

Carcinoma Cuniculatum de Cavidad Oral: Reporte de Caso

Cuniculatum Carcinoma of the Oral Cavity: Case Report

José Manuel Alcalá-Moreno¹, Luis Alejandro Torrontegui-Zazueta¹, Héctor Luis Echeagaray-Sánchez², Cynthia Marina Urias-Barreras³, María José Ortiz-Sainz de Rozas^{4,5}, Areli Sonaly Prado-Tapia⁶

1. Médico Residente de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello, Centro de Investigación y Docencia en Ciencias de la Salud, Hospital Civil de Culiacán. Universidad Autónoma de Sinaloa. Culiacán, Sinaloa.
2. Médico Adscrito de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello, Centro de Investigación y Docencia en Ciencias de la Salud, Hospital Civil de Culiacán. Universidad Autónoma de Sinaloa. Culiacán, Sinaloa.
3. Patóloga bucal adscrita a la Facultad de Odontología y al Departamento de Anatomía Patológica, Centro de Investigación y Docencia en Ciencias de la Salud, Hospital Civil de Culiacán. Universidad Autónoma de Sinaloa. Culiacán, Sinaloa.
4. Médico Especialista en Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello
5. Médico Residente de Subespecialidad en Otorrinolaringología Pediátrica, Hospital Infantil de México Federico Gómez, Universidad Nacional Autónoma de México. Ciudad de México, CDMX.
6. Médico Adscrito del Departamento de Anatomía Patológica, Instituto Mexicano del Seguro Social Hospital General Regional N°1. Culiacán, Sinaloa

*Autor de correspondencia: José Manuel Alcalá Moreno.

Domicilio: Iztacchuatl #1065A, Cumbres II, Culiacán, Sinaloa, México.

Correo electrónico: alcalamorenom@gmail.com

DOI <http://dx.doi.org/10.28960/revmeduas.2007-8013.v15.ne.018>

Recibido 25 de septiembre 2024, aceptado 27 de enero 2025

RESUMEN

Objetivo: Describir un caso de carcinoma cuniculatum en cavidad oral, así como su tratamiento, caso clínico y destacar la importancia de un diagnóstico diferencial preciso. **Caso clínico:** Paciente masculino de 61 años con úlcera progresiva en el paladar duro. La lesión creció hasta formar una masa dolorosa exofítica. La biopsia confirmó carcinoma cuniculatum. Se trató con quimioterapia y resección completa, con una evolución favorable y sin recurrencia. **Conclusión:** El carcinoma cuniculatum en cavidad oral es raro y su diagnóstico es desafiante con tan sólo 22 casos afectando la cavidad oral reportados en la literatura. La resección quirúrgica completa sigue siendo el tratamiento de elección, logrando un buen pronóstico en ausencia de metástasis y con adecuado seguimiento postoperatorio.

Palabras clave: Carcinoma cuniculatum, cavidad oral, paladar duro, cirugía, histología

ABSTRACT

Objective: To describe a case of carcinoma cuniculatum in the oral cavity, a rare variant of squamous cell carcinoma, and to highlight the importance of an accurate differential diagnosis. **Clinical case:** A 61-year-old male patient with an ulcer on the hard palate. The lesion grew to form a painful exophytic mass. The biopsy confirmed carcinoma cuniculatum, treatment consisted on chemotherapy and complete resection, with a favorable evolution and no recurrence. **Conclusion:** Carcinoma cuniculatum in the oral cavity is rare and its diagnosis is challenging, there are only 22 cases in the oral cavity reported in literature. Complete surgical resection remains the treatment of choice, achieving a good prognosis in the absence of metastasis and with adequate postoperative follow-up.

Keywords: Carcinoma cuniculatum, oral cavity, hard palate, surgery, histology.

INTRODUCCIÓN

El carcinoma cuniculatum es una variante extremadamente rara, variante del carcinoma de células escamosas, con características clínico-patológicas únicas que han dificultado su reconocimiento en el ámbito médico. Este tumor

fue descrito por primera vez en 1954 por Aird et al. como una lesión restringida a la planta del pie, pero desde entonces se han documentado casos excepcionales en otras áreas anatómicas, incluyendo la cavidad oral, lo cual

es sumamente inusual con sólo 22 casos reportados en la literatura hasta la fecha.¹⁻³ Se agregó en el 2005 a la clasificación de la OMS, por su arquitectura en forma de criptas ramificadas llenas de queratina, núcleos de queratina que se extienden hacia tejidos de soporte como músculo y hueso, semejante a madrigueras. Puede llegar a confundirse con el carcinoma verrugoso, sin embargo, a diferencia del carcinoma cuniculatum, microscópicamente no presenta la red de canales llenos de queratina que lo caracterizan. Así mismo; hasta en un 20% es posible hallar focos de carcinoma escamoso convencional dentro del mismo. Distintas localizaciones se han reportado por la literatura tras su primera descripción plantar, como en abdomen, palmas de manos, pene, piel y esófago. Sin embargo, a nivel oral es raro, se describió por primera vez por Flieger et al en el 2005.¹⁻⁴

Caso Clínico

Se presenta masculino de 61 años de edad, previamente conocido con antecedente de esclerodermia y múltiples antecedentes oncológicos, leucemia mieloide crónica y carcinoma papilar de tiroides; para los cuales se ha sometido a trasplante de médula ósea y tiroidectomía total junto con terapia de yodo radioactivo. Así como alcoholismo y tabaquismo positivo, con un índice tabáquico de 0.75 cigarrillos al año. Es valorado tras detectar ulcera indolora hiperémica en paladar duro, de un año de evolución; predominante sobre línea media del paladar

duro, con extensión al trígono retromolar derecho, de aproximadamente 2x2cm (**figura 1**).



Figura 1. Lesión ulcerativa en cara bucal de paladar duro.

Se realiza biopsia de la lesión tras crecimiento acelerado de la tumoración, reportando carcinoma cuniculatum. Se decide iniciar quimioterapia con base de docetaxel, carboplatino y capecitabina por 3 meses y se programa para maxilectomía parcial izquierda.

Se solicita tomografía simple de macizo facial, visualizando extensión total de la lesión isodensa la cual invade pared anteriomedial de seno maxilar y cornete inferior izquierdo (**figura 2**).

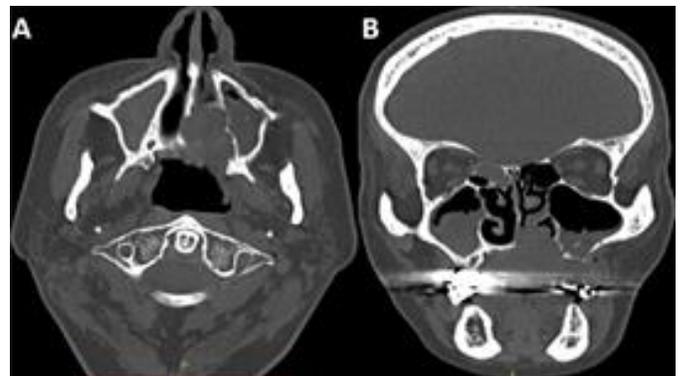


Figura 2. Tomografía simple de macizo facial. **A)** Corte axial, se visualiza lesión isodensa a tejidos blandos a nivel de hemipaladar duro izquierdo, infiltrando septum nasal y pared medial de seno maxilar izquierdo. **B)** Corte coronal, se visualiza lesión isodensa a nivel de piso nasal infiltrando cornete inferior izquierdo y septum nasal.

Se decide tratamiento quirúrgico con maxilectomía parcial izquierda para escisión total de la lesión, se localiza lesión sobre trígono retromolar derecho y se realiza toma de biopsia que se envía a estudio transquirúrgico; se localiza tumoración sobre paladar duro, se toman muestras de bordes quirúrgicos y se procede a realizar incisión a 0.5 cm del borde posterior del paladar duro, posterior al tercer molar, y lateralmente extendiéndose hacia sulcus gingivobucal maxilar izquierdo y tuberosidad maxilar izquierda, y lateralmente a 0.5 cm de los procesos alveolares derechos.

Anteriormente se extiende detrás los procesos alveolares, conservando incisivos centrales y laterales, caninos y procesos molares maxilares derechos. Se procede a retirar maxila, paladar blando, proceso nasal del maxilar y piso nasal, respetando cornete inferior y el resto de la pared lateral nasal izquierda (**figura 3**).



Figura 3. Cavity común naso-oral. Se visualiza mucosa de cavidad nasal y cara inferior de cornete inferior derecho.

Se verifica hemostasia y se visualiza cavidad común entre cavidad nasal y cavidad oral, por lo que se prosigue a la colocación de obturador quirúrgico (**figura 4**).



Figura 4. Obturador quirúrgico

Se coloca obturador quirúrgico inmediato para sellar comunicación entre cavidad oral y nasal, por parte del servicio de cirugía maxilofacial y posteriormente se da por terminado el procedimiento quirúrgico (**figura 5**).



Figura 5. Colocación de obturador quirúrgico con sellado de comunicación entre cavidad nasal y oral.

Se envía muestra al departamento de anatomía patológica (**figura 6**).

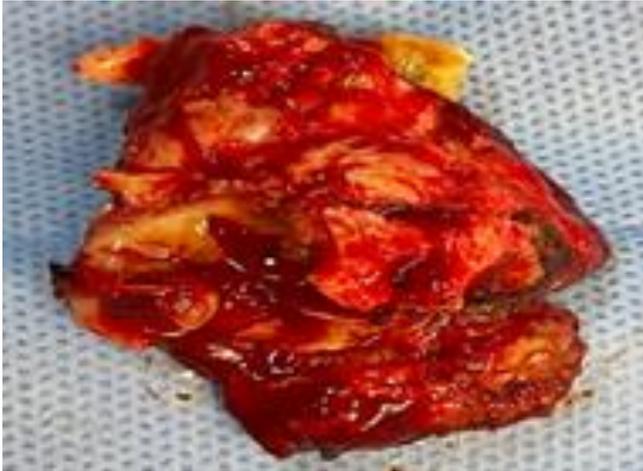


Figura 6. Pieza quirúrgica con bordes irregulares, con dimensiones de 4.8 x 4 x 2.8cm. Se visualizan presencia de piezas dentales maxilares superiores.

El reporte definitivo de histopatología se describe epitelio proliferativo de células escamosas bien diferenciado, con elongación de crestas epiteliales e invasión hacia el tejido conjuntivo subyacente, formando criptas llenas de queratina, nidos de disqueratosis y formación de perlas córneas, compatible con carcinoma cuniculatum estableciendo así el diagnóstico (**figura 7**).

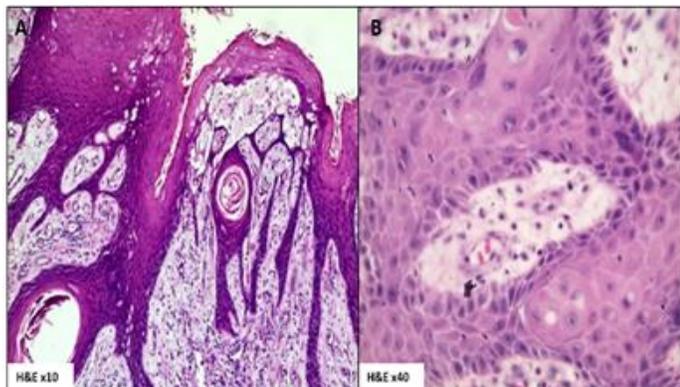


Figura 7. Fotografía microscópica con hematoxilina y eosina donde se observa epitelio proliferativo de células escamosas bien diferenciado con criptas llenas de queratina. Se visualiza campo con aumento x10 (A) y aumento x40 (B).

Durante el seguimiento, el paciente presenta adecuada evolución postquirúrgica, sin datos de recidiva, con seguimientos semestrales, actualmente cumpliendo 19 meses libres de enfermedad.

Discusión

El carcinoma cuniculatum de cavidad oral es una variante rara de presentación del carcinoma escamoso. Se ha nombrado también como epitelioma cuniculatum, carcinoma verrugoso invertido o tumor de Buschke-Lowenstein.³⁻⁴ Su primera descripción en la literatura fue por Aird et al localizado en el pie, a la fecha, se han descrito aproximadamente 22 casos en el tracto aerodigestivo superior, con predilección por la encía mandibular, mucosa alveolar y lengua oral como sitios de aparición más frecuente; similar a lo descrito con nuestro paciente.¹⁻³

La edad de presentación clínica tiene un rango amplio de edad, cuya media es a los 50 años de edad y predominio masculino, característica de presentación similar a la ocurrida con nuestro paciente.⁴ Clínicamente se manifestó como una úlcera e induración, que fue progresando a una lesión invasiva.

Como factores de riesgo el alcohol y el tabaco son agentes conocidos por su correlación con el desarrollo de cáncer de cabeza y cuello, en el

caso del carcinoma cuniculatum se ha mencionado como posible contribuyente, sin embargo, su rareza no ha dado datos significativos concluyentes. Posiblemente, nuestro paciente haya tenido estos factores de riesgo asociados para el desarrollo de la enfermedad al presentar exposición leve al tabaco activamente, alcohol y otros antecedentes oncológicos asociados, sin embargo, la falta de evidencia no nos permite concluirlo.⁴⁻⁶

Las características histopatológicas encontradas en nuestro paciente fueron similares al carcinoma verrucoso, por lo que fue imprescindible una valoración extra por el área de patología bucal, que llevó a realizar un diagnóstico exacto de las imágenes. Donde se encontró epitelio proliferativo de 107nvasió escamosas bien diferenciado con 107nvasi atipia citológica 107nvasión107n e 107nvasión de las crestas epiteliales hacia el conjuntivo subyacente formando criptas llenas de queratina nidos de disqueratosis y formación de perlas corneas, patron madriguera de conejo, compatible con carcinoma cuniculatum.⁷

El tratamiento ideal para estos pacientes sigue siendo la escisión quirúrgica completa de la lesión con márgenes de hasta 5cm, siempre con ayuda de la quimioterapia y radioterapia para disminuir sus dimensiones previo a la extirpación completa.²⁻⁷

Su naturaleza es localmente agresiva, sin generar metástasis, por si origen diploide, teniendo

un pronóstico más favorable a comparación con otros tipos de carcinomas escamosos de cavidad oral.

Conclusión

Se presenta un caso de carcinoma de células escamosas variante cuniculatum de cavidad oral, raro en dicha localización, y entidad de importancia a reconocer dentro de los distintos diagnósticos diferenciales existentes. El enfoque de estos casos requiere un abordaje multidisciplinario, incluida la participación del patólogo bucal y el cirujano de cabeza y cuello.

Referencias

1. Sun Y, Kuyama K, Burkhardt A, Yamamoto H. Clinicopathological evaluation of carcinoma cuniculatum: a variant of oral squamous cell carcinoma: Clinicopathological evaluation of carcinoma cuniculatum. *Journal of Oral Pathology & Medicine*. abril de 2012;41(4):303-8.
2. Elangovan E, Banerjee A, Abhinandan, Roy B. Oral carcinoma cuniculatum. *J Oral Maxillofac Pathol*. 2021;25(1):163.
3. Yadav S, Bal M, Rane S, Mittal N, Janu A, Patil A. Carcinoma Cuniculatum of the Oral Cavity: A Series of 6 Cases and Review of Literature. *Head and Neck Pathol*. marzo de 2022;16(1):213-23.
4. Thavaraj S, Cobb A, Kalavrezos N, Beale T, Walker DM, Jay A. Carcinoma Cuniculatum Arising in the Tongue. *Head and Neck Pathol*. marzo de 2012;6(1):130-4.

5. Hutton A, McKaig S, Bardsley P, Monaghan A, Parmar S. Oral Carcinoma Cuniculatum in a Young Child. *Journal of Clinical Pediatric Dentistry*. 1 de septiembre de 2010;35(1):89-94.
6. Pons Y, Kerrary S, Cox A, Guerre A, Bertolus C, Gruffaz F, et al. Mandibular cuniculatum carcinoma: Apropos of 3 cases and literature review. Rosenthal EL, editor. *Head Neck*. febrero de 2012;34(2):291-5.
7. Ben Arfi K, Marchal A, Hafian H, Boulagnon-Rombi C. Carcinome cuniculatum : une tumeur orale inhabituelle. *Annales de Pathologie*. septiembre de 2019;39(5):369-73.