

# Cisto Odontogênico Ortoceratinizado: Relato de caso

Orthokeratinized Odontogenic Cyst: Case Report

## RESUMO

O Cisto Odontogênico Ortoceratinizado (COO) é um cisto de desenvolvimento que ocorre nos maxilares, com maior predileção pela região posterior da mandíbula, em pacientes jovens do gênero masculino. O COO é caracterizado radiograficamente como uma área radiolúcida, unilocular bem definida e identificado histologicamente pela presença de uma cavidade cística fibrosa, revestida por epitélio estratificado pavimentoso ortoceratinizado. O tratamento do COO geralmente conservador, consiste na enucleação associada à curetagem óssea. O objetivo deste trabalho é relatar um caso de COO localizado em mandíbula.

**Palavras-chave:** Cisto Ortoqueratinizado; Cistos Ósseos; Procedimentos Cirúrgicos Operatórios; Patologia Bucal.

### **Lorena Mendonça Ferreira**

Graduanda pela Faculdade de Odontologia da Universidade Federal da Bahia – FOUFBA, Salvador, Bahia, Brasil.

### **João Nunes Nogueira Neto**

DDS, Especialista em Cirurgia e Traumatologia Bucocomaxilofacial pela Universidade Federal da Bahia – UFBA, Hospital Universitário Professor Edgard Santos – HUPES, Hospital Geral do Estado – HGE, Hospital Santo Antônio (Obras Sociais Irmã Dulce) – HSA/OSID, Salvador, Bahia, Brasil.

### **Patrícia Ribeiro**

DDS, MSc, PhD. Professor Titular do Departamento de Propedêutica e Clínica Integrada da Faculdade de Odontologia da Universidade Federal da Bahia – FOUFBA, Salvador, Bahia, Brasil.

### **Paulo Sergio Flores Campos**

DDS, MSc, PhD. Professor Titular do Departamento de Propedêutica e Clínica Integrada da Faculdade de Odontologia da Universidade Federal da Bahia – FOUFBA, Salvador, Bahia, Brasil.

### **João Frank Carvalho Dantas de Oliveira**

DDS, PhD. Professor Adjunto do Departamento de Propedêutica e Clínica Integrada da Faculdade de Odontologia da Universidade Federal da Bahia – FOUFBA, Salvador, Bahia, Brasil.

Lorena Mendonça Ferreira - aluna de graduação que realizou o acompanhamento pré e pós operatório.  
João Nunes Nogueira Neto – cirurgião  
Patrícia Ribeiro - responsável da disciplina em que o caso foi conduzido  
Viviane Almeida Sarmento - avaliação radiográfica pós-operatória  
Paulo Sergio Flores Campos - avaliação radiográfica pré-operatória  
João Frank Carvalho Dantas de Oliveira - cirurgião do caso.

### **Endereço para correspondência**

Rua Araújo Pinho, 62 – Canela, Salvador/BA. CEP: 40.110-150 FOUFBA – 4º andar.  
E-mail: lorena.mf@yahoo.com

## ABSTRACT

The Orthokeratinized Odontogenic Cyst (OOC) is a developmental cyst that occurs in the jaws, with a greater predilection in the posterior region of the mandible in young male patients. OOC is characterized radiographically as a well-defined radiolucent, unilocular area and histologically identified by the presence of a fibrous cystic cavity lined by orthokeratinized squamous epithelium. Treatment of OOC is usually conservative and consists of enucleation associated with bone curettage. The objective of this study is to report a case of OOC located in the mandible.

**Key words:** Bone Cysts; Surgical Procedures, Operative; Pathology, Oral.

## INTRODUÇÃO

O Cisto Odontogênico Ortoceratinizado (COO) é um cisto de desenvolvimento relativamente raro, exclusivo dos ossos gnáticos, que acomete, principalmente, pacientes jovens e leucodermas do sexo masculino. Pouco agressivo localmente e de crescimento lento, apresenta predileção pela região posterior da mandíbula. É geralmente assintomático, porém, quando em grandes proporções, pode causar expansão óssea da área afetada com baixa taxa de recidiva em cerca de 2% dos casos<sup>1,2,3,4</sup>.

A etiologia da lesão é desconhecida, contudo se acredita que sua origem está associada a remanescentes da lâmina dentária<sup>2</sup>. O COO é definido pela Organização Mundial de Saúde (OMS) como uma entidade patológica independente, não sendo mais considerada uma variante incomum do Ceratocisto Odontogênico (CO)<sup>5</sup>.

Radiograficamente, o COO é caracterizado como uma área radiolúcida, unilocular, bem definida, pequena, não expansiva, podendo ou não estar associado a um dente incluso<sup>1,2,3,4,6</sup>.

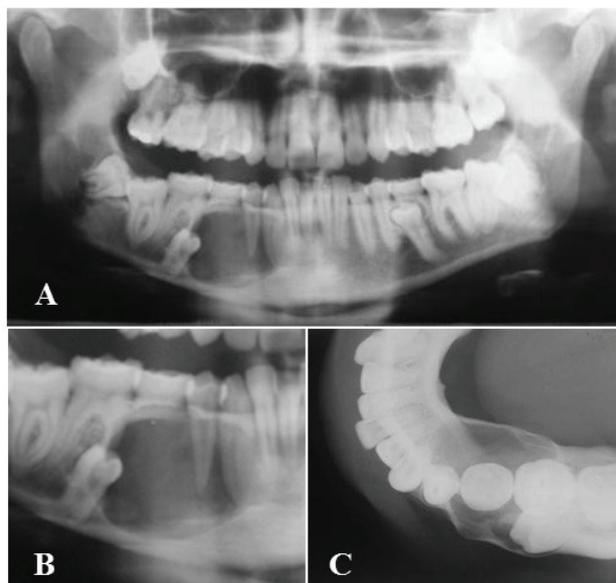
Histologicamente, é caracterizado pela presença de uma cavidade cística fibrosa revestida por epitélio estratificado pavimentoso ortoceratinizado, formado por cinco a seis camadas de células, com uma camada granulosa bem desenvolvida e uma fina camada basal, que não se dispõe em paliçada<sup>1,2,3,4,6</sup>. Também possui interface plana com a cápsula conjuntiva, porém cistos satélites não são encontrados<sup>2</sup>.

O tratamento do COO depende do seu tamanho e localização, mas geralmente é conservador devido ao seu curso clínico pouco agressivo e baixa taxa de recorrência. O tratamento indicado frequentemente é enucleação do cisto associado à curetagem óssea, sendo o prognóstico favorável para esse tipo de terapêutica<sup>1,2,3,7</sup>.

O presente artigo tem como objetivo relatar um caso de COO localizado em corpo mandibular, em paciente do gênero feminino com 19 anos de idade.

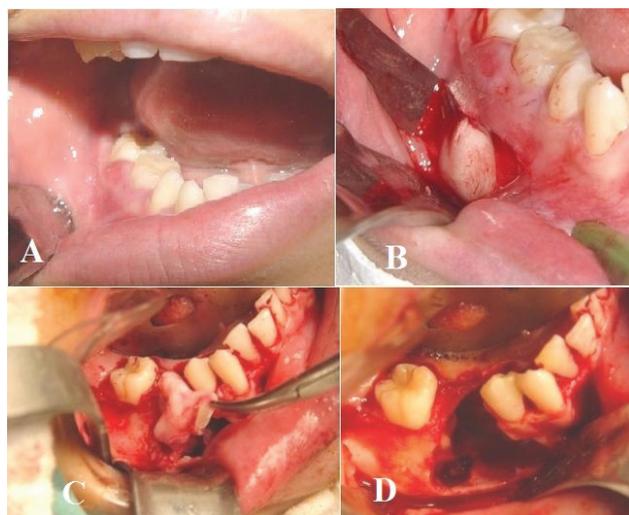
## RELATO DE CASO

Paciente 19 anos, sexo feminino, leucoderma, com histórico de mobilidade dentária e dor periodontal associado ao dente 85 ainda presente na cavidade bucal. Ao exame clínico observou-se eritema gengival localizado na porção vestibular do dente 85, ausência do dente 45 e abaulamento de corticais ósseas vestibular e lingual em corpo mandibular direito (Figura 1). Paciente não referia sintomatologia dolorosa nem apresentava assimetria facial.



**Figura 1** - (A) Radiografia panorâmica evidenciando área radiolúcida unilocular em região de corpo mandibular direito e sua vista ampliada em B. (C) Radiografia oclusal evidenciando expansão das corticais ósseas vestibular e lingual.

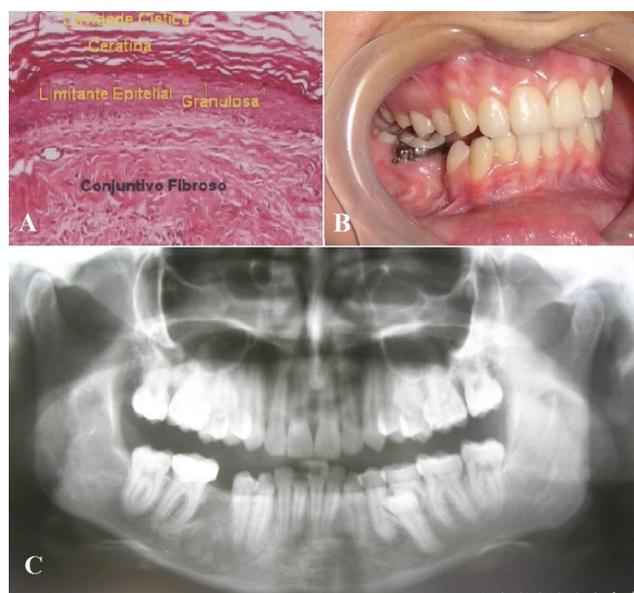
Ao exame de radiografia panorâmica, foi possível identificar uma área radiolúcida unilocular, com contornos bem definidos associada à coroa da unidade 45 inclusa com severa dilaceração radicular, medindo cerca de 3 cm, envolvendo a região radicular dos dentes 43, 44, 46, e 85. Na tomografia computadorizada, observou-se imagem hipodensa unilocular com adelgaçamento de corticais ósseas mandibulares no lado direito da mandíbula e expansão das corticais vestibular e lingual, compatível com tecido sólido intralesional (Figura 2).



**Figura 2** - (A) Vista intra-oral pré-operatória. (B) e (C) Exposição e excisão do cisto, respectivamente. (D) Cavidade cirúrgica após enucleação e curetagem da lesão.

As hipóteses diagnósticas foi para Cisto Dentígero, CO e Ameloblastoma. Durante biópsia incisional, notou-se presença de cápsula fina e material caseoso no interior da lesão. O exame histopatológico mostrou uma lesão cística com capsula fibrosa revestida por uma fina camada de epitélio pavimentoso estratificado e presença de ortoqueratina. O resultado do exame histopatológico foi conclusivo para COO e o tratamento realizado foi enucleação seguida de curetagem e exodontia dos dentes 85 e 45 que estava inclusa.

O paciente evolui com 2 anos de pós-operatório, sem evidências clínicas e radiográficas de recidiva da lesão e avançado estágio de neoformação óssea local (Figura 3).



**Figura 3** - (A) Imagem histológica da lesão. (B) e (C), respectivamente, vista intra-oral e radiografia panorâmica pós operatória de 2 anos demonstrando remodelação óssea no local da lesão.

## DISCUSSÃO

A primeira descrição do COO foi realizada em 1927 por Schultz como sendo um cisto dermatoide intraósseo<sup>2,4</sup>. Em 1956, Philipsen introduziu o termo ceratocisto odontogênico (CO) para identificar uma patologia que apresentava histologicamente uma parede cística fibrosa revestida por epitélio queratinizado<sup>2,3,4</sup>. Wright, em 1981, identificou o COO como uma variante do CO devido às suas diferenças clínico-histológicas e à sua baixa probabilidade de recidiva<sup>8</sup>.

Em 2005, a Organização Mundial de Saúde (OMS) classificou o CO como Tumor Odontogênico Ceratocístico (TOC), considerando-o como uma neoplasia benigna verdadeira. Assim, a partir dessa

publicação, o COO não foi mais considerado uma variante do CO, sendo classificado como cisto de desenvolvimento<sup>2,3,6,9</sup>.

Na mais recente classificação dos tumores ósseos odontogênicos e maxilofaciais da OMS em 2017, o Tumor Odontogênico Ceratocístico voltou a ser classificado como cisto, como nas 1ª e 2ª edições publicadas pela organização<sup>5</sup>. Tal reclassificação baseou-se, principalmente, nas mutações no gene da proteína PTCH, encontradas no CO<sup>5,7</sup>, além das características de crescimento agressivo, recorrência após tratamento e rara ocorrência de sua variante sólida<sup>5</sup>.

Mutações no gene PTCH causam a síndrome de Gorlin-Goltz ou síndrome do carcinoma nevoide basocelular<sup>5</sup>, a qual é frequentemente associada ao CO<sup>1,4,7</sup>. Alterações no gene dessa proteína são encontradas em 85% dos pacientes síndrômicos que possuem o CO, sendo um fato previsível, e 30% em pacientes não síndrômicos<sup>5</sup>.

Apesar da atualização, o COO permanece classificado como cisto de desenvolvimento, ainda uma entidade patológica independente do CO<sup>5</sup>. De acordo com Pereira<sup>2</sup>, ambas as lesões apresentam características biológicas que são suficientemente distintas para reconhecê-las como entidades patológicas específicas.

As mutações no gene PTCH e a associação à síndrome do carcinoma nevoide basocelular não são encontradas no COO<sup>5,7</sup>. Estudos imunohistoquímicos demonstraram uma menor expressão de Bcl-2, Ki-67, P53 em COO, quando comparados ao CO. Esses achados sugerem baixa taxa proliferativa e alto índice apoptótico no COO, quando comparado ao CO, os quais são características compatíveis com lesões císticas<sup>2,4,6,10</sup>.

O COO cresce lentamente, sendo pouco agressivo localmente; o CO, entretanto, é clinicamente agressivo, podendo invadir as regiões adjacentes<sup>5,10</sup>. A diferença também é expressa nas taxas de recidiva; o COO apresenta baixa recidiva, aproximadamente 2%<sup>1,2,3,4</sup>, quando a taxa do CO é de cerca 30%<sup>1,6,7,10</sup>, reaparecendo mesmo após a enucleação ou após tratamento mais radical. Todos esses fatores corroboram e justificam a diferenciação do COO e do CO em duas lesões distintas.

O COO é um cisto odontogênico de incomum ocorrência nos maxilares<sup>6</sup>, sendo encontrado com maior prevalência no sexo masculino<sup>4,6,9,10</sup>, na terceira e na quarta década de

vida<sup>6</sup>, diferente do presente caso que se encontrava na segunda década de vida. É relatada uma taxa de incidência duas vezes maior nos homens que nas mulheres<sup>4,9,7,10</sup>. O presente trabalho relata um caso de COO em paciente do sexo feminino, indo de encontro com a base científica.

Há poucas pesquisas que relacionam essa lesão à etnia dos pacientes, mas é possível identificar maior prevalência em indivíduos leucodermas<sup>2</sup>, como apresentado nesse caso.

Nos exames de imagem, a lesão apresentou-se como uma área radiolúcida, unilocular, de contornos bem definidos em região posterior da mandíbula associada a uma unidade dentária inclusa, medindo cerca de 3 cm em seu maior diâmetro. A associação entre o COO com inclusão dental pode chegar até a 75,7% dos casos<sup>2</sup>. Swain<sup>4</sup> e Mahdavi, Taghavi<sup>6</sup> apontam que o tamanho da lesão pode variar de 1 cm a 7 cm. Os aspectos imagiológicos do caso relatado são condizentes com a literatura<sup>2,3,4,6,7,10</sup>

Histologicamente, o COO apresenta-se como uma cavidade cística fibrosa revestida por epitélio estratificado pavimentoso e por uma camada de espessura variada de ortoqueratina<sup>1,2,3,4,6</sup>. Essa descrição é equivalente ao resultado encontrado na biópsia da lesão do paciente desse caso.

Métodos alternativos de tratamento, como enucleação associada à remoção de mucosa adjacente, aplicação de solução de Carnoy, crioterápicos e marsupialização ou descompressão, também são descritos<sup>2</sup>. O tratamento realizado foi enucleação, seguida de curetagem da loja óssea, sendo essa a abordagem terapêutica mais indicada, devido à baixa taxa de recidiva da lesão<sup>2,3,7</sup>. Quando é utilizada enucleação e curetagem a recidiva ocorre em apenas cerca de 2.2% dos casos<sup>3</sup>. No momento, o paciente se encontra em acompanhamento pós-operatório de 2 anos sem sinais de recidiva da lesão, o que sugere a eficiência desse método de tratamento cirúrgico.

## CONSIDERAÇÕES FINAIS

O COO é um cisto de desenvolvimento pouco frequente, que apresenta características clínicas e radiográficas comuns a outros cistos odontogênicos, razão por que seu diagnóstico final é realizado por meio de exame histológico. A enucleação da lesão, seguida de curetagem, é o tratamento de eleição na maioria dos casos, sendo relatados raros casos de recidiva, contudo o acompanhamento do paciente por um longo período ainda é necessário.

## REFERÊNCIAS

1. Cheng YC, Liang H, Wright J, Teenier T. Multiple Orthokeratinized Odontogenic Cysts: A Case Report. *Head and Neck Pathol.* 2015;9:153–57.
2. Silva LAB, Albuquerque Neto AD, Bessa-Nogueira RV, Lisboa Neto JA. Cisto Odontogênico Ortoceratinizado: Relato De Caso e Revisão dos Aspectos Clínicos, Radiográficos, Histopatológicos e Terapêuticos. *Braz. J. Surg. Clin. Res.* 2015 jun–aug;11(4):25-9.
3. Pereira FAC, Vidal MTA, Flores Campos PS, Valença Neto AAP, Andrade LCS, Fernandes A, et al. Orthokeratinized odontogenic cyst: A report of two cases in the mandible. *Rev Odonto Cienc.* 2012;27(2):174-78.
4. Swain N, Patel S, Poonja LS, Pathak J, Dekate K. Orthokeratinized Odontogenic Cyst. *Journal of Contemporary Dentistry.* 2012 May–Aug;2(2):31-3.
5. Wright JM, Vered M. Update from the 4th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours: Odontogenic and Maxillofacial Bone Tumors. *Head and Neck Pathol.* 2017; 11:68–77.
6. Mahdavi N, Taghavi N. Orthokeratinized Odontogenic Cyst of the Maxilla: Report of a Case and Review of the Literature. *Turkish Journal of Pathology.* 2014 Aug; 11:1-5.
7. Nascimento RD, Raldi FV, De Moraes MB, Holleben D, Arantes PT. Cisto odontogênico ortoqueratinizado x tumor odontogênico queratocístico: a importância da diferenciação histopatológica no tratamento. *Rev. Cir. Traumatol. Buco-Maxilo-Fac.* 2012 jan-mar;12(1):17-24.
8. Wright JM. The odontogenic keratocyst: orthokeratinized variant. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1981;51(6):609–18.
9. MacDonald-Jankowski DS. Orthokeratinized odontogenic cyst: a systematic review. *Dentomaxillofacial Radiology.* 2010; 39: 455–67.
10. Dong Q, Pan S, Sun LS, Li TJ. Orthokeratinized Odontogenic Cyst: A Clinicopathologic Study of 61 Cases. *Arch Pathol Lab Med.* 2010; 134:271–75.