC se detecta en el examen del recién nacido (RN), por lo que los autores consideran interesante la descripción de un caso complementada con una revisión de la literatura en esta condición.

Correspondencia: Hugo Braga Tavares. Rua Óscar da Silva 1295 1º esq. 4450-760 Leça da Palmeira. Portugal. e-mail: hugotavares@net.sapo.pt

Recibido: Agosto 2008

Aceptado: Noviembre 2008

CASO CLÍNICO

Se presenta el caso de un RN femenino, sin antecedentes de interés, y embarazo sin complicaciones. En su primer examen de rutina fue detectada lesión vegetativa en la encía superior izquierda, con 2-3 cm de diámetro, de color blanquecino-rosada, superficie lisa y consistencia fibroelástica (Fig. 1). La paciente no presentaba alteraciones respiratorias ni dificultad de alimentación, por lo que se remite a la consulta externa de Cirugía Pediátrica.

Al mes de edad fue sometida a escisión quirúrgica de la lesión, con control de la profundidad de corte para no hacer daño en el germen dental (Fig. 2). El examen anatomopatológico describió una formación nodular con superficie exterior lisa, parcialmente blanquecina y compatible con el diagnóstico de tumor de células granulares – EC (Fig. 3A). La valoración inmunohistoquímica ha sido negativa para citoqueratina de bajo peso molecular y para la proteína S-100 (Figs. 3B y 3C).

El paciente tuvo una adecuada cicatrización de la herida, con posibilidad de inicio temprano de la dieta. A los 24 meses post-operatorio el desarrollo odontológico fue normal y no había recidiva de la lesión.

DISCUSIÓN

El EC es un tumor pedunculado benigno de la mucosa de los maxilares, más frecuentemente localizado en el superior (ratio maxilar/mandíbula de 2:1⁽¹⁾ o 3:1^(6,7)). Es específico del RN y tiene un predominio en el sexo femenino (hasta 10:1, dependiendo de la serie)^(8,16,21).

Macroscópicamente tiene un tono blanco, superficie lisa y consistencia fibroelástica y es indoloro al tacto. En aproximadamente el 10% de los casos es una lesión múltiple⁽⁸⁾. Su tamaño puede ser variable, desde milímetros a varios centímetros e incluso puede ocupar toda la cavidad oral, con compromiso de la alimentación y la respiración del RN^(1,2,9-15). El tumor suele ser observado *in utero* a las 25 semanas de gestación a



Figura 1. Lesión vegetante en la arcada maxilar superior izquierda.

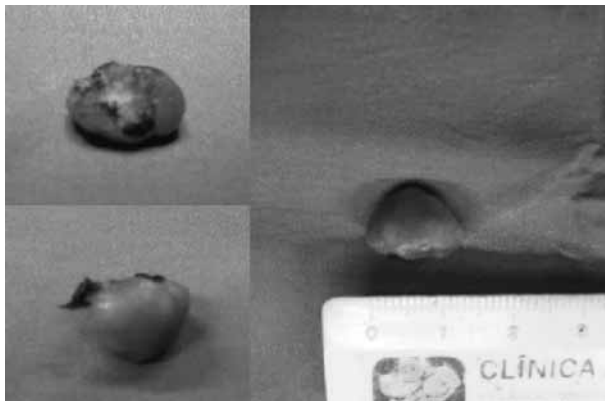


Figura 2. Aspecto macroscópico de la pieza operatoria.

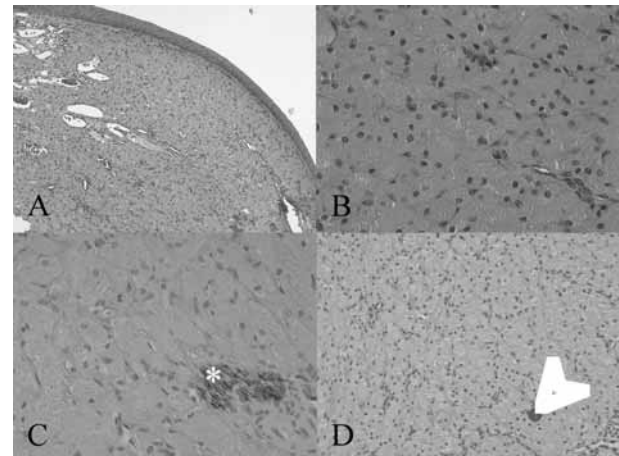


Figura 3. Examen microscópico. A) HE (x10), lesión homogénea con superficie lisa. B) HE (40x), células poliédricas con núcleo bien definido y citoplasma de aspecto granular. C) Inmunohistoquímica para citoqueratina de bajo peso molecular (marcación negativa), *estructura anexial (control positivo). D) Inmunohistoquímica para la proteína S-100 (marcación negativa); punta de la flecha – estructura nerviosa (control positivo).

través de ecografía⁽¹⁷⁾ o resonancia magnética⁽²²⁾, con la visualización de la lesión o de signos indirectos de compromiso de deglución como el polihidramnios⁽¹⁶⁻²⁰⁾, sugiriendo el diagnóstico de EC. La evaluación antenatal es muy importante en la toma de decisión del tipo de parto. Una lesión de dimensiones importantes puede conducir a una cesárea^(17,22-23). El riesgo de complicaciones respiratorias, como obstrucción, asfixia o incluso muerte neonatal deberá también ser considerado en estos casos. El diagnóstico antenatal de una lesión de dimensiones considerables deberá conducir a la madre a un hospital de nivel terciario que tenga un equipo multidisciplinar (medicina materno-fetal, neonatólogo, cirujano) que pueda valorar, decidir y actuar de forma adecuada.

El origen del EC es desconocido, describiéndose las etiologías odontogénica, fibroblástica, histiocítica, miogénica o neurogénica basadas en estudios inmunohistoquímicos⁽⁸⁾.

El examen de anatomía patológica muestra grupos de células de citoplasma granular y núcleo pequeño y ovalado con estroma fibroconectivo y numerosos canales vasculares; puede describirse también epitelio odontogénico y células inflamatorias. El revestimiento es normalmente de epitelio pavimentoso estratificado⁽⁸⁾. La valoración inmunohistoquímica es habitualmente negativa para citoqueratina (presente en estructuras anexiales), y proteína S-100 (marcador de estructuras nerviosas^(14,24-26)), como el caso que presentamos.

El principal diagnóstico diferencial del EC es el mioblastoma de células granulares que puede ocurrir a cualquier edad, encontrarse a menudo en otras áreas del tubo digestivo y que tiene potencial de malignidad y recurrencia⁽⁸⁾. La valoración inmunohistoquímica es positiva para proteína S-100 (a diferencia de la EC). Otras lesiones que pueden confundirse con la EC son el hemangioma, linfoma, los fibromas, rhabdomioma de bajo grado de malignidad o schwannoma, granuloma y perlas de Epstein^(6-8,14,24).

Cuando la lesión compromete la respiración o alimentación del RN se plantea su exéresis quirúrgica precoz⁽⁸⁾, incluso durante el parto si el diagnóstico es antenatal⁽²³⁾. En los restantes casos debe planificarse su exéresis para los primeros meses de vida, para permitir el diagnóstico diferencial con las lesiones anteriormente descritas.

Están descritos algunos casos de involución espontánea^(27,28) y no hay descripción de recurrencia ni de malignización de las lesiones⁽⁸⁾. El desarrollo dental suele ser nor-

mal cuando se realiza cirugía precoz⁽⁸⁾, como en el caso descrito.

Los autores enfatizan que el conocimiento de esta rara enfermedad neonatal es importante para su correcto diagnóstico y orientación terapéutica.

BIBLIOGRAFÍA

1. Eppley BL, Sadove AM, Campbell A. Obstructive congenital epulis in a newborn. *Ann Plast Surg.* 1991; 27: 152-155.
2. Akoz T, Erdogan B, Gorgu M. Obstructive congenital epulis of the newborn. *Plast Reconstr Surg.* 1997; 99: 922-923.
3. Zuker RM, Buenechea R. Congenital epulis: review of the literature and case report. *J Oral Maxillofac Surg.* 1993; 51: 1040-1043.
4. Lack EE, Perez-Atayde AR, McGill TJ, Vawter GF. Gingival granular cell tumor of the newborn (congenital "epulis"): ultrastructural observations relating to histogenesis. *Hum Pathol.* 1982; 13: 686-689.
5. Neumann E. EF. Fall von congenitaler epulis. *Arch Helth.* 1871; 12: 189.
6. Koch BL, Myer C, 3rd, Egelhoff JC. Congenital epulis. *AJNR Am J Neuroradiol.* 1997; 18: 739-741.
7. Wittebole A, Bayet B, Veyckemans F, Gosseye S, Vanwijck R. Congenital epulis of the newborn. *Acta Chir Belg.* 2003; 103: 235-237.
8. Olson JL, Marcus JR, Zuker RM. Congenital epulis. *J Craniofac Surg.* 2005; 16: 161-164.
9. Birman EG, Lopes RA, Barbosa J. Congenital epulis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1972; 34: 437-439.
10. Blair AE, Edwards DM. Congenital epulis of the newborn. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1977; 43: 687-691.
11. Chami RG, Wang HS. Large congenital epulis of newborn. *J Pediatr Surg.* 1986; 21: 929-930.
12. Costas JB, Di Piramo S. Congenital epulis (congenital granular cell myoblastoma). Report of two cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1968; 26: 497-504.
13. Karma P, Rasanen O, Karja J. Congenital epulis. Report of a case. *J Laryngol Otol.* 1977; 91: 623-627.
14. Lapid O, Shaco-Levy R, Krieger Y, Kachko L, Sagi A. Congenital epulis. *Pediatrics.* 2001; 107: E22.
15. Rainey JB, Smith IJ. Congenital epulis of the newborn. *J Pediatr Surg.* 1984; 19: 305-306.
16. Kannan SK, Rajesh R. Congenital epulis - congenital granular cell lesion: a case report. *J Indian Soc Pedod Prev Dent.* 2006; 24: 104-106.
17. Roy S, Sinsky A, Williams B, Desilets V, Patenaude YG. Congenital epulis: prenatal imaging with MRI and ultrasound. *Pediatr Radiol.* 2003; 33: 800-803.
18. Shaw L, Al-Malt A, Carlan SJ, Plumley D, Greenbaum L, Kosko J. Congenital epulis: three-dimensional ultrasonographic findings and clinical implications. *J Ultrasound Med.* 2004; 23: 1121-1124.
19. Kim SK, Won HS, Lee SW, Kim JK, Shim JY, Lee PR, et al. Prenatal diagnosis of congenital epulis by three-dimensional ultrasound and magnetic resonance imaging. *Prenat Diagn.* 2006; 26: 171-174.
20. Thoma V, Idrissi B, Kohler M, Becmeur F, Viville B, Favre R. Prenatal diagnosis of congenital epulis. A case study. *Fetal Diagn Ther.* 2006; 21: 321-325.
21. McGuire TP, Gomes PP, Freilich MM, Sandor GK. Congenital epulis: a surprise in the neonate. *J Can Dent Assoc.* 2006; 72: 747-750.
22. Nakata M, Anno K, Matsumori LT, Sumie M, Sase N, Nakano T, et al. Prenatal diagnosis of congenital epulis: a case report. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2002; 20(6): 627-9.
23. Kumar P, Kim HH, Zahtz GD, Valderrama E, Steele AM. Obstructive congenital epulis: prenatal diagnosis and perinatal management. *Laryngoscope.* 2002; 112(11): 1935-9.
24. Gomez Tellado M, Midon Miguez J, Mendez Gallart T, Rey JL, Montero M, Pais Pineiro E, et al. [Benign gingival granular cell tumor in the newborn: congenital epulis]. *An Esp Pediatr.* 1996; 45: 519-521.
25. Lifshitz MS, Flotte TJ, Greco MA. Congenital granular cell epulis. Immunohistochemical and ultrastructural observations. *Cancer.* 1984; 53: 1845-1848.
26. Tucker MC, Rusnock EJ, Azumi N, Hoy GR, Lack EE. Gingival granular cell tumors of the newborn. An ultrastructural and immunohistochemical study. *Arch Pathol Lab Med.* 1990; 114: 895-898.
27. Sakai VT, Oliveira TM, Silva TC, Moretti AB, Santos CF, Machado MA. Complete spontaneous regression of congenital epulis in a baby by 8 months of age. *Int J Paediatr Dent.* 2007; 17: 309-312.
28. Stavropoulos F, Guelmann M, Bimstein E, Katz J. Congenital epulis of the newborn: A case report. *Quintessence Int.* 2007; 38: E1-4.