

# Tratamento cirúrgico de extenso cisto odontogênico glandular: considerações clínico-cirúrgicas

## *Surgical treatment of an extensive glandular odontogenic cyst: a case report*

Patrício José de Oliveira Neto<sup>I</sup>  
Rafael Linard Avelar<sup>I</sup>  
Emanuel Sávio de Souza Andrade<sup>II</sup>  
Ronaldo de Carvalho Raimundo<sup>III</sup>  
Ana Cláudia Amorim Gomes<sup>II</sup>  
José Rodrigues Laureano Filho<sup>II</sup>

Recebido em 02/03/2009  
Aprovado em 07/04/2009

### RESUMO

O Cisto Odontogênico Glandular (COG) é um cisto raro que foi descrito inicialmente por PAdayache e Van Wyk em 1987, sob o termo cisto "sialo-odontogênico". Entretanto, seu nome foi alterado para Cisto Odontogênico Glandular por Gardner et al. em 1988, em virtude da falta de evidência de sua possível origem glandular e para enfatizar a derivação odontogênica desse cisto. Esse termo foi posteriormente adotado pela Organização Mundial de Saúde. Clinicamente, um aumento de volume de crescimento lento e assintomático é observado frequentemente, na região anterior de mandíbula (85%), e uma leve predileção para os homens pode ser vista. Radiograficamente, esses cistos podem ser uniloculares ou multiloculares com uma borda bem definida, e, embora nenhuma das características clínicas ou radiográficas do COG seja única ou patognomônica, a lesão tem um comportamento potencialmente agressivo. Na literatura, recomendações para o tratamento dessa entidade têm sido esporádicas e não baseadas em evidências. Este artigo tem o objetivo de relatar o caso de um paciente do sexo masculino, leucoderma, 33 anos de idade, que procurou o departamento de Cirurgia Buco-Maxilo-Facial da Faculdade de Odontologia de Pernambuco devido a um aumento de volume na região anterior de mandíbula, com dois anos de evolução. Uma biópsia incisional foi realizada, e, após o diagnóstico histológico de COG, procedeu-se ao tratamento cirúrgico da lesão por meio de osteotomia periférica. Atualmente, o paciente está em controle pós-operatório de dois anos e meio, sem recorrência da lesão.

**Descritores:** Cistos Odontogênicos/cirurgia. Neoplasias Mandibulares. Doenças Mandibulares. Tomografia.

### ABSTRACT

Glandular Odontogenic Cyst (COG) is a rare odontogenic cyst that was first described by Padayachee and Van Wyk in 1987 under the term "sialo-odontogenic cyst". However, its name was changed to Glandular Odontogenic Cyst by Gardner et al in 1988 because of the lack of evidence of salivary gland origin and to emphasize the odontogenic derivation of this cyst. The term was later adopted by the World Health Organization. Clinically, an asymptomatic slow-growing swelling is observed frequently in the anterior region of the mandible (85%), and a slight predilection for men can be seen, with a female-to-male ratio of 19:28. Radiologically, these cysts may be unilocular or multilocular with a well-defined border, and although none of the clinical or radiographic features of GOC are unique or pathognomonic, the lesion has a potentially aggressive behavior. Recommendations for treatment in the literature have been sporadic and are not supported by evidence-based data. This paper aims to report the case of a male, leucoderma, 33 years old, who sought the department of Maxillofacial Surgery due to painless swelling in anterior region of the mandible with two years of evolution. Incisional biop-

<sup>I</sup> Especialista em Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial. Faculdade de Odontologia de Pernambuco. Universidade de Pernambuco.

<sup>II</sup> Professor Adjunto Doutor. Faculdade de Odontologia de Pernambuco. Universidade de Pernambuco.

<sup>III</sup> Professor Assistente. Faculdade de Odontologia de Pernambuco. Universidade de Pernambuco.

sy was performed, and after the histological diagnosis of COG, proceeded to the surgical treatment of lesion through peripheral osteotomy. Currently, the patient is in postoperative control of two and half years, without recurrence of the lesion.

**Keywords:** Odontogenic Cysts/surgery. Mandibular Neoplasms. Mandibular Diseases. Tomography.

## INTRODUÇÃO

Cisto odontogênico glandular (COG) é um raro cisto dos maxilares, que foi originalmente descrito em 1987 por Padayache e Van Wyk. Relataram dois cistos mandibulares multiloculares que eram semelhantes aos cistos odontogênicos botrioides, embora com um elemento glandular no seu revestimento epitelial. Naquele momento então, propuseram o termo "cisto sialo-odontogênico", atribuindo sua possível etiologia a glândulas salivares<sup>1-6</sup>. As características histológicas que apoiaram essa escolha de terminologia foram material mucinoso dentro dos espaços císticos e espessamentos epiteliais semelhantes a placas no revestimento cístico<sup>7</sup>. Em 1988, Gardner et al.<sup>8</sup> relataram oito casos adicionais, envolvendo tanto a maxila como a mandíbula, com características histopatológicas semelhantes e introduziram o termo cisto odontogênico glandular para enfatizar a derivação odontogênica deste cisto<sup>3,7,9</sup>. De acordo com Gardner et al.<sup>8</sup>, o termo cisto sialo-odontogênico é inadequado e deve ser abandonado, porque a presença de células mucosas não implica uma histogênese glandular salivar<sup>8,10</sup>. Desta forma, a Organização Mundial da Saúde (OMS), em 1992, adotou o termo COG e aceitou-a como uma entidade patológica distinta, classificando-a como um cisto odontogênico de desenvolvimento, uma vez que a possível origem glandular salivar desses cistos não foi estabelecida, e as características histológicas eram altamente indicativas de uma origem odontogênica<sup>2-5,7,11,12</sup>. Segundo a OMS, o COG é definido como "um cisto que se origina nas áreas de suporte dental dos maxilas e caracterizado por um revestimento epitelial com células colunares ou cuboidais, tanto na superfície como no seu revestimento, com criptas ou espaços semelhantes a cistos dentro da espessura do epitélio"<sup>13</sup>.

O objetivo do presente trabalho é o de descrever

um novo caso de COG, além de discutir as suas características clinicopatológicas que determinaram a modalidade de tratamento escolhida para esta lesão, agregando mais conhecimento sobre essa rara entidade.

## RELATO DE CASO

Paciente de 35 anos de idade, leucoderma, se apresentou-se em maio de 2006, à Universidade de Pernambuco, Faculdade de Odontologia, Departamento de Cirurgia Maxilofacial, queixando-se de apinhamento e mobilidade dos seus dentes na região de 42 - 43, além de abaulamento indolor na mandíbula anterior, presente há dois anos.

A história médica do paciente não foi significativa. Ele negou qualquer história de trauma na referida área e também negou uso de tabaco e/ou álcool.

Clinicamente, um aumento de volume se estendendo desde a linha média até o lado direito da mandíbula foi observado, resultando em uma assimetria no lado direito da face do paciente. O exame intrabucal revelou uma grande expansão vestibular, envolvendo desde o canino esquerdo até o primeiro molar do lado oposto, com a profundidade do vestibulo totalmente perdida e com leve expansão lingual. A lesão estava coberta por uma mucosa eritematosa e intacta, não havendo sinais de infecção no local (Figuras 1A e 1B). Todos os dentes envolvidos na área do inchaço não mostraram qualquer sinal de cárie e reagiram positivamente ao teste sensibilidade, embora de maneira bem leve. À palpação da lesão, o paciente relatou leve desconforto, tendo sido observada uma consistência papirácea em algumas regiões e sinais de flutuação em outras, sugerindo uma grande erosão da tábua vestibular com perfuração em áreas focais. O exame radiográfico panorâmico mostrou uma grande radiolucência unilocular bem

circunscrita, estendendo-se por meio das áreas de suporte dental desde o canino mandibular do lado esquerdo até o primeiro molar do lado direito, entre as raízes dos dentes 42 e 43, provocando ligeiro deslocamento radicular, e de 5 milímetros subjacente à margem alveolar até a cortical basal mandibular, produzindo um afinamento dessa cortical. Não foi constatado reabsorção radicular dos dentes envolvidos. Um filme oclusal claramente mostrou a expansão e erosão das corticais lingual e vestibular, resultando em um afinamento destas placas ósseas (Figuras 1C e 1D).

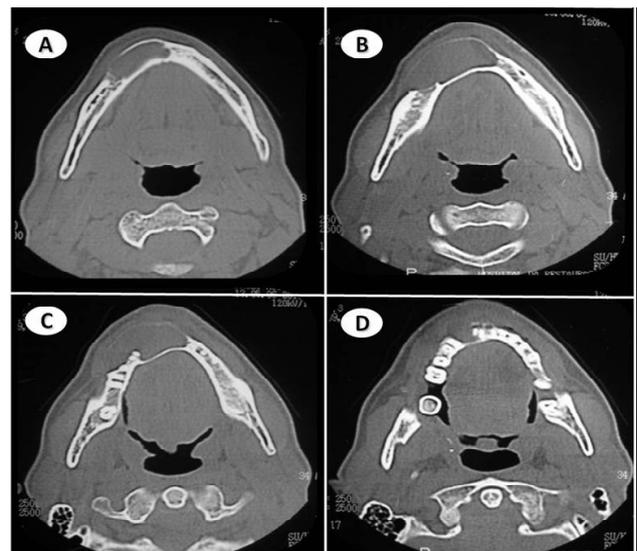
Uma biópsia incisional foi realizada. Aspiração produziu quantidade abundante de líquido claro, inodoro, de baixa viscosidade e, neste momento, percebemos uma deiscência focal do osso com o colapso da mucosa. Um retalho triangular de espessura total foi rebatido, evidenciando uma cortical óssea bastante fina, cobrindo a lesão. O osso cortical estava realmente perfurado em alguns locais. Fragmentos de tecidos moles e duros foram excisados e submetidos para diagnóstico histopatológico. O exame histológico mostrou uma cavidade cística única, revestida por epitélio escamoso estratificado que continha estruturas semelhantes a ductos preenchidos por muco no seu interior. Esta lesão foi diagnosticada como cisto odontogênico glandular.



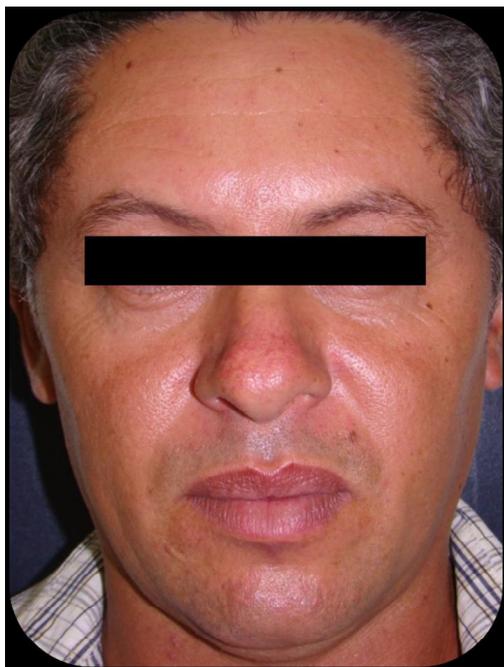
**Figura 1A:** Aumento de volume se estendendo da linha média para o lado direito da mandíbula, produzindo assimetria no lado direito da face do paciente. **1B:** Exame intrabucal revela uma grande expansão vestibular desde o canino esquerdo até o primeiro molar direito. **1C:** Exame radiográfico panorâmico mostrando uma grande radiolucência unilocular bem circunscrita. **1D:** Filme oclusal claramente mostrando a expansão e erosão das corticais lingual e vestibular.

Um exame tomográfico foi realizado para se obter um melhor detalhamento e delimitação da lesão. Os cortes axiais mostraram uma grande lesão hipodensa, unilocular e bem definida, estendendo-se desde o primeiro molar direito até o canino mandibular esquerdo. Expansão óssea das corticais lingual e bucal, com afinamento, perfurações focais e extensão da lesão para os tecidos moles bucais foi observada (Figura 2). Sob anestesia geral, o paciente foi submetido a uma excisão completa da lesão cística, com osteotomia periférica. Durante o procedimento cirúrgico, o cirurgião observou uma cortical óssea vestibular extremamente fina com uma grande perfuração. A lesão se estendia por meio das áreas de suporte dental desde o canino mandibular do lado esquerdo até o primeiro molar direito, insinuando-se entre as raízes dos dentes mandibulares anteriores. A peça cirúrgica foi enviada ao Departamento de Patologia Oral da Faculdade de Odontologia da Universidade de Pernambuco, Recife, Brasil, para análise histopatológica. A ferida foi fechada primariamente, e a cicatrização ocorreu sem qualquer inconveniente. O exame histológico da peça cirúrgica confirmou o diagnóstico de COG.

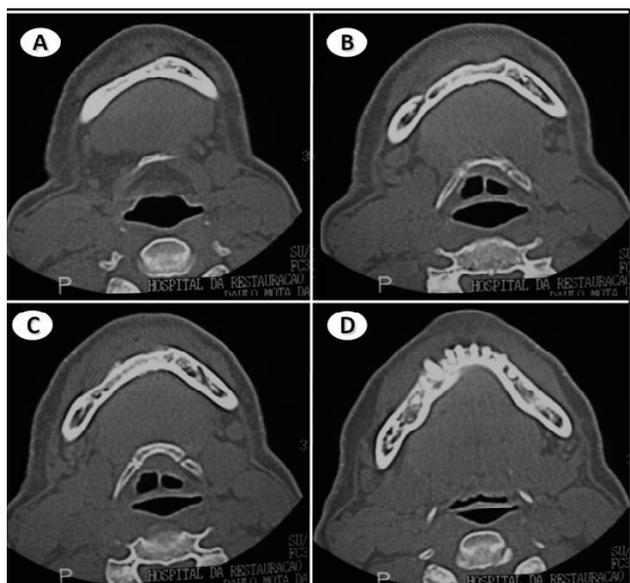
Atualmente, o paciente está em acompanhamento, sem sinais de recorrência da lesão, (Figura 3) e com completo preenchimento do defeito ósseo após dois anos e meio de cirurgia. (Figura 4).



**Figura 2:** Cortes axiais mostrando grande lesão hipodensa, unilocular e bem definida, estendendo-se desde o primeiro molar do lado direito até canino do lado esquerdo. Expansão óssea das corticais lingual e vestibular pode ser observada.



**Figura 3:** Vista frontal do paciente dois anos e meio após cirurgia, mostrando completa resolução de assimetria e aumento de volume.



**Figura 4:** Cortes axiais mostrando completo preenchimento ósseo do defeito após dois anos e meio de cirurgia.

## DISCUSSÃO

O COG ocorre em uma ampla faixa etária, com uma média de idade de 49 anos, e uma ligeira predileção para os homens<sup>5,11,12,14-6</sup>. A apresentação clínica mais comum é a presença de um aumento de volume na face de crescimento lento e assintomático<sup>2,5,14,15</sup>, muitas vezes observado na região anterior de mandíbula<sup>2,5,6,</sup>

<sup>11,12,14,16,17</sup>, tal como se verificou no caso relatado. Radiograficamente, essa entidade pode aparecer como uma lesão radiolúcida uni ou multilocular em ambos os maxilares, com bordas escleróticas bem definidas em algumas situações ou mal definidas em outras, quase sempre atingindo grandes dimensões<sup>2,5,6,12,14</sup>. Os dentes adjacentes geralmente respondem positivamente ao teste vitalidade, mas a inclinação dos dentes pode ser percebida<sup>5</sup>. Expansão e adelgaçamento das placas corticais podem ser observados em filmes oclusais, por vezes, com perfurações também sendo notadas eventualmente. Essas características foram observadas no presente relato de caso. Embora o COG não apresente características clínicas ou radiográficas patognomônicas, a lesão tem um comportamento potencialmente agressivo<sup>2,6,11</sup>, com uma alta taxa de recorrência. Por esse motivo, o COG tem ganhado uma atenção especial por cirurgiões e patologistas nos últimos anos, com vários relatos de casos, tendo sido encontrados na literatura recente. Histopatologicamente, o caso apresentado preenche os critérios propostos por Gardner et al.<sup>8</sup> e da OMS para o COG, incluindo uma cavidade cística revestida por epitélio escamoso estratificado, não-queratinizado, variando em espessura, com espessamentos focais desse epitélio semelhantes a placas, presença de variável número de células secretoras de muco na camada superficial do epitélio, presença de células ciliadas e espaços semelhantes a ductos, contendo material mucoso, presença de múltiplos cistos e ausência de inflamação. Como se pode ver, algumas dessas características são compartilhadas pelo carcinoma central mucoepidermoide de baixo grau (MEC) dos maxilares. No entanto, devido a aspectos clinicoradiográficos do presente caso, à abundante quantidade de líquido observado durante a aspiração e aos achados histopatológicos, pudemos fazer a distinção entre estas duas entidades.

Na maior série de casos relatados, Sittitavorwong et al.<sup>6</sup>, em 2006, revisaram as características clinicopatológicas de 64 casos de COG e encontraram que

a lesão tipicamente afetava pacientes mais idosos com uma média de idade de 49,4 anos (a idade dos pacientes variou de 11 a 90 anos). Nenhuma significativa predileção por gênero foi encontrada, apenas uma ligeira predominância dos homens (33 = 51,6%) em relação às mulheres (31 = 48,4%). Esta séria é contrastada pelo estudo de Koppang et al.<sup>4</sup>, no qual o COG foi encontrado mais frequentemente em mulheres (proporção de 3 para 2). Na análise de Sittitavorwong et al., treze casos (20,3%) ocorreram na maxila com a grande maioria destes (11 casos - 84,6%) encontrados na porção anterior. O restante das lesões (51 casos - 79,7%) envolveram a mandíbula, com 33 desses casos ocorrendo simultaneamente na porção anterior e posterior mandibular, cruzando a linha média. Isto está em oposição aos dados relatados por Qin et al.<sup>15</sup> em uma revisão de 14 casos, em que eles encontraram a maxila sendo afetada em 64% dos pacientes.

Na literatura, recomendações de tratamento para o COG são inconsistentes e não são baseadas em evidências, variando de pequenos procedimentos, como enucleação e curetagem, a grandes cirurgias, como ressecção marginal, osteotomia periférica e ressecção parcial do maxilar. Taxas de recorrência parecem estar correlacionadas com a modalidade terapêutica utilizada, variando de 29% para 55%, e métodos conservadores, como enucleação e curetagem, têm sido comumente associados à recorrência da doença<sup>2,14</sup>. Hussain et al.<sup>18</sup> sugeriram excisão local em bloco com reconstrução primária, tendo em vista a alta taxa de recorrência associada com o tratamento conservador desses cistos e o seu potencial invasivo. Para a escolha do melhor tratamento, Kaplan et al.<sup>11</sup>, em uma revisão de 56 casos, sugeriram que algumas características desta lesão precisam ser consideradas e avaliadas de forma que assim se possa escolher a técnica cirúrgica mais adequada para cada caso, diminuindo a propensão para recorrência. Dessa forma, adelgaçamento e perfuração de corticais devem ser reconhecidos e considerados, quando se planejando o tratamento, e

modalidades apropriadas de imagens (como radiografia oclusal e tomografia computadorizada) devem ser realizadas para avaliar essas características, uma vez que são indicadores de agressividade. Multilocularidade também é um bom indicador de recorrência. O tamanho da lesão, porém, não é um bom indicador. Segundo esses autores, grandes lesões devem ser biopsiadas para estabelecer o diagnóstico antes do tratamento definitivo. Para grandes lesões multiloculares de maior risco, modalidades de tratamento mais agressivas são indicadas (osteotomia periférica, ressecção marginal ou ressecção parcial do maxilar envolvido), dependendo do tamanho da lesão, integridade das corticais do maxilar envolvido e proximidade da lesão a estruturas vitais, sendo a osteotomia periférica, em conjugação com a enucleação, realizada sempre que possível.

Neste caso, o tratamento foi uma cuidadosa e completa enucleação seguida de osteotomia periférica, devido ao afinamento e comprometimento da integridade das corticais. Embora não tenha havido nenhum sinal de recidiva após dois anos e meio de cirurgia, é imperativo que o paciente seja acompanhado por um longo tempo. Esse acompanhamento deverá continuar até sete anos, uma vez que existem relatos de recidiva após este período pós-operatório, principalmente nos casos com características associadas com maior risco, como neste caso apresentado. É importante que novos casos sejam documentados cuidadosamente e acompanhados clínica e tomograficamente, de forma que conclusões mais precisas possam ser obtidas em relação à melhor forma de tratamento.

## CONSIDERAÇÕES FINAIS

Neste caso, o tratamento foi uma cuidadosa e completa enucleação seguida de osteotomia periférica devido ao afinamento e comprometimento da integridade das corticais. Embora não tenha havido nenhum sinal de recidiva após dois anos e meio de cirurgia, é imperativo que o paciente seja acompanhado de um

longo tempo. Esse acompanhamento deverá continuar até sete anos, uma vez que existem relatos de recidiva após esse período pós-operatório, principalmente nos casos com características associadas com maior risco, como neste caso apresentado. É importante que novos casos sejam documentados cuidadosamente e acompanhados clínica e tomograficamente, de forma que conclusões mais precisas possam ser obtidas em relação à melhor forma de tratamento.

## REFERÊNCIAS

1. Padayachee A, Van Wyk CW. Two cystic lesions with features of both the botryoid odontogenic cyst and the central mucoepidermoid tumour: sialo-odontogenic cyst? *J Oral Pathol.* 1987 Nov;16(10):499-504.
2. Shen, J, Fan M, Chen X, Wang S, Wang L, Li Y. Glandular odontogenic cyst in China: report of 12 cases and immunohistochemical study. *J Oral Pathol Med.* 2006 Mar;35(3):175-82.
3. Manor R, Anavi Y, Kaplan I, Calderon S. Radiological features of glandular odontogenic cyst. *Dentomaxillofac Radiol.* 2003 Mar;32(2):73-9.
4. Kopang HS, Johannessen S, Haugen LK, Haanaes HR, Solheim T, Donath K. Glandular odontogenic cyst (sialo-odontogenic-cyst): report of two cases and literature review of 45 previously reported cases. *J Oral Pathol Med.* 1998 Oct;27(9):455-62 .
5. Chung G, Han W, Kim E. A huge glandular odontogenic cyst occurring at posterior mandible. *Korean Journal of Oral and Maxillofacial Radiology.* 2004; 34:209-13.
6. Sittitavornwong S, Koehler JR, Said-Al-Naief N. Glandular odontogenic cyst of the anterior maxilla: case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 2006 Apr;64(4):740-5.
7. Noffke C, Raubenheimer EJ. The glandular odontogenic cyst: clinical and radiological features; review of the literature and report of nine cases. *Dentomaxillofac Radiol.* 2002 Nov;31(6):333-8.
8. Gardner DG, Kessler HP, Morency R, Schaffner DL. The glandular odontogenic cyst: an apparent entity. *J Oral Pathol.* 1988 Sep;17(8):359-66.
9. Manojlović S, Grgurević J, Knezević G, Kruslin B. Glandular odontogenic cyst: a case report and clinicopathologic analysis of the relationship to central mucoepidermoid carcinoma. *Head Neck.* 1997 May;19(3):227-31.
10. de Carvalho YR, Kimaid A, Cabral LA, Nogueira Tde O. The glandular odontogenic cyst: a case report. *Quintessence Int.* 1994 May;25(5):351-4.
11. Kaplan I, Gal G, Anavi Y, Manor R, Calderon S. Glandular odontogenic cyst: treatment and recurrence. *J Oral Maxillofac Surg.* 2005 Apr;63(4):435-41.
12. Tran PT, Cunningham CJ, Baughman RA. Glandular odontogenic cyst. *J Endod.* 2004 Mar;30(3):182-4.
13. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. Histological typing of odontogenic tumours. WHO International Histological Classification. 2, 1992.
14. 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; 64:1121-8.
15. Qin XN, Li JR, Chen XM, Long X. The glandular odontogenic cyst: clinicopathologic features and treatment of 14 cases. *J Oral Maxillofac Surg.* 2005 May;63(5):694-9.
16. de Sousa SO, Cabezas NT, de Oliveira PT, de Araújo VC. Glandular odontogenic cyst: report of a case with cytokeratin expression. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1997 Apr;83(4):478-83.
17. Economopoulou P, Patrikiou A. Glandular odontogenic cyst of the maxilla: report of case. *J Oral Maxillofac Surg.* 1995 Jul;53(7):834-7.
18. Hussain K, Edmondson HD, Browne RM. Glandular Odontogenic cysts, diagnosis and treatment. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1995 May;79(5):593-602.
19. Pires FR, Chen SY, da Cruz Perez DE, de Almeida OP, Kowalski LP. Cytokeratin expression in central mucoepidermoid carcinoma and glandular odontogenic cyst. *Oral Oncol.* 2004 May;40(5):545-51.

20. Semba I, Kitano M, Mimura T, Sonoda S, Miyawaki A. Glandular odontogenic cyst: analysis of cytokeratin expression and clinicopathological features. J Oral Pathol Med. 1994 Sep;23(8):377-82.
21. Ide F, Shimoyama T, Horie N. Glandular odontogenic cyst with hyaline bodies: an unusual dentigerous presentation. J Oral Pathol Med. 1996 Aug;25(7):401-4.

**ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA**

Ana Cláudia Amorim Gomes  
Faculdade de Odontologia de Pernambuco  
Departamento de Cirurgia e Traumatologia BMF  
Av. General Newton Cavalcanti, 1650  
Camaragibe - PE - 54753-220 - Brasil  
E-mail - anacagomes@uol.com.br

