

Distintas manifestações do tumor odontogênico cístico calcificante

Different manifestations of calcifying cystic odontogenic tumor

Estevam Rubens Utumi¹, Irineu Greghanin Pedron¹, Leopoldo Penteado Nucci da Silva²,
Gustavo Grothe Machado³, André Caroli Rocha³

RESUMO

O tumor odontogênico cístico calcificante normalmente se manifesta como uma massa indolor, de crescimento lento, que acomete tanto a maxila como a mandíbula, tendo predileção pelo segmento anterior (área dos incisivos e caninos). Geralmente, ocorre em adultos jovens, na terceira a quarta década de vida, sem preferência por gênero. Imagens de tomografia computadorizada revelaram características importantes não detectadas na radiografia panorâmica, tais como fenestração, calcificação e estruturas dentiformes. A característica microscópica típica dessa lesão é a presença de células epiteliais aberrantes anucleadas, em quantidades variáveis, denominadas "células fantasmas". Também se pode encontrar dentina displásica e, ocasionalmente, os cistos estão associados a tecido dentário duro, semelhante ao odontoma. O tratamento do tumor odontogênico cístico calcificante incluiu simples enucleação e curetagem. O objetivo deste trabalho foi mostrar duas manifestações diferentes do tumor odontogênico cístico calcificante, em que a tomografia computadorizada, associada às características clínicas, foi ferramenta importante para o diagnóstico, o planejamento cirúrgico e o acompanhamento dos pacientes.

Descritores: Cisto odontogênico calcificante; Tumores odontogênicos; Relatos de casos

ABSTRACT

The calcifying cystic odontogenic tumor normally presents as a painless, slow-growing mass, involving both maxilla and mandible, primarily the anterior segment (incisor/canine area). It generally affects young adults in the third to fourth decades, with no gender predilection. Computerized tomography images revealed important characteristics that were not detected by panoramic radiography, such as fenestration, calcification and tooth-like structures. The

typical microscopic feature of this lesion is the presence of variable amounts of aberrant epithelial cells, without nuclei, which are named "ghost cells". In addition, dysplastic dentine can be found and occasionally the cyst can be associated with an area of dental hard tissue formation resembling an odontoma. The treatment for calcifying cystic odontogenic tumor involves simple enucleation and curettage. The purpose of this article is to present two different manifestation of calcifying cystic odontogenic tumor in which computerized tomography, associated to clinical features, served as an important tool for diagnosis, adequate surgical planning and follow-up of patients.

Keywords: Odontogenic cyst, calcifying; Odontogenic tumors; Case reports

INTRODUÇÃO

Tumor odontogênico cístico calcificante (TOCC) é a nova designação do cisto odontogênico calcificante (COC) recomendada pela classificação de 2005 da Organização Mundial da Saúde (OMS). Várias características clínicas e histopatológicas já foram descritas e diversas classificações foram propostas⁽¹⁻⁴⁾.

Geralmente, o TOCC se manifesta como um tumor indolor, de crescimento lento, que afeta igualmente a maxila e a mandíbula, com predileção pelo segmento anterior (área dos incisivos e caninos). Frequentemente, acomete adultos jovens, na terceira e quarta década de vida, sem preferência por gênero⁽⁵⁻⁸⁾.

As imagens radiográficas mostram estrutura unilocular radiolúcida e, ocasionalmente, multilocular, com

¹ Hospital de Aeronáutica de São Paulo – HASP, São Paulo (SP), Brasil.

² Instituto Israelita de Ensino e Pesquisa Albert Einstein – IIEPAE, Hospital Israelita Albert Einstein – HIAE, São Paulo (SP), Brasil.

³ Hospital das Clínicas, Faculdade de Medicina, Universidade de São Paulo – USP, São Paulo (SP), Brasil.

Autor correspondente: Estevam Rubens Utumi – Rua Pelotas, 284, apto. 21, Vila Mariana – CEP: 04012-000 – São Paulo (SP), Brasil – Tel.: (11) 5549-8241 – E-mail: estevamutumi@uol.com.br

Data de submissão: 3/2/2012 – Data de aceite: 3/8/2012

bordas bem circunscritas, contendo áreas com opacificação difusa, associadas a dentes impactados ou não erupcionados, ou a outro tumor odontogênico^(4,8,9).

Histologicamente, o TOCC é, em geral, composto por uma cavidade cística com cápsula fibrosa revestida por epitélio odontogênico. A característica microscópica típica dessa lesão é a presença, em quantidades variáveis, de células epiteliais aberrantes anucleadas, denominadas “células fantasmas”. Também se pode encontrar dentina displásica e, ocasionalmente, o cisto está associado a uma área de tecido dentário duro, semelhante ao odontoma^(4,7,10).

O tratamento do TOCC é a enucleação simples com curetagem vigorosa e acompanhamento por período prolongado^(6,11).

O objetivo deste trabalho foi relatar duas manifestações diferentes do TOCC em que a tomografia computadorizada (TC) foi ferramenta importante para o planejamento adequado da remoção cirúrgica da lesão.

CASO 1

Paciente do gênero feminino, branca, 36 anos, foi encaminhada por seu dentista ao Serviço de Cirurgia Bucocomaxilofacial do Hospital das Clínicas, em São Paulo, devido ao aumento de volume na área do canino superior esquerdo, há 8 meses. A paciente estava assintomática, e não havia nada digno de nota em sua história clínica. A inspeção da boca revelou pequena tumefação vestibular nas fossas caninas e ausência do canino permanente e do primeiro pré-molar. A mucosa tinha aspecto normal (Figura 1).

A radiografia periapical mostrou caninos impactados em aparente associação com massa radiopaca e uma lesão osteolítica (Figura 2). A radiografia panorâmica evidenciou o deslocamento de dois dentes (canino e primeiro pré-molar) e lesão unilocular com radiolucência, parcialmente ocupada por massa radiopaca se-



Figura 1. Aspecto intraoral pré-operatório, que mostra uma tumefação vestibular nas fossas caninas e ausência do canino e do primeiro pré-molar permanentes

melhante a um odontoma, envolvendo o primeiro pré-molar e o canino esquerdos (Figura 3).

A TC foi realizada para obter avaliação mais completa. As imagens da TC mostraram lesão em expansão bem definida, circunscrita, hipodensa com placa cortical na área posterior esquerda. Também foi observada opacificação completa do seio esquerdo (Figura 4A). Foram detectados dois fragmentos de massas radiopacas na margem distal (Figura 4B).



Figura 2. Radiografia panorâmica mostra deslocamento de dois dentes e uma massa radiopaca relacionada à lesão cística

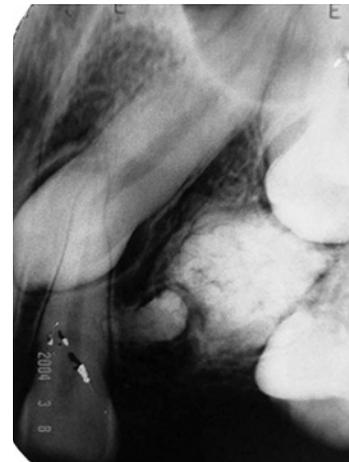


Figura 3. Radiografia periapical do caso 1 demonstra canino e primeiro pré-molar impactados, em aparente associação com a massa radiopaca na lesão osteolítica

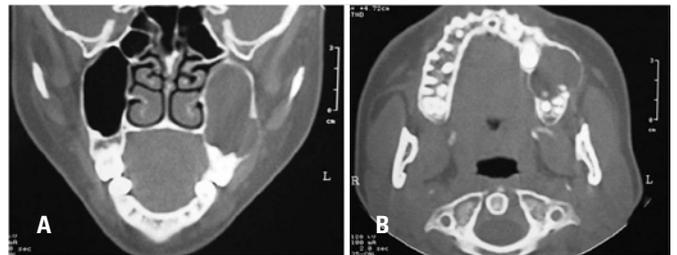


Figura 4. (A) Tomografia computadorizada em plano coronal mostra uma grande imagem hipodensa unilocular no seio maxilar esquerdo. A lesão se expandiu até a maxila, causou erosão na parede lateral do seio e poupou a cavidade nasal. (B) Tomografia computadorizada em plano axial apresenta uma lesão hipodensa associada à expansão bucal e no palato. A pequena porção radiopaca na parte distal da lesão, não detectada em radiografias convencionais

Os diagnósticos clínicos e radiológicos foram tumor odontogênico calcificante e odontoma. A biópsia por aspiração continha líquido seroso marrom. A enucleação foi realizada sob anestesia geral. A abordagem cirúrgica intraoral expôs a lesão. Um cisto de parede espessa foi completamente removido; ele continha material com aspecto de dentina e esmalte, compatível com odontoma composto dentro do cisto. O canino e o pré-molar impactados foram extraídos (Figuras 5A e 5B).

O exame microscópico mostrou uma cavidade cística revestida por camada basal proeminente e bem definida, com células cuboides e luminais que, focalmente, assemelhavam-se a epitélio ameloblástico, com numerosas células fantasmas e partículas calcificadas. Múltiplas estruturas dentiformes foram encontradas na luz do cisto (Figuras 6A a 6C). O diagnóstico histopatológico foi COC associado a odontoma.

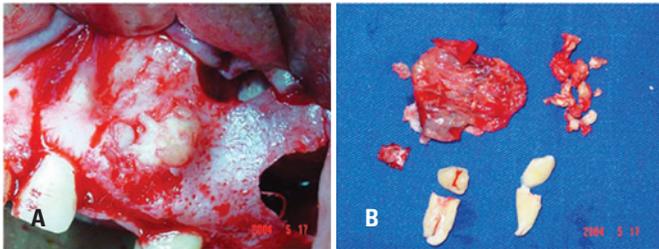


Figura 5. (A) Detalhe intraoral da cirurgia mostra uma lesão calcificada, dura como o osso maxilar. (B) Aspecto macroscópico da ressecção cirúrgica, e dentes canino e primeiro pré-molar impactados extraídos

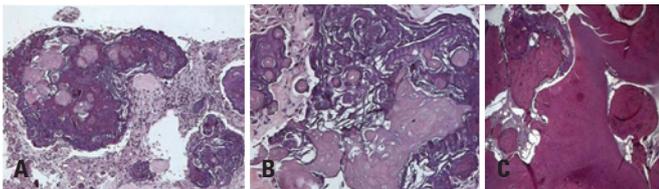


Figura 6. (A) Fotomicrografia do revestimento epitelial do tumor odontogênico cístico calcificante mostra paliçada da camada basal e massas de células "fantasmas" (hematoxilina-eosina, aumento original 50X); (B) observam-se inúmeras células "fantasmas" (hematoxilina-eosina, aumento original 100X); (C): na luz do cisto, encontrou-se material irregular semelhante a dente

Houve boa recuperação clínica e, após 2 anos de acompanhamento, não foi observada recidiva da lesão.

CASO 2

Paciente masculino, com 17 anos de idade, sem história clínica relevante, foi encaminhado ao Serviço de Cirurgia Bucomaxilofacial do Hospital das Clínicas por tumefação assintomática na mandíbula. Ao exame extraoral, havia edema facial à direita, e a pele da face es-

tava inalterada. Ao exame da cavidade oral, verificou-se expansão do sulco gengivolabial dos incisivos, caninos e molares direitos, estendendo até a área posterior. O paciente estava assintomático e sua mucosa era normal (Figura 7).

Os exames radiológicos evidenciaram lesão radioluciente, unilocular, com margens bem definidas e calcificações radiopacas difusas. Não foi verificada relação com dentes não erupcionados (Figura 8). Na TC, observou-se massa hipodensa, bem circunscrita, com expansão anteroposterior e látero-medial das corticais, contendo opacidades irregulares em forma de estrela na porção anterior da mandíbula (Figura 9).



Figura 7. Aspecto intraoral pré-operatório mostra tumefação expansiva na região anterior da mandíbula, resultando em desvio da linha média



Figura 8. Radiografia panorâmica apresenta grande área unilocular radioluciente com material calcificado na região anterior da mandíbula



Figura 9. (A) Tomografia computadorizada em plano axial mostra uma lesão hipodensa associada a depósitos calcificados dentro da lesão. (B) Tomografia computadorizada em plano coronal apresenta lesão hipodensa e depósitos calcificados ao redor da crista alveolar

Todos os dentes associados à lesão apresentaram resposta positiva aos exames de vitalidade.

A aspiração da lesão apresentou um líquido seroso de cor marrom. Biópsia incisional foi realizada sob anestesia local. Os achados histopatológicos revelaram TOCC. Resultados semelhantes foram verificados no caso 1, mas sem evidência de componentes dentiformes.

A enucleação total da lesão foi realizada sob anestesia geral. A evolução pós-operatória foi boa, sem complicações após 18 meses de acompanhamento. Não houve sinais de recidiva.

DISCUSSÃO

Alguns autores classificaram o TOCC dentro do grupo de neoplasias e tumores que se originam de tecidos odontogênicos, mas confirmaram que a maioria dos casos era não neoplásicos^(4,12).

Geralmente os TOCCs são indolores e de crescimento lento^(13,14). Quando localizados na maxila, os pacientes podem se queixar de rigidez nasal, epistaxe ou cefaleia. Apesar do envolvimento do seio paranasal, a paciente do caso 1 não apresentava nenhum desses sintomas. No caso 2, apesar do envolvimento da mandíbula anterior, o paciente estava assintomático.

Raramente o TOCC está associado a outros tumores odontogênicos, como fibroma ameloblástico, fibro-odontoma ameloblástico, odontoameloblastoma, ou mixofibroma odontogênico^(4,7,15). O caso 1 traz uma situação rara de COC associado a um odontoma. Não houve tumores associados no caso 2.

A maioria dos casos é de apresentação intraósseas e seu aspecto radiológico é de radiolucência uni ou multilocular bem definida, com depósitos radiopacos ocasionais, de tamanho e opacidade variáveis^(9,13,16). No caso 2, foi observada lesão unilocular intraóssea com margens bem definidas e calcificações radiopacas difusas.

Quando se detecta material calcificado, deve-se considerar a possibilidade de tumor adenomatoide, fibroma ossificante, tumor odontogênico epitelial calcificante e odontoma^(11,17). No caso 1, a lesão apresentava radiolucência unilocular bem demarcada, com massa calcificada envolvendo o primeiro pré-molar e o canino. O diagnóstico clínico, histológico e radiológico foi de TOCC com odontoma.

O diagnóstico diferencial do TOCC inclui as hipóteses de cisto dentífero, tumor odontogênico adenomatoide, fibro-odontoma ameloblástico e tumor odontogênico epitelial calcificante. O diagnóstico definitivo pode ser feito pelo exame histológico^(4,17).

A TC é uma importante ferramenta para visualizar a estrutura interna da lesão e o envolvimento de estru-

turas vizinhas, com alta reprodutibilidade de medidas para todas as dimensões. É considerada muito útil no planejamento terapêutico⁽¹⁸⁾. O TOCC geralmente aparece como lesão unilocular com margens bem definidas. Divergência dos dentes e reabsorção de raiz também são comuns⁽¹⁹⁾. Nos dois casos relatados, as imagens da TC revelaram características não detectadas pela radiografia panorâmica, como fenestração, calcificação e estruturas dentiformes. Em ambos os casos as margens eram bem definidas.

Considera-se a TC indispensável para o planejamento cirúrgico. Nestes casos apresentados, a TC foi utilizada para confirmar a presença de calcificações na parede do cisto e de pequenas manchas não detectadas por imagens radiológicas simples.

A histopatologia dos dois casos foi caracterizada por camada basal com células cuboides ou luminais focais semelhantes a epitélio ameloblástico, com muitas células fantasmas e partículas calcificadas. O caso 1 também estava associado a estruturas dentiformes (odontomas). O caso 2 apresentava inúmeras células fantasmas e elementos calcificados, mas não havia componentes semelhantes a dentes.

Esses tumores apresentam uma grande variedade de aspectos clínicos, radiológicos e histopatológicos^(11,18,20). O TOCC está frequentemente associado a dentes impactados ou não erupcionados ou outros tumores odontogênicos, como odontomas^(4,7,11,19-21). O tumor odontogênico mais associado ao TOCC é o odontoma⁽²²⁾, mas a frequência dessa associação ainda não está esclarecida⁽¹⁹⁾. Os cistos dentíferos são a segunda causa mais frequente de cistos odontogênicos, depois dos cistos radiculares⁽²²⁾. O primeiro caso aqui apresentado demonstrou associação com dentes impactados e odontoma composto⁽²²⁾, e tal fato não ocorreu no segundo caso.

O tratamento do TOCC depende da localização da lesão e do tipo histológico⁽²²⁾ e varia de enucleação simples a curetagem, o que significa enucleação seguida de remoção de 1 a 2 mm de osso ao redor da periferia da cavidade cística, com cureta bem afiada ou broca para ossos. O objetivo desse procedimento é remover resíduos epiteliais que poderiam levar a uma recidiva^(11,17). Souza et al.⁽¹¹⁾ relataram que a marsupialização poderia ser indicada como tratamento inicial do TOCC, para minimizar o dano às estruturas anatômicas próximas.

Buchner⁽⁶⁾ salientou a importância do acompanhamento prolongado. As recidivas são pouco frequentes e o comportamento maligno é raro⁽⁴⁾.

Salienta-se que a escolha do tratamento deve ser individualizada para cada lesão, já que as características radiológicas e histológicas diferem. Talvez seja possível

correlacionar algumas características do exame macroscópico do espécime cirúrgico com as imagens da TC.

O TOCC é uma neoplasia odontogênica benigna que, ocasionalmente, manifesta-se como tumor agressivo e recorrente^(11,17). Nos dois casos relatados, foi realizado tratamento conservador, com enucleação completa do tumor. Não foram observadas recidivas ou complicações durante o acompanhamento.

Em conclusão a TC foi uma ferramenta importante para o adequado planejamento cirúrgico das lesões nos dois casos. A análise histopatológica foi necessária para o diagnóstico definitivo. Consultas de acompanhamento durante longo período são recomendadas, especialmente quando as estruturas adjacentes também forem afetadas.

REFERÊNCIAS

1. Toida M. So-called calcifying odontogenic cyst: review and discussion on the terminology and classification. *J Oral Pathol Med*. 1998;27(2):49-52.
2. Hong SP, Ellis GL, Hartman KS. Calcifying odontogenic cyst. A review of ninety-two cases with reevaluation of their nature as cysts or neoplasms, the nature of ghost cells, and subclassification. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1991;72(1):56-64.
3. Li TJ, Yu SF. Clinicopathologic spectrum of the so-called calcifying odontogenic cysts: a study of 21 intraosseous cases with reconsideration of the terminology and classification. *Am J Surg Pathol*. 2003;27(3):372-84.
4. Chindasombataroen J, Kakimoto N, Akiyama H, Kubo K, Murakami S, Furukawa S, et al. Computerized tomography observation of a calcifying cystic odontogenic tumor with an odontoma: case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2007;104(6):e52-7.
5. Yoshida M, Kumamoto H, Ooya K, Mayanagi H. Histopathological and immunohistochemical analysis of calcifying odontogenic cysts. *J Oral Pathol Med*. 2001;30(10):582-8.
6. Buchner A. The central (intraosseous) calcifying odontogenic cyst: an analysis of 215 cases. *J Oral Maxillofac Surg*. 1991;49(4):330-9.
7. Gallana-Alvarez S, Mayorga-Jimenez F, Torres-Gómez FJ, Avellá-Vecino FJ, Salazar-Fernandez C. Calcifying odontogenic cyst associated with complex odontoma: case report and review of the literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2005;10(3):243-7.
8. Reyes D, Villanueva J, Espinosa S, Cornejo M. Odontogenic calcific cystic tumor: a report of two clinical cases. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2007;12(2):E126-9.
9. Rushton VE, Horner K. Calcifying odontogenic cyst - a characteristic CT finding. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 1997;35(3):196-8.
10. Hirschberg A, Kaplan I, Buchner A. Calcifying odontogenic cyst associated with odontoma: a possible separate entity (odontocalcifying odontogenic cyst). *J Oral Maxillofac Surg*. 1994;52(6):555-8.
11. Souza LN, Souza AC, Gomes CC, Loyola AM, Durighetto AF Jr, Gomez RS, et al. Conservative treatment of calcifying odontogenic cyst: report of 3 cases. *J Oral Maxillofac Surg*. 2007;65(11):2353-6.
12. Krammer IRH, Pindborg JJ, Shear M. World Health Organization classification: histological typing of odontogenic tumours. Berlin: Springer-Verlag, 1993.
13. Gopalakrishnan R, Simonton S, Rohrer MD, Koutlas IG. Cystic variant of calcifying epithelial odontogenic tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endo* 2006;102(6):773-7.
14. Anavi Y, Kaplan I, Citir M, Calderon S. Clear-cell variant of calcifying epithelial odontogenic tumor: clinical and radiographic characteristics. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2003;95(3):332-9.
15. Lin CC, Chen CH, Lin LM, Chen YK, Wright JM, Kessler HP, et al. Calcifying odontogenic cyst with ameloblastic fibroma: report of three cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2004;98(4):451-60.
16. Cheng YS, Wright JM, Walstad WR, Finn MD. Calcifying epithelial odontogenic tumor showing microscopic features of potential malignant behavior. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;93(3):287-95.
17. Daniels JS. Recurrent calcifying odontogenic cyst involving the maxillary sinus. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2004;98(6):660-4.
18. Cavalcanti MG, Vannier MW. Measurement of the volume of oral tumors by three-dimensional spiral computed tomography. *Dentomaxillofac Radiol*. 2000;29(1):35-40.
19. Uchiyama Y, Akiyama H, Murakami S, Koseki T, Kishino M, Fukuda Y, Shimizutani K, Furukawa S. Calcifying cystic odontogenic tumour: CT imaging. *Br J Radiol*. 2012;85(1013):548-54.
20. Lida S, Fukuda Y, Ueda T, Aikawa T, Arizpe JE, Okura M. Calcifying odontogenic cyst: radiologic findings in 11 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2006;101(3):356-62.
21. Sakai VT, Filho CE, Moretti AB, Pereira AA, Hanemann JA, Duque JA. Conservative surgical treatment of an aggressive calcifying cystic odontogenic maxillary tumor in the young permanent dentition. *Pediatr Dent*. 2011;33(3):261-5.
22. Chindasombataroen J, Poomsawat S, Klongnoi B. Calcifying cystic odontogenic tumor associated with other lesions: case report with cone-beam computed tomography findings. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2012;113(3):414-20.