

# CISTO ODONTOGÊNICO CALCIFICANTE NA MAXILA POSTERIOR: UM RELATO DE CASO ATÍPICO COM ACOMPANHAMENTO DE DOIS ANOS

*Calcifying odontogenic cyst in the posterior maxilla:  
an atypical case report with two-year follow-up*

Leonardo de Lima Cavalcante<sup>1</sup>

Muhammad Y. Knaneh<sup>2</sup>

Ricardo Roberto de Souza Fonseca<sup>3</sup>

Wagner Hespanhol<sup>4</sup>

Maria Aparecida de Albuquerque Cavalcante<sup>5</sup>

<sup>1</sup>3º ano de Cirurgia e traumatologia Bucomaxilo Facial, Hospital Universitário Clementino Fraga Filho, Universidade Federal do Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, Brasil.

<sup>2</sup>3º ano de Cirurgia e traumatologia Bucomaxilo Facial, Hospital Universitário Clementino Fraga Filho, Universidade Federal do Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, Brasil.

<sup>3</sup>Mestre em Periodontia, Centro Universitário do Estado do Pará, Belém, Pará, Brasil.

<sup>4</sup>Doutor em Patologia Oral, Professor associado do Hospital Universitário Clementino Fraga Filho, Universidade Federal do Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, Brasil.

<sup>5</sup>Doutora em Patologia Oral, Professora emérita do Hospital Universitário Clementino Fraga Filho, Universidade Federal do Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, Brasil.

Recebido em: 07/03/2019

Aceito em: 28/05/2019

CAVALCANTE, Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.

## RESUMO

**Introdução:** o Cisto Odontogênico Calcificante (COC) é um cisto odontogênico raro e indolor, que causa destruição óssea medular e expansão óssea cortical, sendo relatado pela primeira vez por Gorlin, em 1962. **Objetivo:** neste artigo relatamos um caso de COC na região mais rara de sua aparição, que é a região posterior da maxila em

um jovem de apenas 15 anos. **Relato de Caso:** o paciente foi internado com um inchaço extra-oral, que cresceu lentamente durante os 8 meses anteriores; na cavidade bucal, também foi observado edema na região dos dentes 26, 27 e 28 e também acentuada mobilidade; radiograficamente, havia área radiolúcida unilocular com algumas áreas radiopacas (como uma casca alaranjada). Os achados histológicos observados incluem proliferação de células fantasmas e células basais colunares, semelhantes a ameloblastos e células com camadas superficiais frouxas. **Conclusão:** o paciente foi submetido à enucleação com curetagem de cisto como tratamento; devido a altas taxas de recorrência, o paciente teve um acompanhamento a cada três meses por um período de 2 anos, sem sinais de recidiva.

**Palavras-chave:** Cisto Odontogênico Calcificante. Patologia Oral. Cirurgia Oral.

## ABSTRACT

**Introduction:** *Calcifying Odontogenic Cyst (COC) is an uncommon and painless odontogenic cyst, that causes bone marrow destruction and cortical bone expansion. It was first reported by Gorlin, in 1962.*

**Objective:** *in this article, we report a case of COC in the rarest region of its appearance, which is the posterior region of the maxilla in a young man who is only 15 years old.* **Case Report:** *the patient was admitted with an extraoral swelling that grew slowly during the previous 8 months; in the oral cavity, edema was also observed in the region of the teeth 26, 27 and 28, and also marked mobility; radiographically, there was unilocular radiolucent area with some radiopaque areas (like an orange skin). The histological findings observed include proliferation of phantom cells, and columnar basal cells, similar to Ameloblasts and cells with loose superficial layers.*

**Conclusion:** *the patient underwent enucleation with cyst curettage as a treatment; due to high rates of recurrence the patient had a follow up every three months for a period of 2 years without signs of relapse.*

**Keywords:** *Calcifying Odontogenic Cyst. Oral Pathology. Oral Surgery.*

CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima et  
al. Cisto odontogênico  
calcificante na maxila  
posterior: um relato  
de caso atípico com  
acompanhamento de  
dois anos. *SALUSVITA*,  
Bauru, v. 38, n. 2,  
p. 409-421, 2019.

CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.

## INTRODUÇÃO

O Cisto de Gorlin, também conhecido como Cisto Odontogênico Calcificante (COC), foi descrito pela primeira vez por Gorlin em 1962; trata-se de uma lesão rara, de desenvolvimento, sabe-se que sua prevalência está em 2% de todas as alterações patológicas odontogênicas mandibulares e na maxila está em 0,3% na população mundial (GORLIN *et al.*, 1962; TARAKJI *et al.*, 2015).

Clinicamente, o COC manifesta-se como um tumor de crescimento lento, habitualmente indolor, apresentando maior incidência na região anterior de mandíbula e maxila. Geralmente, ocorre na região medular óssea.

Esta lesão é comum em adultos jovens, na faixa etária dos 30 anos de idade e, na literatura, não apresenta predileção por gênero (ZORNOSA; MÜLLER, 2010; FREGNANI *et al.*, 2003).

Radiograficamente, o cisto de Gorlin pode aparecer como uma lesão radiolúcida unilocular ou multilocular, com margens bem circunscritas ou mal definidas. Também pode ser observado em associação com dentes irrompidos. Além disso, é possível observar áreas radiopacas irregulares, devido às áreas de calcificação, à reabsorção de dentes adjacentes e à erosão do osso subjacente (OHATA *et al.*, 2018; GAMOH *et al.*, 2017).

Suas características histopatológicas incluem um revestimento epitelial constituído de células basais cuboidais ou colunares, semelhantes a ameloblastos e células das camadas mais superficiais frouxas, semelhantes ao retículo estrelado do órgão do esmalte. O cisto de Gorlin apresenta inúmeras células epiteliais sem núcleo, levemente eosinofílicas, denominadas células fantasmas (YUKIMORI *et al.*, 2017; EMAM *et al.*, 2017).

Demais características observadas incluem a calcificação das células fantasmas e a presença de dentina displásica, que pode estar localizada perto da camada basal do epitélio. Na literatura, como forma de tratamento para o cisto de Gorlin, recomenda-se a enucleação cirúrgica conservadora com curetagem, a fim de evitar as recorrências (EMAM *et al.*, 2017).

Este trabalho tem como objetivo descrever um caso atípico de cisto de Gorlin na região posterior de maxila.

## RELATO DE CASO

Paciente de 15 anos de idade, do sexo masculino, não fumante, sem alterações sistêmicas e sem histórico progresso de alergias, procurou o Hospital Universitário Clementino Fraga Filho na cidade do Rio de Janeiro, com a queixa principal de “aumento de volume da face e dentes moles” há cerca de 8 meses, tumefação na região posterior esquerda maxilar e dentes com mobilidade acentuada há cerca de 8 meses (FIGURA 1).



FIGURA 1 - foto inicial demonstrando edema hemi-facial.

O edema localizava-se na região vestibular e palatina, envolvendo a mucosa bucal na região dos molares superiores envolvidos na lesão. Durante o exame clínico, constatou-se a ausência de infecção dentária na região ou a presença de doença periodontal; A tumefação supracitada era nodular, séssil, de forma ovóide, com margens difusas, moles a firmes à palpação, indolores e de tamanho 8x8 cm, coberto por uma mucosa oral normal (FIGURA 2).

CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.

CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.



FIGURA 2: foto intraoral mostrando tumefação nodular, séssil e coberto por uma mucosa oral normal.

A fim de chegar a um diagnóstico, foi realizada uma punção aspirativa por agulha fina. A punção foi positiva, e obteve-se 3,5 ml de um fluido líquido levemente viscoso, com aspectos acastanhado para o marrom (FIGURA 3). Em seguida, foi realizada citologia esfoliativa, que evidenciou um infiltrado celular inflamatório crônico.



FIGURA 3: punção aspirativa demonstrando líquido viscoso marrom.

Através de uma radiografia panorâmica, observou-se uma imagem radiolúcida bem delimitada na região posterior esquerda de maxila, acometendo todos os molares. Uma tomografia computadorizada foi solicitada para avaliar melhor a lesão. Na imagem, observou-se lesão expansiva unilocular, elíptica, bem definida, com placas corticais e corpos radiopacos (FIGURA 4).



FIGURA 4 - panorâmica evidenciando imagem radiolúcida delimitada na região posterior esquerda da maxilla.

Frente aos dados coletados e características clínicas e radiográficas, foram aventados os possíveis diagnósticos sugestivos: Lesão Central de Células Gigantes, Ameloblastoma Unicístico, Tumor Odontogênico Adenomatóide ou Cisto de Gorlin.

Para realizar o exame histopatológico, foi realizada uma biópsia incisional com uma peça de 5 cm (FIGURA 5). Este material foi encaminhado ao laboratório de patologia oral e Maxilofacial da Universidade Federal do Rio de Janeiro (UFRJ). A análise revelou um epitélio cístico revestido por epitélio escarificado, acetinado, estratificado, com cápsula de tecido conjuntivo fibrovascular de espessura variável, com a presença de células semelhantes a ameloblastos, a um retículo estrelado células e exibiu glóbulos de estrutura eosinofílica sugestivos de células fantasmas, juntamente com várias áreas de fibras colágenas associadas à hialinização subepitelial (FIGURA 6). Com base nos achados clínicos, radiológicos e histopatológicos, o diagnóstico final foi Cisto Odontogênico Calcificante ou Cisto de Gorlin.

CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.



CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.

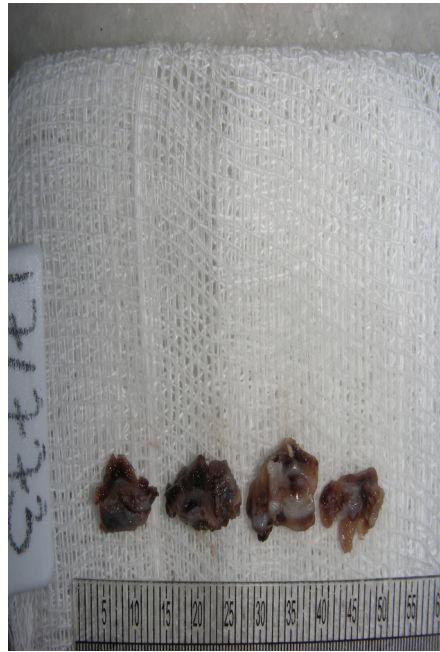


FIGURA 5 - peça pós biópsia incisional.

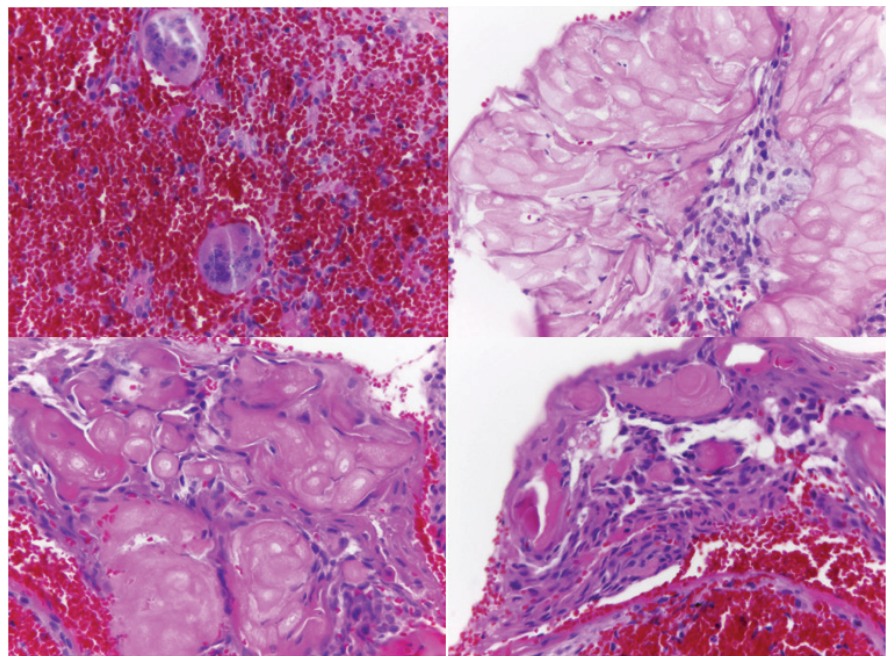


FIGURA 6 - exame histopatológico mostrando aspectos importantes para diagnóstico da lesão.

Como tratamento, foi proposta a enucleação com curetagem do cisto. O paciente logo foi encaminhado ao serviço de Cirurgia Oral e Maxilofacial do Hospital Universitário Clementino Fraga Filho, da UFRJ, onde a cirurgia foi realizada sob anestesia geral e o acesso

cirúrgico feito de forma intraoral, para evitar risco de lesões vasculonervosas e também cicatrizes extraorais extensas com comprometimento estético na face de um jovem adolescente.

Foi realizada uma incisão ampla em envelope, enucleação cística total, curetagem com cureta de Wolkman e sutura com fio reabsorvível vicryl 3.0 (FIGURA 7). Juntamente com a manobra cirúrgica, foi feita a exodontia dos elementos 26, 27 e 28, devido ao severo quadro de reabsorção óssea e inviabilidade de manutenção destes.

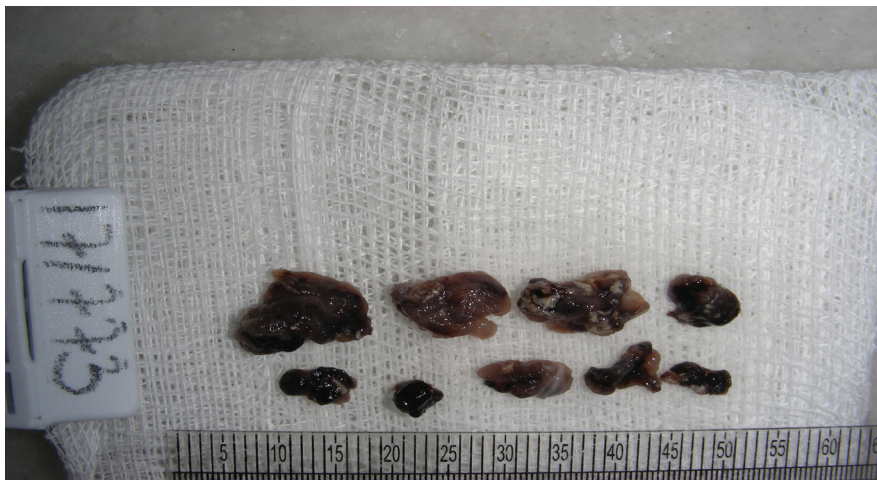


FIGURA 7 - enucleação cística total da lesão.

Posteriormente à cirurgia, o controle pós-operatório ocorreu através de consultas semanais e, depois de certo período, semestrais, para averiguar a região devido ao quadro de recidiva. Em cada consulta foram realizados exames clínicos e radiográficos (FIGURA 8). Após dois anos de acompanhamento, observou-se a estabilidade da região e a neoformação óssea sem quaisquer sinais de recidiva cística (FIGURA 9).



FIGURA 8 - imagem do acompanhamento pós-operatório de 3 meses.

CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.



CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.

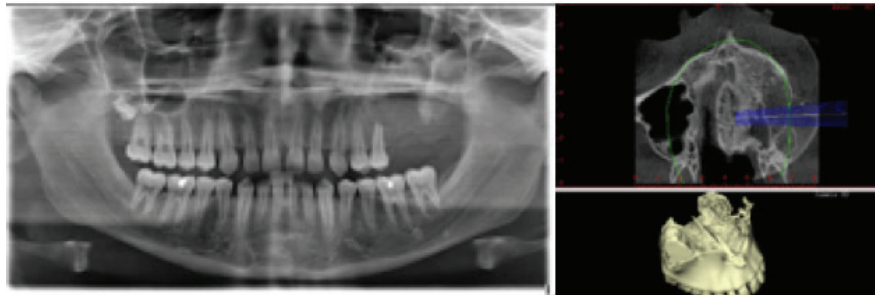


FIGURA 9 - Acompanhamento pós-operatório após 2 anos.

## DISCUSSÃO

O Cisto de Gorlin é uma lesão de origem odontogênica, que apresenta características histológicas, radiográficas e clínicas similares a diversos tumores e cistos, tais como: calcificante de Malherbe, tumor odontogênico epitelial calcificante, craniofaringioma, tumor odontogênico adenomatóide e ameloblastoma. Tais semelhanças dificultam muito seu diagnóstico, tornando necessária uma interpretação precisa entre os sinais e sintomas (SARODE *et al.*, 2017).

Na literatura, os autores demonstram que tal lesão é prevalente igualmente entre homens e mulheres; sendo sua incidência comum em adultos na faixa etária dos 33 anos. No caso relatado, o Cisto de Gorlin foi diagnosticado em um jovem adolescente de 15 anos, sendo tal condição bastante rara. O diagnóstico preciso foi graças à avaliação criteriosa dos autores quanto às características clínicas, histológicas e radiográficas, e a estudos de referências na literatura (WRIGHT; VERED, 2017; URS *et al.*, 2016).

O fato de o COC aparecer em um paciente adolescente deve ser levado em consideração; logo, a partir deste caso, os pacientes de pouca idade que apresentarem as mesmas características devem ter o diagnóstico sugestivo de COC levado em consideração. Outro ponto relevante neste caso é que o COC é comumente prevalente na região anterior, tanto da mandíbula quanto na maxila (URS *et al.*, 2016; DESAI *et al.*, 2015).

Segundo De Carvalhosa *et al.* (2014), o COC tem uma prevalência bem semelhante entre mandíbula e maxila, mas, como supracitado, este cisto tem suas aparições mais comuns na região anterior. Ainda de acordo com o autor mencionado previamente, a prevalência do COC na região posterior de maxila é sua aparição mais incomum, sendo apenas 2% do total de casos diagnosticados até o presente momento desta publicação.

No caso relatado, essa lesão inicialmente não teve o diagnóstico de COC: somente após a biópsia que o diagnóstico sugestivo inicial foi considerado. Sendo assim, o padrão mencionado na literatura de diagnóstico, devido à prevalência mais comum, deve ser ampliado para uma avaliação mais completa dos casos a fim de levar a diagnóstico preciso e tratamento adequado (URS *et al.*, 2016; DESAI *et al.*, 2015; DE CARVALHOSA *et al.*, 2014).

Outra abordagem diagnóstica diferenciada dos autores deste caso para a bibliografia usual é que, na literatura, os autores encontrados se limitam aos exames radiográficos bidimensionais para visualização das imagens. Contudo, como uma alternativa viável, foi utilizada a tomografia computadorizada e, através deste exame tridimensional, foi possível observar que havia reabsorção radicular dos dentes afetados, envolvimento do seio maxilar e fratura patológica em rebordo infraorbitário, porém bem posicionada (esta tratada conservadoramente). Além disso, houve destruição óssea extensa e expansão óssea cortical da maxila (CHINDASOMBATJAROEN; POOMSAWAT; BOONSIRISETH, 2014).

Através da revisão de literatura, foi possível concluir que o caso relatado acima não se desenvolveu como a maioria dos casos publicados. Vale ressaltar que o diagnóstico preciso se deu graças à presença de características histopatológicas essenciais, tais como células-fantasma e células odontogênicas epiteliais queratinizadas, que são sugestivas da presença do COC.

Após ter o diagnóstico definido, houve o planejamento do tratamento. Através da análise de literatura, foi possível notar que autores como Chindasombatjaroen *et al.* (2014) e Urs *et al.* (2016) relataram casos em que seus tratamentos tiveram um acesso cirúrgico extra oral. Contudo, a análise do caso deste artigo foi feita levando em consideração a pouca idade do paciente, as consequências de uma incisão extra oral e o trabalho de Desai *et al.* (2015). De acordo com Desai *et al.* (2015), o acesso cirúrgico extra oral em pacientes jovens pode ser muito agressivo e prejudicial ao desenvolvimento deste paciente. Sendo assim, optou-se pela cirurgia intraoral, que, mesmo com a dificuldade do acesso, obteve um excelente resultado.

Outro fator diferencial deste caso é o tempo de acompanhamento, pois, mesmo com diagnóstico e tratamento bem executados, sabe-se que o COC apresenta uma alta taxa de recidiva. Logo após a conclusão do tratamento, os autores procuraram realizar o acompanhamento do paciente e sua evolução pós-operatória. O plano de acompanhamento foi estabelecido em visitas semanais e, depois de certo período, trimestrais, com exames clínicos e radiográficos da região

CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.

CAVALCANTE, Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.

para prevenir uma possível recidiva (URS *et al.*, 2016; DESAI *et al.*, 2015; DE CARVALHOSA *et al.*, 2014).

## CONSIDERAÇÕES FINAIS

Neste trabalho, relatou-se um raro caso de Cisto Odontogênico Calcificante. Podemos destacar que sua aparição em uma região pouco usual e em um paciente com a metade da faixa etária comum a esta patologia nos evidencia que destacar suas características clínicas, radiográficas e histopatológicas são de fundamental importância para um diagnóstico preciso e precoce. Esta constatação serviria para evitar abordagens cirúrgicas radicais, bem como para preservar durante um tempo considerável, devido às altas recidivas.

## REFERÊNCIAS

- DE CARVALHOSA, A. A. et al. 10-year follow-up of calcifying odontogenic cyst in the periapical region of vital maxillary central incisor. **J Endod**, Chicago, v. 40, n. 10, p.1695-7, 2014.
- DESAI, R. S. et al. Calcifying cystic odontogenic tumor in a 5-year-old boy: a case report. **J Maxillofac Oral Surg**, Nova Delhi, v. 14, p. Suppl 1, p. 348-351, 2015.
- EMAM, H. A. et al. Tube Decompression for Staged Treatment of a Calcifying Odontogenic Cyst-A Case Report. **J Maxillofac Oral Surg**, Nova Delhi, v. 75, n. 9, p. 1915-1920, 2017.
- FREGNANI, E. R. et al. Calcifying odontogenic cyst: Clinicopathological features and immunohistochemical profile of 10 cases. **Journal of Oral Pathology & Medicine**, Oxford, v. 32, n. 3, p. 163–170, 2003.
- GAMOH, S. et al. Calcifying cystic odontogenic tumor accompanied by a dentigerous cyst: A case report. **Oncol Lett**, Atenas, v. 14, n. 5, p. 5785-5790, 2017.
- GORLIN, R. J. et al. The calcifying odontogenic cyst-a possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of Malherbe. An analysis of fifteen cases. **Oral Surg Oral Med Oral Pathol**, St Louis, v. 15, n. 10, p. 1235-1243, 1962.
- OHATA, Y. et al. A lesion categorized between ghost cell odontogenic carcinoma and dentinogenic ghost cell tumor with CTNNB1 mutation. **Pathol Int**, Carlton South, v.68, n.5, p.307-312, 2018.
- POOMSAWAT, S.; BOONSIRISETH, K. Two unique cases of calcifying cystic odontogenic tumor in the maxillary posterior region. **Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol**, St Louis, v. 118, n. 4, p. 497-504, 2014
- SARODE, G. S. et al. Calcifying Cystic Odontogenic Tumor in Radiologically Normal Dental Follicular Space of Mandibular Third Molars: Report of Two Cases. **Clin Pract**, Pavia, v. 9, n.7, p. 41-44, 2017.
- TARAKJI, B. et al. Malignant transformation of calcifying cystic odontogenic tumour - A review of literature. **Wspolczesna Onkologia**, Posnânia, v. 19, n. 3, p. 184–186, 2015.
- URS, A. B. et al. Calcifying ghost cell odontogenic tumor (CGCOT) with predominance of clear cells: a case report with important diag-

CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima et  
al. Cisto odontogênico  
calcificante na maxila  
posterior: um relato  
de caso atípico com  
acompanhamento de  
dois anos. *SALUSVITA*,  
Bauru, v. 38, n. 2,  
p. 409-421, 2019.



CAVALCANTE,  
Leonardo de Lima *et al.* Cisto odontogênico calcificante na maxila posterior: um relato de caso atípico com acompanhamento de dois anos. *SALUSVITA*, Bauru, v. 38, n. 2, p. 409-421, 2019.

nostic considerations. **Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol**, St Louis, v. 121, n.2, e32-37, 2016.

WRIGHT, J. M.; VERED, M. Update from the 4th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours: Odontogenic and Maxillofacial Bone Tumors. **Head & Neck Pathology**, Philadelphia, v. 11, n. 1, p. 68–77, 2017.

YUKIMORI, A. *et al.* Genetic basis of calcifying cystic odontogenic tumors. **PLoS One**, São Francisco, v. 28, n. 12, p. 180-224, 2017.

ZORNOSA, X.; MÜLLER, S. Calcifying Cystic Odontogenic Tumor. **Head & Neck Pathology**, Philadelphia, v. 4, n. 4, p. 292–294, 2010.

