

Zanon C, Cavalcanti MA, Hespanhol W. Cisto odontogênico glandular: uma condição patológica incomum – revisão de literatura. *ClipeOdonto*. 2016; 8(1):38-43.

Cisto odontogênico glandular: uma condição patológica incomum – revisão de literatura

Glandular odontogenic cyst: an unusual pathological condition -literature review

Caroline Zanon¹
Maria Aparecida Cavalcanti¹
Wagner Hespanhol¹

Correspondência: carolinefranco.cf@gmail.com
Submetido: 19/04/2016 Aceito: 17/06/2016

Resumo

O Cisto Odontogênico Glandular (COG) é um cisto incomum de origem odontogênica, importante clinicamente pela sua alta taxa de recorrência e pelo seu potencial de crescimento agressivo. O local mais comum para seu desenvolvimento é a região anterior de mandíbula, mostrando maior predisposição pelo gênero masculino na quinta década de vida. O tratamento varia de um tratamento conservador como a enucleação, até alternativas mais agressivas como as ressecções ósseas. O objetivo desse estudo é apresentar uma revisão de literatura sobre os COGs, que são entidades patológicas raras, e abordar as possíveis formas de tratamento para esse tipo de lesão.

Palavras-chave: Patologia Bucal; Doenças da Boca; Cistos Odontogênicos; Assistência Odontológica.

Abstract

A *glandular odontogenic cyst (GOC)* is an unusual cyst of odontogenic origin, which is clinically important because it has a high recurrence rate and an aggressive growth potential. The most common site of occurrence of GOC is the anterior region of the mandible, and it has a greater predisposition among men in the fifth decade of life. The treatment varies from a conservative approach, such as enucleation, to an aggressive one, such as segmental bone resection. The aim of this study is to present a literature review on GOC, which are rare pathological entities, and possible treatment approaches for GOC.

Key Words: Pathology; Oral, Mouth Diseases; Odontogenic Cysts; Dental Care.

¹ Universidade Federal do Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, RJ, Brasil.

Introdução

O Cisto Odontogênico Glandular é uma lesão rara de origem odontogênica, sendo relatado pela primeira vez na literatura por Padayachee e Van Wyk em 1987 [1]. Eles descreveram duas lesões que apresentavam características incomuns, nas quais os autores identificaram similaridades com os cistos odontogênicos botríóides, e estruturas similares a um material mucinoso. Por esse motivo, os autores propuseram o termo cisto “sialo – odontogênico” para essas condições, acreditando que seriam derivadas das estruturas glandulares [1]. Em 1988, Gardner *et al.* [2] descreveram outros oito casos e chamaram essas lesões de cistos odontogênicos glandulares, uma vez que consideraram que a estrutura de mucina que formava o epitélio cístico não possuía origem de glândulas salivares, e essa etiologia deveria ser atribuída na verdade a uma degeneração do epitélio odontogênico.

Esses cistos odontogênicos são clinicamente importantes porque possuem uma alta taxa de recorrência e um potencial de crescimento agressivo. Eles afetam usualmente a região anterior de mandíbula e aparecem como um aumento de volume assintomático [3,4]. Em alguns casos podem causar dor e eliminação de secreção purulenta. Os COGs podem ser assintomáticos e são descobertos por exames radiográficos de rotina [5,6]. Radiograficamente, o COG aparece como uma imagem radiolúcida bem definida uni ou multilocular. Muitos autores também relatam a identificação de perda da cortical e algumas vezes citam a presença de um elemento dentário impactado dentro da cavidade cística [4,7,8].

Esse cisto pode aparecer em qualquer idade, mas usualmente afeta adultos de meia idade, na faixa dos 50 anos, com predisposição pelo gênero masculino [9,10]. O tratamento para o COG é controverso, métodos conservadores e radicais têm sido propostos. Entretanto, a enucleação com curetagem periférica é a forma de tratamento mais citada na literatura [4,5,6]. Um longo acompanhamento do paciente é recomendado pela alta tendência à recidiva, e pelo prognóstico incerto dessa lesão [4].

O objetivo desse estudo foi apresentar uma revisão de literatura sobre Cisto Odontogênico Glandular, discutindo suas principais características clinicopatológicas.

Material e Métodos

A metodologia adotada para esta revisão bibliográfica consistiu em uma pesquisa de artigos científicos nos bancos de dados PubMed (<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/>), SciELO (<http://www.scielo.org>) e LILACS (<http://lilacs.bvsalud.org/>). Para a busca dos artigos foram utilizadas as palavras-chaves “Glandular odontogenic cyst”, “Sialo-odontogenic Cyst”, “Odontogenic Cysts”, “Reviews of literature” e “Treatment”. Os termos “Glandular odontogenic cyst”, “Sialo-odontogenic Cyst” e “Odontogenic Cysts” foram inseridos isoladamente ou em conjunto com o auxílio da palavra “AND” da seguinte forma nos referidos sites, “Glandular odontogenic cyst” AND “Odontogenic Cysts”, “Glandular odontogenic cyst” AND “Reviews of literature”, “Glandular odontogenic cyst” AND “Treatment”, “Sialo-odontogenic Cyst” AND “Odontogenic Cysts”, “Sialo-odontogenic Cyst” AND “Reviews of literature”, “Sialo-odontogenic Cyst” AND “Treatment”.

Os critérios de inclusão consistiram na limitação à língua portuguesa e inglesa, e aos últimos cinco anos de publicação, com exceção de artigos clássicos mais antigos. Foram feitas buscas por título, assunto, “abstract” e/ou resumo. Todos os tipos de estudo foram avaliados para serem incluídos neste trabalho, como revisões bibliográficas, relatos de casos únicos e em série, estudos descritivos, estudos quase-experimentais, estudos caso-controle, estudos de coorte, ensaios clínicos e revisões sistemáticas. Foram excluídos desta pesquisa, os estudos que abordavam os cistos odontogênicos em geral, cistos sem qualquer relação com a região da cabeça e pescoço e pesquisas que abordassem somente aspectos de expressões genéticas ligadas ao cisto glandular.

Revisão de Literatura

O Cisto Odontogênico Glandular é um cisto odontogênico incomum e sua frequência dentre todos os cistos dos maxilares é de 0.012% a 1.3% [5,11]. Ele foi classificado como cisto de desenvolvimento do epitélio odontogênico pela OMS em 1992 [12]. Na literatura, alguns autores sugerem que o trauma local poderia desencadear o aparecimento dessa entidade [12,13,15], que apresenta como localização preferencial de acometimento a região anterior de mandíbula, seguida pela região anterior de maxila [5,11,13,14]. Apesar da maioria dos estudos evidenciarem o cisto odontogênico glandular na região anterior de mandíbula, Lee *et al.* [15] identificaram essa condição na região posterior do corpo de mandíbula, afirmando que esta é uma rara área de ocorrência para esta entidade. Os estudos de Fowler *et al.* [16] também corroboram com esse trabalho, uma vez que eles reportaram somente dois casos de COG em região posterior de mandíbula dos 45 casos que foram estudados em seu trabalho [16].

Os trabalhos publicados na literatura estudada, em sua grande maioria, reportam uma maior incidência dos cistos odontogênicos glandulares em homens, com predileção pela quinta década de vida [5, 7, 10, 11,14]. Entretanto, numa análise de 46 casos dessa lesão, houve uma leve preferência pelo gênero feminino, e a maioria dos cistos foi diagnosticada na quinta, sexta e sétima décadas de vida [15]. Raju *et al.* [6] descreveram um caso de COG em uma paciente do gênero feminino de 65 anos, assim como outros autores [3,4,9,15] também relataram essa lesão em mulheres.

Pacientes diagnosticados com esse cisto odontogênico geralmente não apresentam dor, e a condição é usualmente descoberta através de uma radiografia de rotina [3,4,8]. O aumento de volume sem associação com qualquer sintomatologia costuma ser o sinal mais comum do desenvolvimento desses cistos [17]. Elementos dentários quando estiverem presentes na área acometida e se estiverem associados a esta condição, geralmente apresentam vitalidade pulpar [12]. Como por exemplo o caso relatado no estudo de Mascitti *et al.* [4], que não descreveram dor, assimetria facial ou aumento de volume na região da lesão no momento do seu diagnóstico [4].

Algumas vezes, especialmente em casos onde o COG é grande, essa lesão pode estar associada à dor, aumento de volume, drenagem de secreção purulenta e parestesia. Esses sintomas podem ser causados por compressão neurovascular e infecção secundária, entretanto, são sintomas incomuns [5, 10,18]. Nos relatos de Guruprasad *et al.* [8], Shah *et al.* [10], Tambawala *et al.* [7] e Raju *et al.* [6] a sintomatologia dolorosa foi relatada.

Os COGs não apresentam imagem panorâmica patognomônica, porque as características radiográficas não permitem diferenciar essa condição de outras condições patológicas. Geralmente, esta lesão aparece como uma imagem radiolúcida unilocular ou multilocular com bordas bem definidas [4,5,12]. Algumas vezes, elementos dentários inclusos e/ou impactados podem ser evidenciados nos exames radiográficos, aparecendo na cavidade cística, estando associados aos cistos. Quando existe a presença de elementos dentários erupcionados, durante a inspeção radiográfica, pode-se observar o afastamento ou a reabsorção radicular dos mesmos [4,5, 12,13,19].

Por causa das características clínicas e radiográficas serem inespecíficas, os cirurgiões dentistas devem considerar outras patologias como o tumor odontogênico ceratocístico, ameloblastoma, carcinoma mucoepidermóide, cisto epitelial lateral, cisto odontogênico botrióide, cisto ósseo simples, cisto dentífero e lesão central de células gigantes como possíveis diagnósticos diferenciais, sendo extremamente importante a análise histopatológica e investigação minuciosa de cada caso [4,5,12,13,20]. Por sua semelhança com o carcinoma mucoepidermóide, alguns autores consideram que a raridade dessa condição patológica é discutível, uma vez que poderia ser confundida com o baixo grau de diferenciação do carcinoma mucoepidermóide, sendo este erroneamente diagnosticado [14,21].

A punção aspirativa da cavidade cística antes da realização de procedimentos de biópsia também não apresenta aspectos específicos, sendo que diferentes características podem ser

observadas nesses fluidos dos COGs. Esse fato tende a dificultar a especificação do diagnóstico dos COGs, durante a aspiração. Os diferentes tipos de fluidos aspirados podem variar apresentando-se como líquidos claros com baixa viscosidade, líquidos cremosos de alta viscosidade, fluidos marrom-avermelhados, ou até mesmo apresentar resultado negativo para os procedimentos de punção aspirativa [22].

Histopatologicamente, os COGs se apresentam com uma grande variedade de características histológicas, e alguns autores sugeriram que essas características podem diferenciar esse cisto de outras lesões como o cisto periodontal lateral, cisto odontogênico botrióide e carcinoma mucoepidermoide [4,6,7,9]. Na literatura, muitos estudos sugeriram um critério diagnóstico para o COG baseado nas suas características microscópicas [6,7,23]. Esse critério diagnóstico baseia-se num critério diagnóstico maior e menor citado por Kaplan *et al.* em 2005 [23], que estabeleceram parâmetros para essa condição [6,7,16]. Esses parâmetros são: “Critério Maior: 1- epitélio escamoso sobre a interface da parede cística, 2- variações na espessura do revestimento do cisto com ou sem tecido epitelial em " esferas " ou proliferação luminal focal; não paliçadas, 3- células eosinofílicas cubóides, 4- células mucosas com acúmulo mucoso intra-epitelial com ou sem criptas revestidas por células produtoras de muco, 5- micro – cistos glandulares intraepiteliais ou estruturas similares a ductos. Critério Menor: 1- proliferação papilar, 2- células ciliadas, 3- multicistos ou arquitetura multi-luminal, 4- células vacuoladas” [23].

Na literatura, como método para auxiliar o diagnóstico, foi proposta a identificação de citoqueratinas (proteínas de queratina presentes no epitélio que vêm sendo amplamente utilizadas para identificação de tumores). Os COGs apresentam positividade para as citoqueratinas CK-18, CK-19 e Ki-67 presentes no epitélio dos cistos, diferente da expressão de um epitélio normal que apresenta expressão de CK-13 e CK-14. Essa entidade mostra também baixa positividade para a proteína p-53, fato que pode auxiliar na diferenciação desses cistos com carcinoma mucoepidermoide [24, 25].

As opções de tratamento para o COGs variam muito na literatura, e vão desde uma abordagem conservadora como enucleação e curetagem até ressecção segmentar [3,4,10]. A modalidade terapêutica irá se basear no comportamento biológico agressivo e na propensão a recorrência. Planos de tratamento devem ser, quando possível, individualizados para cada caso e paciente [26]. Tamanho, sítio da lesão e envolvimento de estruturas nobres irão determinar o tipo de tratamento que será utilizado [4, 10, 12].

Para pequenas lesões ou lesões uniloculares, a enucleação ou a curetagem estão indicadas; entretanto, esse tipo de terapia está associada a altas taxas de recidivas. Alguns autores acreditam que essa recorrência é explicada por alguns fatores, como a presença de micro cistos que podem permanecer no osso adjacente ao COG e também a remoção incompleta da parede cística [4, 5, 10, 27, 28]. Na literatura, o uso de solução de Carnoy após a enucleação, crioterapia e uso de nitrogênio líquido tem mostrado aumento da efetividade das medidas de tratamento, devendo ser usado como adjuvantes para potencializar a terapêutica [18, 29].

Em casos de grandes lesões ou lesões multiloculares, marsupialização seguida de cirurgia para preservar estruturas vitais próximas do cisto, enucleação associada à osteotomia periférica ou ressecção marginal são as terapias mais indicadas. Uma forma mais agressiva de tratamento é recomendada nesses casos, porque esse tipo de COG é mais propenso à recorrência do que as lesões menores [4,5,10].

Para prevenir recidivas, muitos autores sugerem que um acompanhamento deve ser realizado por um período mínimo de três a sete anos. Tal fato é justificado pelo agressivo comportamento biológico do COG [4,6,10]. As taxas de recorrência aumentam de acordo com o sítio e tamanho da lesão. COG grandes e multiloculares são mais propensos a recidivar, e a maior taxa de recidiva está associada a lesões que causam perfurações ósseas. Estudos relatam que essas lesões podem recidivar mesmo após muitos anos e o prognóstico ainda não é claro.

Conclusão

O Cisto Odontogênico Glandular é um cisto odontogênico raro, considerado por muitos autores como uma condição agressiva. Possui aspectos radiográficos e histopatológicos variados, e esses parâmetros podem ser correlacionados com as características clínicas para diagnosticar essa lesão. Existem várias modalidades de tratamento, as quais variam de uma abordagem conservadora até uma abordagem agressiva e, devido às altas taxas de recorrência, deverá ser realizado um acompanhamento mais prolongado e cuidadoso.

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;16:499–504. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1600-0714.1987.tb00680.x>
2. Gardner DG, Kessler HP, Morency R et al. The glandular odontogenic cyst: an apparent entity. *J Oral Pathol* 1988;17:359–66. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1600-0714.1988.tb01298.x>
3. Purohit S, Shah V, Bhakhar V, Harsh A. Glandular odontogenic cyst in maxilla: A case report and literature review. *J Oral Maxillo fac Pathol* 2014 May;18(2):320-3. <http://dx.doi.org/10.4103/2F0973-029X.140923>
4. Mascitti M, Santarelli A, Sabatucci A, Procaccini M, Lo Muzio L, Zizzi A, Rubini C. Glandular odontogenic cyst: review of literature and report of a new case with cytokeratin-19 expression. *Open Dent J* 2014 Feb 7;8:1-12. <http://dx.doi.org/10.2174/1874210601408010001>
5. Akkaş İ, Toptaş O, Özcan F, Yılmaz F. Bilateral glandular odontogenic cyst of mandible: a rare occurrence. *J Maxillofac Oral Surg* 2015 Mar;14(Suppl 1):443-7. <http://dx.doi.org/10.1007/s12663-014-0668-y>
6. Raju SP, Reddy SP, Ananthnag J. Glandular odontogenic cyst of the anterior mandible. *N Am J Med Sci*. 2015 Feb;7(2):65-9. <http://dx.doi.org/10.4103/2F1947-2714.152081>
7. Tambawala SS, Karjodkar FR, Yadav A, Sansare K, Sontakke S. Glandular odontogenic cyst: A case report. *Imaging Sci Dent* 2014 Mar;44(1):75-9.
8. Guruprasad Y, Chauhan DS. Glandular odontogenic cyst of maxilla. *J Clin Imaging Sci* 2011;1:54. <http://dx.doi.org/10.4103/2156-7514.90074>
9. Prabhu S, Rekha K, Kumar G. Glandular odontogenic cyst mimicking central mucoepidermoid carcinoma. *J Oral Maxillofac Pathol* 2010 Jan;14(1):12-5. <http://dx.doi.org/10.4103/0973-029X.64303>
10. Shah M, Kale H, Ranginwala A, Patel G. Glandular odontogenic cyst: A rare entity. *J Oral Maxillofac Pathol* 2014 Jan;18(1):89-92. <http://dx.doi.org/10.4103/0973-029X.131922>
11. Salehinejad J, Saghafi S, Zare-Mahmoodabadi R, Ghazi N, Kermani H. Glandular odontogenic cyst of the posterior maxilla. *Arch Iran Med* 2011 Nov;14(6):416-8.
12. Oliveira Neto PJ, Avelar RL, Andrade ESS, Raimundo RC, Gomes ACA, Laureano Filho JR. Surgical treatment of an extensive glandular odontogenic cyst: a case report. *Rev Cir Traumatol Buco-Maxillofac* 2009 Out./Dez;9(4):59-66.
13. Bulut E, Baş B, Dinçer D, Günhan Ö. Treatment of Maxillary Glandular Odontogenic Cyst Involving the Same Place of Previously Treated Traumatic Bone Cyst. *J Craniofac Surg* 2016 Mar;27(2):e150-3. <http://dx.doi.org/10.1097/SCS.0000000000002396>
14. Faisal M, Ahmad SA, Ansari U. Glandular odontogenic cyst - Literature review and report of a paediatric case. *J Oral Biol Craniofac Res* 2015 Sep-Dec;5(3):219-25. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jobcr.2015.06.011>
15. Lee BD, Lee W, Kwon KH, Choi MK, Choi EJ, Yoon JH. Glandular odontogenic cyst mimicking ameloblastoma in a 78-year-old female: A case report. *Imaging Sci Dent* 2014 Sep;44(3):249-52. <http://dx.doi.org/10.5624/isd.2014.44.3.249>
16. Fowler CB, Brannon RB, Kessler HP, Castle JT, Kahn MA. Glandular odontogenic cyst: analysis of 46 cases with special emphasis on microscopic criteria for diagnosis. *Head Neck Pathol* 2011 Dec;5(4):364-75. <http://dx.doi.org/10.1007/s12105-011-0298-3>
17. Ogata DC, Sassi LM, Luz MA, Dirschnabel AJ. Glandular DC odontogenic cyst: an uncommon lesion that requires aggressive treatment. *Rev Bras Cir Cabeça Pescoço* 2010;39(1): 80-81.
18. Jafarian AH, Rahpeyma A, Khajehahmadi S. Recurrent Glandular Odontogenic Cyst of Maxilla- A Case Report. *Iran J Pathol*. 2015 Spring;10(2):160-4.
19. Chandra S, Reddy ES, Sah K, Srivastava A. Maxillary Glandular Odontogenic Cyst: An Uncommon Entity at an Unusual Site. *Arch Iran Med* 2016 Mar;19(3):221-4.
20. Guruprasad Y, Chauhan DS. Glandular odontogenic cyst of maxilla. *J Clin Imaging Sci* 2011;1:54. <http://dx.doi.org/10.4103/2156-7514.90074>

21. Kaplan I, Anavi Y, Hirshberg A. Glandular odontogenic cyst: a challenge in diagnosis and treatment. *Oral Dis* 2008;14(7):575. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1601-0825.2007.01428.x>
22. Roochi MM, Tavakoli I, Ghazi FM, Tavakoli A. Case series and review of glandular odontogenic cyst with emphasis on treatment modalities. *J Craniomaxillofac Surg* 2015 Jul;43(6):746-50. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jcms.2015.03.030>
23. Kaplan I, Anavi Y, Manor R, Sulkes J, Calderon S. The use of molecular markers as an aid in the diagnosis of glandular odontogenic cyst. *Oral Oncol* 2005 Oct;41(9):895-902. <http://dx.doi.org/10.1016/j.oraloncology.2005.04.015>
24. Mittal A, Narang V, Kaur G, Sood N. Glandular Odontogenic Cyst of Mandible: A Rare Entity. *J Clin Diagn Res.* 2015 Dec;9(12):ED09-10. <http://dx.doi.org/10.7860%2FJCDR%2F2015%2F15005.6901>
25. 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. [http://dx.doi.org/10.1016/S1079-2104\(97\)90149-9](http://dx.doi.org/10.1016/S1079-2104(97)90149-9)
26. Cano J, Benito DM, Montáns J, Rodríguez-Vázquez JF, Campo J, Colmenero C. Glandular odontogenic cyst: two high-risk cases treated with conservative approaches. *J Craniomaxillofac Surg.* 2012 Jul;40(5):e131-6. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jcms.2011.07.005>
27. Araújo de Morais HH, Vasconcellos RJH, de Santana Santos T, Guedes Queiroz LM, Dantas da Silveira ÉJ. Glandular odontogenic cyst: case report and review of diagnostic criteria. *J Craniomaxillofac Surg* 2012 Feb;40(2):e46-50. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jcms.2011.03.018>
28. Motooka N, Ohba S, Uehara M, Fujita S, Asahina I. A case of glandular odontogenic cyst in the mandible treated with the dredging method. *Odontology* 2015 Jan;103(1):112-5. <http://dx.doi.org/10.1007/s10266-013-0143-0>
29. Turalı S, Yazıcıoğlu D, Ergül KC, Telcioğlu NT, Karasu HA. Recurrent glandular odontogenic cyst treatment. *Kulak Burun Bogaz İhtis Derg* 2012 May-Jun;22(3):176-80. <http://dx.doi.org/10.5606/kbbihtisas.2012.033>