

# Cisto odontogênico glandular: relato de um caso incomum na região posterior de mandíbula

## *Glandular odontogenic cyst: report of an unusual case in the posterior mandible*

Glória Maria França; Camila Tatyane S. Freitas; Luis F. Almeida Neto; Luiz Carlos Moreira Jr.; Petrus P. Gomes; Hébel C. Galvão

Universidade Federal do Rio Grande do Norte (UFRN), Natal, Rio Grande do Norte, Brasil.

### RESUMO

*O cisto odontogênico glandular (COG) é um cisto de desenvolvimento incomum que apresenta diferenciação glandular e tem potencial de recidiva. Clinicamente, é assintomático e de crescimento lento. Este relato propõe-se a descrever um caso clínico de COG diagnosticado em região posterior de mandíbula em um paciente do gênero masculino, 36 anos de idade, atendido no Serviço de Anatomia Patológica de uma universidade no nordeste do Brasil. Como tratamento, optou-se por ressecção mandibular e enxerto ósseo da crista ilíaca. Conclui-se que os parâmetros clínicos, microscópicos e radiográficos foram ferramentas essenciais na escolha do tratamento realizado.*

*Unitermos: diagnóstico; reconstrução mandibular; bioprótese.*

### ABSTRACT

The glandular odontogenic cyst (GOC) is an uncommon developmental cyst that presents glandular differentiation and has potential for recurrence. Clinically, it is asymptomatic and it has slow growing. This report proposes to describe a clinical case of GOC diagnosed at the Service of Pathological Anatomy of a university in the northeast of Brazil, in the posterior region of the mandible, which was treated with mandibular resection and bone graft with iliac crest. One may conclude that clinical, microscopic and radiographic parameters were crucial tools for treatment choice.

**Key words:** diagnosis; mandibular reconstruction; graft survival.

### RESUMEN

*El quiste odontogénico glandular (QOG) es un quiste del desarrollo poco frecuente que presenta diferenciación glandular y es propenso a la recurrencia. Clínicamente, es asintomático y de crecimiento lento. El presente trabajo tiene como objetivo describir un caso clínico de QOG diagnosticado en la región posterior de la mandíbula en un paciente masculino de 36 años de edad, atendido en el servicio de Anatomía Patológica de una universidad en el nordeste de Brasil. Se decidió tratarlo por resección mandibular e injerto óseo de la cresta ilíaca. La conclusión a que podemos llegar es que los parámetros clínicos, microscópicos y radiográficos fueran herramientas esenciales para la elección del tratamiento.*

*Palabras clave: diagnóstico; reconstrucción mandibular; bioprótesis.*

## INTRODUÇÃO

O cisto odontogênico glandular (COG) é um cisto de desenvolvimento incomum com características epiteliais de diferenciação glandular; representa menos de 0,5% de todos os cistos odontogênicos<sup>(1)</sup>. A etiologia é desconhecida, mas alguns autores sugerem que esteja associada aos remanescentes da lâmina dentária<sup>(2)</sup>.

Clinicamente, é assintomático; apresenta aumento de volume e crescimento lento<sup>(3)</sup>. A faixa etária mais atingida varia entre a 5ª e a 6ª décadas de vida, com discreta predileção pelo gênero masculino<sup>(1)</sup>. As características radiográficas incluem áreas uniloculares ou multiloculares com margens bem definidas, e aproximadamente 87% dos casos demonstram expansão da cortical óssea. A reabsorção radicular e o deslocamento dentário também têm sido relatados<sup>(4,5)</sup>.

As características histológicas do COG podem simular outros tipos de cistos, como cistos dentígeros, cistos odontogênicos botrioides e carcinomas mucoepidermóides (CME)<sup>(6)</sup>. Nesse sentido, é difícil fazer um diagnóstico definitivo. Recomenda-se o uso de critérios maiores e menores para o diagnóstico dessa lesão<sup>(7,8)</sup>. Os tratamentos indicados para o COG variam de cirurgia conservadora à ressecção radical<sup>(5)</sup>, considerando os relatos de recidivas apresentados na literatura<sup>(2,9)</sup>. Entretanto, ainda há poucos casos na literatura abordando, especificamente, restaurações implantossuportadas ou próteses após o tratamento do COG<sup>(3)</sup>.

O presente caso aborda os critérios morfológicos usados no diagnóstico, com ênfase em sua localização, bem como a conduta cirúrgica utilizada para o tratamento.

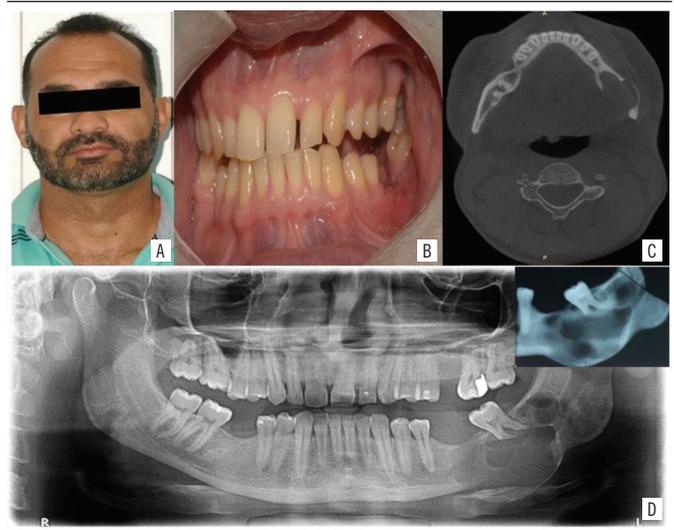
## RELATO DE CASO

Paciente do sexo masculino, 36 anos de idade, feoderma, compareceu ao serviço de Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial da Universidade Federal do Rio Grande do Norte (UFRN) queixando-se de dor durante movimentos mastigatórios em região posterior esquerda da mandíbula. O exame clínico mostrou mobilidade acentuada do segundo molar inferior esquerdo e discreto aumento de volume em região mandibular esquerda, sem alterações volumétricas intraorais (**Figura 1 A-B**). O exame de imagem panorâmico também considerou lesão osteolítica, radiolúcida, multilocular, com expansão da cortical basilar, reabsorção radicular do segundo molar inferior esquerdo e envolvimento de corpo, ângulo e ramo mandibular esquerdo (**Figura 1C**).

Após análise clínica e radiográfica, realizou-se biópsia incisional, em âmbito ambulatorial. O material foi encaminhado para análise histopatológica no setor de Patologia Oral da UFRN. O exame anatomopatológico revelou fragmentos de lesão cística de natureza odontogênica, caracterizada por múltiplos compartimentos císticos revestidos por epitélio, ora exibindo células escamosas achatadas, ora cuboidais de espessura variável. A camada de células luminiais exibe células colunares baixas, algumas vezes referidas como células hobnail. Observa-se a presença de células mucosas, espaços microcísticos, projeções papilares em forma de tufo, células com secreção apócrina e focos de espessamento epitelial. A cápsula de tecido conjuntivo fibroso denso exibe vasos congestionados e áreas de extravasamento hemorrágico. Face ao exposto, o diagnóstico anatomopatológico de COG foi estabelecido (**Figura 2**).

Diante desse achado, foram solicitados: tomografia computadorizada (TC) *multislice* para avaliação mais detalhada da lesão (**Figura 1D**), confecção de biomodelo prototipado para planejamento cirúrgico, bem como exames laboratoriais e risco cirúrgico para realização de procedimento para ressecção da lesão e reconstrução imediata.

A ressecção da massa tumoral foi realizada com margem de segurança, anterior e posterior às margens da lesão, medindo 1 cm, seguida por instalação da placa de reconstrução mandibular do sistema de 2,4 mm; esta foi pré-modelada em biomodelo prototipado. Simultaneamente a esse procedimento, a equipe



**FIGURA 1** – Características clínicas e radiográficas do caso

A) assimetria mandibular; B) exame intraoral mostrando aumento de volume em mandíbula esquerda com desvio de linha média e maloclusão dentária; C) TC evidenciando abaulamento da cortical óssea; D) radiolucidez multilocular, expansão da cortical óssea e reabsorção dentária na radiografia panorâmica.

TC: tomografia computadorizada.

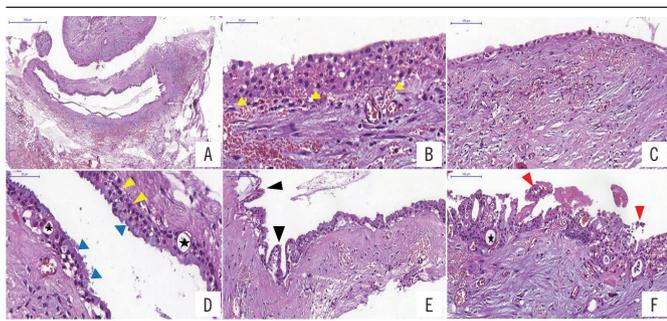


FIGURA 2 – Histopatológico do COG

A) múltiplas cavidades císticas (Scale bar: 500  $\mu$ m); B) revestimento epitelial escamoso com interface plana e presença de células eosinofílicas cúbicas, referidas como células hobnail (seta amarela) (Scale bar: 50  $\mu$ m); C) epitélio simples e cápsula de tecido conjuntivo fibroso (Scale bar: 100  $\mu$ m); D) espaços microcísticos (estrela), células calciformes (seta azul) e células hobnail (seta amarela) (Scale bar: 50  $\mu$ m); E) epitélio apresentando projeções papilares em direção ao lúmen cístico (seta preta) (Scale bar: 100  $\mu$ m); F) células com secreção apócrina (seta vermelha), espaços microcísticos (estrela) e projeções papilares em forma de tufo (Scale bar: 100  $\mu$ m).

COG: cisto odontogênico glandular.

de ortopedia do Hospital Universitário Onofre Lopes realizou a remoção do enxerto da região de crista ilíaca anterior de modo que após a instalação da placa de reconstrução, fosse realizada a preparação do enxerto, sua adaptação e sua fixação na região ressecada, com auxílio de parafusos do sistema de 2,4 mm, e a mecanoterapia ativa por elásticos foi aplicada (Figura 3). Finalizou-se a instalação com a sutura dos acessos e aplicação de curativos compressivos.

A peça cirúrgica foi enviada ao laboratório de Anatomia Patológica, e a análise microscópica confirmou o diagnóstico, bem como as margens livres da doença. O paciente evoluiu em

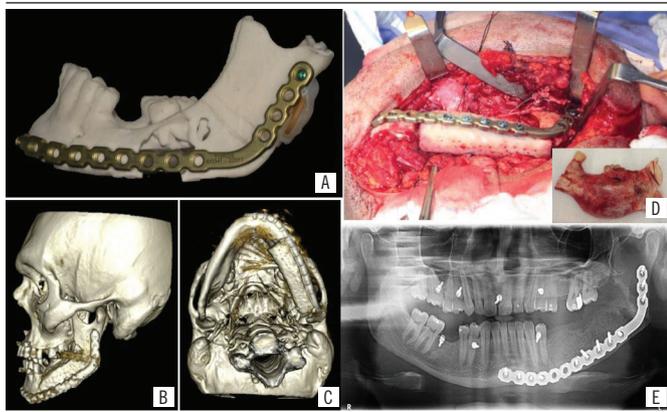


FIGURA 3 – Plano de tratamento do COG

A) prototipagem mandibular para planejamento cirúrgico e adaptação de placa de reconstrução mandibular; B) transoperatório com hemimandibulectomia e inserção de enxerto de crista ilíaca; C) corte sagital em imagem 3D da TC; D) corte axial mostrando o enxerto em imagem 3D da TC; E) radiografia panorâmica do pós-operatório.

COG: cisto odontogênico glandular; TC: tomografia computadorizada.

pós-operatório imediato sem queixa álgica, mas com edema compatível com o procedimento realizado e abertura bucal limitada. Mecanoterapia ativa com elásticos foi utilizada desde o primeiro dia do pós-operatório, tanto para fixação maxilomandibular temporária quanto para fisioterapia imediata. O presente caso foi acompanhado por seis meses (Figura 4).

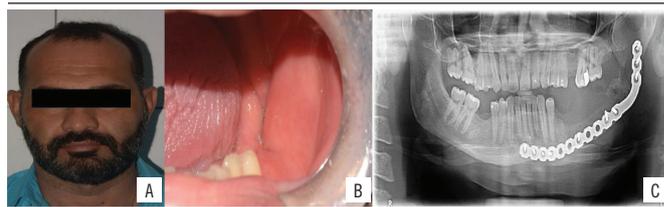


FIGURA 4 – Seis meses do pós-operatório

A) leve assimetria na hemiface esquerda; B) mucosa oral adjacente ao enxerto com aspectos de normalidade; C) radiografia panorâmica mostrando formação óssea.

## DISCUSSÃO

Kaplan *et al.* (2008)<sup>(8)</sup> estabeleceram critérios maiores e menores para o diagnóstico do COG e sugeriram que a presença focal de cada um dos critérios maiores seja obrigatória para o diagnóstico, enquanto os critérios menores apenas o complementam, sem ser obrigatórios. Os critérios maiores incluem revestimento epitelial escamoso, com interface plana com a parede do tecido conjuntivo, sem paliçamento basal; epitélio exibindo variações na espessura ao longo do revestimento cístico, com ou sem esferas epiteliais ou espirais ou proliferação luminal focal; células eosinofílicas cúbicas ou células hobnail; células mucosas (cálce) com piscinas mucosas intraepiteliais; e estruturas microcísticas semelhante a ductos. Os critérios menores incluem proliferação papilar do epitélio de revestimento; células ciliadas; arquitetura multicística ou multiluminal; e células claras ou vacuoladas nas camadas basais ou espinhosas.

De acordo com El-Naggar *et al.* (2017)<sup>(7)</sup>, um diagnóstico confiável para o COG é feito quando pelo menos sete dos 10 critérios específicos estão presentes. São dois os critérios relatados em 100% de todos os registros: 1. espessura variável do epitélio revestindo o cisto de duas-três camadas de células escamosas achatadas ou cuboidais e epitélio escamoso estratificado mais espesso; 2. camada de células luminiais cuboidais a células colunares baixas, algumas vezes referidas como células hobnail. Os critérios presentes na maioria dos casos são: 3. microcistos intraepiteliais; 4. metaplasia apócrina das células luminiais; 5. células claras nas camadas basal e/ou parabasal; 6. projeções papilares em tufo dentro do lúmen; 7. células mucosas. Por fim, os critérios presentes em poucos casos

são: 8. esferas epiteliais similares às do cisto periodontal lateral; 9. cílios, ocasionalmente vistos; 10. múltiplos compartimentos císticos.

O caso relatado apresentou sete critérios, segundo El-Naggar *et al.* (2017)<sup>(7)</sup>: espessura variável do epitélio com células cuboidais e epitélio escamoso estratificado; células colunares baixas (células hobnail); microcistos intraepiteliais; metaplasia apócrina das células luminais; projeções papilares em tufo; células mucosas; e múltiplos compartimentos císticos.

No levantamento epidemiológico proposto por Chrcanovic *et al.* (2017)<sup>(1)</sup>, 169 casos de COG foram encontrados e detalhados na literatura. A lesão foi discretamente mais prevalente em homens na 5ª e na 6ª décadas de vida, na região mandibular anterior, associadas à expansão óssea (73%) e ao aspecto radiográfico unilocular (61,5%). O COG apresentou-se associado ao deslocamento do dente ou a um dente não irrompido (30,9%), à perfuração do osso cortical (26%), à presença de sintomas clínicos (24,3%) e à reabsorção (13,9%). Quanto à preservação, 97 casos apresentavam informações sobre recorrências; destes, 21 (21,6%) foram sobre o tratamento inicial (quatro curetagens, 16 enucleações e uma ressecção marginal). O intervalo do tratamento inicial e a recorrência variou de seis a 96 meses<sup>(1)</sup>. No presente relato, a lesão causou expansão óssea, deslocamento e reabsorção dentária; apresentou-se multilocular e com sintomatologia dolorosa.

Há vários tratamentos cirúrgicos propostos para essa lesão, mas eles dependem exclusivamente da preferência do cirurgião. A enucleação e a curetagem são as técnicas mais comuns. Marsupialização, ressecção marginal ou parcial da mandíbula e terapias adjuvantes – aplicação de solução de Carnoy, preenchimento da cavidade com enxerto ósseo autógeno ou alógeno e criocirurgia – são métodos diferentes para tratar essa lesão cística da mandíbula. A taxa de recorrência varia na literatura. Recorrências são mais comuns em lesões de tamanhos maiores, com perfuração do osso cortical, e em lesões multiloculares na radiografia<sup>(10)</sup>.

A baixa incidência desse tipo de lesão na população e principalmente a falta de acompanhamento fazem com que as informações sobre a taxa de sucesso nas diferentes modalidades de tratamento sejam prejudicadas. Alguns autores defendem que o acompanhamento desses pacientes deve ser, no mínimo, três anos, enquanto outros acreditam que o tempo necessário para

alta seja um período de sete anos<sup>(10,11)</sup>. No presente caso, o paciente encontra-se em seis meses de acompanhamento. Considerando a formação óssea como indicador de sucesso, nosso objetivo é realizar a preservação por três anos<sup>(10,12)</sup>.

Estudos prévios mencionaram quais os aspectos clínicos, radiográficos e microscópicos e as modalidades terapêuticas foram mais repetidos nas recorrências. Os autores encontraram, na maioria dos casos, expansão óssea, perfuração da cortical, lesões multiloculares e tratamento com enucleação. Quanto aos parâmetros microscópicos, secreção apócrina, células claras, espessura variável, projeções papilares, múltiplos espaços císticos e células mucosas foram os padrões mais frequentes<sup>(1)</sup>. Em virtude desses achados, e, portanto, por serem mais suscetíveis a recaídas, o presente caso foi tratado de forma radical.

O diagnóstico do COG é difícil e pouco estudado em função de sua baixa prevalência, por isso desperta a atenção dos pesquisadores que visam a melhor compreensão histológica e comportamental dessa lesão, a fim de contribuir com a elucidação do diagnóstico, pautado nos critérios estabelecidos pela Organização Mundial da Saúde (OMS), e eleger o tratamento eficaz, de acordo com a sua agressividade.

## CONCLUSÃO

Atualmente, existe uma grande preocupação com a melhoria no diagnóstico do COG. Para tanto, a OMS criou critérios morfológicos maiores e menores, os quais auxiliam os patologistas orais no diagnóstico definitivo da lesão. Acredita-se que os aspectos microscópicos apresentem relação com a recorrência. Algumas características, como secreção apócrina, células claras, espessura variável, projeções papilares, múltiplos espaços císticos e células mucosas, foram os padrões mais relacionados com a recidiva. Este relato exibe quatro das seis características histológicas apresentadas.

O tratamento cirúrgico da lesão foi muito bem planejado, pois os parâmetros clínicos, microscópicos e radiográficos foram levados em consideração. Diante desses achados, a melhor conduta a ser realizada foi o tratamento radical com reconstrução óssea na mesma sessão.

## REFERÊNCIAS

1. Chrcanovic BR, Gomez RS. Glandular odontogenic cyst: an updated analysis of 169 cases reported in the literature. *Oral Dis.* 2017; 00: 1-8.

2. Siqueira EC, Sousa SF, França JA, et al. Targeted next-generation sequencing of glandular odontogenic cyst: a preliminary study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2017; 124(5): 490-4.

3. Barth C, Chamberlain J, Wessel J. Treatment of a mandibular glandular odontogenic cyst with peripheral ostectomy, bone allograft, and implant

- reconstruction: a case report. *Int J Periodontics Restorative Dent.* 2017; 37(4): 210-6.
4. Chandra S, Reddy ESP, Sah K, Srivastava A. Maxillary glandular odontogenic cyst: an uncommon entity in an unusual site. *Arch Iran Med.* 2016; 19(3): 221-4.
  5. Gurler G, Al-Ghamian H, Aksakalli N, Delilbasi C. Glandular odontogenic cyst: case series. *Contemp Clin Dent.* 2017; 8(4): 653-7.
  6. Silva BSE, Yamamoto-Silva FP, Sena-Filho M, et al. 20-year follow-up of recurrent glandular odontogenic cyst mimicking a periapical lesion. *J Endod.* 2017; 43(11): 1915-20.
  7. El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, Takata T, Slootweg PJ. WHO Classification of head and neck tumours. 4 ed. Lyon; 2017. p. 235.
  8. Kaplan I, Anavi Y, Hirshberg A. Glandular odontogenic cyst: a challenge in diagnosis and treatment. *Oral Dis.* 2008; 14(7): 575-81.
  9. Motooka N, Ohba S, Uehara M, Fujita S, Asahina I. A case of glandular odontogenic cyst in the mandible treated with the dredging method. *Odontology.* 2015; 103: 112-5.
  10. Roochi MM, Tavakoli I, Ghazi FM, Tavakoli A. Case series and review of glandular odontogenic cyst with emphasis on treatment modalities. *J Craniomaxillofac Surg.* 2015; 43(6): 746-50.
  11. Thor A, Warfvinge G, Fernandes R. The course of a long-standing glandular odontogenic cyst: marginal resection and reconstruction with particulated bone graft, platelet-rich plasma, and additional vertical alveolar distraction. *J Oral Maxillofac Surg.* 2006; 64(7): 1121-8.
  12. Morais HHA, Vasconcellos RJH, Santos TS, Queiroz LMG, Silveira EJD. Glandular odontogenic cyst: case report and review of diagnostic criteria. *J Craniomaxillofac Surg.* 2012; 40(1): 46-50.

#### AUTOR CORRESPONDENTE

---

Hébel Cavalcanti Galvão  0000-0002-1092-1992  
e-mail: hebel.galvao@yahoo.com.br



This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License.