

CERATOCISTO ODONTOGÊNICO, TERAPIAS E RECORRÊNCIA EM OITO ANOS DE ACOMPANHAMENTO

*ODONTOGENIC KERATOCYST, THERAPIES, AND RECURRENCE IN EIGHT YEARS OF
FOLLOW-UP*

Larissa Moreira Pinto¹ – ORCID ID 0000-0003-3391-8996

Rafael dos Santos Giorgis² – ORCID ID 0000-0002-7201-487X

Gabriel C.S² – ORCID ID 0000-0001-8785-5455

Samille Biasi Miranda² – ORCID ID 0000-0003-3475-7303

Taiane Coutinho de Oliveira² – ORCID ID 0000-0003-3717-0428

Antônio César Manentti Fogaça² – ORCID ID 0000-0002-5493-8665

¹ Pontifícia Universidade Católica do Rio Grande do Sul PUCRS

² Universidade Federal de Pelotas

larimoreirapinto@gmail.com

RESUMO

Objetivo: Descrever a abordagem terapêutica de um paciente portador de Ceratocisto Odontogênico na mandíbula esquerda, que manifestou recorrência após um período de três anos de acompanhamento.

Relato de caso: Uma paciente de 53 anos, leucoderma, do sexo feminino, procurou atendimento devido ao aumento de volume na mandíbula esquerda. Após realizar uma radiografia panorâmica, foram identificadas lesões no corpo e ramo mandibular esquerdos. A biópsia incisional foi realizada, seguida pela instalação de um dispositivo de descompressão. O exame histopatológico confirmou o diagnóstico de Ceratocisto Odontogênico. Após um acompanhamento bem-sucedido da descompressão, seguida de marsupialização, optou-se pela enucleação associada a uma ostectomia periférica profunda com broca. A cavidade óssea foi preenchida com osso bovino inorgânico e fechada com sutura bordo a bordo.

Conclusão: Na abordagem terapêutica, priorizou-se a enucleação como terapia adjuvante em detrimento da descompressão, considerando suas contraindicações. No entanto, no caso em questão, mesmo com a resposta positiva da lesão cística à descompressão e marsupialização, observou-se recidiva.

Palavras-chave: Cistos Odontogênicos. Cirurgia Bucal. Proservação. Patologia Bucal.

ABSTRACT

Objective: To describe the therapeutic approach in a case of Odontogenic Keratocyst in the left mandible that exhibited recurrence after three years of follow-up. **Case Report:** A 53-year-old female patient of fair complexion, presented with a complaint of swelling in the left mandible. A panoramic radiograph revealed lesions in the left mandibular body and ramus. An incisional biopsy was performed, and a decompression device was installed. Histopathological examination confirmed the diagnosis of Odontogenic Keratocyst. Following successful decompression and subsequent marsupialization, enucleation was performed along with deep peripheral ostectomy using a bur. The bony cavity was filled with inorganic bovine bone and sutured edge to edge. **Conclusion:** Enucleation was prioritized as an

adjuvant therapy over decompression, taking into consideration its contraindications. In this case report, despite the positive response of the cystic lesion to decompression and marsupialization, recurrence was observed.

Keywords: Odontogenic Cysts. Oral Surgery. Follow-Up. Oral Pathology.

INTRODUÇÃO

O ceratocisto odontogênico (CO) tem 60% dos diagnósticos em pacientes entre 10 e 40 anos de idade, raramente são observados na primeira infância e possuem preferência pelo gênero masculino, na proporção de 2:1⁷. Cerca de 25-40% dos COs estão relacionados a um dente incluso, principalmente, sisos mandibulares^{8,28}. Ocorrem com maior frequência em mandíbula, 70-75% localizam-se em ramo e ângulo mandibular^{19,23}. Apresentam tendência de crescimento anteroposterior dentro do osso medular¹⁶. Raramente deslocam dentes e causam parestesia, em alguns casos já foi observada tumefação e invasão dos tecidos moles, após a destruição da cortical óssea com infecção e supuração^{18,6}.

Radiograficamente, o CO apresenta-se em lesões uniloculares bem definidas. Lesões grandes em região posterior de mandíbula podem ser multiloculadas com margens recortadas³¹. Lesões uniloculares podem imitar as características radiográficas de um cisto dentífero, estando associadas a um dente não erupcionado em 25-40% dos casos. A reabsorção radicular é incomum, sendo mais observada em cistos dentíferos e radiculares¹⁶.

Quando um indivíduo apresentar múltiplos ceratocistos odontogênicos deve-se considerar a possibilidade de o paciente ter a síndrome de Gorlin-Goltz, a qual é uma condição autossômica dominante com alta penetrância e expressividade variável, ocorrendo em 1:19.000 até 1:256.000 pessoas^{16,32}.

Por conseguinte, o presente artigo objetiva relatar um caso clínico de CO com oito anos de preservação até sua recidiva mais recente em 2020, também serão enfatizadas as estratégias atuais de tratamento do CO.

RELATO DE CASO

Paciente leucoderma, 53 anos, sexo feminino, compareceu ao serviço de Cirurgia Buco – Maxilo - Facial do Sistema Único de Saúde em Bagé, Rio Grande do Sul, Brasil, com queixa de aumento de volume em mandíbula esquerda. Após o exame clínico, foi constatado uma lesão com expansão mandibular esquerda. A paciente se queixava de dor. Foi realizada uma radiografia panorâmica para investigação (Figura 1), onde foi detectada uma lesão de dimensões importantes em corpo e ramo mandibular esquerdos.

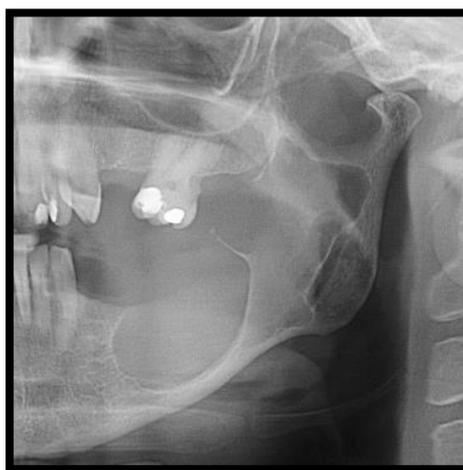


Figura 1. Aspecto radiográfico inicial, apresentando lesões em corpo e ramo mandibulares esquerdos. Julho, 2012.

Em poucos dias após a primeira consulta foi realizada uma biópsia incisiva e instalação de aparato para descompressão da lesão. O diagnóstico do exame histopatológico foi de CO. A paciente foi instruída à irrigação de 10 mL de soro fisiológico com clorexidina a 0,12%, sem álcool, 3 vezes ao dia, em um período de 12 meses. Queixosa da dificuldade de irrigação, foi submetida, posteriormente, à marsupialização por um tempo de 12 meses. Os exames radiográficos de controle em 3 meses (Figura 2), 8 meses (Figura 3), 15 meses (Figura 4), 19 meses (Figura 5) e 27 meses (Figura 6) demonstraram uma significativa redução da lesão.



Figura 2. Radiografia de controle após 3 meses da descompressão cística. Outubro, 2012.



Figura 3. Neoformação óssea após 8 meses da descompressão cística. Março, 2013.



Figura 4. Neoformação óssea após 15 meses da descompressão cística. Outubro, 2013.



Figura 5. Controle radiográfico após 19 meses da descompressão cística. Fevereiro, 2014.

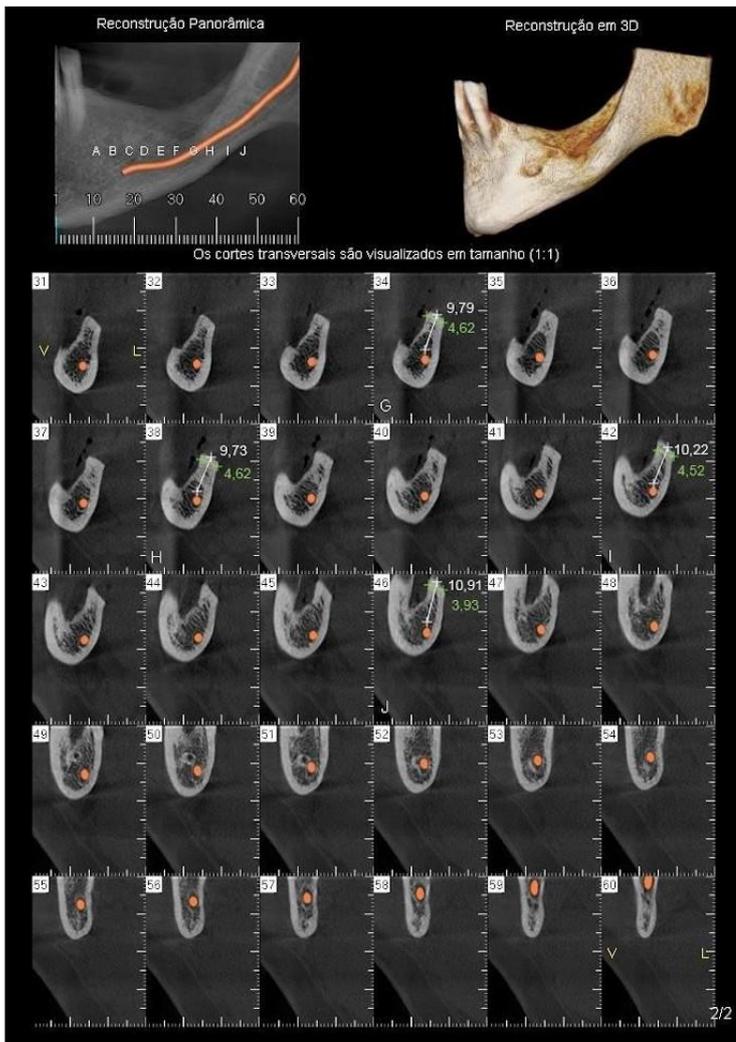


Figura 6. Exame tomográfico em 27 meses após a descompressão cística associada à marsupialização, demonstrando loja óssea residual. Novembro, 2014,

O exame tomográfico demonstra a loja óssea deixada pela descompressão associada à posterior marsupialização, após 27 meses do início do tratamento (Figura 6). Quando as dimensões da lesão foram reduzidas, foi realizada a enucleação associada à profunda ostectomia periférica com broca (Figuras 7 e 8). Além disso, a cavidade óssea foi preenchida com osso bovino inorgânico e suturada com giro de retalho bordo a bordo (Figura 9). Em 2019, foi realizada uma abordagem em ambiente hospitalar para a visualização da loja óssea (resíduos com ceratina), curetagem e crioterapia (Figura 11). Os exames

radiográficos de controle foram realizados periodicamente até o presente momento (ano de 2020) (Figuras 10 e 12), totalizando oito anos de controle. A indício claro, a recidiva foi observada em 60 meses e os tratamentos propostos não obtiveram sucesso até maio de 2020 (Figuras 13).



Figura 7. Aspecto inicial pré-operatório. Cavidade acessória após, aproximadamente, 2 anos da descompressão cística. 2014.

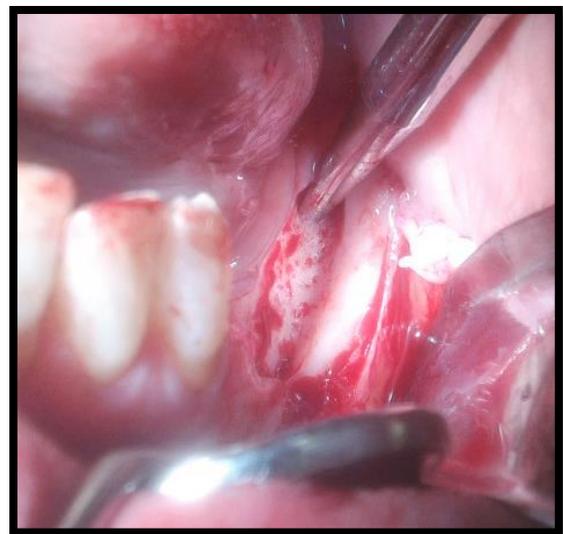


Figura 8. Cistectomia e exposição da loja óssea para ostectomia periférica. 2014.



Figura 9. Transcirúrgico, demonstrando enxertia óssea na loja residual. 2014.



Figura 10. Recidiva da lesão radiolúcida multilocular. Exame radiográfico de controle em 5 anos após a terapia cirúrgica, demonstrando recidiva da lesão em ramo mandibular esquerdo. 2019.

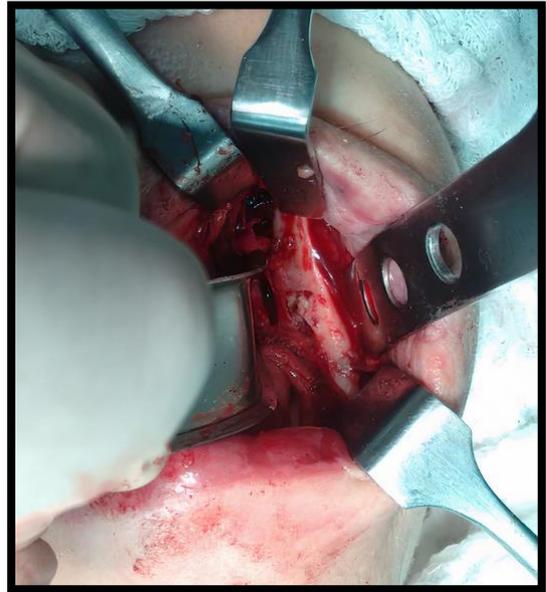


Figura 11. Abordagem em ambiente hospitalar. Incisão alta em ramo mandibular para visualização da loja (resíduos com ceratina), curetagem e crioterapia. 2019.



Figura 12. Radiografia pós-operatória, 69 dias após cirurgia com curetagem e crioterapia. 2019.

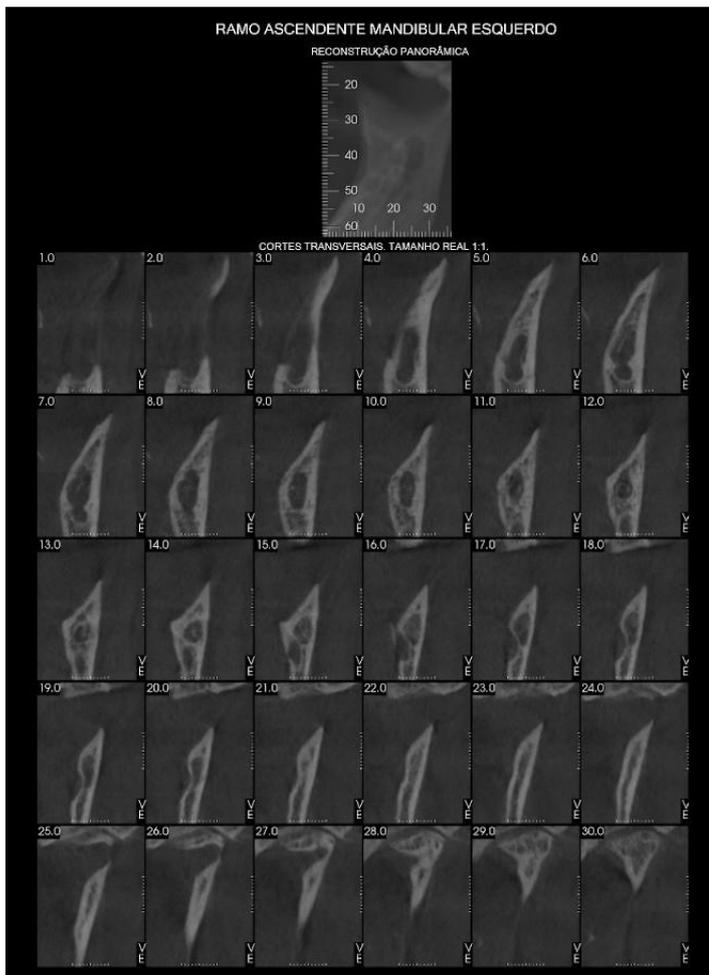


Figura 13. Exame tomográfico demonstrando nova recidiva da lesão cística. Maio, 2020.

DISCUSSÃO

Os tratamentos dos COs podem ser executados com métodos “conservadores” como enucleação, descompressão, marsupialização ou terapias adjuvantes como solução de Carnoy ou crioterapia¹². No entanto, tratamentos mais radicais têm demonstrado menores taxas de recidiva. Ademais, a literatura disponível não elucida qual técnica é mais efetiva na redução da morbidade e na prevenção de recorrências^{15, 24}.

A marsupialização foi inicialmente descrita no final do século XIX, posteriormente, em 1958. Thoma foi o primeiro a empregar o termo descompressão, modificando o método com o uso de um tubo, caracterizando uma

drenagem tubular^{10,11}. Essa técnica, também foi descrita no livro de Kruger (1984) como “marsupialização modificada”, devido à inserção de um dreno de polietileno no interior de grandes lesões permitindo a redução do tamanho das cavidades císticas^{16, 13}.

A descompressão modifica o epitélio da mucosa cística, isso pode ocorrer por metaplasia ou por substituição pelo epitélio da mucosa oral que cresce pelas bordas da lesão³. Descompressão corresponde a qualquer tratamento em que a pressão é retirada da lesão cística através de uma abertura por onde ocorre a drenagem. É utilizada para reduzir o tamanho de uma lesão e, posteriormente, permitir a enucleação sem riscos a dentes, nervos ou fratura¹⁷.

A crioterapia consiste na penetração do spray de nitrogênio em 0,51mm até 2,5mm, com média de 0,89mm de necrose²⁶. A necrose é efetiva nas paredes do sítio ósseo, e, sob determinado protocolo é controlada²⁶. A destruição óssea causada é pequena, quando comparada à curetagem por broca ou ressecção²⁶.

A ressecção de COs recorrente deve estender-se além dos limites da lesão para garantir a remoção dos remanescentes satélites ou remanescentes epiteliais da lâmina dentária ou da parede cística. Recomenda-se acompanhamento periódico a longo prazo³⁰. A ressecção segmentar, consiste na ostectomia periférica onde um bloco da lesão é removido pelo tangenciamento do corte ósseo com margem de segurança, removendo-se juntamente tecido sadio e preservando a base da mandíbula^{5, 4}.

Não existe uma regra única aplicável ao tratamento de todos os COs, sendo necessário o estudo criterioso de cada situação. A presente revisão sustenta

diferentes alternativas de terapias. Desse modo, para evitar a lesão irreversível de estruturas neuro-vasculares e fraturas ósseas é importante optar, primeiramente, pela descompressão ou marsupialização, objetivando controlar a natureza agressiva da patologia por meio da metaplasia epitelial³.

Outros tratamentos de rotina para o ceratocisto incluem a enucleação e marsupialização, ou descompressão². Para lesões extensas pode ser realizada inicialmente a marsupialização para reduzir o tamanho e a morbidade da patologia cística, e posteriormente uma enucleação – cistectomia^{31, 11}.

Embora o tratamento em lesões extensas permaneça controverso, o uso de nitrogênio mantém a estrutura inorgânica intacta, preservando o osso, controlando satisfatoriamente a patologia cística e mantendo estética e função¹⁰. Fernandes et al. (2010) reportam que a associação entre enucleação, curetagem óssea e criocirurgia reduz às recidivas, quando comparadas ao tratamento conservador, diminuindo, também, a indicação de ressecção, a qual causa defeitos ósseos e sequelas estético-funcionais⁹.

Nesse sentido, a crioterapia tem a vantagem de preservar a propriedade osseocondutora do tecido, sendo empregada de maneira simples, rápida, econômica e apresentando excelentes resultados²⁶. Porém, deve ser utilizada com cautela em idosos⁹. O nitrogênio inativa tecidos orgânicos em uma profundidade de 1,5mm no interior de cavidades ósseas com 1 minuto de congelamento, repetido por 3 vezes²⁰. A crioterapia pode causar parestesia com recuperação espontânea em até 6 meses e reduz significativamente as recidivas císticas²⁵.

Em contrapartida, Bataineh e Al Qudah (1998) descreveram 100% de

sucesso no tratamento de 31 COs por meio de ressecção óssea preservando a borda inferior e posterior do ramo mandibular[4]. Tal técnica remove todos os dentes em continuidade com a lesão com 1cm de margem de segurança, e, em perfurações corticais resseca a mucosa local, obtendo a erradicação da lesão, a redução de recidivas e a preservação da forma e função mandibular. Nenhuma recorrência cística foi observada nos 8 anos de proervação realizados no caso clínico descrito neste estudo⁴.

Segundo Zhao et al. (2002), a ressecção radical deve ser utilizada, após tentativas conservadoras de tratamento em múltiplos cisto recorrentes, devido a sua alta morbidade (infecções, parestesias, danos estéticos funcionais e psicológicos), ou seja, deve ser empregada como solução final e extrema³¹.

Além da solução de Carnoy modificada, novos tratamentos coadjuvantes após a enucleação têm sido propostos na literatura com menor morbidade pós-operatória, a fim de reduzir as taxas de recorrência, como o 5-fluorouracil, um reconhecido agente citostático que fornece uma abordagem molecular direcionada ao ceratocisto^{1, 27, 14}.

No caso clínico relatado, foram empregados os tratamentos de descompressão, marsupialização, curetagem com broca, enxertia, crioterapia, e, transitou-se do sucesso ao fracasso em poucos anos. Descompressão, marsupialização e irrigação da luz cística deveriam remover a totalidade da ceratina e favorecer um comportamento menos agressivo da patologia, o que não foi efetivo na situação apresentada, devido à anatomia e ao volume de líquido utilizado.

Futuras investigações determinarão se a causa de os resíduos de ceratina ficarem aprisionados em elevadas

posições póstero-superiores durante a neoformação óssea desordenada foi favorecida pela descompressão da lesão e ligada a uma maior recidiva, embora a razão provável e universalmente aceita atualmente seja a possível existência de cistos satélites²². O problema da terapia descompressiva consiste na medida em que a lesão diminui, o revestimento do cisto é levado adiante e pequenos remanescentes podem ser abandonados no trajeto, de modo que a enucleação (cistectomia) posterior não elimine esses ninhos celulares abandonados à grande distância da loja remanescente final¹. Esta hipótese foi apresentada na literatura, demonstrando resultados inferiores com o emprego de descompressão e cistectomia posterior, associadas à terapia adjuvante, já que tais manobras não afetarão os remanescentes abandonados no trajeto da terapia descompressiva¹.

Outrossim, resultados superiores foram obtidos pela enucleação imediata do ceratocisto, sem alterar as proporções da loja óssea original com a descompressão, usando ou não terapias adjuvantes, as quais poderão ser mais efetivas no tratamento dos restos celulares de lesões em profundidade de 1-2mm. Dessa forma, elucida-se o porquê da enucleação parecer funcionar melhor do que a descompressão e que tratamentos coadjuvantes parecem ser promissores e devem ser considerados

^{27, 14}

CONCLUSÃO

Diante do exposto, a priorização recai sobre a enucleação como terapia adjuvante, sendo a primeira opção, em detrimento da descompressão, respeitando as contraindicações, especialmente em lesões de grandes dimensões que apresentem maiores riscos

de danos vasculares e neurosensoriais. Embora a extensa lesão tenha apresentado uma resposta satisfatória à descompressão e marsupialização, a ocorrência de recidivas demanda uma nova abordagem cirúrgica em ambiente hospitalar. Essa intervenção será realizada, associando técnicas consideradas mais apropriadas para o caso em questão, incluindo acesso ao ramo mandibular esquerdo, enucleação, demarcação com azul de metileno, nova curetagem com broca, e a aplicação tópica de 5-fluoracil.

REFERÊNCIAS

1. Al-Moraissi EA, Pogrel MA, Ellis E. Enucleation with or without adjuvant therapy versus marsupialization with or without secondary enucleation in the treatment of keratocystic odontogenic tumors: A systematic review and meta-analysis. *J Craniomaxillofac Surg.* 2016 Sep; 44(9):1395-403.
2. Antonoglou GN, Sándor GK, Koidou VP, Papageorgiou SN. Non-syndromic and syndromic keratocystic odontogenic tumors: systematic review and meta-analysis of recurrences. *J Craniomaxillofac Surg.* 2014 Oct; 42(7):364-71.
3. August M, Faquin WC, Troulis MJ, Kaban LB. Dedifferentiation of odontogenic Keratocyst epithelium after cyst decompression. *J Oral Maxillofac Surg.* Jun 2003; 61(6):678-83.
4. Bataineh AB, Al Qudah M. Treatment of mandibular odontogenic keratocysts. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1998; 86:42-7.
5. Bramley P. The odontogenic Keratocyst - an approach to treatment. *Int J Oral Surg.* 1974; 3:337-41.

6. Carneiro AG, Cardoso JA, Silva VP, Benigno J, Cancio AV, Farias JG. Um ano de descompressão seguida de enucleação para tratamento de tumor odontogênico queratocístico: relato de caso. **Rev Passo Fundo**. maio/ago 2012; 17(2):212-17.
7. Chilvarquer I, Homen MGN, Duailibi Neto EF, Choi IGG, Ximenez MEL, Hayek JE et al. Relato de caso clínico: tumor odontogênico queratocístico na primeira infância **Rev Associação Paul Cir Dent** 2015; 69(3):212-6.
8. Chirapathomsakul D, Sastravaha P, Jansisyanont P. A review of odontogenic Keratocyst and the behavior of recurrences. **Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod**. 2006; 101:5-9.
9. Fernandes MMS, Etges A, Torriani MA. O uso da crioterapia com nitrogênio líquido em lesões intraósseas dos maxilares. **Rev Bras Cir Buco-Maxilo-Fac**. 2010;10(2):49-57.
10. Garcia CB, Gignon VF, Melo MR, Costa SAA, Costa JMC, Patrocinio LG. Tumor odontogênico queratocístico extenso de mandíbula: enucleação associada à crioterapia. **Rev Bras Cir Craniomaxilofac**. 2011; 14(1):60-2.
11. Johnson NR, Batstone MD, Savage NW. Management and recurrence of keratocystic odontogenic tumor: A systematic review. **Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol**. 2013; 116:271-6.
12. Kaczmarzyk T, Mojsa J, Stypulkowska A. A systematic review of the recurrence rate for keratocystic odontogenic tumor in relation to treatment modalities. **Int J Oral Maxillofac Surg**. 2012 Jun; 41(6):756-67.
13. Kruger GO. *Cirurgia Bucal e Maxilo Facial*. 5.ed. Guanabara Koogan; 1984.
14. Ledderhof NJ, Caminiti MF, Bradley G, Lam DK. Topical 5-fluorouracil is a novel targeted therapy for the keratocystic odontogenic tumor. **J Oral Maxillofac Surg**. 2017; 75(3):514-524.
15. Morgan TA, Burton CC, Qian F. A retrospective review of treatment of the odontogenic Keratocyst. **J Oral Maxillofac Surg**. 2005 May; 63(5):635-9.
16. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. *Patologia oral e maxilo-facial*. 4. ed. Rio de Janeiro: Saunders Elsevier; 2016.
17. Oh JS, You JS, Kim SG. Clinical and histomorphometric evaluation of decompression followed by enucleation in the treatment of odontogenic Keratocyst. **J Dent Sci**. 2018;13(4):329-33.
18. Pagotto SR, Carvalho MB, Cardoso W, Curcio R. Queratocisto odontogênico: revisão da literatura e relato de caso. **Rev Bras Cir Cabeça Pescoço**. 2004; 33(2):99-102.
19. Philipsen HP. Keratocyst odontogenic tumors. In: BARNES, L.; EVESON, J.W.; REICHART, P.; SIDRANSKY, D. editors. *World Health Organization classification of tumours. Pathology and genetics of head and neck tumours*. Lyon (France): IARC; 2005.
20. Pogrel MA, Regezi JA, Fong B, Hakim-Faal Z, Rohrer M, TRAN C. Effects of liquid nitrogen cryotherapy and bone grafting on artificial bone defects in minipigs a preliminary study. **Int J Oral Maxillofac Surg**. 2002; 31(3):296-302.
21. Pogrel MA, Jordan RC. Marsupialization as a definitive treatment for the odontogenic Keratocyst. **J Oral Maxillofac Surg**. 2004; 62:651-5.
22. Pogrel MA. Decompression and marsupialization as definitive

- treatment for keratocysts - a partial retraction. **J Oral Maxillofac Surg.** 2007 Feb; 65(2):362-3.
23. Ribeiro-Júnior O, Borba A, Alves C, Gouveia M, Coracin F, Guimarães-Júnior J. Keratocyst odontogenic tumors and Carnoy's solution: Results and complications assessment. **Oral Dis.** 2012; 18:548-57.
 24. Sánchez-Burgos R, González-Martín-Moro J, Pérez-Fernández E, Burgueño-García M. Clinical, radiological and therapeutic features of keratocystic odontogenic tumors: A study over a decade. **J Clin Exp Dent.** 2014, 6:259-64.
 25. Schmidt BL, Pogrel MA. The use of enucleation and liquid nitrogen cryotherapy in the management of odontogenic keratocysts. **J Oral Maxillofac Surg.** 2001; 59:720-7.
 26. Silva FM. Estudo das características histológicas do processo de reparo após aplicação de nitrogênio líquido em tecido ósseo em mandíbulas de coelhos. **Tese** (Doutorado em Odontologia, área de concentração em Cirurgia e Traumatologia Buco-maxilo-facial) - Faculdade de Odontologia, Pontifícia Universidade Católica do Rio Grande do Sul. 2003.
 27. Sivanmalai S, Kandhasamy K, Prabu N, Prince CN, Prabu CSAPS. Carnoy's solution in the management of odontogenic keratocyst. **J Pharma Bioall Sci.** 2012; 4(Suppl 2): S183.
 28. Titinchi F, Nortje CJ. Keratocyst odontogenic tumor: A recurrence analysis of clinical and radiographic parameters. **Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.** 2012; 114:136-42.
 29. Thoma KH. Oral Surgery. **3.ed.** St Louis: Mosby; 1958.
 30. Williams TP, Connor JR FA. Surgical management of the odontogenic Keratocyst: aggressive approach. **J Oral Maxillofac Surg.** 1994; 52:964-6.
 31. Zhao YF, Wei JX, Wang SP. Treatment of odontogenic keratocysts: a follow up of 255 Chinese patients. **Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.** 2002; 94:151.
 32. Spiker AM, Troxell T, Ramsey ML. Gorlin Syndrome. 2021 Feb 15. In: StatPearls [Internet]. **Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2021**