

Trabajos Originales:

**TUMORES DE NERVIOS PERIFÉRICOS DE LA CAVIDAD BUCAL - ESTUDIO EPIDEMIOLÓGICO**

**Recibido para arbitraje: 22/06/2010**

**Aceptado para publicación: 12/03/2010**

**Paulo Ricardo Saquete Martins Filho** Maestría en Ciencias de la Salud en el Centro de Graduados de Medicina de la Universidad y Profesor Suplente de Sergipe y el Departamento de Odontología, Universidad Federal de Sergipe. **Thiago de Santana Santos** Profesor de la Facultad de Odontología de la Universidad de Pernambuco. **Emanuel Sávio de Souza Andrade** Maestría en Cirugía y Traumatología Bucco-Máxilo-Facial de la Universidad de Pernambuco(FOP/UPE). **Luiz Carlos Ferreira da Silva** Profesor del Departamento de Odontología, Universidad Federal de Sergipe. **Marta Rabello Piva** Estudiante de Doctorado en Patología Bucal, Universidad Federal de Rio Grande do Norte y profesor de Departamento de Odontología, Universidad Federal de Sergipe.

**Dirección para correspondencia:**

Faculdade de Odontologia de Pernambuco - FOP/UPE. Av. General Newton Cavalcanti, 1650. Bairro: Tabatinga, Código postal: 54753-220, Camaragibe - Pernambuco, Brasil. Teléfono: +55 81 87121279 E-mail: [thiago.ctbmf@yahoo.com](mailto:thiago.ctbmf@yahoo.com)

**RESUMEN**

**Introducción:** Los tumores neurales son lesiones oriundas de los nervios periféricos, siendo raros en la cavidad bucal. Estas lesiones incluyen el neurofibroma, neuroma traumático, schwannoma tumor de células granulares y el neuroma encapsulado. **Objetivo:** El presente trabajo se propuso a estudiar la prevalencia de estos tumores en dos servicios de diagnóstico oral. **Material y Método:** fue realizado, a través de análisis de informes histopatológicos, un estudio retrospectivo de los casos de tumores neurales solitarios en la cavidad bucal diagnosticados en el laboratorio de Patología de la Universidad de Pernambuco, en el período de 1.992 a 2.007, y en el servicio de Patología de la Universidad Federal de Sergipe, en el periodo de 2.000 a 2.007. **Resultados:** Fueron encontrados 28 tumores neurales benignos, de un total de 4,485 informes analizados. De una manera general, el género femenino fue el más afectado y la lengua el sitio de mayor predilección. Hubo una discreta tendencia del surgimiento de las lesiones en la 1ª, 2ª e 3ª Décadas de vida. **Conclusión:** el conocimiento de estas lesiones, aunque raras en la cavidad bucal, se torna imprescindible para los profesionales del área odontológica, visto que las estrategias de diagnóstico y tratamiento son dependientes de los datos epidemiológicos encontrados en la literatura especializada.

**Palabras Claves:** Tumores de Nervios Perifericos, Neurofibroma, Neuroma Traumático, Schwannoma.

**ABSTRACT**

**Introduction:** Peripheral nerve sheath tumors rarely occur in the oral cavity and include neurofibroma, traumatic neuroma, schwannoma, granular cell tumor and palisaded encapsulated neuroma. Aim: The purpose of the present study was to determine the prevalence of these tumors in patients referred in two oral diagnostic services. **Material and Method:** Specimens diagnosed as oral peripheral nerve sheath tumors archived in the oral pathology services of Universidade de Pernambuco, from 1992 to 2007, and Universidade Federal de Sergipe, from 2000 to 2007, were evaluated. **Results:** Twentyeight peripheral nerve sheath tumors were diagnosed. Neurofibroma was the tumor more prevalent, including 40% of the cases. In general, females were more affected than males and the most frequent oral site was the tongue. Children and young people were more prevalent. **Conclusion:** The knowledge of these lesions, even though rare in oral cavity, it is essential for dentistry professionals, since that diagnosis and treatment strategies are dependents to epidemiological data founded in the literature.

**Key Words:** Nerve Sheath Tumors, Neurofibroma, Traumatic Neuroma, Schwannoma

## INTRODUCCIÓN

Los tumores benignos originados en los nervios periféricos son comunes en la piel de la cara y cuello, mas son raros en la cavidad bucal. Estas lesiones incluyen el neurofibroma, neuroma traumático, schwannoma, tumor de células granulares y el neuroma circunscrito encapsulado. En ciertas situaciones, puede haber asociación con algunas enfermedades, como el neurofibromatosis tipo I y el síndrome de neoplasias endocrinas múltiples tipo III.

Son escasos los trabajos encontrados en la literatura que estudiaran la prevalencia de esos tumores en la cavidad bucal. Cavalcante y col (1) observaron una prevalencia de 1,08% de tumores neurales en niños de cero a 14 años de edad. Fregnani (2) verificó que 0,28% de las lesiones diagnosticadas en 32 años en la Facultad de Odontología de Piracicaba eran tumores neurales benignos. Batainch y Al-Dwariri (3) verificaron la presencia de apenas dos tumores neurales (0,68%) entre 294 lesiones diagnosticadas en el periodo de 2.001 a 2.004 en Jordania. Franklin y Jones (4) estudiaron 4,406 lesiones orales en niños de cero a 16 años de edad, en Inglaterra, y mostró una prevalencia de 0,8% de tumores de nervios periféricos. Rocha y col (5) constataron la presencia de 14 tumores neurales (0,3%) entre los 4.592 informes histopatológicos analizados en el periodo de 1.982 a 2.002 en Natal-RN. Por fin, Bertoja y col (6) realizaron un estudio retrospectivo de 1.963 lesiones bucomaxilofaciales diagnosticadas en el Laboratorio de Histopatología de la Facultad de Odontología de UnicenP - Paraná, en el periodo de 2.003 a 2.006, y verificaran la presencia de 6 neurofibromas, 2 neuromas traumáticos y 1 schwannoma. Esas lesiones comprenderán 0,49% del total de casos diagnosticados.

Wright y Kackson (7) relataron 146 casos de schwannoma en tejidos blandos de la cavidad bucal, con más de 50% de las lesiones localizadas en lengua. Peszkowski y Larsson<sup>8</sup> estudiaron 45 casos de neuroma traumático en la cavidad bucal y su asociación con extracciones dentarias previas. Marocchio (9) estudió 66 neurofibromas en la región de cabeza y cuello y evidenció que, en apenas 17 casos las lesiones se encontraban en la cavidad bucal, siendo la encía y el reborde alveolar los sitios más frecuentemente afectados. La frecuencia fue mayor en el género femenino y se encontraban en el grupo etario por encima de los 40 años de edad.

Son pocos los trabajos publicados en relación a los neuromas circunscritos encapsulados en la mucosa bucal, los cuales fueron primeramente descritos por Reed y col (10), en 1.972. Tomich y Moll (11) describieron el primer caso de encontrado en el labio inferior en 1.976. Chauvin y col (12) relataron una serie de 13 casos en la mucosa bucal, de los cuales 9 ocurrieron en el paladar duro.

Algunas series de casos sobre tumores de células Granulares (tumor de Abrikossoff) también fueron encontradas. Ingiero y col (13) diagnosticaron, en un periodo de 5 años, 11 pacientes con este tumor, siendo la lengua el lugar de mayor ocurrencia. Eguia y col (14) estudiaron 8 casos de tumor de células granulares y evidenciaran que 75% de los casos se trataba de la lengua. En los estudios mencionados, hubo una discreta predilección por el género femenino y los pacientes se encontraban preferencialmente, en la 4ta. y 5ta. décadas de la vida.

Debido a la escasez de estudios epidemiológicos sobre el tema, nos propusimos realizar un levantamiento epidemiológico de tumores neurales benignos solitarios de la cavidad bucal diagnosticados en el Laboratorio de Patología de la Universidad de Pernambuco, en el periodo de 1.992 a 2.007, y en el Servicio de Patología de la Universidad Federal de Sergipe, en el periodo de 2.000 al 2.007.

## MATERIAL Y MÉTODO

Fue realizado, a través del análisis de informe histopatológicos, un estudio retrospectivo de los casos de tumores neurales benignos solitarios de la cavidad bucal diagnosticados en el Laboratorio de Patología de

la Universidad de Pernambuco, en el periodo de 1992 al 2.007, y en el Servicio de Patología de la Universidad Federal de Sergipe, en el periodo de 2.000 al 2.007.

Los datos presentes en los informes fueron agrupados de la siguiente forma: (1) Según las lesiones - tipos histológicos y localizaciones; (2) En cuanto al paciente - edad y género. El conjunto de observaciones fue resumido en forma de tablas, siendo realizada la distribución de frecuencias de las variables analizadas. Medidas de tendencia central para la edad de los pacientes que participan también fueron calculadas.

## RESULTADOS

Fueron analizados 4.485 informes histopatológicos, siendo encontrados registros de 28 tumores neurales benignos solitarios de la cavidad bucal. Este valor representa aproximadamente 0,62% del total de informes analizados. Los resultados obtenidos en cuanto a los tipos histológicos están resumidos en la tabla 01.

**Tabla 1**  
**Distribución de los casos de tumores neurales por tipo histológico**

Tipo Histológico	n	%
Neurofibroma	12	42,9
Neuroma Traumático	07	25,0
Schwanoma	04	14,3
Tumor de Células Granulares	04	14,3
Neuroma (en empalizada) Encapsulado	01	3,5
<b>TOTAL</b>	<b>28</b>	<b>100</b>

Fuente: Laboratorio de Patología da UPE e Servicio de Patología de la UFS.

En cuanto a la localización, observamos que los tumores neurales se desarrollaron preferencialmente en regiones de tejidos blandos de la boca, siendo la lengua la zona de mayor predilección. Las lesiones intra-óseas ocurrirán cerca de  $\frac{1}{4}$  de los casos. Las tablas 02 y 03 mostrarán, en frecuencia absoluta y relativa, las regiones de participación de estos tumores.

**Tabla 2**  
**Localizaciones de los tumores neurales de acuerdo con la afectación intra y extra intra-ósea**

Localización	n	%
Extra-Óseo	21	75,0
Intra-Óseo	07	25,0
<b>TOTAL</b>	<b>28</b>	<b>100</b>

Fuente: Laboratorio de Patología da UPE e Servicio de Patología de la UFS.

**Tabla 3**  
**Localización anatómica de los tumores neurales en la cavidad bucal**

Tipo Histológico	Lengua	Paladar	Yugal	Labio Inf.	Piso de la boca	Labio Sup	Encía	Intra-óseo	Total
Neurofibroma	02	02	01	01	01	-	01	04	12
Neuroma Traumático	03	01	01	-	-	01	-	01	07
Schawanoma	-	-	01	-	01	-	-	02	04
TCG	04	-	-	-	-	-	-	-	04
NPE	-	-	-	01	-	-	-	-	01
<b>Total</b>	<b>09</b>	<b>03</b>	<b>03</b>	<b>02</b>	<b>02</b>	<b>01</b>	<b>01</b>	<b>07</b>	<b>28</b>

Fuente: Laboratorio de Patología da UPE e Servicio de Patología de la UFS.

En relación al género, se verificó una amplia predilección por las mujeres, las cuales comprenderán más del 70% de los casos (Tabla 04).

**Tabla 4**  
**Distribución en cuanto al género de los pacientes portadores de tumores neurales en la cavidad bucal.**

Género	n	%
Femenino	20	71,4
Masculino	07	25,0
Sin Información	01	3,6
<b>TOTAL</b>	<b>28</b>	<b>100</b>

Fuente: Laboratorio de Patología da UPE e Servicio de Patología de la UFS

La edad de los pacientes afectados varió los 4 a los 66 años, con una media de 33,2 años y mediana de 27 años. A través de la tabla 05, se observa que hay una distribución equilibrada de los tumores neurales para los grupos etarios ocurrió con una leve predilección por las tres primeras décadas de vida.

**Tabla 5**  
**Distribución en cuanto la edad de los pacientes portadores de los tumores neurales en la cavidad bucal.**

Grupo Etario	n	%
0-10	03	10,7
11-20	06	21,4
21-30	04	14,3
31-40	01	3,6
41-50	04	14,3
51-60	05	17,9
61-70	02	7,1
Sin Información	03	10,7
<b>TOTAL</b>	<b>28</b>	<b>100</b>

Fuente: Laboratorio de Patología da UPE e Servicio de Patología de la UFS

**Tabla 6**  
**Levantamientos Epidemiológicos de Lesiones Orales y la Prevalencia de Tumores Neurales**

Trabajos	País de Origen	Número de Informes estudiados	Total de tumores Neurales Observados	Prevalencia de Tumores Neurales
Cavalcante y col <sup>1</sup>	Brasil	370	04	1,08%
Fregnani <sup>2</sup>	Brasil	8,875	25	0,28%
Bataineh y col - Dwairi <sup>3</sup>	Jordania	294	02	0,68%
Franklin y Jones <sup>4</sup>	Inglaterra	4,406	35	0,80%
Rocha y col <sup>5</sup>	Brasil	4,592	14	0,30%
Bertoja	Brasil	1,963	09	0,49%

## DISCUSIÓN

Estudios sobre tumores neurales presentes en la cavidad bucal no son relatados con tanta frecuencia, bien como la prevalencia de estas lesiones y su relación con algunas variables, como localización, edad y género. De acuerdo con los raros trabajos publicados (tabla 06) y los resultados encontrados en nuestro estudio, verificamos que es extremadamente baja la prevalencia de tumores neurales en la cavidad bucal, generalmente no mayor de 1%.

Con relación a los tipos histológicos encontrados, observamos que hubo una mayor prevalencia de neurofibromas, comprendiendo más del 40% de los casos. El neuroma traumático fue el segundo tumor más frecuente, seguido del schwannoma y del tumor de células granulares. La mayoría de los trabajos ya citados sobre la prevalencia de estos tumores tienen cifras semejantes a las encontradas en nuestra investigación, con excepción a los hallados de Fregnani (2), que reportaron el neuroma traumático como la lesión neural más común en la cavidad bucal.

En lo que concierne al sitio de localización, observamos que apenas un cuarto de los tumores tuvieron participación intra-ósea, con mayor predilección por la mandíbula. Estas lesiones pueden originarse en cualquier porción del nervio trigémino (raíz, cavidad de Merckel o en los ramos periféricos), de forma espontánea (15-18) o relacionada a factores extrínsecos, como exodoncias complicadas (8,19) y cirugías ortognáticas (20,21). Los neuromas traumáticos son las lesiones generalmente relacionadas a estos factores extrínsecos y por eso, algunos autores la consideran una tentativa frustración de reparación del nervio lesionado, y no una verdadera neoplasia.

Los tumores extra-óseos, a su vez representaran tres cuartos de los casos estudiados, siendo la lengua el local de mayor prevalencia. A pesar de algunos relatos demostraran que cualquier porción de la cavidad bucal pueda estar involucrada, como el piso de boca (22), labio inferior (11,23,24), paladar (25,26), mucosa yugal (28,29), parece consenso de que la lengua es realmente el sitio de mayor involucramiento (7,13,14,30-35).

En relación a la variable de género, verificamos que la gran mayoría de los pacientes encontrados en nuestro estudio pertenece al género femenino. Del mismo modo, varios trabajos apuntan una mayor frecuencia de mujeres afectadas por tumores neurales de la cavidad bucal, especialmente para los casos de neurofibromas (9), schwannomas (15,32,33) y tumores de células granulares (13,14). Resultados contrastantes fueron relatados por Franklin y Jones, que verificaran una mayor frecuencia de

schawanomas y tumores de células granulares en individuos del género masculino, de cero a 16 años de edad.

Para la variable de grupo etario, verificaremos una distribución equilibrada entre los casos, con una discreta predilección por la 1ª, 2ª y 3ª décadas de vida. De acuerdo con la mayoría de los estudios, a pesar que los tumores neurales se manifiestan en cualquier edad, hay una predilección en la 3ª, 4ª y 5ª décadas de vida (9,13-15,18,24,25,32), presenta el neuroma circunscrito encapsulado una mayor frecuencia en los pacientes más viejos (12). De hecho, el único caso de neuroma circunscrito encapsulado verificado en nuestros hallazgos ocurrió en una paciente con 66 años de edad.

## CONCLUSIONES

De acuerdo con nuestros hallazgos, los tumores de nervios periféricos pueden ser encontrados en cualquier porción anatómica de la cavidad bucal, siendo más frecuentes en la lengua. Las mujeres son más comúnmente afectadas y hay una discreta predilección por las tres primeras décadas de vida.

El conocimiento de estas lesiones, pese a que son poco frecuentes en la cavidad bucal, se torna imprescindible para los profesionales del área odontológica, visto que las estrategias de diagnóstico y tratamiento son dependientes de los datos epidemiológicos encontrados en la literatura especializada.

## REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS:

1. Cavalcante ASR, Marsilio AL, Kühne SS, Carvalho YR. Lesões bucais de tecido mole e ósseo em crianças e adolescentes. Pós-Grad Rev Fac Odontol São José dos Campos. (1999); 2(1): 67-75.
2. Fregnani ER. Avaliação epidemiológica de 8.875 diagnósticos histopatológicos orais realizados pelo serviço de diagnóstico oral da disciplina de patologia bucal da FOP/UNICAMP em um período de 32 anos [dissertação]. Campinas: Universidade de Campinas, 2003.
3. Bataineh A, Al-Dwairi ZN. A survey of localized lesions of oral tissues: a clinicopathological study. J Contemp Dent Pract. (2005); 6(3): 30-9.
4. Franklin AV, Jones CD. An analysis of oral and maxillofacial pathology found in children over a 30-year period. Int J Paed Dent. (2006); 16: 19-30.
5. Rocha DAP, Oliveira LMM, Souza LB. Neoplasias benignas da cavidade oral: estudo epidemiológico de 21 anos (1982 a 2002). Rev Odont Univ Cid São Paulo. (2006); 18(1): 53-60.
6. Bertoja IC, Tomazini JG, Braosi APR, Zielak JC, Reis LFG, Giovanini AF. Prevalência de lesões bucais diagnosticadas pelo laboratório de histopatologia da UnicenP. Rev Sul Bras Odont. (2007); 4(2): 41-6.
7. Wright BA, Jackson D. Neural tumors of the oral cavity. A review of the spectrum of benign and malignant oral tumors of the oral cavity and jaws. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. (1980); 49: 509-522.
8. Peszkowski MJ, Larsson A. Extraosseous and intraosseous oral traumatic neuromas and their association with tooth extraction. J Oral Maxillofac Surg. (1990);48: 963-7.
9. Marocchio LS. Neurofibroma isolado na região de cabeça e pescoço: considerações clínicas e

histopatológicas [dissertação]. Bauru: Universidade de São Paulo, 2004.

10. Reed RJ, Fine RM, Meltzer HD. Palisaded, encapsulated neuromas of the skin. *Arch Dermatol.* (1972); 106(6): 865-70.
11. Tomich CE, Moll MC. Palisaded, encapsulated neuroma of the lip. *J Oral Surg.* (1976); 34(3): 265-8.
12. Chauvin PJ, Wysocki GP, Daley TD, Pringle GA. Palisaded encapsulated neuroma of oral mucosa. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* (1992); 73(1): 71-4.
13. Angiero F, Crippa R, Stefani M. Granular cells tumour in the oral cavity: report of eleven cases treated with laser surgery. *Minerva Stomatol.* (2006); 55(7-8): 423-30.
14. Eguia A, Uribarri A, Gay-Escoda C, Crovetto MA, Martínez-Conde R, Aguirre JM. Granular cell tumor: report of 8 intraoral cases. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* (2006); 11: 425-8.
15. Sadeghi EM, Koenig LJ, Clark D. Intrabony neurilemmoma: diagnosis and management. *J Am Dent Assoc.* (1998); 129: 729-32.
16. Paiva Neto MA, Stamm AC, Braga FM. Schwannoma do ramo mandibular do nervo trigêmeo. *Arq Neuropsiquiatr.* (2001); 59(4): 959-63.
17. Che Z, Nam W, Park WS, Kim HJ, Cha IH, Kim HS et al. Intraosseous nerve sheath tumors in the jaws. *Yonsei Med J.* (2006); 47(2): 264-70.
18. Martins MD, Taghlobi SA, Bussadori SK, Fernandes KPS, Palo RM, Martins MAT. Intraosseous schwannoma mimicking a periapical lesion on the adjacent tooth: case report. *Int Endod J.* (2007); 40: 72-8.
19. Arribas-García I, Alcalá-Galiano A, Gutiérrez R, Montalvo-Moreno JJ. Traumatic neuroma of the inferior alveolar nerve: a case report. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* (2008); 13(3): 86-8.
20. Chau MNY, Jönsson E, Lee KM. Traumatic Neuroma Following Sagittal Mandibular Osteotomy. *Int J Oral Maxillofac Surg.* (1989); 18(2): 95-8.
21. Kallal RH, Ritto FG, Almeida LE, Crofton DJ, Thomas GP. Traumatic neuroma following sagittal split osteotomy of the mandible. *Int J Oral Maxillofac Surg.* (2007); 36(5): 453-4.
22. Al-Omran MK, Al-Khamis ANK, Malik AK. Solitary neurofibroma of the floor of the mouth. *Neurosci.* (2006); 11(1): 53-5.
23. Zhang M, Hayashi H, Fukuyama H, Nakamura T, Kurokawa H, Takahashi T. Traumatic neuroma in the lower lip arising following laser/cryosurgery to treat a mucocele. *Oral Dis.* (2003); 9: 160-1.
24. Tashiro A, Imafuku S, Furue M. Traumatic neuroma of the lower lip with intraepithelial nerve fibers. *J Cutan Pathol.* (2008); 35: 320-3.
25. Boulos R, Marsot-Dupuch K, Saint-Maur P, Meyer B, Huy PT. Granular cell tumor of the palate: a case report. *Am J Neuroradiol.* (2002), 23: 850-4.
26. Johann ACBR, Caldeira PC, Souto GR, Freitas JB, Mesquita RA. Extra-osseous solitary hard palate

- neurofibroma. Rev Bras Otorrinolaringol. (2008); 74(2): 317.
27. Marocchio LS, Pereira MC, Soares CT, Oliveira D. Oral plexiform neurofibroma not associated with neurofibromatosis type I: case report. J Oral Sci. (2006); 48: 157-60.
  28. Souza LB, Oliveira JMB, Freitas TMC, Carvalho RA. Neurofibroma paciniano: relato de um caso raro de localização intra-oral. Rev Bras Otorrinolaringol. (2003); 69(6): 851-4.
  29. Marcos JAG, Ferrer AD, Granados FA, Masera JJR, Marcos MJG, Jiménez AV et al. Encíal neurofibroma in a neurofibromatosis type 1 patient. Case report. Med Oral Patol Oral Cir Bucal. (2007); 12: 287-91.
  30. Lahoz Zamarró MT, Galve Rovó A. Neurofibroma of the tongue. An Otorrinolaringol Ibero Am. (1990); 17(3): 287-95.
  31. Chiapasco M, Ronchi P, Scola G. Neurilemmoma (Schwannoma) of the oral cavity. Minerva Stomatol. (1993); 42(4): 173-8.
  32. Hitoshi W, Daisuke I, Kaname S, Masayasu I, Go Y, Taro I et al. Schwannoma of the oral cavity: report of 6 cases. J Showa Univ Dent Soc. (2004); 24(3): 267-72.
  33. Sardinha SCA, Paza AO, Vargas PA, Moreira RWF, Moraes M. Schwannoma of the oral cavity. Histological and immunohistochemical features. Braz J Oral Sci. (2005); 4(14): 806-19.
  34. Bongiorno MR, Pistone G, Aricó M. Manifestations of the tongue in neurofibromatosis type I. Oral Dis. (2006); 12: 125-9.
  35. Alves PM, Araújo CRF, Pereira JV, Martins FAP, Queiroz LMG. Neurofibromatose tipo 1 com manifestação oral: relato de caso e revisão da literatura. J Bras Patol Med Lab. (2008); 44(2): 141-5.