

# Cisto odontogênico glandular: relato de caso raro

*Glandular odontogenic cyst: rare case report*

*Quiste dental glandular: reporte de un caso raro*

### RESUMO

**Introdução:** O cisto odontogênico glandular (COG) é um cisto odontogênico de desenvolvimento raro com potencial para agressividade e alta recorrência. Inicialmente denominado cisto sialodontogênico, por acreditarem que sua etiologia estaria possivelmente associada às glândulas salivares, posteriormente foi proposto o nome de COG e enfatizada a origem odontogênica para o mesmo. O objetivo deste trabalho foi relatar e discutir um caso de COG, analisando-se os aspectos clínicos, imaginológico e histológicos, discutindo com dados provenientes da literatura. **Relato de caso:** Paciente do sexo masculino, 22 anos, com diversas patologias de desenvolvimento dentário, cuja lesão localizava-se na região posterior da mandíbula associada a unidades dentárias não vitais simulando sinais de cisto radicular, foi realizada abordagem cirúrgica para extração dos dentes 36 e 37, curetagem da lesão e posterior acompanhamento de 5 anos sem recidiva. **Considerações finais:** O caso clínico demonstrou um COG que, pelas suas características clínicas e radiográficas, assemelhava-se a um cisto radicular em um paciente que apresentava alterações no desenvolvimento das unidades dentárias, contudo o laudo histopatológico foi fundamental para a elucidação diagnóstica e terapêutica adequada. **Palavras-chaves:** Cistos Maxilomandibulares; Diagnóstico diferencial; Cirurgia Oral.

#### **Naiara Santana Rodrigues**

Mestranda em Odontologia e Saúde pela Faculdade de Odontologia Universidade Federal da Bahia – FOUFBA.

#### **João Nunes Nogueira Neto**

DDS. Especialista em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial 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 Leite Ribeiro**

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

#### **Viviane de Almeida Sarmento**

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

#### **João Frank Carvalho Dantas**

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

#### **ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA**

Naiara Santana Rodrigues  
Avenida Araújo Pinho, 62  
Canela, Salvador- BA  
Cep.: 40110-150 – 4º andar  
Telefone: (71) 98369-5417  
E-mail: naiara.rodrigues2012@gmail.com

### ABSTRACT

**Introduction:** Glandular odontogenic cyst (GOC) is a rare developing odontogenic cyst with potential for aggressiveness and high recurrence. Initially called sialodontogenic cyst, as they believed that its etiology was possibly associated with salivary glands, the name of COG was later proposed and its odontogenic origin was emphasized. The objective of this work was to report and discuss a case of COG, analyzing the clinical, imaging and histological aspects, discussing with data from the literature. **Case report:** Male patient, 22 years old, with several pathologies of dental development, whose lesion was located in the posterior region of the mandible associated with non-vital dental units simulating signs of radicular cyst, a surgical approach was performed to extract the teeth 36 and 37, curettage of the lesion and subsequent follow-up of 5 years without recurrence. **Final considerations:** The clinical case demonstrated a COG that, due to its clinical and radiographic characteristics, resembled a radicular cyst in a patient who presented alterations in the development of dental units, however the histopathological report was essential for the proper diagnostic and therapeutic elucidation.

**Key-words:** Jaw Cysts; Diagnosis Differential; Surgery Oral.

### RESUMEN

**Introducción:** El quiste odontogénico glandular (GOC) es un quiste odontogénico en desarrollo poco común con potencial de agresividad y alta recurrencia. Inicialmente denominado quiste sialodontogénico, ya que creían que su etiología posiblemente estaba asociada a glándulas salivales,

posteriormente se propuso el nombre COG y se enfatizó su origen odontogénico. El objetivo de este trabajo fue informar y discutir un caso de COG, analizando los aspectos clínicos, imagenológicos e histológicos, discutiendo con datos de la literatura. **Caso clínico:** Paciente masculino de 22 años con diversas patologías del desarrollo dental, cuya lesión se localizó en la región posterior de la mandíbula asociada a unidades dentales no vitales simulando signos de quiste radicular, se realizó un abordaje quirúrgico para extraer el dientes 36 y 37, curetaje de la lesión y seguimiento posterior de 5 años sin recidiva. **Consideraciones finales:** El caso clínico mostró un COG que por sus características clínicas y radiográficas se asemejaba a un quiste radicular en un paciente que presentaba alteraciones en el desarrollo de las unidades dentales, sin embargo el informe histopatológico fue fundamental para el adecuado esclarecimiento diagnóstico y terapéutico.

**Palabras Clave:** Quistes maxilomandibulares; Diagnóstico diferencial; Cirugía Oral.

## INTRODUÇÃO

O cisto odontogênico glandular (COG) é um cisto de desenvolvimento raro, reconhecido como uma entidade patológica distinta pela Organização Mundial de Saúde (OMS) em 1992. Foi descrito pela primeira vez por Padayachee & Van Wyk em 1987, que o denominou de cisto sialodontogênico, por acreditarem que sua etiologia possivelmente estava associada a glândulas salivares. Em 1988, Gardner *et al.*, propuseram o nome de COG e enfatizaram a origem odontogênica para o mesmo. Em 1992, a OMS reconheceu o COG como uma entidade distinta e o classificou como cisto epitelial odontogênico de desenvolvimento<sup>1-3</sup>.

A patogênese dessa lesão ainda é desconhecida, sendo a origem odontogênica, possivelmente dos remanescentes da lâmina dentária<sup>4</sup>.

Clinicamente, o COG possui crescimento lento, porém pode apresentar um comportamento agressivo e com potencial de recorrência. Acomete paciente na faixa etária de 50 anos, em ambos os sexos, tendo uma ligeira predileção pelo sexo masculino<sup>3,5</sup>. O sítio anatômico mais comumente afetado é a região anterior da mandíbula. Clinicamente, a lesão pode ser assintomática, ou apresentar tumefação óssea e sintomatologia dolorosa<sup>5</sup>.

As alternativas terapêuticas para o COG na literatura são inconsistentes e não baseadas em evidências devido à raridade da condição, variando de procedimentos menores, como enucleação e curetagem, a cirurgias de grande porte, como ressecção marginal, osteotomia periférica e ressecção parcial da mandíbula<sup>6</sup>. O objetivo deste trabalho é

relatar um caso raro de um paciente jovem com 22 anos de idade, do sexo masculino, apresentando múltiplas patologias de desenvolvimento dental, e um COG na região de molar inferior esquerdo associado a unidades dentais não vitais simulando sinais de cisto radicular.

## RELATO DE CASO

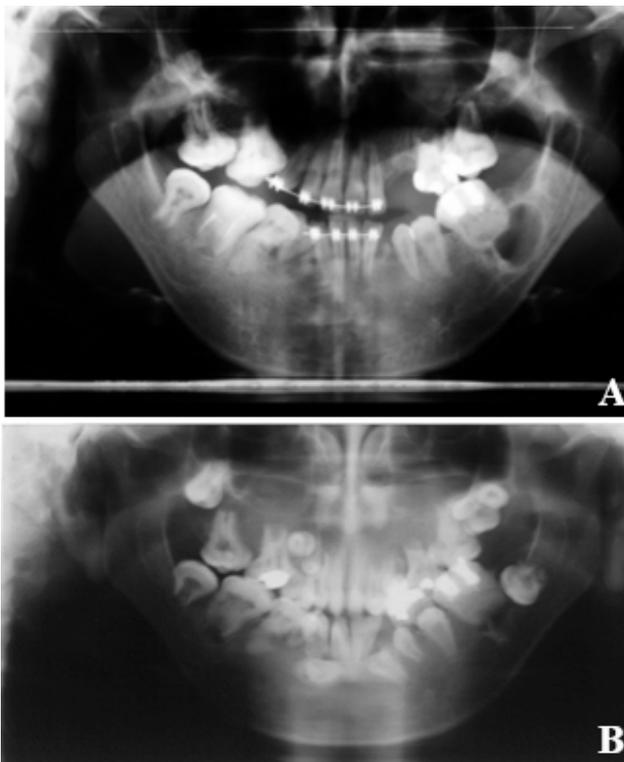
Paciente do sexo masculino, com 22 anos de idade compareceu para atendimento clínico odontológico encaminhado pelo ortodontista, relatando mobilidade dentária excessiva no elemento dentário 36 que se apresentava fusionada com o dente 37.

Ao exame clínico, o paciente apresentava mobilidade grau 3 nos dentes 36 e 37. A mucosa oral adjacente aos elementos dentários 36 e 37, apresentava coloração normal, sem aumento de volume das corticais ósseas vestibular e lingual. O paciente relatou histórico de dor nesses dentes há cerca de 7 anos, os quais foram tratados com pulpectomia, porém sem obturação dos condutos radiculares.

O paciente apresentava ainda fusão dos elementos dentários 14 e 15, 24 e 25, 26 e 27, 46 e 47, além de alteração morfológica nos elementos 16, 34, 35, 44, 45 e 48.

Uma radiografia panorâmica foi solicitada para avaliação dentária. Observou-se imagem radiolúcida circundada por halo esclerótico bem definida, com aproximadamente 20 mm em seu maior diâmetro, associada à região periapical dos dentes 36 e 37 compatível com lesão cística (Figura 1- A). Evidenciou-se também taurodontia do dente 38 e 48, alteração da formação radicular dos elementos 44 e 45, os quais, apresentavam raízes curtas.

Foram solicitadas as radiografias panorâmicas prévias, realizadas durante o tratamento ortodôntico. Na radiografia inicial, realizada há aproximadamente 6 anos, observou-se presença de diversos elementos dentários e supranumerários retidos na maxila e mandíbula (Figura 1- B). A lesão associada aos dentes 36 e 37 já podia ser evidenciada com tamanho discreto. Nas radiografias realizadas 2 e 4 anos após a radiografia inicial, a lesão na região do 36 e 37 não apresentava aumento no tamanho. Porém, observou-se um crescimento da lesão entre a última radiografia obtida no arquivo do ortodontista, realizada há 2 anos e o exame de imagem pré-cirúrgico, no qual foi realizado o diagnóstico da lesão.

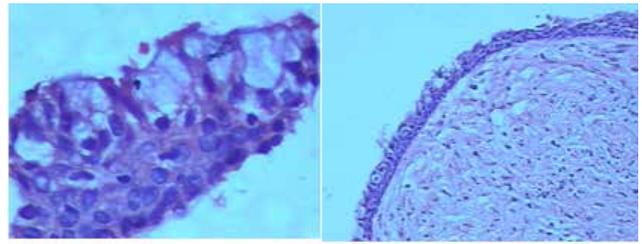


**Figura 1** - A) Radiografia pré-cirúrgica: nota-se área radiolúcida circundada por halo esclerótico bem definido, com aproximadamente 20 mm, associada à região periapical dos dentes 36 e 37 compatível com lesão cística. B) Radiografia panorâmica inicial (6 anos antes), evidenciou presença de área radiolúcida associada a região periapical dos dentes 36 e 37 com tamanho discreto. Ademais, nota-se taurodontia dos dentes 38 e 48; alteração da formação radicular dos elementos 44 e 45 (raízes curtas) e diversos elementos dentários e supranumerários retidos na maxila e mandíbula.

A suspeita clínica de cisto radicular foi estabelecida. Sob anestesia local, realizou-se remoção dos dentes 36 e 37. No momento da remoção da lesão, observou-se que a cápsula cística era mais friável e menos espessa do que o usual de cistos radiculares. A cavidade óssea foi curetada e a peça cirúrgica encaminhada para exame histopatológico.

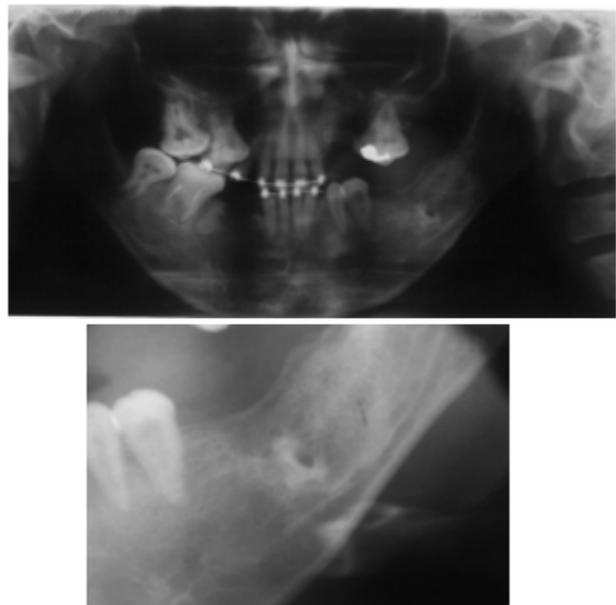
Macroscopicamente, a lesão consistia em um fragmento tissular irregular, macio, acastanhado, medindo 0,9 x 0,8 x 0,3 cm. No exame histopatológico com coloração de hematoxilina e eosina, observou-se fragmento de cavidade cística, que apresentava limitante epitelial pavimentoso estratificado de espessura variável, eventualmente projetada associada a arranjos nodulares esporádicos e a interface epitélio-conjuntivo plana. As células superficiais apresentavam-se cúbicas, por vezes ciliadas e algumas vezes com discreta disposição papilar irregular. Notavam-se também células mucosas e pequenas concentrações intraepiteliais de padrão mucinoso. A cápsula fibrosa era constituída de tecido conjuntivo denso com discretos focos

de células inflamatórias mononucleares (Figura 2). O diagnóstico histopatológico foi compatível com COG.



**Figura 2** - Fragmento de cavidade cística com limitante epitelial pavimentoso estratificado de espessura variável e a interface epitélio-conjuntivo plana. As células superficiais apresentavam-se cúbicas, por vezes ciliadas e algumas vezes com discreta disposição papilar irregular.

Em um acompanhamento clínico e radiográfico de 2 anos após a cirurgia, paciente não apresentava sinais de recidiva da lesão, demonstrando bom estado de cicatrização óssea no local da remoção da lesão (Figura 3).



**Figura 3** - Acompanhamento radiográfico de 2 anos após a cirurgia, demonstrando bom estado de cicatrização óssea no local da remoção da lesão.

## DISCUSSÃO

O COG é um cisto odontogênico de desenvolvimento extremamente raro, que possui crescimento lento, porém pode apresentar comportamento agressivo e possui potencial de recorrência<sup>7</sup>. No caso apresentado uma lesão radiolúcida associada as unidades 36 e 37 já era observada 6 anos antes da cirurgia, porém nesse momento poderia apenas ser reacional a necrose pulpar dessas unidades, pois evidenciou-se somente

o aumento de tamanho da lesão nos dois últimos anos antes do momento da cirurgia.

Na literatura, não há um consenso em relação à predileção por idade e sexo devido a poucos casos relatados na literatura de COG. O COG acomete pacientes de uma ampla faixa etária, com maior prevalência na quinta e sextas décadas de vida, não havendo predileção pelo sexo<sup>3</sup>, sendo que alguns autores afirmam que o sexo masculino é ligeiramente mais acometido que o feminino<sup>2,3</sup>. No caso relatado, o paciente era do sexo masculino, porém sua idade de 22 anos difere da faixa etária mais acometida pelo COG.

Quanto à localização, pode acometer tanto a mandíbula quanto a maxila, com uma predileção pela mandíbula<sup>3</sup>. Os autores são unânimes ao afirmar que a região anterior é a mais afetada<sup>2,3</sup>. Entretanto, a lesão descrita neste caso não apresentava uma localização comum, sendo localizada na região posterior de mandíbula, associada à região periapical dos dentes 37 e 36.

Clinicamente, caracteriza-se por ser uma lesão benigna, de crescimento lento, porém agressiva e com alta taxa de recidiva. As lesões menores geralmente são assintomáticas, sendo descobertas através de exames radiográficos de rotina, enquanto as maiores podem causar tumefação óssea e sintomatologia dolorosa<sup>2,3</sup>. O paciente não apresentava dor nem abaulamento da cortical na região afetada, porém havia mobilidade dentária nos elementos 37 e 36, próximos a lesão. É importante ressaltar que houve um aumento do tamanho da lesão quando foi realizada a comparação entre a radiografia do início do tratamento ortodôntico e o exame realizado no pré-operatório.

Não há relatos na literatura sobre a ocorrência de associação entre o COG e alterações de desenvolvimento dental como fusão dental e taurodontia como o relatado no caso descrito.

Radiograficamente, a lesão detectada apresentava imagem radiolúcida delimitada por uma cortical radiopaca, associada à região periapical do 37 e 36. Devido à proximidade da lesão com a região periapical dos dentes citados, nos quais havia sido realizado pulpectomia, sugeriu-se inicialmente o diagnóstico de cisto radicular. Os dados da literatura revelam que as características radiográficas do COG não são específicas, apresentando uma imagem radiolúcida unilocular ou multilocular, com bordas bem definidas e escleróticas, e por vezes, podem ser mal-definidas<sup>3</sup>. A associação com elemento incluso pode ser observada em alguns casos, mimetizando um cisto dentígero ou folículo hiperplásico. A reabsorção de raízes de dentes

adjacentes, assim como expansão óssea, erosão e perfuração de cortical podem ser observadas<sup>1</sup>.

Os aspectos histopatológicos exibidos pelo COG são a presença de uma cavidade cística revestida por epitélio pavimentoso estratificado de espessura variada, com células epiteliais da superfície cúbicas ou colunares, podendo ser ciliadas ou não, com a superfície papilar, por vezes, irregular. A presença de placas ou nódulos esféricos de células epiteliais pode ser evidenciada, semelhantes aos exibidos no cisto periodontal lateral. Observa-se ainda a presença de células mucosas em quantidade variável e espaços semelhantes a ductos ou microcistos limitados por células cúbicas no epitélio. Esses espaços no epitélio contêm material mucoso no seu interior com afinidade por mucicarmim e pela coloração ácido periódico-Schiff (PAS). A interface epitélio-conjuntivo é plana e a cápsula fibrosa geralmente não apresenta infiltrado inflamatório<sup>2,8,9</sup>. O presente caso apresentou as características histológicas do COG.

Em relação ao diagnóstico diferencial, devem-se considerar as lesões radiolúcidas dos maxilares, entre elas, o cisto periodontal lateral e sua variante multicística, o cisto odontogênico botrióide, além do carcinoma mucoepidermóide central de baixo grau, do ameloblastoma, entre outras<sup>8</sup>. Quando envolve a coroa de um elemento incluso, o cisto dentígero também deve ser considerado<sup>1</sup>. No caso relatado foi considerado o diagnóstico de cisto radicular devido a necrose pulpar das unidades associadas a lesão e pelas características clínicas e radiográficas.

O cisto odontogênico botrióide e o carcinoma mucoepidermóide central de baixo grau possuem características histológicas semelhantes ao COG<sup>9</sup>. Porém, o cisto odontogênico botrióide não possui células ciliadas, mucosas e espaços císticos com mucina<sup>8</sup>. Já a distinção entre o carcinoma mucoepidermóide central e o COG é mais difícil, entretanto, placa de células epiteliais, células ciliadas, estruturas semelhantes a ductos e microcistos intraepiteliais não são comuns no carcinoma mucoepidermóide<sup>10</sup>.

Pires *et al.*<sup>9</sup>, na tentativa de diferenciar o COG do carcinoma mucoepidermóide central, identificaram o perfil das citoqueratinas (CK's) expressas nessas duas entidades, através da técnica imuno-histoquímica. Os autores verificaram que havia diferença na expressão das CK's 18 e 19, sendo a CK 18 predominante no carcinoma mucoepidermóide e a CK 19 no cisto odontogênico glandular. Conclui-se que as duas lesões são entidades distintas e que a expressão das CK's 18 e 19 pode ser útil no diagnóstico diferencial.

Nos trabalhos realizados por Sousa *et al.*<sup>8</sup> e Mascitti *et al.*<sup>10</sup>, a expressão das CK's 8 e 18 no COG foi negativa e evidenciaram uma forte positividade em todas as camadas do epitélio do COG para CK 19. Esse achado é importante, pois pode ser uma forma de diferenciar esse cisto do carcinoma mucoepidermóide central, uma vez que o último apresenta imunopositividade para as CK 8 e 18 nas células mucosas e intermediárias.

Em relação ao tratamento a ser estabelecido no COG, há terapias conservadoras e radicais. O tratamento conservador, que inclui enucleação, curetagem e crioterapia, está associado a uma alta taxa de recidiva, de aproximadamente 25%. Isso ocorre possivelmente pela remoção incompleta da lesão, e em casos que, radiograficamente, apresentam uma imagem multiloculada com perfuração de cortical óssea. O tratamento radical, como a ressecção em bloco com ou sem crioterapia e a osteotomia periférica tem sido a terapia adotada pelos profissionais nas lesões que apresentam comportamento mais agressivo, são multiloculadas e apresentam grandes dimensões, sem relatos de recidiva após o tratamento<sup>6</sup>. No presente caso, como a suspeita clínica era de cisto radicular devido à associação com a região periapical do 37 e 36, realizou-se extração dos dentes envolvidos que tinham mobilidade, além de enucleação e curetagem da cavidade cística.

A taxa de recorrência da lesão foi relatada como sendo de 25% a 55%<sup>7</sup>. Sendo que a recidiva geralmente ocorre em um período de 6 meses a 7 anos, por isso, recomenda-se o acompanhamento do paciente a longo prazo<sup>7</sup>. Durante o acompanhamento clínico e radiográfico do paciente neste caso, no período de 2 anos, não havia sinais de recidiva da lesão.

## CONSIDERAÇÕES FINAIS

O diagnóstico diferencial de lesões císticas dos maxilares muitas vezes pode ser um exercício difícil devido à semelhança de características clínicas e radiográficas de lesões de comportamento biológico distintos. O artigo apresentado demonstrou um caso de COG que devido as suas características clínicas e radiográficas assemelhava-se a um cisto radicular em um paciente que apresentava alterações do desenvolvimento das unidades dentais, entretanto o laudo histopatológico foi crucial para diagnóstico acurado e terapêutica adequada.

## REFERÊNCIAS

1. Kaplan I, Anavi Y, Hirshberg A. Glandular odontogenic cyst: a challenge in diagnosis and treatment. *Oral Dis.* 2008; 14(7): 575-81.
2. Kasaboglu O, Basal Z, Usubütün A. Glandular odontogenic cyst presenting as a dentigerous cyst: a case report. *J Oral Maxillofac Surg* 2006; 64(4): 731-33.
3. Chrcanovic BR, & Gomez RS. Glandular odontogenic cyst: an updated analysis of 169 cases reported in the literature. *Oral Dis* 2018; 24(5): 717-24.
4. Siqueira EC, Sousa SF, França JA, Diniz, MG, Pereira, TDSF, Moreira, RG, et al. Targeted next-generation sequencing of glandular odontogenic cyst: a preliminary study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2017; 124(5): 490-94.
5. Gurler G, Al-Ghamian H, Aksakalli N, Delilbasi C. Glandular odontogenic cyst: Case series. *Contemp Clin Dent* 2017;8(4):653-57.
6. França GM, Freitas CTS, Almeida LF, Moreira LC, Gomes PP, & Galvão HC. Glandular odontogenic cyst: report of an unusual case in the posterior mandible. *Jornal Brasileiro de Patologia e Medicina Laboratorial* 2020; 55: 683-92.
7. Uzun, T, Bozkurt M, Duran BC, Imamoglu EH, & Toptas, O. Glandular Odontogenic Cyst. *Journal of the College of Physicians and Surgeons--pakistan: JCPSP* 2020; 30(1):104-105.
8. Sousa SOM, Cabezas NT, Oliveira PT, Araújo VC. Glandular odontogenic cyst. Report of a case with Cytokeratin expression. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1997; 83(4): 478-83.
9. Pires FR, Chen S, Perez DEC, Almeida OP, Kowalski LP. Cytokeratin expression in central mucoepidermóide carcinoma and glandular odontogenic cyst. *Oral Oncol* 2004; 40(5): 545-51.
10. Mascitti M, Santarelli A, Sabatucci A, Procaccini M, Muzio LL, Zizzi A et al. Glandular odontogenic cyst: review of literature and report of a new case with cytokeratin-19 expression. *Open Dent. J.* 2014;8:1.