

CISTO ODONTOGÊNICO EPITELIAL CALCIFICANTE RELATO DE CASO *

CALCIFYING EPITHELIAL ODONTOGENIC CYST A CASE REPORT

Paulo José MORAES DA SILVA **

José de Amorim LISBOA-NETO ***

Ana Karla de ALMEIDA-BARBOSA ****

Ana Carolina OMENA BARBOSA-SILVA *****

* Trabalho realizado em comemoração aos 80 anos de vida e, 60 anos de Carreira Universitária e, Profissão do Prof. Dr. Clóvis Marzola.

** Professor Adjunto 4 da Disciplina de Cirurgia e Traumatologia Buco Maxilo Facial 1 e 2 da Universidade Federal de Alagoas. searom50@hotmail.com

*** Professor Adjunto 4 da disciplina de Patologia Oral da Universidade Federal de Alagoas.

**** Especialista em Periodontia.

***** Especialista em Ortodontia.

RESUMO

Cisto odontogênico epitelial calcificante é lesão odontogênica rara, com incidência, principalmente, nas segunda e terceira décadas da vida, sem predileção por raça ou gênero. Apresenta comportamento biológico e características microscópicas peculiares, podendo comportar-se como cisto ou como neoplasia agressiva. Principal manifestação clínica é aumento volumétrico, usualmente sem sintomatologia dolorosa. É composta de larga parede cística, contendo epitélio do tipo ameloblastomatoso e, pequenos amontoados de células fantasmas. Este trabalho relata caso clínico de paciente que compareceu aos *Serviços de Estomatologia e Cirurgia Buco-Maxilo-Facial da Universidade Federal de Alagoas em Maceió, AL*, apresentando sintomatologia dolorosa e, aumento volumétrico na região anterior da mandíbula. Ao exame radiográfico observou-se área radiolúcida circunscrita extensa, com reabsorção radicular dos dentes adjacentes, além de áreas de calcificação interna. Tratamento de escolha foi cirúrgico, consistindo na enucleação do cisto, associado à remoção dos dentes envolvidos.

ABSTRACT

Calcifying epithelial odontogenic cyst is a rare odontogenic lesion, mostly afflicting patients in their third and second decades of life. It makes no distinction with regards to race or gender, showing a unique biological pattern and distinctive histopathological features. It may take the shape of a cyst or of an aggressive neoplasm. Its main clinical symptom is painless swelling of the affected area. Ameloblastoma-like epithelial cells and small clusters of ghost cells are found within the thick cystic wall. Herein, we report the case of a patient who came to the Department of Stomatology and Oral and Maxillofacial Surgery at the Federal University of Alagoas (UFAL) with a tender and swollen anterior lower jaw region. Radiographically, the lesioned area was extensive, circumscribed, and radiolucent, with root resorption of adjacent teeth and calcified spots within the lesion. Enucleation was the treatment of choice, with simultaneous removal of all affected teeth.

Unitermos - Cisto Odontogênico Epitelial Calcificante; Características clínico-radiográficas; Microscópico; Tratamento.

Uniterms - Calcifying epithelial odontogenic cyst; Clinical radiographic features; Microscopically; Treatment.

INTRODUÇÃO

Cisto odontogênico epitelial calcificante é lesão rara, apresentando comportamento clínico variável e, características microscópicas peculiares, além de grande diversidade de terminologias, pelas suas variáveis clínicas, radiográficas e microscópicas (LI; YU, 2003 e MARZOLA, 2008). Foi descrito inicialmente por Gorlin (1962) sendo, anteriormente, classificado como ameloblastoma atípico ou ainda, tipo de odontoma (PINDBORG; CRAMER; TORLONI, 1984 e MARZOLA, 2008) ocupando lugar anômalo entre cistos e neoplasias (GORLIN; GOLDMAN, 1980).

Há ampla variação da faixa etária para este cisto, com pico de incidência na segunda década. Aparece usualmente em pessoas com menos de 40 anos de idade, tendo predileção pelo gênero feminino e, 70% dos casos associados à maxila (REGEZI; SCIUBBA, 1989 e MARZOLA, 2008).

Principal manifestação clínica é aumento de volume e, usualmente sem sintomatologia (ARAÚJO; ARAÚJO, 1984 e MARZOLA, 2008). No geral, se forma anteriormente ao primeiro molar, porém, em 20% dos casos localiza-se na mucosa gengival, meramente tocando osso adjacente (CAWSON; BINNIE; EVESON, 1997 e MARZOLA, 2008)⁶.

Radiograficamente, aparece como imagem radiolúcida, uni ou multilocular (REGEZI; SCIUBBA, 1989 e MARZOLA, 2008), com áreas mineralizadas no seu interior variando de pequenos focos a grandes massas, aparecendo, na maioria das vezes, associada à dentes retidos ou odontomas, sendo um terço das lesões extra ósseas (ARAÚJO; ARAÚJO, 1984 e MARZOLA, 2008). Microscopicamente apresenta larga parede cística contendo epitélio tipo ameloblastomatoso, pequenos amontoados de células fantasmas e, material amorfo eosinofílico acompanhados por tecido fibroso, incluindo pequenas ilhas de epitélio odontogênico, sendo sua característica diferencial primordial (MORI *et al.*, 2000 e MARZOLA, 2008). Aspecto mais característico é presença de células totalmente queratinizadas (TOMMASI, 1988).

Tratamento, quando não está associado com outra lesão, é sua enucleação cirúrgica, havendo poucos riscos de recidiva. Quando associada deverá ser tratada com considerações apropriadas (REGEZI; SCIUBBA, 1989 e MARZOLA, 2008).

Presente estudo relata caso clínico de Cisto Odontogênico Calcificante, apresentado por paciente atendido pelo Departamento de Semiologia, Cirurgia Buco-Maxilo-Facial e Patologia da Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Alagoas, Maceió, AL, Brasil.

RELATO DE CASO

Paciente E. A. O., com 63 anos de idade, gênero feminino, cor parda, portadora de lesão na região mental que compareceu aos *Departamentos de Semiologia e Cirurgia Buco-Maxilo-Facial da Faculdade de Odontologia, Universidade Federal de Alagoas, Maceió, AL*, para atendimento. Queixava-se de aumento volumétrico na região mental e, após anamnese, não foram evidenciadas presença de quaisquer alterações sistêmicas. Foi realizada verificação da pressão arterial e, exames extra e intra-orais. Ao exame extra-oral notou-se grande aumento volumétrico na região mental, comprometendo assimetria facial do paciente. Apresentava-se normo-corada, sem presença de nódulos sensíveis à palpação (**Fig. 1**). Relatou dor na referida região, com histórico de períodos inflamatórios purulentos. Ao exame intra-oral, percebeu-se ausência de alguns elementos dentais, como mudança de posicionamento. Lesão estendia-se desde região de pré-molares do lado direito até aqueles do lado oposto, com forma arredondada e, grande aumento volumétrico, resultando no desaparecimento do sulco vestibular e, assoalho bucal. Coloração caracterizada por se apresentar discretamente avermelhada, moderadamente macia à palpação, séssil e, com aproximadamente 7cm de diâmetro, 3cm de altura e 4cm de espessura (**Fig. 2**).



Fig. 1 - Aspecto extra oral, exibindo aumento volumétrico e assimetria facial no mento.

Fonte - Acervo Departamento Semiologia e Cirurgia BMF da F Odontologia, Universidade Federal de Alagoas.

CISTO ODONTOGÊNICO EPITELIAL CALCIFICANTE
RELATO DE CASO



Fig. 2 - Aspecto intra-oral, evidenciando presença de tumefação e dentes com deslocamento percebendo-se ausência das demarcações do sulco vestibular e assoalho bucal.

Fonte - Acervo Departamento Semiologia e Cirurgia BMF da F Odontologia, Universidade Federal de Alagoas.

Paciente relatou que lesão estava presente há período relativamente longo, exibindo, contudo, crescimento rápido e intenso nos últimos 3 meses, atingindo progressivamente volume constatado no momento do atendimento.

Foi realizada radiografia panorâmica com fim de diagnóstico a 21 de junho de 2006, onde lesão apresentou-se como área radiolúcida circunscrita, unilocular, estendendo-se bilateralmente desde forames mentuais. Observou-se, também, que havia reabsorção radicular dos incisivos, caninos e pré-molares inferiores (**Fig. 3**).



Fig. 3 - Lesão radiolúcida unilocular apresentando margens definidas, aspecto cístico com bordas escleróticas, presença reabsorção radicular dos dentes adjacentes à lesão.

Fonte - Acervo Departamento Semiologia e Cirurgia BMF da F Odontologia, Universidade Federal de Alagoas.

Como tratamento, realizou-se exérese cirúrgica total da lesão, sob anestesia geral, no Hospital Universitário Prof. Alberto Antunes, Maceió - Alagoas. Após procedimento cirúrgico, parte da lesão foi armazenada em recipiente contendo solução de formol a 10%. Foi encaminhada ao setor de Anatomia Patológica, para exame microscópico. Como hipóteses possíveis de diagnóstico, foram sugeridas Ameloblastoma e Queratocisto Odontogênico.

Diagnóstico microscópico final revelou tratar-se de Cisto Odontogênico Calcificante (**Figs. 4 e 5**). No controle pós-operatório realizou-se segunda radiografia panorâmica a 19 de novembro de 2007, onde havia presença de extensa neoformação óssea na região mental e, ausência de elementos dentais na mandíbula (**Fig. 6**). Paciente foi acompanhada por período de 17 meses pelo setor de *Semiologia e Cirurgia Buco-Maxilo-Facial da Faculdade de Odontologia, Universidade Federal de Alagoas*.

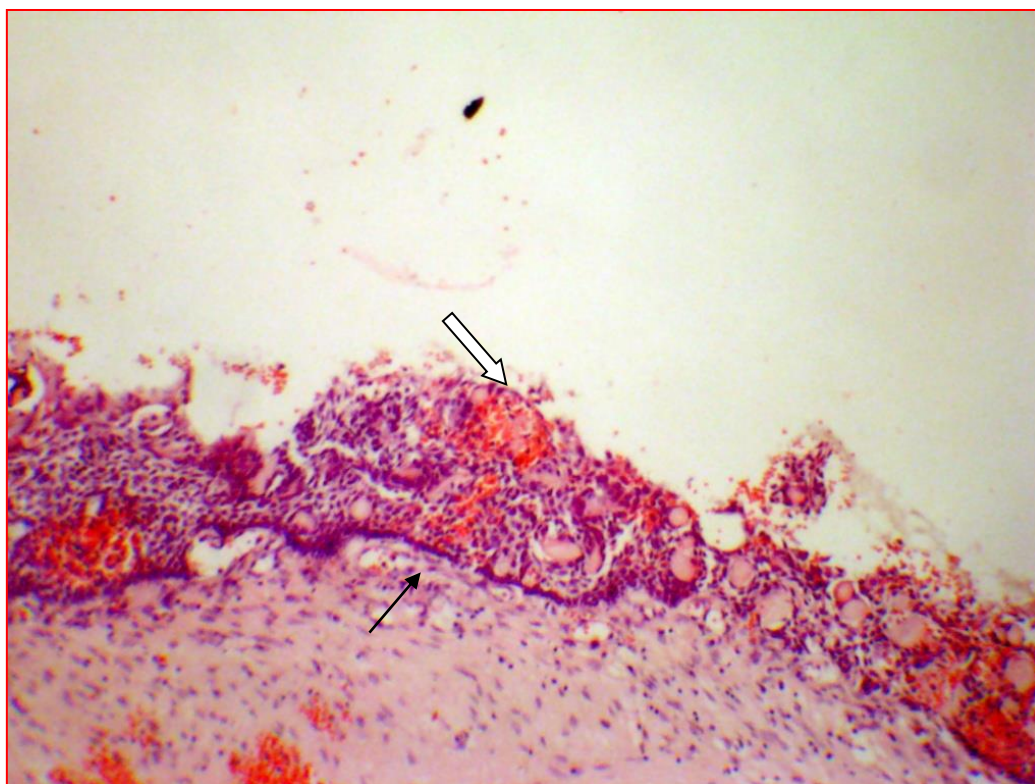


Fig. 4 - Epitélio de revestimento cístico apresentando células hiper Cromáticas em paliçada (Seta estreita), camada suprabasal com células frouxamente arranjadas lembrando o retículo estrelado (seta larga) e, focos de células fantasmas de aspecto eosinofílico (H.E 200x).

Fonte - Acervo Departamento Semiologia e Cirurgia BMF da F Odontologia, Universidade Federal de Alagoas.

CISTO ODONTOGÊNICO EPITELIAL CALCIFICANTE
RELATO DE CASO

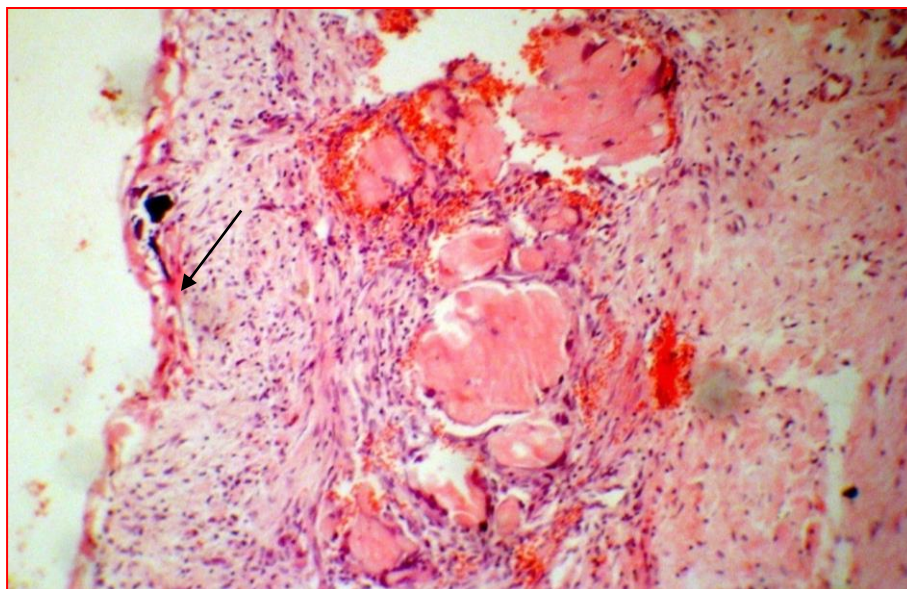


Fig. 5 - Grupo de células fantasmas queratinizadas (seta) em contato com a parede conjuntiva da lesão cística (H.E 400x).

Fonte - Acervo Departamento Semiologia e Cirurgia BMF da F Odontologia, Universidade Federal de Alagoas.



Fig. 6 - Radiografia panorâmica de controle pós-operatório 15 meses de *follow up*, revelando grande neoformação óssea na região mental e ausência de elementos dentais na mandíbula.

Fonte - Acervo Departamento Semiologia e Cirurgia BMF da F Odontologia, Universidade Federal de Alagoas.

DISCUSSÃO

Cisto odontogênico calcificante (COC) é lesão originada a partir de remanescentes do epitélio odontogênico, podendo localizar-se no interior dos ossos maxilares ou gengiva (GORLIN; GOLDMAN, 1980; LI; YU, 2003 e MARZOLA, 2008). Apresenta comportamento clínico variável e características microscópicas peculiares, além de grande diversidade de terminologias, devido suas variáveis clínicas, radiográficas e microscópicas (LI; YU, 2003 e MARZOLA, 2008). Foi descrito inicialmente por Gorlin (1962) sendo, anteriormente, classificado como ameloblastoma atípico ou tipo de odontoma (PINDBORG; CRAMER; TORLONI, 1984 e MARZOLA, 2008), também, conhecido como tumor odontogênico de células-fantasmas, Ameloblastoma atípico, tumor bucal de Malherbe, cisto odontogênico calcificante queratinizante e, ainda, tumor odontogênico calcificante de células fantasmas (FREGNANI *et al.*, 2003), correspondendo 0,5 % do total do número de casos de tumores odontogênicos sendo, portanto, considerado raro (BUCHNER; MERRELL; CARPENTER, 2006 e MARZOLA, 2008).

Há controvérsias quanto à classificação dos cistos odontogênicos, visto que devido a esta complexidade microscópica e diversidade morfológica, discute-se muito esta lesão já que ocupa lugar anômalo entre cisto e neoplasia (GORLIN; GOLDMAN, 1980 e IDE *et al.*, 2005). Baseado na segunda concepção, OMS definiu COC como lesão de natureza neoplásica. Lesões frequentemente apresentam proliferação destas células neoplásicas, que se originam de remanescentes epiteliais da lâmina dentária do interior dos maxilares ou da gengiva, sendo muitas vezes encontrada associada a dentes retidos (MORI *et al.*, 2000; LIN *et al.*, 2004 e IIDA *et al.*, 2006).

Tumor dentinogênico de células fantasmas sendo considerado como contraparte neoplásica do cisto odontogênico calcificante, contendo mutação no códon 3 (ACT → ICT) do gene β -catenin (KIM *et al.*, 2007).

Como principal característica clínica da lesão tem-se edema severo ligeiramente doloroso (MORI *et al.*, 2000 e MARZOLA, 2008), sendo lesão bem definida e, consistência firme (CAZAL *et al.*, 2005 e MARZOLA, 2008). Prevalência da lesão é variada, sendo casos relatados na literatura entre 9 e 72 anos, com idade média de ocorrência em torno de 23 anos (CAZAL *et al.*, 2005; BUCHNER; MERRELL; CARPENTER, 2006 e MARZOLA, 2008).

Paciente, também, apresentou grande aumento de tamanho, na região mental, acarretando assimetria facial. Dor e processo inflamatório também foram relatados, estando idade da paciente dentro da faixa etária citada na literatura (TOMMASI, 1988 e MARZOLA, 2008).

Maxila é mais afetada que mandíbula, estando em contradição com relatos (MOLERI; MOREIRA; CARVALHO, 2002 e MARZOLA, 2008), onde mandíbula foi mais afetada. Não apresentou predileção para localização, estando presente tanto na maxila (53%), mais frequentemente na região anterior, quanto na mandíbula (47%), predominando região posterior (YOSHIDA *et al.*, 2001; LI; YU, 2003; IIDA *et al.*, 2006 e MARZOLA, 2008). Caso relatado ocorreu na região mandibular anterior, confrontando com relatos de alguns autores acima citados.

Achados radiográficos mostram área radiolúcida unilocular, contendo finas massas de material radiopaco (MORI *et al.*, 2000; DANIELS, 2004 e MARZOLA, 2008), também, podendo apresentar aspecto multilocular (MOLERI; MOREIRA; CARVALHO, 2002 e MARZOLA, 2008), com visualização de quantidades dispersas de material calcificado (CAZAL *et al.*, 2005). Estas calcificações variam de pequenos raios a áreas de calcificação sólidas de franco odontoma e, em diversos relatos tem mostrado incidência de lesões em associação com dentes em processo de reabsorção radicular (TOIDA, 1998; IIDA *et al.*, 2006 e MARZOLA, 2008).

Radiograficamente apresentou-se como área radiolúcida circunscrita, unilocular, estendendo-se entre forames mentuais, com margens bem definidas. Diversos relatos mostram incidência de lesões em associação com dentes em processo de reabsorção radicular. Microscopicamente apresenta-se composto de larga parede cística, contendo epitélio tipo ameloblastomatoso, pequenos amontoados de células fantasmas, podendo dispor-se em grupos ou isoladamente (TAKATA *et al.*, 2000). Também, material amorfo eosinofílico acompanhado por tecido fibroso, incluindo pequenas ilhas de epitélio odontogênico (MORI *et al.*, 2000; LI; YU, 2003; DANIELS, 2004 e CAZAL *et al.*, 2005).

Células fantasmas nos cistos odontogênicos calcificantes representam acúmulo de proteínas relacionadas ao esmalte em seu citoplasma, no processo de transformação patológica (TAKATA *et al.*, 2000). Imunohistoquimicamente, a proteína amelogenina se expressa no citoplasma das células fantasmas e, células epiteliais lineares apresentam-se quase que completamente manchadas por amelogeninas (YOSHIDA *et al.*, 2001).

Achados microscópicos revelaram presença de epitélio de revestimento cístico com células hipercromáticas em paliçada, camada suprabasal com células frouxamente arranjadas lembrando o retículo estrelado e focos de células fantasmas de aspecto eosinofílico. Grupo de células fantasmas queratinizadas em contato com parede conjuntiva da lesão cística, também, estiveram presentes ((TAKATA *et al.*, 2000 e YOSHIDA *et al.*, 2001).

Há consenso entre autores em relação tratamento preconizado para COC, enucleação cirúrgica, apresentando índice recidiva estatisticamente baixo, sendo rara. No entanto, tratamento COC, se associado à outra patologia, deve levar em consideração presença de lesão associada. Tratamento proposto neste caso está de acordo com literatura. Através controle clínico-radiográfico pós-operatório, não foi detectada recidiva da lesão, mas sim, áreas de osteogênese (MARZOLA, 2008).

CONCLUSÕES

Pelas pesquisas realizadas para revista da literatura, cisto odontogênico é lesão rara, correspondendo 0,5 % do total do número de casos de tumores odontogênicos. Trata-se de lesão cística com características neoplásicas, originada de proliferação de remanescentes epiteliais da lâmina dentária do interior dos maxilares ou da gengiva, sendo muitas vezes encontrada associada a dentes retidos. Suas características clínico-radiográficas, associadas exame microscópico são imprescindíveis para correto diagnóstico da lesão. Tratamento mais recomendado é enucleação cirúrgica, sendo raros casos de recidiva.

REFERÊNCIAS *

- ARAÚJO, N. S. DE; ARAÚJO, V. C. DE. *Patologia Bucal. In: Cistos da Boca.* São Paulo: Ed. Artes Médicas, 1984, p. 109-10.
- BUCHNER, A.; MERRELL, P. W.; CARPENTER, W. M. Relative frequency of central odontogenic tumors: Study 1,088 cases from Northern California and comparison to studies from other parts of world. *J. oral Maxillofac. Surg.*, v. 64, n. 9, p. 1343-52, 2006.
- CAWSON, R. A; BINNIE, W. H.; EVESON, J. W. *Cistos Odontogênicos. In: Atlas Colorido de Enfermidades da Boca: Correlações Clínicas e Patológicas.* 2ª ed. São Paulo: Ed. Artes Médicas. 1997, p. 610-11.
- CAZAL, C. et al., Extraosseous calcifying odontogenic cyst: A case report and literature review. *Bras. Patol. Med. Lab.*, v. 41, n. 6, p. 443-6, 2005.
- DANIELS, J. S. M. Recurrent calcifying odontogenic cyst involving the maxillary sinus. *Oral Surg., Oral Med., Oral Pathol., Oral Radiol., Endod.*, v. 98, n. 6, 660-4, 2004.
- FREGNANI, E. R. et al., Calcifying odontogenic cyst: Clinic pathological features and immunohistochemical profile of 10 cases. *J. oral Pathol. Med., Copenhagen*, v. 32, p. 163-70, 2003.

- GORLIN, R. J.; GOLDMAN, H. M. *Quistes de los maxilares, suelo de la boca y cuello*. In: THOMA, K. H., *Patología Oral*. 1a ed. Barcelona: Salvat Editores, 1980, p. 494-5.
- IDE, F. *et al.*, Ameloblastoma calcifying odontogenic cyst (Dentinogenic ghost cell tumor). *J. oral Med.*, v. 34, p. 511-2, 2005.
- IIDA, S. *et al.*, Calcifying odontogenic cyst: Radiologic findings in 11 cases. *Oral Surg., Oral Med., Oral Pathol., Oral Radiol., Endod.*, v. 101, p. 356-62, 2006.
- KIM, S. A. *et al.*, Investigation of the β -catenin gene in a case of dentinogenic ghost cell tumor. *Oral Surg., Oral Med., Oral Pathol., Oral Radiol., Endod.*, v. 103, p. 97-101, 2007.
- LI, T. J.; YU, S. F. Clinic pathologic spectrum of so-called calcifying odontogenic cysts: A study of 21 intraosseous cases with reconsideration of terminology classification. *Amer. J. Surg. Pathol.*, v. 27, n. 3, p. 372-84, 2003.
- LIN, C. C. *et al.*, Calcifying odontogenic cyst with ameloblastic fibroma: Report of three cases. *Oral Surg., Oral Med., Oral Pathol., Oral Radiol., Endodont.*, v. 98, n. 4, p. 451-60, 2004.
- MARZOLA, C. *Fundamentos Cirurgia BMF*. São Paulo: Ed. BigForms, 2008. 6 vs.
- MOLERI, A. B.; MOREIRA, L. C.; CARVALHO, J. J. Comparative morphology of 7 new cases of calcifying odontogenic cysts. *J. oral Maxillofac. Surg.*, v. 60, p. 689-96, 2002.
- MORI, M. *et al.*, Dentinogenic ghost cell tumor: histologic aspects, immunohistochemistry, lectin binding profiles, and biophysical studies. *Oral Oncol.*, v. 36, n. 1, p. 134-43, 2000.
- PINDBORG, J. J.; CRAMER, I. R. H.; TORLONI, H; *Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts, and allied lesions*. Genève: Word Health Organization, 1984, p.72-6.
- REGEZI, J. A.; SCIUBBA, J. J. *Cistos da Boca*. In: *Patologia Bucal e Correlações Clinicopatológicas*. RJ: Ed. Guanabara/Koogan. 1989, p. 232-4.
- TAKATA, T. *et al.*, Ghost cells in calcifying odontogenic cyst express enamel-related proteins. *Histochem. J.*, v. 32, p. 223-29, 2000.
- TOIDA, M. So-called calcifying odontogenic cyst: review and discussion on the terminology and classification. *J. oral Pathol. Med.*, v. 27, p. 49-52, 1998.
- TOMMASI, A. F. *Cistos e tumores odontogênicos*. In: *Diagnóstico em Patologia Bucal*. 3ª ed. São Paulo: Ed. Pancast, 1988, p. 285.
- YOSHIDA, M. *et al.*, Histopathological and immunohistochemical analysis of calcifying odontogenic cysts. *J. oral Pathol. Méd.*, v. 30, p. 582-8, 2001.

* De acordo com as normas da ABNT e da Revista de Odontologia da ATO.

