

FACSETE - Faculdade de Sete Lagoas

ABO – Associação Brasileira de Odontologia - Uberlândia

Especialização em Radiologia Odontológica

Renata Magalhães

TUMOR ODONTOGÊNICO EPITELIAL CALCIFICANTE (TOEC): ASPECTOS
RADIOGRÁFICOS E TOMOGRÁFICOS

Uberlândia
2020

Renata Magalhães

TUMOR ODONTOGÊNICO EPITELIAL CALCIFICANTE (TOEC): ASPECTOS
RADIOGRÁFICOS E TOMOGRÁFICOS

Monografia apresentada à FACSETE –
Faculdade Sete Lagoas, como requisito para
obtenção do título de Especialista em
Radiologia Odontológica, sob orientação do
Prof. Dr. Antônio Francisco Durighetto Júnior

**Uberlândia, MG
2020**

Magalhães, Renata

Tumor odontogênico epitelial calcificante (TOEC): aspectos radiográficos e tomográficos / Renata Magalhães - 2020.

64 fl.; il.

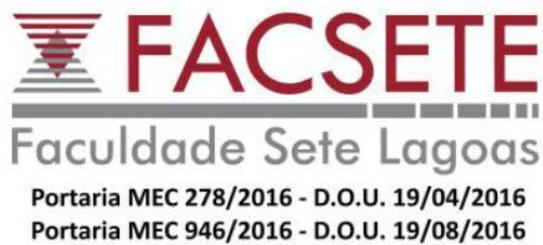
Orientador: Dr. Antônio Francisco Durighuetto Júnior

Monografia (Especialização) – Faculdade Sete Lagoas, 2020.

1. Tumores odontogênicos. 2. Radiologia. 3. Tomografia computadorizada.

I. Título

II. Orientador



Monografia intitulada “Tumor odontogênico epitelial calcificante (TOEC): aspectos radiográficos e tomográficos” de autoria da aluna Renata Magalhães.

Aprovada em ____ / ____ / ____ pela banca constituída pelos seguintes professores:

Prof. Dr. Antônio Francisco Durighetto Júnior

Profa. Dra. Mirna Scalon Cordeiro

Profa. Msd. Juliana Rodrigues Machado

Uberlândia, ____ de _____ de 2020.

Faculdade Sete Lagoas - FACSETE
Rua Ítalo Pontelo 50 – 35.700-170 _ Set Lagoas, MG
Telefone (31) 3773 3268 - www.facsete.edu.br

RESUMO

O tumor odontogênico epitelial calcificado (TOEC) ou o tumor de Pindborg é uma neoplasia odontogênica epitelial benigna rara, que, é exclusivamente epitelial em seu tecido de origem. Muitos casos estão associados a dentes impactados e simulam cistos dentígeros, radiograficamente. Isso ocorre predominantemente entre a quarta e a quinta década de vida, sem preferência por sexo. Radiograficamente, este tumor é caracterizado por uma lesão uni ou multilocular que geralmente mostra um padrão radiolúcido-radiopaco misto. O tratamento consiste na remoção cirúrgica da lesão, com recidiva inferior a 15% dos casos.

Palavras-chave: tumor odontogênico epitelial calcificante; radiografia; tomografia computadorizada.

ABSTRACT

The calcified epithelial odontogenic tumor (TOEC) or Pindborg's tumor is a rare benign epithelial odontogenic neoplasm, which is exclusively epithelial in its original tissue. Many cases are associated with impacted teeth and simulate dentigerous cysts, radiographically. This occurs predominantly between the fourth and fifth decade of life, with no preference for sex. Radiographically, this tumor is characterized by a single or multilocular lesion that usually shows a mixed radiolucent-radiopaque pattern. Treatment consists of surgical removal of the lesion, with recurrence of less than 15% of cases.

Keywords: Odontogenic epithelial calcified tumor; radiography; computed tomography.

Dedico esse trabalho à minha família, pela presença constante em minha vida.

AGRADECIMENTOS

A Deus, pelas oportunidades e caminhos traçados. A minha família, por estarem presentes sempre; aos professores Dra. Mirna Scalon e Dr. Antônio Francisco Durighuetto Júnior, pelo incentivo e apoio. Foi um grande privilégio aprender com vocês, que são pessoas as quais eu tenho imensa admiração.

LISTA DE ABREVIATURAS

FOA- Tumor fibro-odontoma ameloblástico

OMS- Organização Mundial da Saúde

OPG- Ortopantomografia

RM- Ressonância magnética

TC- Tomografia computadorizada

TCFC-Tomografia computadorizada de feixe cônico

TO- Tumores odontogênicos

TOA- Tumor odontogênico adenomatoide

TOCC-Tumor odontogênico cístico calcificante

TOEC -Tumor odontogênico epitelial calcificante

LISTA DE ILUSTRAÇÕES

Figura 1	Histopatologia do TOEC. Células poliédricas com pleomorfismo e material semelhante a amiloide	18
Figura 2	Uso de coloração especial em TOEC. (A) Detalhe do material amiloide corado em vermelho congo, que exibe uma cor amarelada/esverdeada ao ser visualizado sob luz polarizada (B). Objetiva, 10X	19
Figura 3	Tumor odontogênico epitelial calcificante (HE 50X)	19
Figura 4	Células epiteliais em aglomerados com núcleos centrais basofílicos uniformes. (Ampliação 40 x; coloração com hematoxilina e eosina)	20
Figura 5	Células poliédricas com células distintas, limita núcleos e citoplasma eosinofílico pálido (Ampliação 40x; coloração em hematoxilina e eosina).	21
Figura 6	Tumor odontogênico epitelial calcificante unilocular, com calcificações, deslocamento dentário e reabsorção radicular	22
Figura 7	TCFC do caso apresentado	23
Figura 8	Peça cirúrgica do caso da figura 2. Observam-se pontos amarelados na superfície de corte que correspondem a calcificações centrais	23
Figura 9	Radiografia periapical mostrando lesão radiotransparente unilocular, bem delimitada, contendo material radiopaco no seu interior, localizada na região anterior da maxila do lado esquerdo, projetada na região das raízes dos dentes 22 e 23 (seta)	24
Figura 10	Radiografia oclusal total de maxila mostrando a lesão (seta)	25
Figura 11	(a) – lesão nodular exofítica localizada em gengiva vestibular maxilar; (b) radiografia panorâmica exibindo lesão radiolúcida, de bordos indistintos, com focos centrais radiopacos	25
Figura 12	Exame tomográfico em reconstrução panorâmica mostrando a íntima relação da lesão com as raízes dos dentes 22 e 23 sem, contudo, promover reabsorção radicular (seta)	26
Figura 13	Exame tomográfico em cortes transversais mostrando a localização palatina da lesão (seta)	26
Figura 14	Inchaço expansivo e bem definido, envolvendo o palato duro direito e estendendo-se em direção à borda anterior do palato mole	27
Figura 15	(a) TC mostrando um grande tumor envolvendo o seio maxilar direito, demonstrando áreas radiolúcidas e radiopacas mistas invadindo o assoalho orbital (b) TC demonstrando radiopacidades maciças no seio maxilar causando erosão da parede lateral do nariz	28
Figura 16	Vista frontal do inchaço se estendendo do ramo direito (contorno da seta preta) cruzando a linha média até a região da parassínfise esquerda (seta preta sólida) da mandíbula.	29
Figura 17	A visão intraoral revela um edema com expansão bicortical, obliterando o sulco bucal, (contorno em seta preta) presente lingualmente (setas pretas sólidas) com deslocamento dos dentes mandibulares e maxilares (setas brancas) no lado direito	29
Figura 18	A radiografia panorâmica mostra uma única lesão radiopaca-radiolúcida circular bem definida e mista no lado direito da mandíbula com deslocamento dos dentes inferiores e superiores. A presença de uma massa radiopaca no centro da lesão (seta preta) com estrias radiopacas tem a aparência de “neve dirigida”	30

Figura 19	A tomografia computadorizada de vista axial mostra uma enorme massa tumoral heterodensa bem definida no lado direito da mandíbula com a presença de uma massa irregular hiperdensa no centro da lesão (seta preta)	30
Figura 20	A tomografia computadorizada em corte coronal mostra uma massa tumoral heterodensa bem definida na mandíbula direita com uma massa hiperdensa irregular central (seta preta sólida) com várias calcificações irregulares com um padrão de “flocos de neve” (setas pretas de contorno)	31
Figura 21	Uma reconstrução multidimensional da tomografia computadorizada usando um algoritmo de tecido duro exhibe a extensão do tumor gigante bem circunscrito (seta branca)	31
Figura 22	TC mostrando lesão radiolúcida-radiopaca mista envolvendo o seio maxilar. O osso periférico parece descontínuo em algumas áreas	32
Figura 23	Ortopantomograma mostrando imagem osteolítica da maxila esquerda com poucos focos de calcificações	33
Figura 24	TC axial demonstrando radiolúcência da maxila esquerda que obliterou completamente o seio maxilar e o envolvimento do processo alveolar com erosão da placa cortical e a invasão do tecido mole adjacente	34
Figura 25	– A) radiografia lateral do seio mostra opacidades na maxila esquerda e um dente não irrompido em sua parede posterior. B), TC coronal revela massa heterogênea arredondada, quase preenchendo todo o antro superior esquerdo. A lesão contém um dente central com calcificações amorfas circundantes e elementos de tecidos moles na periferia. C) RM coronal ponderada em T2 mostra uma grande massa heterogênea ocupando a maxila esquerda expandida. Havia áreas intralesionais de baixo sinal nas seqüências ponderadas em T2, consistentes com a calcificação e os dentes superiores identificados na tomografia computadorizada. D), Imagem axial ponderada em T1 com contraste axial mostra uma grande massa heterogênea ocupando a maxila esquerda expandida. Havia áreas intralesionais de baixo sinal nas seqüências ponderadas em T1, consistentes com a calcificação e os dentes superiores identificados na tomografia computadorizada. E) amostra bruta de um segundo molar não irrompido (seta) na substância calcificada do tumor bem encapsulado	35
Figura 26	radiografia panorâmica	36
Figura 27	Imagem de tomografia computadorizada axial ao nível dos tecidos moles demonstrando a extensão anteroposterior do tumor e mostrando a vascularização na porção posterior da lesão (seta).	37
Figura 28	Imagem de tomografia computadorizada coronal ao nível ósseo, mostrando a relação entre o dente impactado e a lesão. Expansão lateromedial e erosão óssea lingual também podem ser observadas (seta)	37
Figura 29	TC da região maxilofacial mostrando massa heterogênea sobre o lado esquerdo do dorso nasal e processo frontal da maxila esquerda	38
Figura 30	Radiografia panorâmica mostrando lesão radiolúcida unilocular, difusa, associada ao dente 37	39
Figura 31	TC coronal mostrando lesão hipodensa, com áreas hiperdensas irregulares em seu interior, associadas à expansão do osso cortical vestibular e à reabsorção do osso cortical do processo alveolar	40
Figura 32	Seções de tomografia computadorizada axial (a) e coronal (b) mostrando extensão do tumor ao seio maxilar esquerdo e destruição de tecidos adjacentes	41

Figura 33	Tomografia computadorizada tridimensional não revelou recorrência no seguimento de 1 ano	41
Figura 34	Porção de uma radiografia panorâmica mostrando um tipo de radiolucência alveolar associada a um dente impactado	42
Figura 35	A TC realizada após a recorrência demonstra claramente a perda completa da arquitetura da maxila esquerda	42
Figura 36	TC axial demonstrando radiolucência com numerosas radiopacidades.	43
Figura 37	Corte coronal da TC mostrando obliteração do seio maxilar esquerdo.	43
Figura 38	Seção da TC mostrando comprometimento da cavidade nasal e parede orbital inferior.	44
Figura 39	a) Visão extra-oral; b) visão intra-oral	45
Figura 40	a) Radiografia panorâmica que revela radiolucência unilocular acima dos ápices radiculares do segundo pré-molar superior esquerdo e do primeiro molar envolvendo segundo molar superior esquerdo não irrompido no centro, b) A tomografia computadorizada (TC) mostra uma radiolucência unilocular bem definida	46
Figura 41	OPG mostrando lesão expansiva na maxila anterior.	47
Figura 42	A e B – Tomografia computadorizada axial e sagital mostrando lesão expansível com calcificação intralesional	47
Figura 43	(a) Ortopantomograma pré-operatório: na mandíbula inferior esquerda, é observada uma lesão radiolúcida expansível de 3,8 x 1,5 cm com calcificações pontilhadas espalhadas nos dentes pré-molares e molares (b); ortopantomograma pós-operatório: uma mandibulectomia parcial com ressecção completa do tumor envolveu reconstrução óssea e dentária e retalho livre da fíbula; (c); A TC maxilofacial pré-operatória com reconstrução 3D ilustrou lesão radiolúcida expansível de 3,8 x 1,5 x 2 cm no corpo mandibular esquerdo e envolvimento das raízes dos dentes	48
Figura 44	A radiografia panorâmica mostrou uma radiolucência unilocular bem definida, com uma margem corticada que se estende da raiz distal do dente 38 até metade da área do ramo esquerdo e da área retromolar esquerda até o corpo mandibular	50
Figura 45	O ortopantomograma panorâmico e a visão do seio aéreo paranasal revelaram a presença de aparência radiológica do tipo “neve dirigida” sem o envolvimento do antro superior esquerdo	51
Figura 46	Tratamento cirúrgico da lesão por enucleação simples, seguida de curetagem do osso adjacente ao tumor e fragmento removido	52
Figura 47	Ressecção segmentar em bloco ou marginal. Preservação da margem inferior da mandíbula	53
Figura 48	Ressecção parcial. Perda da continuidade do osso.	54
Figura 49	Caso clínico. A) aspecto clínico intraoral. B) Aspecto radiográfico; C) Expansão da cortical lingual; D) Incisão e descolamento do mucoperiósteo; E) Enucleação por dissecação da lesão; F) Curetagem da loja óssea	55

SUMÁRIO

1	INTRODUÇÃO	11
2	PROPOSIÇÃO	13
3	REVISÃO DE LITERATURA	14
3.1	TUMORES ODONTOGÊNICOS	14
3.2	TUMOR ODONTOGÊNICO EPITELIAL CALCIFICANTE (TUMOR DE PINDBORG).....	16
3.2.1	Aspectos histológicos	18
3.2.2	Aspectos radiográficos e tomográficos do TOEC	21
3.3	DIAGNÓSTICO DIFEENCIAL	48
3.4	TRATAMENTO.....	51
3.5	RECORRÊNCIA/RECIDIVA	56
4	DISCUSSÃO	57
5	CONCLUSÃO	60
	REFERÊNCIAS	61

1 INTRODUÇÃO

Os tumores derivados dos tecidos dentinários constituem um grupo muito diversificado de lesões que apresentam o desenvolvimento complexo das estruturas dentinárias, pois todos surgem de alguma alteração no padrão normal da odontogênese (El-Naggar et al., 2017; Almazyad et al., 2018).

Os tumores odontogênicos (TO) são sempre um assunto complexo, pois compreendem diversas lesões de natureza odontogênica que apresentam comportamento autenticamente neoplásico, ao passo que outras são basicamente hamartomas (Dib et al. 2020). Estas lesões ocorrem exclusivamente na maxila e na mandíbula, em geral como neoplasias benignas assintomáticas e de crescimento lento que podem ser localmente agressivas e a invadir ossos e tecidos moles adjacentes (Ando et al. 2017; Kamboj et al., 2020; Nery Neta et al., 2020). Quando localizado na maxila, pode estar associado a epistaxe, congestão nasal, proptose e dor de cabeça (Kamath; Abraham, 2012).

Estas entidades são relativamente frequentes e podem representar de 2,5% a 5% dos diagnósticos realizados nos laboratórios de patologia oral (Azevedo e Pires, 2016). Sua origem é creditada à proliferação de remanescentes dos tecidos moles e duros que originam os dentes, mas sua patogênese exata ainda é desconhecida. Como os dentes são formados no interior dos ossos gnáticos, os TOs são entidades preferencialmente intraósseas, muito embora possam surgir nos tecidos moles da gengiva e do rebordo alveolar (El-Naggar et al., 2017; Ando et al., 2017; Dib et al. 2020).

De acordo com a Organização Mundial de Saúde (OMS) (El-Naggar et al. 2017), os TOs são classificados em dois grandes grupos: tumores odontogênicos benignos e malignos (este último incluindo carcinomas, carcinosarcoma e sarcomas odontogênicos), além de quatro grupos adicionais de lesões denominadas cistos de desenvolvimento odontogênicos e não odontogênicos, tumores maxilofaciais de osso e cartilagem, lesões fibro-ósseas e osteocondromatosas e lesões de células gigantes e cistos ósseos.

Os tumores odontogênicos também são subdivididos em três grupos considerando a presença de epitélio odontogênico, mesênquima e ectomesênquima odontogênico (Ando et al., 2017).

Clinicamente, os tumores odontogênicos benignos não costumam apresentar sintomas, podem deslocar dentes e produzir expansão da cortical óssea, algumas vezes atingindo grandes dimensões (Almazyad et al., 2018).

Dentre os tumores odontogênicos benignos, o tumor odontogênico epitelial calcificante (TOEC) é um tumor odontogênico benigno de origem epitelial, pouco frequente (com incidência variando de 0,4 a 3% (Munteanu et al., 2016), mas pode ser de natureza local agressiva (Szporek et al., 2005). A maioria das lesões está localizada nas regiões dos molares e pré-molares (Foroughi et al., 2015; Nery Neta et al., 2020), podendo ocorrer fora do osso em áreas de inserção dos dentes (Santana et al., 2018).

Durante a avaliação microscópica, um patologista que desconheça estas características pode confundir-lo com uma lesão maligna, por isso é fundamental a sua avaliação por um patologista oral para o diagnóstico correto e tratamento adequado (Almazyad et al., 2018; Dib et al., 2020).

Exames de raio-X e tomografia computadorizada devem ser realizados para obter informações sobre a localização e características do tumor (Szporek et al., 2005)

2 PROPOSIÇÃO

Neste trabalho apresenta-se o tumor odontogênico epitelial calcificante (TOEC), enfatizando-se seus aspectos diagnósticos (radiológicos e tomográficos) mais importantes.

3 REVISÃO DE LITERATURA

3.1 TUMORES ODONTOGÊNICOS

Basicamente, os tumores odontogênicos são aberrações do processo indutivo da odontogênese; portanto, a aparência microscópica das lesões lembrará sempre momentos diferentes do processo de formação dentária (Almazayad et al., 2018). Relembrando a odontogênese, é importante ressaltar que a formação do órgão dentário é resultado da interação dos tecidos epiteliais da lâmina dentária com o ectomesênquima especializado, originando induções que alteram tanto as células epiteliais quanto as ectomesenquimatosas (Ando et al. 2017).

Na literatura já existiram diversos tipos de classificação, alguns com enfoque clínico, outros com ênfase radiográfica.

A primeira tentativa de classificação dos tumores odontogênicos foi atribuída a Broca, em 1866, que denominou de “odontoma” todos os tumores odontogênicos conhecidos naquela época. Somente após 80 anos, Thomas e Goldman formularam uma classificação que é considerada a base de todas as demais classificações que a sucederam, e que foi fundamentada na origem embrionária da lesão (Philipsen e Reichart, 2006). Os tumores odontogênicos foram classificados em epiteliais, mesenquimais e mistos, ficando o termo “odontoma” restrito apenas às lesões que mostravam formação de esmalte, dentina e cemento (Ando et al. 2017).

Em 1970, Pindborg subdividiu os tumores de origem epitelial de acordo com sua capacidade indutiva ou não no tecido mesenquimal (Philipsen e Reichart, 2006).

Logo após, em 1971, a OMS, com a colaboração de um grupo de especialistas de diferentes países, inclusive do Brasil, publicou a Classificação Histológica Internacional de Tumores número 5, na qual as neoplasias odontogênicas foram subdivididas apenas em dois grupos: tumores benignos e malignos (Philipsen e Reichart, 2006).

Esta classificação foi muito difundida, permanecendo por mais de 20 anos, até que, em 1992, a OMS apresentou uma nova classificação, em que foram

introduzidas algumas modificações, e apesar de conservarem as duas grandes categorias de benignos e malignos, os tumores odontogênicos benignos foram subdivididos em três grupos em relação à presença de epitélio odontogênico: epitélio odontogênico sem ectomesênquima odontogênico; epitélio odontogênico com ectomesênquima odontogênico, com ou sem formação de tecidos dentários mineralizados; e, ectomesênquima odontogênico com ou sem epitélio odontogênico (Philipsen e Reichart, 2006).

A classificação da OMS de 2005 manteve esta classificação acrescentando um grande grupo denominado lesões ósseas relacionadas, e o grupo de cistos odontogênicos foi suprimido (Barnes et al., 2005).

No entanto, a classificação mais aceita é da OMS, de 2017, que organiza as lesões considerando seus aspectos histopatológicos e radiográficos. Deve-se ponderar que, nesta última edição da OMS, só foram consideradas as lesões publicadas nos últimos anos (El-Naggar et al., 2017)

Nesta última classificação de 2017 houve uma simplificação, classificando-os apenas como tumores epiteliais, mistos ou mesenquimais (ectomesenquimatosos). A seguir, são apresentados os tumores odontogênicos segundo a classificação da OMS de 2017 (El-Naggar et al., 2017):

- a) Tumores epiteliais: Ameloblastoma (unicístico, periférico/extraósseo e metastizante/maligno); tumor odontogênico escamoso, tumor odontogênico epitelial calcificante e tumor odontogênico adenomatoide.
- b) Tumores mistos/epiteliais e mesenquimais: fibroma ameloblástico, tumor odontogênico primordial, odontoma complexo, odontoma composto e tumor dentinogênico de células-fantasma.
- c) Tumores mesenquimais (ectomesenquimatosos): fibroma odontogênico, mixoma odontogênico/mixofibroma e fibroma cemento-ossificante.
- d) Tumores odontogênicos malignos: carcinoma ameloblástico, carcinoma intraósseo, carcinoma odontogênico esclerosante, carcinoma odontogênico de células claras, carcinoma odontogênico de células fantasma, carcinossarcoma odontogênico e sarcomas odontogênicos.

Os tumores odontogênicos também possuem uma classificação,

considerando seu aspecto radiográfico, em tumores radiolúcidos, radiopacos e mistos (radiolúcidos e radiopacos). A imagem radiográfica, a faixa etária do paciente e a localização podem contribuir para o diagnóstico do tumor, entretanto, na maioria dos casos, o diagnóstico final é obtido pelo exame histopatológico, por meio de uma biopsia incisional ou excisional (Carvalhosa et al., 2005; Gupta et al., 2006; El-Naggar et al., 2017).

Sendo assim, pode-se dizer que a heterogeneidade microscópica dos tumores é muito grande, visto que podem associar-se à proliferação de remanescentes odontogênicos de origem ectodérmica, ectomesenquimal ou de ambas. Assim como acontece na odontogênese, seu padrão microscópico pode estar restrito à proliferação de um só componente ou de vários, incluindo as interações na formação dos tecidos moles e duros que conduzirão a formação dos dentes (Azevedo; Pires, 2016).

3.2 TUMOR ODONTOGÊNICO EPITELIAL CALCIFICANTE (TUMOR DE PINDBORG)

O tumor odontogênico epitelial calcificante (TOEC) está incluso no grupo dos tumores odontogênicos benignos de origem epitelial (Gupta et al., 2006), que se caracterizam pela presença de proliferação de epitélio odontogênico em um estroma de tecido conectivo fibroso e que não exibem a presença de ectomesênquima odontogênico e dos principais produtos da interação epitélio/ectomesênquima odontogênico, a dentina e o esmalte (Philipsen e Reichart, 2006).

O TOEC foi descrito em 1955 por Jens J. Pindborg, passando a ser conhecido pelo seu epônimo: Tumor de Pindborg (Akhtar et al., 2010; Misra et al., 2013; Dib et al. 2020), tendo os seus primeiros casos relatados por Thoma e Goldman, em 1946, como um “adamantoblastoma adenoide” e, em 1971, o termo “tumor odontogênico epitelial calcificante” foi aceito e adotado pela OMS (Philipsen e Reichart, 2006).

Embora sua histogênese seja discutida, atualmente considera-se como um tumor odontogênico benigno e raro, com caráter agressivo local e tendência a recidiva (Santana et al. 2018), de origem epitelial rica em proteína amiloide e que

tem a tendência a calcificar (Gupta et al., 2006). Além disso, outras apresentações histológicas também foram descritas, não calcificante, célula clara, cístico, cribriforme (Kamboj et al., 2020).

É um tumor relativamente raro, representando menos de 1% de todos os TOs que pode ser dividido em duas variantes clínico-topográficas: intraóssea (central) e extraóssea (periférica), com uma incidência de 6% dos casos quando localizado na variante extraóssea (geralmente localizados na região anterior das mandíbulas e envolvendo a gengiva), porém a forma intraóssea é a mais observada em 94% dos casos (Sahni et al., 2012; Kamath; Abraham, 2012; Misra et al., 2013), afetando em 75% dos casos a mandíbula, principalmente a região posterior (Philipsen e Reichart, 2006; Tanaka et al., 2013).

Pacientes de ambos os sexos são acometidos, com faixa etária variando de 20 a 60 anos, com um pico de incidência na 5ª década de vida (Ching et al., 2000; Akhtar et al., 2010; Nery Neta et al., 2020). Entretanto, já foram descritos casos em crianças (13 anos de idade) (Fazeli et al., 2019).

Os pacientes são, em geral, assintomáticos e o tumor tem crescimento lento, podendo causar aumento de volume na região, estando relacionado com um dente incluso (Tanaka et al., 2013) em aproximadamente 50% dos casos (Sahni et al., 2012; Dib et al. 2020).

Clinicamente, o TOEC pode exibir um aumento de volume de crescimento lento, com predileção pela região de pré-molares e molares mandibulares (Foroughi et al., 2015; Almazyad et al., 2018). Dor ou parestesia podem ou não ser uma característica, dependendo do tamanho do tumor, do padrão de crescimento ou de sua localização anatômica e da proximidade das estruturas neurovasculares (Sahni et al., 2012; Pereira et al., 2013).

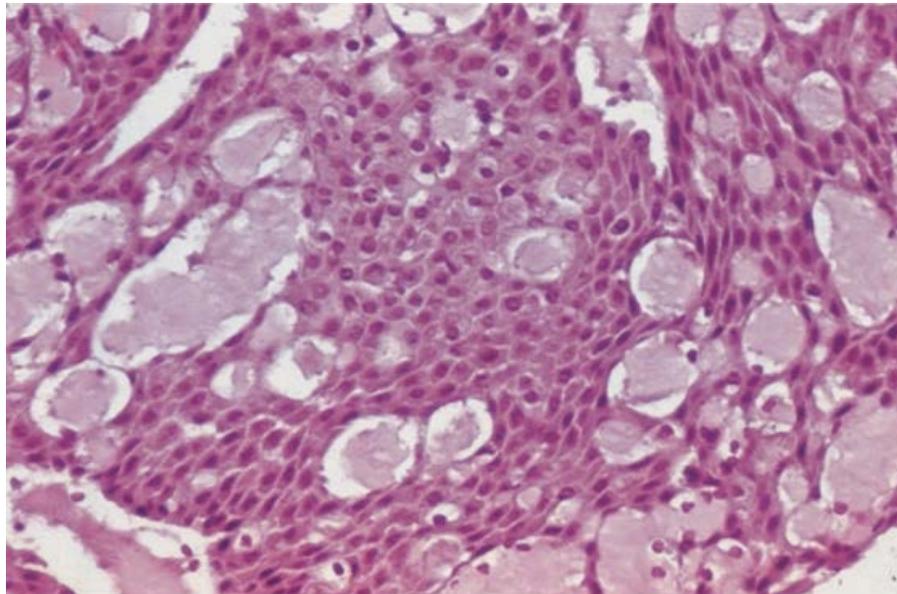
Há casos de TOEC com comportamento mais agressivo, onde foi verificada tumefação dolorosa, com rápido crescimento da massa tumoral, ruptura da cortical, compressão do nervo alveolar inferior e infecção secundária (Henriques et al. 2009).

Os achados citológicos característicos, associados às características radiológicas, podem ajudar o citopatologista a prestar um diagnóstico pré-operatório conciso do TOEC, mesmo em locais atípicos como a maxila (Gupta et al., 2006).

3.2.1 Aspectos histológicos

O TOEC é caracterizado histologicamente pela proliferação de células epiteliais poliédricas exibindo abundante citoplasma eosinofílico, pleomorfismo celular e nuclear, hipercromatismo, nucléolos proeminentes ou lençóis. Ou seja, é constituído por ilhas ou cordões de células epiteliais eosinofílicas com pontos intercelulares proeminentes e pleomorfismo nuclear (FIG. 1) (Almazyad et al., 2018).

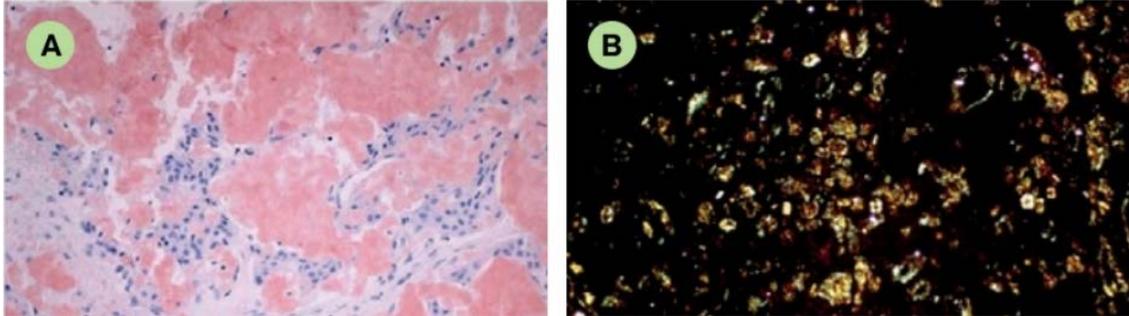
Figura 1 – Histopatologia do TOEC. Células poliédricas com pleomorfismo e material semelhante a amiloide



Fonte: Dib et al. (2020).

Na maioria dos casos de TOEC há a presença de um material eosinofílico homogêneo e hialino dentro e por entre as células epiteliais, de natureza amiloide (FIG 2) e que se cora em vermelho claro pelo método histoquímico de vermelho Congo ou Tioflavina T e adquire uma cor amarelada/esverdeada birrefringente na observação sob luz polarizada (Dib et al. 2020).

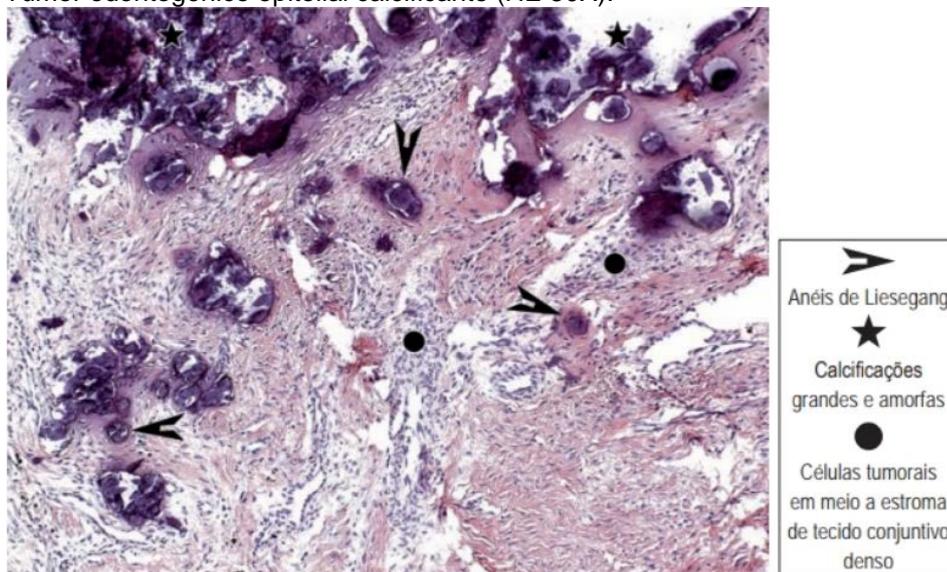
Figura 2 – Uso de coloração especial em TOEC. (A) Detalhe do material amiloide corado em vermelho congo, que exibe uma cor amarelada/esverdeada ao ser visualizado sob luz polarizada (B). Objetiva, 10X.



Fonte: Dib et al. (2020).

As células epiteliais associadas podem degenerar, liberando as massas acidófilas e calcificadas, que apresentam anéis concêntricos de Liesegang, sinal patognomônico da lesão (Tanaka et al. 2013). Essas calcificações podem fusionar-se, levando à formação de grandes áreas mineralizadas (FIG. 3). O estroma da lesão é composto de tecido conjuntivo denso e, ocasionalmente, observam-se células claras (Sperandio; Giudice, 2018).

Figura 3 – Tumor odontogênico epitelial calcificante (HE 50X).

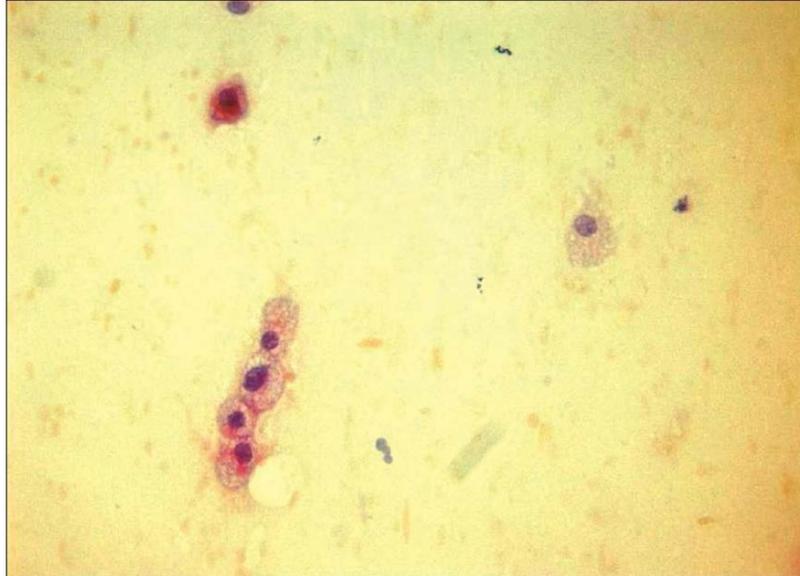


Fonte: Sperandio e Giudice (2018).

O relato de esfregaços citológicos é caracterizado por aglomerados, lençóis e células pleomórficas isoladas raras do tipo escamoide; blocos de material amorfo cercados por fibroblastos e calcificações ocasionais. O esfregaço citológico de um estudo importante mostrou aglomerados de células epiteliais com núcleos basofílicos e bordas bem definidas e uniformes colocados centralmente misturados

com hemácias e células inflamatórias. As células epiteliais eram de forma poliédrica com bordas bem definidas com citoplasma eosinofílico pálido. Poucas células apresentaram pleomorfismo nuclear e celular (FIG. 4) (Sahni et al., 2012).

Figura 4 - Células epiteliais em aglomerados com núcleos centrais basofílicos uniformes. (Ampliação 40 x; coloração com hematoxilina e eosina)

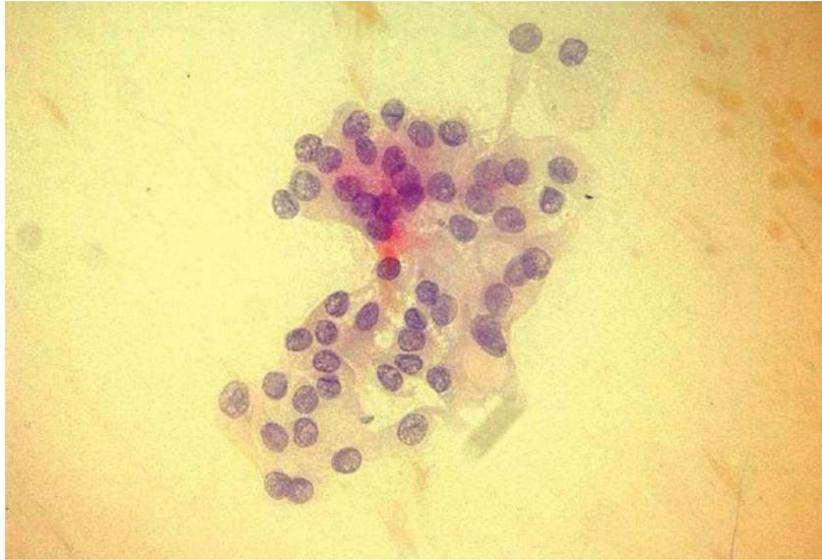


Fonte: Sahni et al. (2012).

O grau variável de pleomorfismo nuclear pode levar um observador inexperiente a confundir estas células epiteliais com aquelas vistas em um carcinoma de células escamosas intraósseo; mas, ao contrário do que se observa neste último, a presença de mitoses no TOEC é extremamente rara (Tanaka et al., 2013).

Células com citoplasma claro (FIG. 5) podem ser eventualmente observadas neste tumor as quais são mais frequentes em lesões periféricas e não parecem alterar seu comportamento biológico e seu prognóstico (Sperandio/Giudice, 2018).

Figura 5 – Células poliédricas com células distintas, limita núcleos e citoplasma eosinofílico pálido (Ampliação 40x; coloração em hematoxilina e eosina).



Fonte: Sahni et al. (2012).

Raramente este tipo de tumor aparece fora do osso, em áreas associadas a dentes. Em tais casos, o epitélio neoplásico parece menos ativo, e há menos focos de calcificação que no tipo intra-ósseo (Almeida, 2016).

Várias variantes histológicas do TOEC foram relatadas, como células claras (Rydin et al., 2016), células de Langerhans, formação de cimento, não calcificantes, associadas ou combinadas com outras lesões odontogênicas, como tumor odontogênico adenomatoide, com revestimento cístico associado e TOEC com células mioepiteliais (Channappa et al., 2012; Shetty et al., 2014).

3.2.2 Aspectos radiográficos e tomográficos do TOEC

As imagens, incluindo radiografia convencional, tomografia computadorizada e ressonância magnética, revelaram uma lesão bem definida no osso alveolar da maxila esquerda, que continha um dente impactado e algumas radiopacidades pequenas. A tomografia computadorizada e a ressonância magnética demonstram aumento do contraste principalmente na porção central da lesão (Uchiyama et al., 2012).

Radiograficamente, o TOEC pode apresentar aspecto radiolúcido unilocular bem delimitado, mas 25% dos casos podem ser multiloculares. Quando

unilocular, associado à coroa de um dente incluído, entra no diagnóstico diferencial com o cisto dentígero (Ching et al., 2000; Henriques et al., 2009), e quando multilocular, apresenta aspecto semelhante a “favos de mel”, podendo ser confundido com o ameloblastoma (ameloblastoma sólido/multicístico) (Sousa et al., 2015).

Finalmente, pode se apresentar como uma lesão mista (radiolúcida e radiopaca), com aparência radiográfica semelhante à do fibrodontoma ameloblástico, tumor odontogênico adenomatoide e cisto odontogênico calcificante. A presença destas calcificações no exame radiográfico tem sido descrita como em aspecto de “neve caindo”. A figura 6 mostra um TOEC unilocular, com calcificações e a figura 7 uma tomografia computadorizada de feixe cônico (TCFC) deste mesmo caso. A figura 8 apresenta um corte cirúrgico realizado no referido caso. No entanto, calcificações, às vezes, podem não ser evidentes nas radiografias.

Figura 6 – Tumor odontogênico epitelial calcificante unilocular, com calcificações, deslocamento dentário e reabsorção radicular.



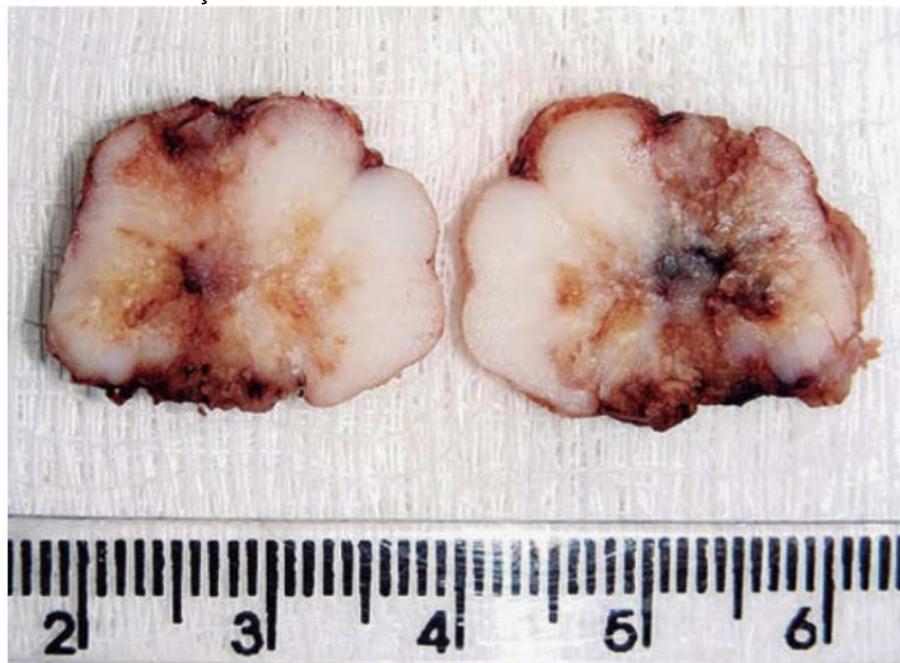
Fonte: Dib et al. (2020).

Figura 7 - TCFC do caso apresentado



Fonte: Dib et al. (2020).

Figura 8 – Peça cirúrgica do caso da figura 2. Observam-se pontos amarelados na superfície de corte que correspondem a calcificações centrais.



Fonte: Dib et al. (2020).

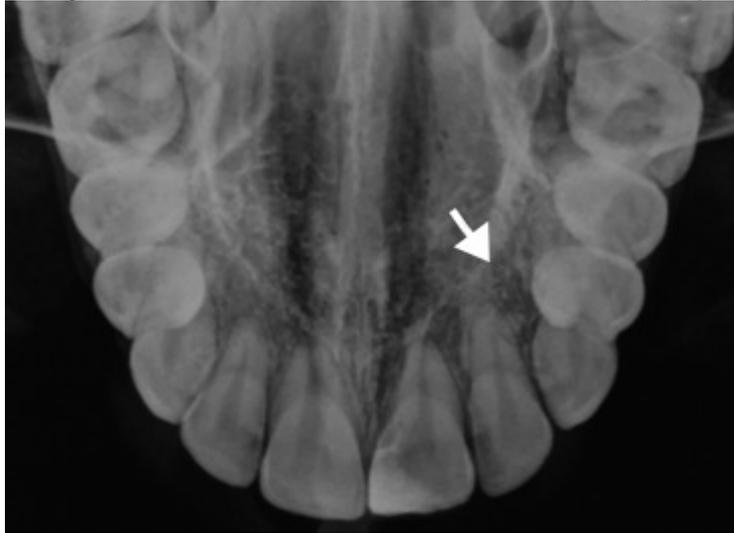
No estudo de Sousa et al. (2015), ao exame radiográfico foi observada uma área radiotransparente circunscrita unilocular, delimitada por um halo radiopaco, contendo material radiopaco em permeio, localizada no rebordo alveolar entre os terços médios das raízes dos dentes 22 e 23 (Figuras 9 e 10).

Figura 9 – Radiografia periapical mostrando lesão radiotransparente unilocular, bem delimitada, contendo material radiopaco no seu interior, localizada na região anterior da maxila do lado esquerdo, projetada na região das raízes dos dentes 22 e 23 (seta).



Fonte: Sousa et al. (2015).

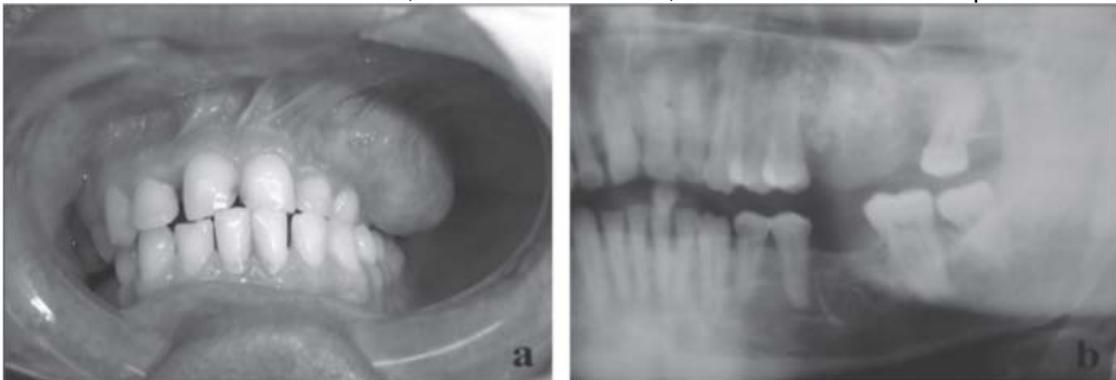
Figura 10 – Radiografia oclusal total de maxila mostrando a lesão (seta)



Fonte: Sousa et al. (2015).

Um estudo apresentado por Nascimento et al. (2009), descreveu caso clínico de paciente exibindo aumento de volume na região maxilar esquerda. À inspeção intra-oral, constatou-se massa nodular (8,0 x 5,0cm), localizada em gengiva vestibular maxilar esquerda, estendendo-se da região de incisivo lateral ao segundo molar (Fig. 11a), com consistência mole e superfície lobular. Os exames radiográficos revelaram área radiolúcida, com bordos indistintos, associada a depósitos radiopacos centrais (Fig. 11b), expansão e reabsorção da cortical vestibular, sendo diagnosticado TOEC.

Figura 11 (a) – lesão nodular exofítica localizada em gengiva vestibular maxilar; (b) radiografia panorâmica exibindo lesão radiolúcida, de bordos indistintos, com focos centrais radiopacos.



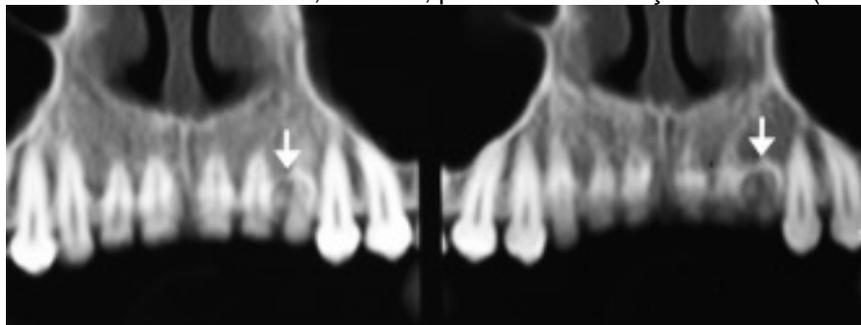
Fonte: Nascimento et al. (2009).

As características da tomografia computadorizada (TC) e da ressonância magnética (RM) são mais específicas, com a TC mostrando uma área bem definida

de alteração dos tecidos moles com focos dispersos de alta densidade. A natureza expansiva da lesão produz afinamento cortical, sem destruição óssea e sem invasão de tecidos moles. A imagem da RM é relatada como baixa intensidade de sinal na imagem ponderada em T1 e alta intensidade na imagem ponderada em T2 (Sahni et al., 2012).

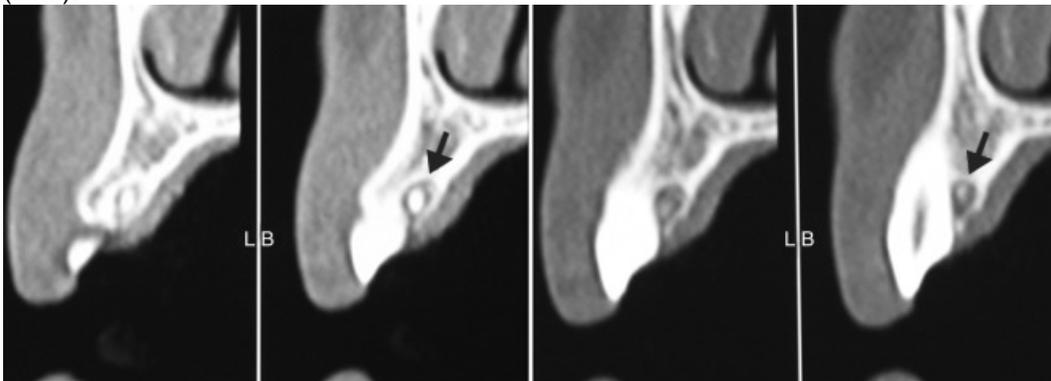
A tomografia computadorizada cone beam (TCCB) apresenta vantagens relacionadas com a baixa dose de radiação e maior grau de detalhamento das lesões tumorais benignas. Ela permite o detalhamento dos tumores, auxiliando no planejamento, tratamento e acompanhamento dos casos. No estudo de Sousa et al. (2015), para uma melhor avaliação da dimensão, localização, relação com estruturas adjacentes, periferia e conteúdo da lesão TOEC, foi solicitada uma tomografia computadorizada, a qual mostrou lesão hipodensa, bem delimitada, contendo estrutura hiperdensa irregular no seu interior, medindo aproximadamente 7mm de diâmetro, localizada próximo à cortical palatina da maxila, entre os dentes 22 e 23, sem promover reabsorção radicular dos mesmos (FIG. 12 e 13).

Figura 12 – Exame tomográfico em reconstrução panorâmica mostrando a íntima relação da lesão com as raízes dos dentes 22 e 23 sem, contudo, promover reabsorção radicular (seta).



Fonte: Sousa et al. (2015)

Figura 13 – Exame tomográfico em cortes transversais mostrando a localização palatina da lesão (seta).



Fonte: Sousa et al. (2015)

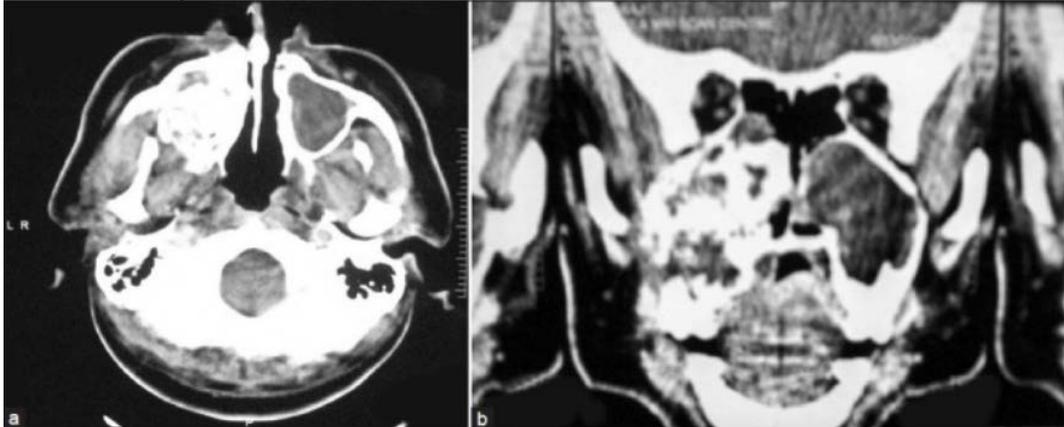
Sahni et al. (2012) descreveram um caso de paciente do sexo masculino, 52 anos de idade, apresentando edema na região da bochecha direita há 18 meses, edema solitário bem definido, medindo 3 x 2 x 1,5 cm, que se estendia da superfície distal do canino superior direito à área retromolar do palato duro, mobilidade grau II de todos os molares envolvidos, assim como inchaço de consistência firme (FIG. 14). No exame radiográfico, a radiografia oclusal mostrou obliteração completa do seio. A visão panorâmica mostrou lesão radiolúcida e radiopaca envolvendo o alvéolo direito e o seio maxilar com erosão da parede lateral e do assoalho do seio. Múltiplos focos de radiopacidade, simulando manchas de calcificações, foram vistos, dando-lhe uma "aparência dirigida pela neve". A tomografia computadorizada (TC) mostrou o envolvimento do seio maxilar direito e demonstrou áreas radiolúcidas e radiopacas mistas. A lesão se estendeu em direção à parede lateral do nariz (FIG. 15).

Figura 14 – Inchaço expansivo e bem definido, envolvendo o palato duro direito e estendendo-se em direção à borda anterior do palato mole.



Fonte: Sahni et al. (2012).

Figura 15 - (a) TC mostrando um grande tumor envolvendo o seio maxilar direito, demonstrando áreas radiolúcidas e radiopacas mistas invadindo o assoalho orbital (b) TC demonstrando radiopacidades maciças no seio maxilar causando erosão da parede lateral do nariz.



Fonte: Sahni et al. (2012).

Um caso de TOEC gigante foi relatado por Misra et al. (2013). O paciente, de 38 anos de idade, notou inicialmente um pequeno inchaço no lado direito da face que cresceu progressivamente para atingir seu tamanho atual, devido ao comprometimento da mastigação e da fala (FIG. 16). No exame clínico, observou-se um inchaço enorme e bem circunscrito no lado direito da face, de forma ovóide, estendendo-se do ramo direito, cruzando a linha média até a região da parassínfise esquerda da mandíbula, medindo 12 × 10 cm na maior consistência óssea e não palpável. A abertura da boca era restrita; a distância interincisal é de 20 mm. Intra-oralmente, observou-se um grande edema que se estende do dente 33 até a região retromolar direita, com expansão bicortical, obliterando o sulco bucal direito, com lobulações presentes no aspecto lingual (FIG. 17). As radiografias oclusais e panorâmicas revelaram uma única lesão radiopaca-radiolúcida circular bem definida e mista com expansão bicortical, no lado direito da mandíbula, com deslocamento dos dentes mandibular e maxilar. Havia a presença de uma massa radiopaca no centro da lesão, que poderia ser um dente impactado ou odontoma com estrias radiopacas, sugestivas de aparência de "neve dirigida" (FIG. 18). Imagens de TC multiplanares e reconstruções tridimensionais auxiliadas por computador são úteis para delinear a extensão da lesão, essencial para o planejamento cirúrgico. Sendo assim, imagens de tomografia computadorizada (TC) nos planos axial, coronal e sagital (FIG. 19 e 20) mostraram uma lesão grande e bem definida do tecido místico, medindo 12 × 10 cm, com um componente predominantemente calcificado em um padrão de floco de neve observado na mandíbula direita. Múltiplos ossículos e densidades ossificáveis com 700 a 1600 unidades de Hounsfield foram observados

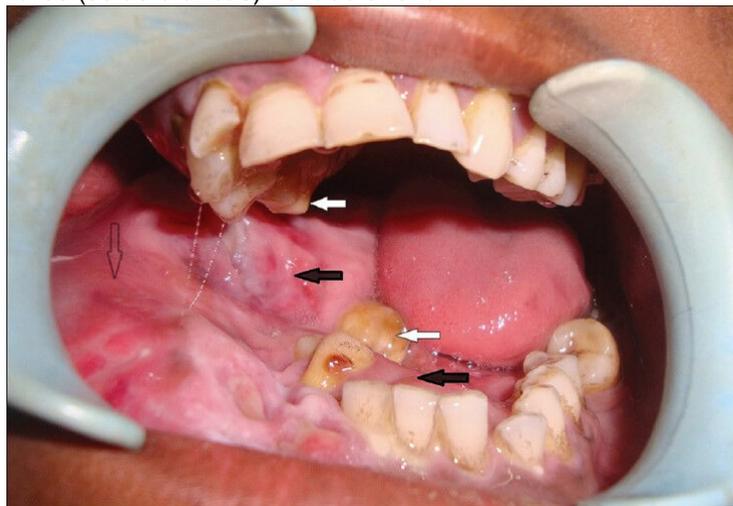
em toda a lesão. Toda a massa tumoral foi bem circunscrita com expansão dos córtices sem perfuração (FIG. 21). As aparências radiológicas foram sugestivas de tumor calcificado, mas um diagnóstico definitivo foi confirmado por histopatologia. Foi realizada hemimandibulectomia seguida de reconstrução microvascular com enxerto de fíbula livre para restaurar o enorme defeito cirúrgico.

Figura 16 – Vista frontal do inchaço se estendendo do ramo direito (contorno da seta preta) cruzando a linha média até a região da parassínfise esquerda (seta preta sólida) da mandíbula.



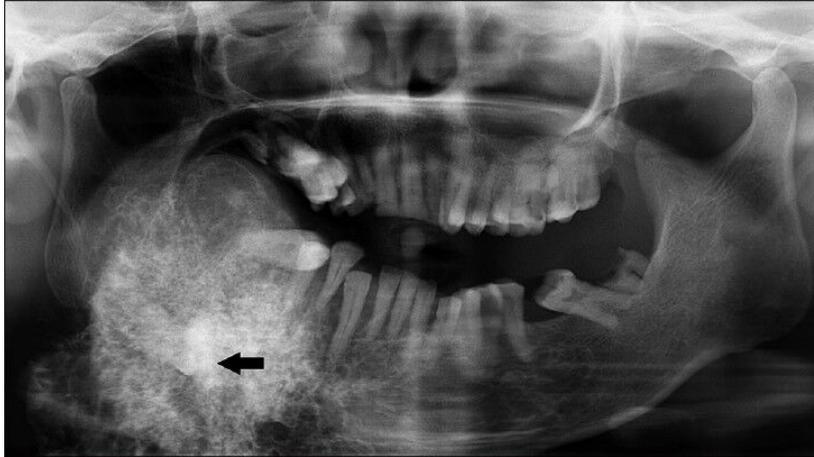
Fonte: Misra et al. (2013)

Figura 17 - A visão intraoral revela um edema com expansão bicortical, obliterando o sulco bucal, (contorno em seta preta) presente lingualmente (setas pretas sólidas) com deslocamento dos dentes mandibulares e maxilares (setas brancas) no lado direito.



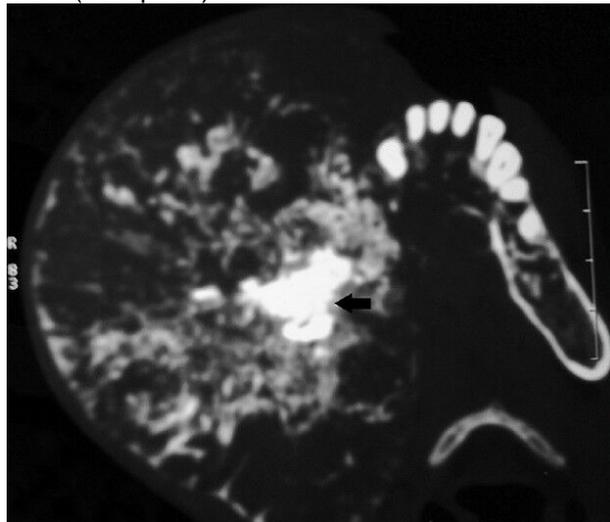
Fonte: Misra et al. (2013)

Figura 18 - A radiografia panorâmica mostra uma única lesão radiopaca-radiolúcida circular bem definida e mista no lado direito da mandíbula com deslocamento dos dentes inferiores e superiores. A presença de uma massa radiopaca no centro da lesão (seta preta) com estrias radiopacas tem a aparência de “neve dirigida”.



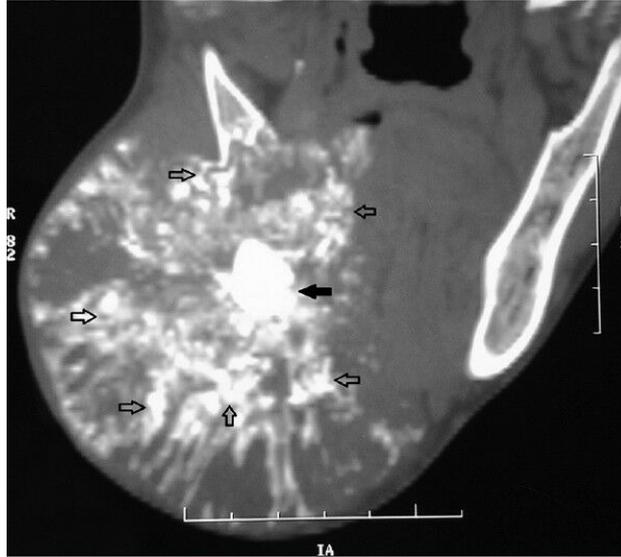
Fonte: Misra et al. (2013)

Figura 19 - A tomografia computadorizada de vista axial mostra uma enorme massa tumoral heterodensa bem definida no lado direito da mandíbula com a presença de uma massa irregular hiperdensa no centro da lesão (seta preta)



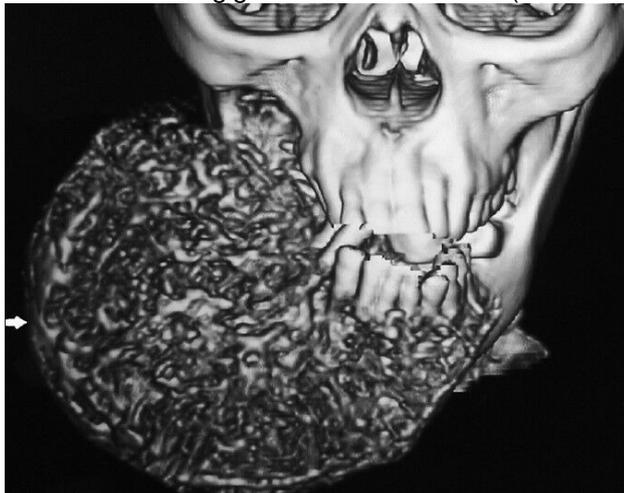
Fonte: Misra et al. (2013)

Figura 20 - A tomografia computadorizada em corte coronal mostra uma massa tumoral heterodensa bem definida na mandíbula direita com uma massa hiperdensa irregular central (seta preta sólida) com várias calcificações irregulares com um padrão de “flocos de neve” (setas pretas de contorno).



Fonte: Misra et al. (2013)

Figura 21 - Uma reconstrução multidimensional da tomografia computadorizada usando um algoritmo de tecido duro exhibe a extensão do tumor gigante bem circunscrito (seta branca).



Fonte: Misra et al. (2013)

Rani et al. (2016) descreveram um caso de um tumor odontogênico epitelial calcificado da maxila, com proporções enormes, envolvendo o seio maxilar de uma mulher de 48 anos de idade. O tumor era em grande parte intraóssea. Nas regiões canina e do primeiro pré-molar, a perda óssea pode ser palpada, mas a mucosa oral parece normal. Histologicamente, o tecido tumoral pode ser visto no tecido conjuntivo abaixo do epitélio oral. O achado mais significativo foi a presença de um tumor intraósseo com envolvimento extraósseo em um único tumor, indicando comportamento agressivo e justificando tratamento agressivo. Uma tomografia computadorizada mostrou uma lesão radiolúcida-radiopaca bem definida envolvendo

o seio maxilar direito. Destruição da placa cortical bucal foi observada em 1 área. Nenhuma invasão nas outras estruturas vitais foi observada. Por conseguinte, foi feito um diagnóstico provisório de um fibroma ossificante (FIG. 22). O diagnóstico de TOEC foi confirmado. A histopatologia da biópsia por excisão produziu o mesmo quadro da biópsia incisional. Entretanto, em uma área, o tumor foi observado no tecido conjuntivo, adjacente ao epitélio da mucosa oral. Não foram observadas características de transformação maligna. Foram examinados 3 a 4 mm da superfície dos tecidos moles raspando a totalidade da amostra enucleada; mostrou apenas um tecido conjuntivo fibroso denso sem nenhum tecido tumoral. Foi feito o diagnóstico histopatológico de um TOEC com envolvimento extraósseo. Dada a natureza agressiva da lesão, foi recomendado acompanhamento clínico regular. O pós-operatório foi sem intercorrências.

Figura 22 – TC mostrando lesão radiolúcida-radiopaca mista envolvendo o seio maxilar. O osso periférico parece descontínuo em algumas áreas.

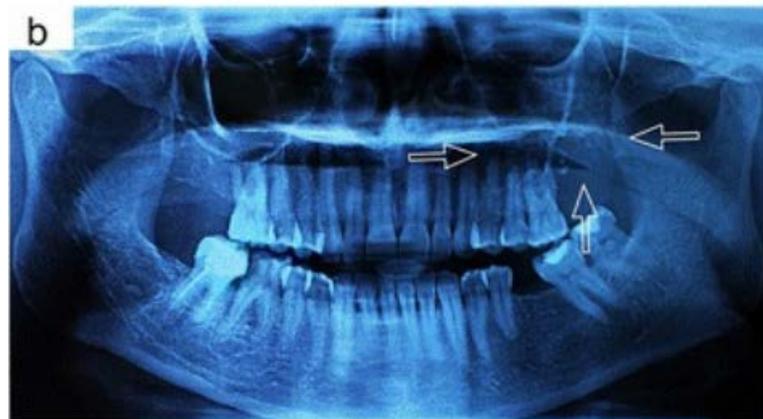


Fonte: Rani et al. (2016)

No estudo de Munteanu et al. (2016), uma paciente apresentando leve inchaço na bochecha esquerda, mais óbvio no lado posterior da região zigomática,

indolor e com consistência difícil na palpação, com edema difuso se estendendo do primeiro pré-molar superior esquerdo às regiões de tuberosidade e retromolar que obliterava o vestíbulo bucal, foi submetida a exames radiográficos e tomográficos. O ortopantomograma mostrou lesão radiolúcida envolvendo a tuberosidade da maxila esquerda, o processo alveolar e o seio maxilar com erosão da parede lateral e do assoalho do seio (Fig. 23). Na tomografia computadorizada observou-se lesão expansiva e radiolúcida da maxila esquerda (cerca de 4cm de diâmetro) com áreas dispersas de calcificação que obliteraram completamente o seio maxilar esquerdo (Fig. 24). O exame mostrou extensão tumoral e envolvimento do processo alveolar (atrás do primeiro pré-molar com afinamento cortical bucal, erosão e invasão do tecido mole da região retromolar), seio maxilar com erosão das paredes laterais e nasais e assoalho do seio) e palatino. Um diagnóstico de TOEC intraósseo com extensão da submucosa do seio maxilar e vestibulo vestibular foi feito com base nestes achados. Histologicamente, este caso corresponde a uma variante TOEC rica em epitélio, mas com células claras S100 + dispersas e depósitos de material semelhante ao cimento.

Figura 23 – Ortopantomograma mostrando imagem osteolítica da maxila esquerda com poucos focos de calcificações.



Fonte: Munteanu et al. (2016)

Figura 24 - TC axial demonstrando radiolucência da maxila esquerda que obliterou completamente o seio maxilar e o envolvimento do processo alveolar com erosão da placa cortical e a invasão do tecido mole adjacente.

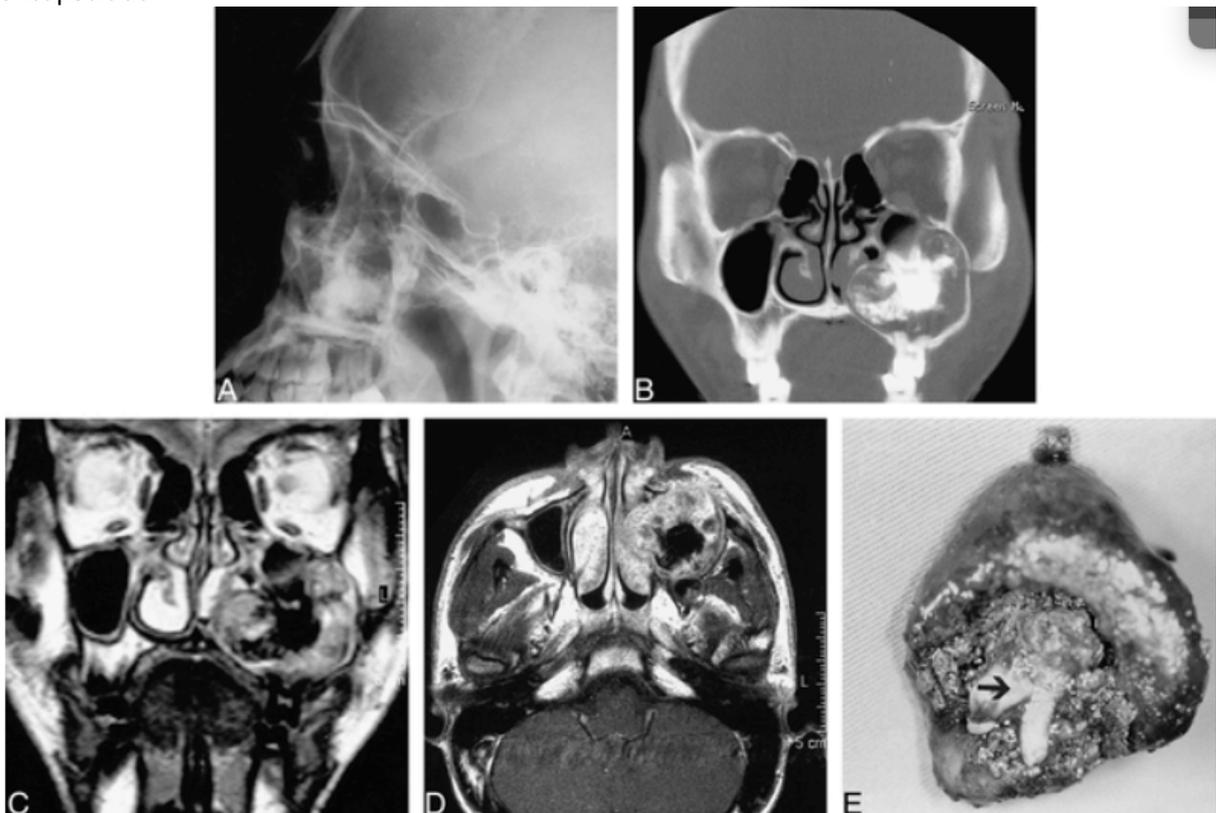


Fonte: Munteanu et al. (2016)

Também Ching et al. (2000) apresentaram caso clínico de paciente apresentando leve inchaço e sensibilidade facial esquerda após sofrer uma lesão facial esquerda em um acidente. A avaliação patológica desta lesão revelou TOEC. Radiografias simples dos seios mostraram opacidades apenas na maxila esquerda, com os outros seios parecendo normais. O seio maxilar foi expandido e um dente não irrompido estava presente em sua parede posterior (FIG. 25A). Uma tomografia computadorizada da região maxilofacial revelou uma massa heterogênea arredondada quase preenchendo todo o antro maxilar esquerdo. A lesão continha um dente central com calcificações amorfas circundantes e elementos de tecidos moles na periferia (FIG. 25B). A ressonância magnética mostrou uma grande massa heterogênea ocupando a maxila esquerda expandida. Havia áreas intralesionais de baixo sinal nas seqüências ponderadas em T1 e T2, consistentes com a calcificação e o dente maxilar identificado na tomografia computadorizada. As imagens ponderadas em T1 obtidas após a administração do material de contraste (0,1 mmol/kg) mostraram realce heterogêneo, principalmente na periferia da lesão. Antero-lateralmente, houve uma pequena ruptura cortical e extensão do músculo bucinador e tecidos subcutâneos da bochecha esquerda (FIG. 25 C e D). A lesão tumoral se estendeu inferiormente para envolver a crista alveolar. O segundo e

terceiro molares inferiores estavam ausentes. O tumor foi enucleado com o paciente sob anestesia geral. No intraoperatório, foi observada uma massa bem encapsulada, com áreas de calcificação e um segundo dente molar central não irrompido. O terceiro dente molar foi incorporado atrás da parede posterior do seio maxilar. O tumor e o terceiro dente molar foram removidos (FIG. 25 E).

Figura 25 – A) radiografia lateral do seio mostra opacidades na maxila esquerda e um dente não irrompido em sua parede posterior. B), TC coronal revela massa heterogênea arredondada, quase preenchendo todo o antro superior esquerdo. A lesão contém um dente central com calcificações amorfas circundantes e elementos de tecidos moles na periferia. C) RM coronal ponderada em T2 mostra uma grande massa heterogênea ocupando a maxila esquerda expandida. Havia áreas intralasionais de baixo sinal nas seqüências ponderadas em T2, consistentes com a calcificação e os dentes superiores identificados na tomografia computadorizada. D), Imagem axial ponderada em T1 com contraste axial mostra uma grande massa heterogênea ocupando a maxila esquerda expandida. Havia áreas intralasionais de baixo sinal nas seqüências ponderadas em T1, consistentes com a calcificação e os dentes superiores identificados na tomografia computadorizada. E) amostra bruta de um segundo molar não irrompido (seta) na substância calcificada do tumor bem encapsulado.

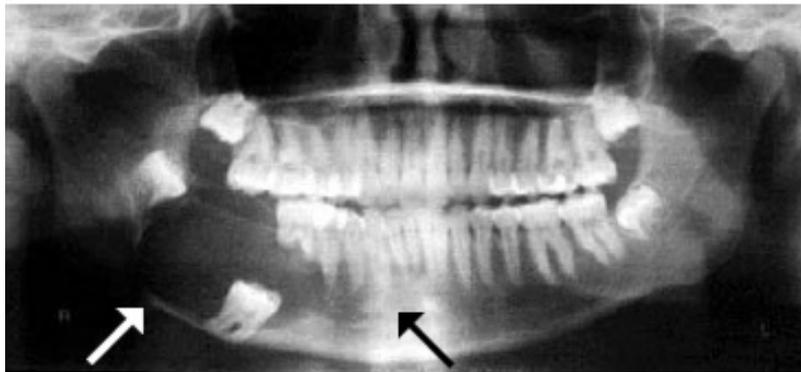


Fonte: Ching et al. (2000).

Deboni et al. (2006) descreveram um caso de TOEC avançado com características incomuns associadas a um segundo molar direito impactado na mandíbula, em paciente de 16 anos de idade. Uma radiografia panorâmica revelou uma lesão lítica grande e bem demarcada envolvendo o corpo direito da mandíbula,

estendendo-se anteriormente ao primeiro pré-molar direito, com um córtex muito fino e reabsorção das raízes dos primeiros molares. O segundo molar foi deslocado para a borda inferior da mandíbula enquanto o terceiro molar foi deslocado posteriormente (FIG. 26). A tomografia computadorizada (TC) mostrou uma massa isodensa bem circunscrita com expansão ântero-posterior e lateromedial dos córtices contendo opacidades estreladas irregulares com erosão óssea (FIG 27 e 28). Foi observada atenuação do realce de contraste envolvendo a porção posterior da lesão. Fenestração do córtex lingual, espaços multiloculares, vascularização e massas radiopacas também foram observadas nas imagens da TC. Após a biópsia incisional, o exame microscópico revelou neoplasia epitelial composta de lençóis e ninhos de células epiteliais poliédricas com citoplasma granular eosinofílico abundante. Os contornos celulares eram distintos e pontes intercelulares foram observadas. Polimorfismo nuclear considerável foi um achado frequente. Também foram identificadas substâncias extracelulares semelhantes a amilóides e depósitos concêntricos calcificados (os chamados anéis de Liesegang). O tratamento de escolha foi a ressecção segmentar da mandíbula direita com reconstrução da placa de titânio.

Figura 26 – radiografia panorâmica



Fonte: Deboni et al. (2006)

Figura 27 – Imagem de tomografia computadorizada axial ao nível dos tecidos moles demonstrando a extensão anteroposterior do tumor e mostrando a vascularização na porção posterior da lesão (seta).



Fonte: Deboni et al. (2006).

Figura 28 - Imagem de tomografia computadorizada coronal ao nível ósseo, mostrando a relação entre o dente impactado e a lesão. Expansão lateromedial e erosão óssea lingual também podem ser observadas (seta).

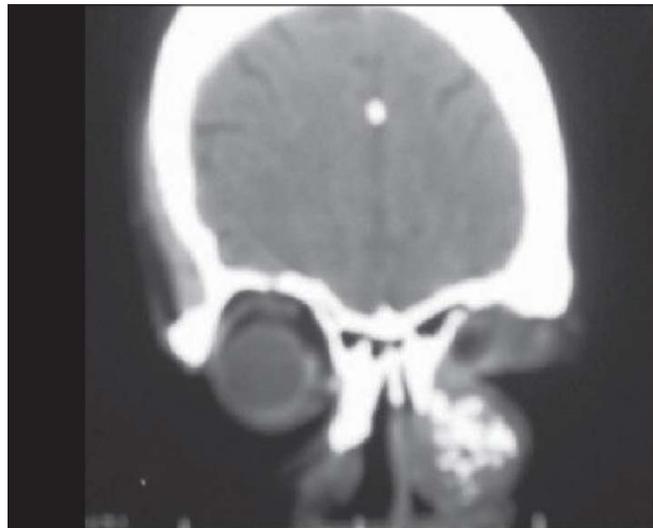


Fonte: Deboni et al. (2006).

Shanmuga et al. (2009) descreveram um caso de TOEC envolvendo a maxila esquerda associado a mieloma múltiplo em um paciente de 55 anos de idade, que apresentava, inicialmente, um inchaço nasal indolor, do lado esquerdo. A tomografia computadorizada (TC) da região maxilofacial revelou uma massa heterogênea arredondada sobre o lado esquerdo do dorso nasal e processo frontal da maxila esquerda (FIG. 29). Aspirado e biópsia da medula óssea foram consistentes com o diagnóstico de mieloma múltiplo (36% de células plasmáticas). Eletroforese de proteínas e imunofixação confirmaram Mieloma, o qual foi enucleado

sob anestesia geral. No intra-operatório, verificou-se uma massa no lado esquerdo do dorso do nariz e o processo frontal da maxila foi corroído. O exame histopatológico revelou uma neoplasia bem circunscrita, predominantemente composta de material eosinofílico acelular, organizado como nódulos, com extensa calcificação e ossificação. Foi realizado exame para amiloidoma do osso, que é uma condição rara caracterizada pela deposição destrutiva maciça do amiloide nos ossos. As células plasmáticas não estavam presentes. O vermelho do Congo manchou o material acelular, confirmando a natureza amiloide. O material acelular foi negativo para coloração por citoqueratina por imuno-histoquímica. Com essas características, um diagnóstico diferencial de amiloidoma e TOEC foi considerado. A presença de calcificação extensa, ossificação, células gigantes do tipo osteoclastos e células escamóides atípicas ocasionais favoreceu fortemente o diagnóstico de TOEC. Foi realizada uma rinitomia lateral.

Figura 29 – TC da região maxilofacial mostrando massa heterogênea sobre o lado esquerdo do dorso nasal e processo frontal da maxila esquerda.



Fonte: Shanmuga et al. (2009).

Um caso clínico de paciente de 21 anos de idade com TOEC na região posterior do corpo mandibular esquerdo foi descrito por Pereira et al. (2013). Durante a realização do exame físico intraoral, foi encontrado nódulo exofítico endurecido assintomático na região 37. Um exame radiográfico revelou uma lesão radiolúcida difusa e unilocular, associada à região 37, mas incluindo a raiz distal da região 36 até a coroa da região 38 (FIG. 30). Utilizando tomografia computadorizada em corte coronal, foi possível observar que se tratava de uma lesão hipodensa local

na região mandibular, contendo áreas hiperdensas irregulares em seu meio, compatíveis com a presença de tecido mineralizado na lesão. Além disso, também foi observado que o tumor causou expansão do osso cortical vestibular e mostrou reabsorção do osso cortical do processo alveolar (FIG. 31). Com base nos achados clínicos e radiográficos, as hipóteses diagnósticas sugeriram cisto dentígero, ameloblastoma unicístico e TOEC. Entretanto, o diagnóstico final só pode ser encontrado a partir dos achados histológicos que apontou para TOEC. A partir de uma biópsia incisional a análise histopatológica revelou camadas de células epiteliais odontogênicas que formaram pontes intercelulares proeminentes. Áreas de material extracelular, eosinofílico e tipo amilóide com formação ocasional de calcificações concêntricas (anéis de Liesegang) também estavam presentes

Figura 30 – Radiografia panorâmica mostrando lesão radiolúcida unilocular, difusa, associada ao dente 37.



Fonte: Pereira et al. (2013)

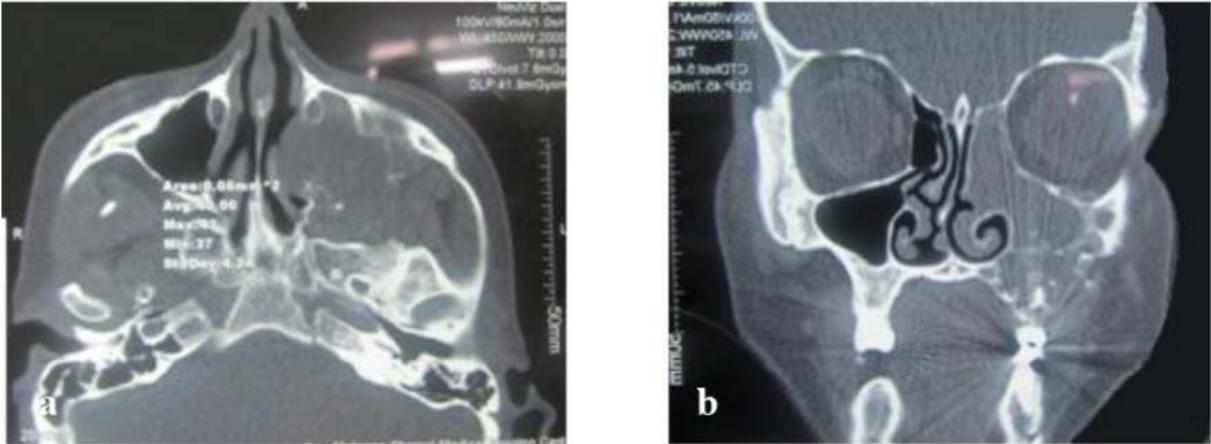
Figura 31 - TC coronal mostrando lesão hipodensa, com áreas hiperdensas irregulares em seu interior, associadas à expansão do osso cortical vestibular e à reabsorção do osso cortical do processo alveolar.



Fonte: Pereira et al. (2013)

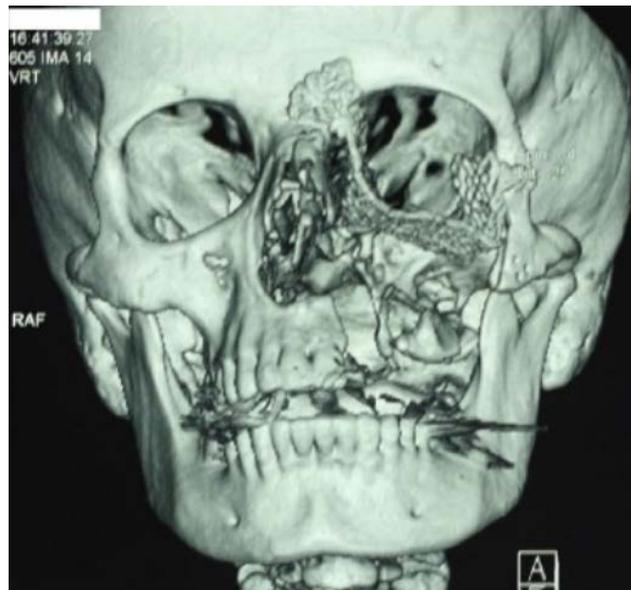
No estudo realizado por Foroughi et al. (2015), a radiografia panorâmica do TOEC mostrou uma radiolucência mal definida na área. Na tomografia computadorizada, uma lesão intraóssea maciça foi revelada na maxila esquerda envolvendo as células orbitais e aéreas etmoidais superiormente e as vias aéreas nasais medialmente (FIG. 32). A biópsia incisional e o exame histopatológico verificaram o diagnóstico de TOEC, que confirmou a recorrência de tumor anterior. A única distinção aparente foi a presença de mais focos de calcificação na lesão recorrente. O acesso cirúrgico ao tumor foi obtido através de uma incisão de rinotomia lateral conectando-se às incisões de pálpebra inferior e da fenda labial. A incisão lateral da rinotomia foi estendida superiormente para fornecer acesso às células aéreas etmoidais. A reconstrução do assoalho orbital foi realizada com uma placa de malha de titânio. A recorrência não foi detectada até um ano após a cirurgia, conforme visualizado na tomografia computadorizada tridimensional (FIG. 33).

Figura 32 – Seções de tomografia computadorizada axial (a) e coronal (b) mostrando extensão do tumor ao seio maxilar esquerdo e destruição de tecidos adjacentes.



Fonte: Foroughi et al. (2015).

Figura 33 – Tomografia computadorizada tridimensional não revelou recorrência no seguimento de 1 ano.



Fonte: Foroughi et al. (2015).

Kamath; Abraham (2012) descreveram caso de TOEC recorrente na maxila (após 3 anos de excisão cirúrgica da lesão), em paciente de 35 anos de idade. A radiografia panorâmica mostrou um tipo difuso de radiolucência em favo de mel que se estende da região pré-molar à terceira molar com poucas radiopacidades (FIG. 34 e 35). A lesão foi associada a um dente impactado, que se assemelhava a um pré-molar e foi deslocado pósterio-superiormente. Não houve evidência de reabsorção radicular dos dentes adjacentes. Uma tomografia computadorizada (TC) mostrou uma lesão grande, expansível e radiolúcida com múltiplas áreas de calcificação que obliterou completamente o antro maxilar esquerdo (FIG. 36 e 37). O

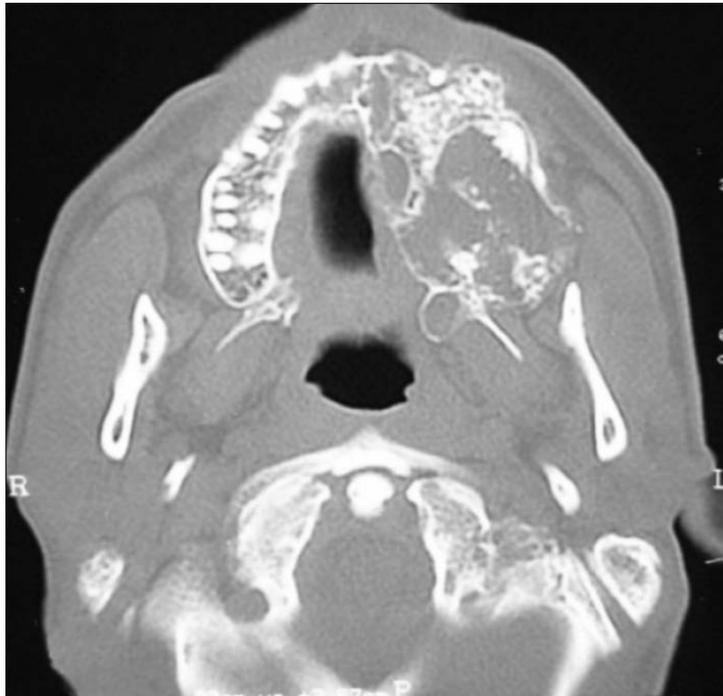
exame mostrou o tumor se estendendo e envolvendo a parede nasal lateral, assoalho orbital e a placa pterigoide medial (FIG. 38). Uma biópsia incisional confirmou que a lesão era uma recorrência do TOEC. A lesão foi excisada cirurgicamente.

Figura 34 – Porção de uma radiografia panorâmica mostrando um tipo de radiolucência alveolar associada a um dente impactado.



Fonte: Kamath; Abraham (2012)

Figura 35 – A TC realizada após a recorrência demonstra claramente a perda completa da arquitetura da maxila esquerda.



Fonte: Kamath; Abraham (2012)

Figura 36 – TC axial demonstrando radiolucência com numerosas radiopacidades.



Fonte: Kamath; Abraham (2012)

Figura 37 – Corte coronal da TC mostrando obliteração do seio maxilar esquerdo.



Fonte: Kamath; Abraham (2012)

Figura 38 – Seção da TC mostrando comprometimento da cavidade nasal e parede orbital inferior.



Fonte: Kamath; Abraham (2012)

Considerando que as características histológicas do TOEC são únicas, mas que apresenta vários subtipos histológicos, Kamboj et al. (2020) relataram um caso de uma variante cística do TOEC na maxila de um paciente do sexo masculino, de 16 anos de idade, que, inicialmente, apresentava achados clínicos e radiológicos consistentes a de um cisto dentífero. Clinicamente, um inchaço difuso estava presente no terço médio da face medindo aproximadamente 3,5 cm x 3,5 cm, estendendo-se superio-inferiormente abaixo da borda infraorbital esquerda à comissura do lábio esquerdo e medialmente da asa esquerda do nariz para 3-4 cm na frente de tragus esquerdo (FIG. 39). Na palpação, o inchaço era de natureza firme, não compressível, não flutuante e afebril. No exame radiográfico, a imagem panorâmica odontológica revelou uma radiolucência relativamente homogênea acima dos ápices radiculares do segundo pré-molar e primeiro molar superior esquerdo, empurrando a parede lateral do seio maxilar, estendendo-se até o assoalho orbital, envolvendo o segundo molar superior esquerdo não irrompido no centro conteúdo radiopaco. A tomografia computadorizada (TC) mostrou radiolucência unilocular bem definida no seio maxilar esquerdo, com dente impactado e poucas manchas de depósitos calcificados. A lesão expandiu a maxila, corroe a parede lateral do seio e projetou-se na cavidade nasal (FIG. 40). O exame

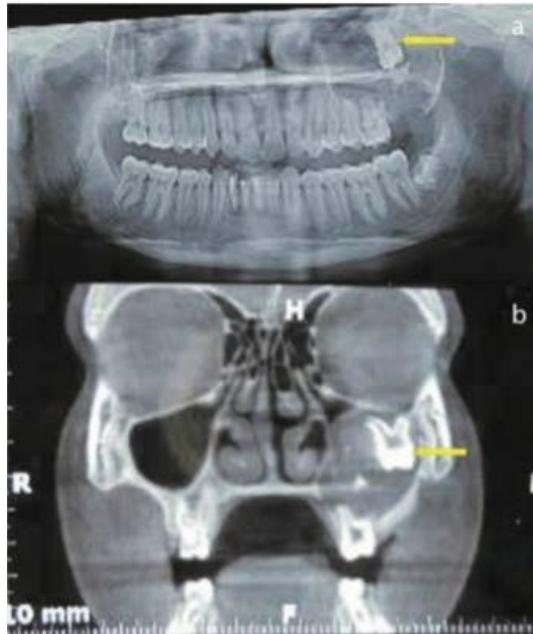
geral revelou dois fragmentos irregulares, um grande espécime cístico com revestimento fixado na junção cimento-esmalte do segundo molar superior esquerdo impactado. A outra parte foi separada do lúmen do cisto. Microscopicamente, foi relatado revestimento epitelial odontogênico de espessura variada na porção cística da lesão. A maioria do revestimento mostrou espessamento da camada celular de 12 a 15 caracterizadas por células poliédricas com citoplasma eosinofílico abundante e núcleos localizados centralmente. A cápsula circundante mostra características de hialinização e separação do tecido epitelial e conjuntivo em poucas áreas. Um bloco de tecido separado revelou folhas de células tumorais com características típicas de TOEC, como células epiteliais poliédricas com contornos distintos, citoplasma abundante e núcleos hiper cromáticos localizados centralmente, áreas de material amorfo, eosinofílico e hialinizado, positivas para Congo vermelho e manifestação mínima de birrefringência verde-maçã sob microscópio polarizador. Calcificações múltiplas também estavam presentes. Considerando todas as características proeminentes, foi realizado o diagnóstico final da variante cística do TOEC.

Figura 39 – a) Visão extra-oral; b) visão intra-oral



Fonte: Kamboj et al. (2020).

Figura 40 – a) Radiografia panorâmica que revela radiolucência unilocular acima dos ápices radiculares do segundo pré-molar superior esquerdo e do primeiro molar envolvendo segundo molar superior esquerdo não irrompido no centro, **b)** A tomografia computadorizada (TC) mostra uma radiolucência unilocular bem definida.



Fonte: Kamboj et al. (2020).

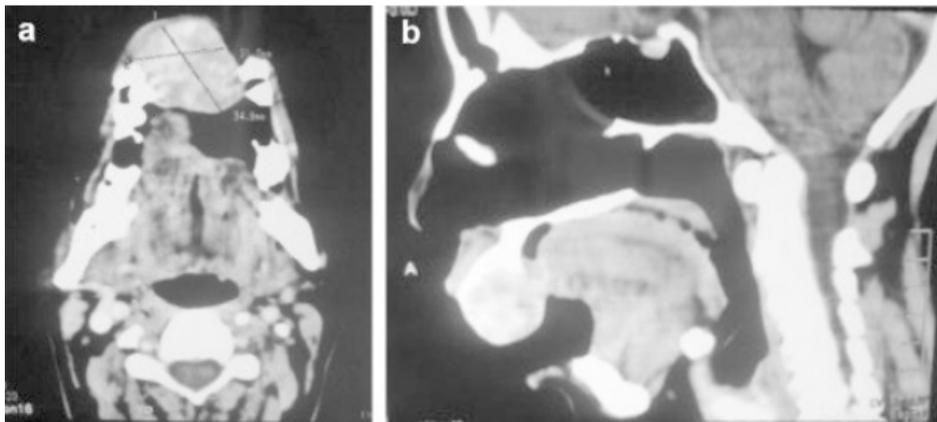
Um estudo anterior, realizado por Shetty et al. (2014), também descreveu uma variante extraóssea de TOEC, muito incomum e de grande porte, com localização anterossuperior, em um paciente de 41 anos de idade. O exame revelou uma massa expansível solitária, benigna, séssil e não pulsátil, envolvendo a maxila anterior que se estendia até a região canina de ambos os lados. A paciente havia perdido os dentes devido à expansão gradual da massa. A tomografia computadorizada e a ortopantomografia (OPG) revelaram uma lesão expansiva de tecidos moles com intensa intensificação com calcificação intralesional (FIG. 41 e 42). Entretanto, somente a partir da biópsia incisional que comprovou-se o diagnóstico de TOEC que foi tratado com maxilectomia anterior e o revestimento do defeito foi realizado com enxerto de pele.

Figura 41 – OPG mostrando lesão expansiva na maxila anterior.



Fonte: Shetty et al. (2014).

Figura 42 – A e B – Tomografia computadorizada axial e sagital mostrando lesão expansível com calcificação intralésional.

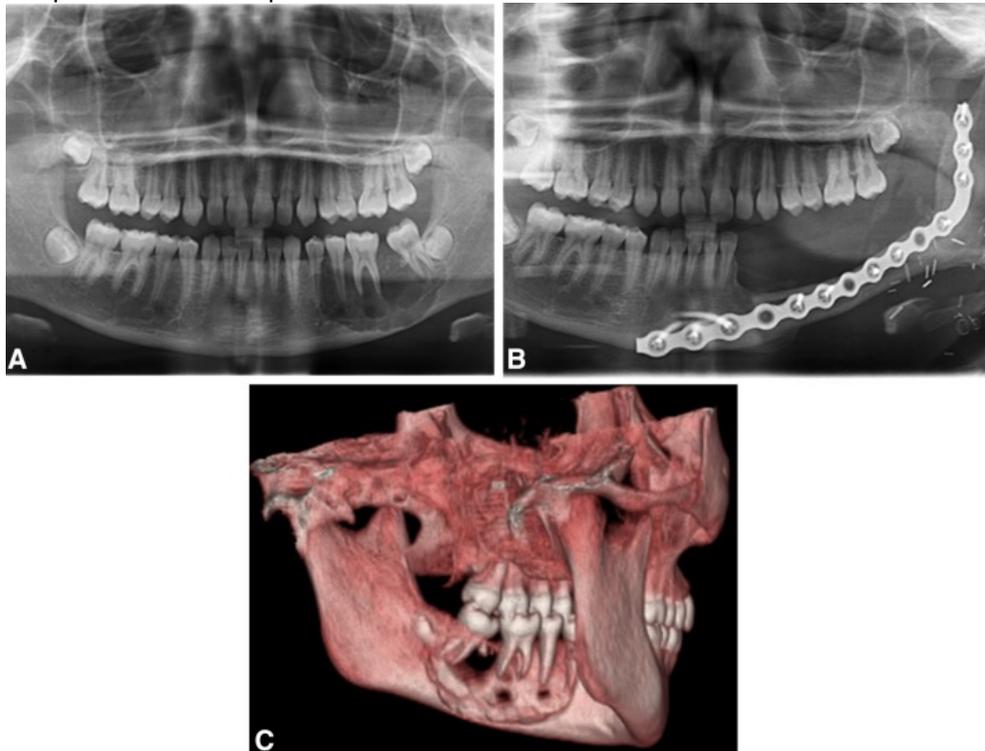


Fonte: Shetty et al. (2014).

Contrariando os relatos de incidência de acometimento do TOEC em pacientes a partir da 4ª década de vida. Fazeli et al. (2019) descreveram um caso de uma menina de 13 anos de idade, apresentando um TOEC mandibular, encontrado incidentalmente em uma visita odontológica de rotina. A radiografia inicial mostrou uma lesão lúcida com calcificação. O ortopantomograma revelou lesão expansiva e radiolúcida com calcificações pontilhadas espalhadas no corpo mandibular. A TC maxilofacial com reconstrução 3D ilustrou uma lesão radiolúcida expansível de 3,8 × 1,5 × 2 cm no corpo mandibular esquerdo e envolvimento das raízes dos dentes (FIG. 43). Uma biópsia foi realizada em um hospital externo e a impressão inicial sugeria uma lesão mixóide. Após uma consulta mais aprofundada, foi realizado um diagnóstico de TOEC. Uma mandibulectomia segmentar transcervical esquerda através de uma incisão no avental seguida de reconstrução mandibular com retalho livre da fíbula esquerda foi realizada em nossa instituição. Uma ressecção segmentar foi realizada para obter uma margem clara de 1 cm na borda inferior da

mandíbula. Alternativamente, uma ressecção marginal nesse caso poderia resultar em uma margem inferior próxima e um risco extremamente alto de fratura patológica. Foi realizada uma dissecação ipsilateral limitada dos níveis I e II do pescoço, puramente para o acesso dos vasos, para facilitar o retalho livre microvascular e não para fins de estadiamento ou detecção de possíveis metástases, dada a natureza benigna da lesão. A partir do exame histopatológico, foi feito o diagnóstico de TOEC com envolvimento extraósseo dos tecidos moles.

Figura 43 – (a) Ortopantomograma pré-operatório: na mandíbula inferior esquerda, é observada uma lesão radiolúcida expansível de 3,8 x 1,5 cm com calcificações pontilhadas espalhadas nos dentes pré-molares e molares (b); ortopantomograma pós-operatório: uma mandibulectomia parcial com ressecção completa do tumor envolveu reconstrução óssea e dentária e retalho livre da fíbula; (c); A TC maxilofacial pré-operatória com reconstrução 3D ilustrou lesão radiolúcida expansível de 3,8 x 1,5 x 2 cm no corpo mandibular esquerdo e envolvimento das raízes dos dentes .



Fonte: Fazeli et al. (2019).

3.3 DIAGNÓSTICO DIFERENCIAL

A apresentação desta entidade é variada e frequentemente confundida com uma variedade de lesões nas mucosas e mandíbula; e características clínicas, radiológicas e patológicas da TOEC que mimetizam a malignidade (Hada et al.

2014).

As características radiográficas do TOEC podem se sobrepor a várias outras lesões odontogênicas e não odontogênicas. No diagnóstico diferencial do TOEC deve-se considerar o tumor odontogênico adenomatoide (TOA), o tumor fibro-odontoma ameloblástico (FOA) e o tumor odontogênico cístico calcificante (TOCC) (Pontes et al., 2009; Sousa et al., 2015) e amiloidoma (Shanmuga et al., 2009).

Da mesma forma como o TOEC, o TOCC, o FOA e o TOA, radiograficamente, mostram-se como lesões radiolúcidas que comumente apresentam focos radiopacos no seu interior. Porém, diferente do TOCC que ocorre com mais frequência na região de incisivos e caninos, o TOEC exhibe predileção pela região dos terceiros molares e o FOA pela região de pré-molares e molares de pacientes mais jovens. O TOA acomete pacientes mais jovens, com uma média de 16,5 anos e afeta duas vezes mais as mulheres que os homens. O diagnóstico final entre estas lesões é sempre realizado após o exame histopatológico (Pontes et al., 2009).

Também o fibroma odontogênico com proliferação de epitélio odontogênico, pode mostrar aspectos similares (Almeida, 2016).

Outras lesões radiolúcidas semelhantes a cisto com inclusões de objetos calcificados fazem o diagnóstico diferencial, também: cisto odontogênico epitelial calcificante (Cisto de Gorlin), Adenoameloblastoma (tumor adenomatoide odontogênico), odontoma ameloblástico e displasia cementária periapical (Almeida, 2016).

Além disso, o TOEC é comumente associado a dentes impactados e pode ser confundido com um cisto dentífero que também é visto ao redor de um dente impactado (Ching et al., 2000). No entanto, o cisto dentífero carece de mineralização na lesão. Ao contrário do cisto dentífero, que é mais frequentemente associado aos terceiros molares, o TOEC é encontrado em torno do primeiro e segundos molares (Kamath; Abraham, 2012).

O ameloblastoma e o mixoma odontogênico também podem se apresentar como radiolucências uniloculares ou multiloculares, semelhantes ao TOEC. Esses dois tumores odontogênicos comuns raramente demonstram evidências radiográficas de radiopacidades como o TOEC. Além disso, o mixoma odontogênico geralmente apresenta uma aparência de "bolha de sabão" com trabéculas angulares na lesão e o ameloblastoma geralmente está associado à

reabsorção radicular em 81% dos casos (Kamath; Abraham, 2012).

Rydin et al. (2016) relataram um caso raro de tumor odontogênico epitelial calcificado de células tumorais claras em uma mulher de 40 anos de idade, que experimentou uma expansão assintomática da mandíbula posterior esquerda. O diagnóstico diferencial incluiu tumor odontogênico queratocístico, ameloblastoma, fibroma ameloblástico e TOEC. Uma radiografia panorâmica mostrou uma radiolucência unilocular bem definida com uma margem corticada que se estende da raiz distal do dente 38 até metade da área do ramo esquerdo e da área retromolar esquerda até o corpo mandibular, que mede cerca de 3 cm x 2 cm de diâmetro (FIG. 44). Após exame radiográfico e biópsia, foi realizada ressecção em bloco. O exame histológico incluiu a análise da reatividade do Ki-67 como um marcador da atividade de crescimento do tumor. A marcação Ki-67 foi pronunciada na população de células não claras na periferia do tumor, mas baixa nas porções centrais e claras das células. Foi demonstrado que as células claras do ameloblastoma eram claramente de origem epitelial odontogênica.

Figura 44 - A radiografia panorâmica mostrou uma radiolucência unilocular bem definida, com uma margem corticada que se estende da raiz distal do dente 38 até metade da área do ramo esquerdo e da área retromolar esquerda até o corpo mandibular.



Fonte: Rydin et al. (2016).

Também Chatterjee et al. (2017) apresentaram caso de variante de células claras do TOEC envolvendo o lado esquerdo da maxila em uma paciente de 73 anos de idade. O exame intraoral revelou a presença de um edema difuso, grande, moderadamente sensível, não compressível, firme a duro, envolvendo a região molar superior esquerda parcialmente desdentada, associada à expansão acentuada das placas corticais bucal e palatina. O ortopantomograma e a visão do seio aéreo paranasal revelaram a presença de uma lesão grande com uma

aparência radiográfica mista caracterizada pela presença de radiolucências intercaladas com várias áreas de radiopacidades, produz uma aparência típica do tipo “neve dirigida”, sem invadir o antro superior esquerdo (FIG. 45). As características microscópicas da luz revelaram a presença de folhas de células epiteliais poliédricas, neoplásicas e odontogênicas com contornos celulares proeminentes e pontes intercelulares, além da presença de materiais amorfos homogêneos, eosinofílicos. Áreas calcificadas também foram observadas nas folhas das células epiteliais. Uma das características mais interessantes foi a presença de células claras com citoplasma vacuolado nas ilhas epiteliais odontogênicas, que apresentam manchas positivas com ácido periódico.

Figura 45 - O ortopantomograma panorâmico e a visão do seio aéreo paranasal revelaram a presença de aparência radiológica do tipo “neve dirigida” sem o envolvimento do antro superior esquerdo.



Fonte: Chatterjee et al. (2017).

Em casos pediátricos, os diagnósticos diferenciados radiográficos devem incluir cisto ósseo aneurismático, ameloblastoma, ceratocisto odontogênico e cisto dentífero (Fazeli et al. 2019).

3.4 TRATAMENTO

O tratamento envolve uma simples enucleação ou curetagem a ressecções radicais e extensas, como hemimandibulectomia ou hemimaxilectomia. O método de tratamento dependerá do tamanho, localização anatômica do tumor, achados histopatológicos, idade do paciente, estado de saúde e consideração dos métodos de reconstrução após o procedimento cirúrgico (Sahni et al., 2012; Shetty

et al., 2014; Rani et al., 2016).

Embora alguns pesquisadores defendam a abordagem conservadora como o tratamento de escolha, outros acreditam que o TOEC é menos agressivo que o ameloblastoma (ameloblastoma sólido/multicístico), podendo ser tratado com remoção cirúrgica, incluindo porção marginal de osso aparentemente saudável (Nascimento et al., 2009; Foroughi et al., 2015; Nery Neta et al., 2020) e ressecção local com pequena margem de osso adjacente (ressecção em bloco), pois o tumor reaparece se não for completamente removido (Dib et al., 2020).

Dois estudos realizaram tratamento cirúrgico da lesão por enucleação, seguida de curetagem do osso adjacente ao tumor e extração do canino retido que estava associado a enfermidade (Utumi et al., 2012; Nery Neta et al. 2020) (FIG. 46).

Figura 46 – Tratamento cirúrgico da lesão por enucleação simples, seguida de curetagem do osso adjacente ao tumor e fragmento removido.



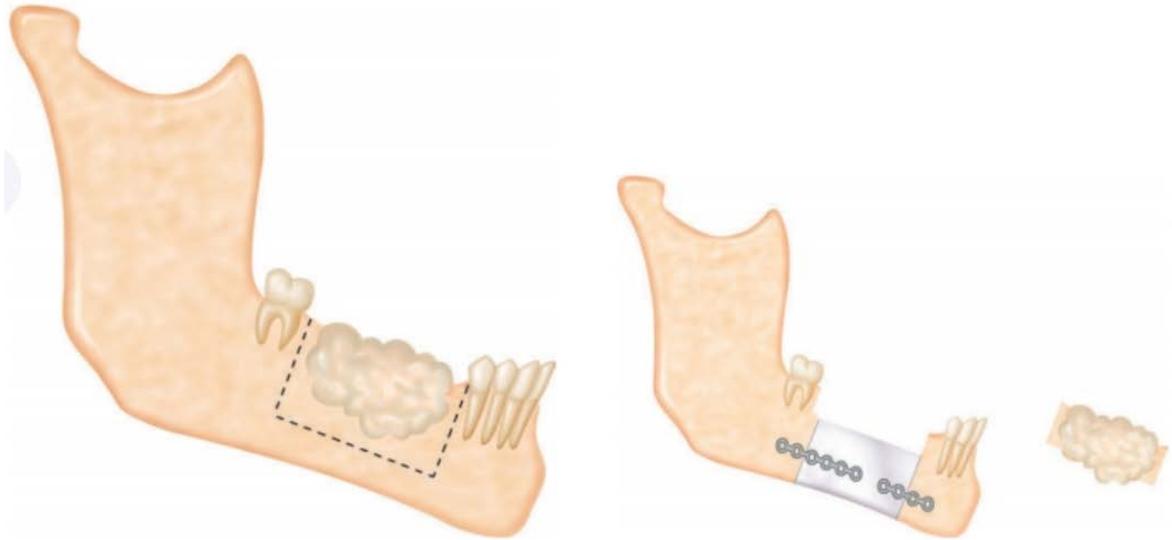
Fonte: Nery Neta et al. (2020)

O objetivo do tratamento cirúrgico dos tumores não se restringe a apenas remover a lesão patológica e erradicação da doença, mas também a sua reconstrução e a restauração funcional do paciente. Dessa maneira, os procedimentos de reconstrução devem ser planejados e previstos antes da realização da cirurgia inicial (Dib et al., 2020; Nery Neta et al., 2020).

Segundo Sperandio e Giudice (2018), quando se está diante do tratamento de uma lesão agressiva, por determinação histopatológica ou por seu comportamento clínico, ou sua consistência é tal que sua total remoção por enucleação, curetagem, ou ambas, se torna difícil, a remoção pode ser facilitada pela ressecção da lesão com margens ósseas adequadas. Como princípio geral, a lesão ressecada deveria incluir em torno de 1cm de margens ósseas saudáveis ao redor dos limites radiográficos da lesão. Se isso puder ser alcançado mantendo

intacta a margem inferior da mandíbula, a ressecção marginal ou segmentar ou em bloco é o método de preferência (FIG. 47). A reconstrução, então, pode limitar-se à substituição da estrutura óssea perdida.

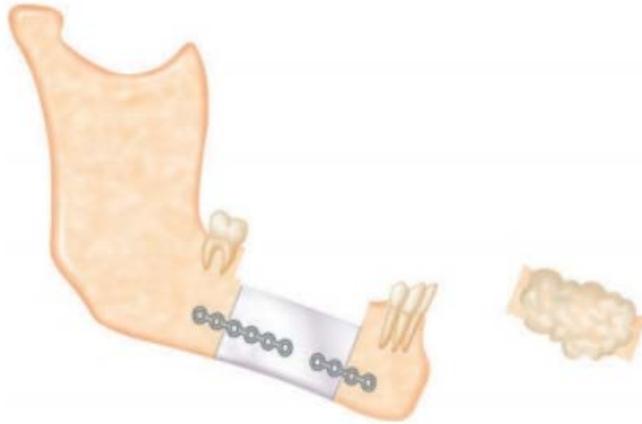
Figura 47 – Ressecção segmentar em bloco ou marginal. Preservação da margem inferior da mandíbula.



Fonte: Dib et al. (2020).

A ressecção parcial está indicada quando a lesão estiver envolvendo a margem inferior da mandíbula, sendo necessário incluir toda a espessura da mandíbula, o que leva à interrupção da sua continuidade (FIG. 48). A reconstrução fica mais difícil neste tipo de técnica, pois os fragmentos mandibulares remanescentes devem ser mantidos em uma adequada relação de posição entre si, para permitir a restauração da função e da simetria óssea. A utilização de placas de reconstrução mandibular está indicada nestes casos como forma de restaurar os limites e favorecer a reconstrução do osso.

Figura 48 – Ressecção parcial. Perda da continuidade do osso.

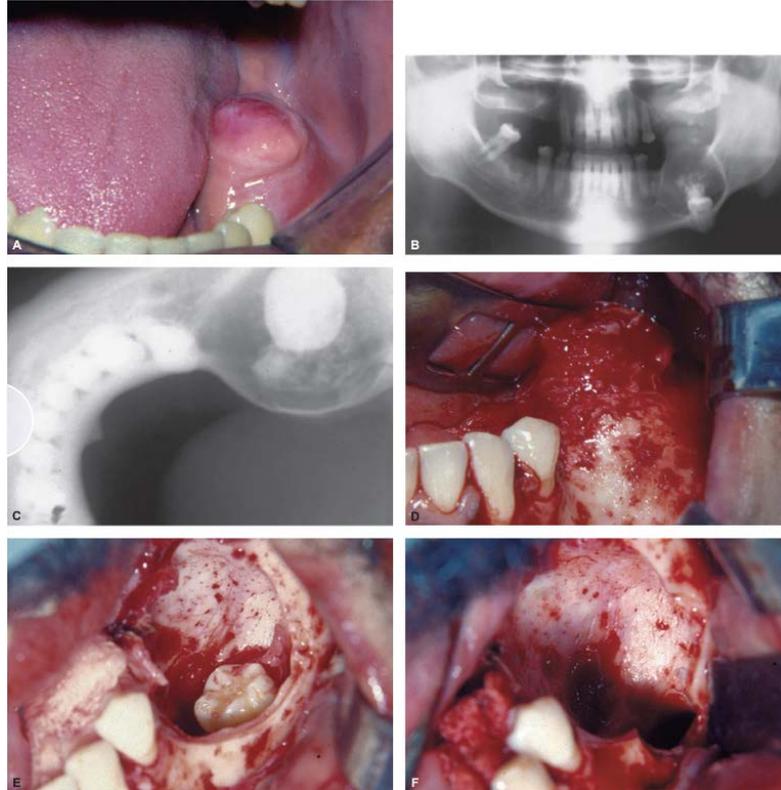


Fonte: Dib et al. (2020).

A técnica cirúrgica para ressecção marginal ou segmentar é bem direta. Um retalho mucoperiosteal da espessura total deve ser preparado e separado do osso que será removido. Serras ou brocas cirúrgicas movidas com motor a ar são, então, usadas para seccionar o osso nos locais planejados, e, finalmente, remove-se o segmento. Sempre que lançar mão da ressecção marginal ou parcial, o cirurgião deve determinar se a lesão alcançou e perfurou as corticais ósseas, causando assim a invasão dos tecidos moles adjacentes. Nesses casos, pode tornar-se necessário sacrificar uma camada de tecido mole para erradicar o tumor. A reconstrução imediata é mais difícil, pois pode não haver tecido mole remanescente suficiente para fazer o fechamento sobre os enxertos ósseos.

Abaixo, a figura 49 demonstra um caso clínico de TOEC tratado com enucleação por dissecação da lesão associada a curetagem da loja óssea.

Figura 49 - Caso clínico. A) aspecto clínico intraoral. B) Aspecto radiográfico; C) Expansão da cortical lingual; D) Incisão e descolamento do mucoperiosteio; E) Enucleação por dissecação da lesão; F) Curetagem da loja óssea.



Fonte: Dib et al. (2020).

Na maxila, o TOEC tende a crescer mais rapidamente e pode se infiltrar nas estruturas vitais proximais, sugerindo que uma cirurgia mais agressiva é necessária nestes casos específicos (Kamath; Abraham, 2012).

A osteotomia Le Fort I e suas modificações é uma abordagem cirúrgica relatada para acesso à nasofaringe, base do crânio e coluna cervical superior. Também é descrita como um método de acesso cirúrgico ao antro da face média e maxilar. No estudo de Sahni et al. (2012), em que o tumor se estendeu do processo alveolar para o seio maxilar direito, o protocolo de tratamento compôs-se de hemimaxilectomia usando a abordagem cirúrgica Le Fort I. O caso foi acompanhado por 3 anos, sem evidência de recorrência.

Quanto ao tratamento por curetagem, o índice de recidiva tem sido de 10 a 15% (Somayaji et al., 2013; Rocha et al., 2016).

Estudos apontaram que um possível comportamento localmente agressivo das lesões recomenda um manejo menos conservador do que a simples curetagem. A variante de “células claras” do TOEC mostra dados demográficos e comportamento biológico semelhantes em comparação com as lesões não

variantes, sugerindo que a presença de células claras não tem significado clínico importante (Chrcanovic e Gomez, 2017; Chatterjee et al., 2017).

3.5 RECORRÊNCIA/RECIDIVA

Vários fatores prognósticos foram propostos para estimar o risco de recorrência do tumor e, conseqüentemente, escolher a extensão das margens cirúrgicas. Presume-se que a recorrência da lesão seja devida à remoção inadequada do tecido neoplásico (Kamath; Abraham, 2012). Microscopicamente, menos agregação amiloide e focos de calcificação têm sido sugeridos com um comportamento tumoral mais agressivo (Foroughi et al., 2015).

Foram relatadas taxas de recorrência local de 10 a 15% (Kamath; Abraham, 2012; Somayaji et al., 2013; Rocha et al., 2016).

Somayaji et al. (2013) descreveram um caso clínico de uma mulher, 34 anos de idade, diagnosticada com TOEC e tratada com curetagem. Posteriormente, apresentou obstrução nasal. Ao exame observou-se presença de uma lesão em massa na cavidade nasal direita e na maxila direita, que foi identificada como uma recorrência do tumor anterior de Pindborg. A paciente foi então tratada com maxilectomia com preservação orbital.

Sendo assim, os protocolos atuais sugerem um período de acompanhamento de cinco a dez anos para detectar qualquer provável recorrência do tumor de Pindborg, pois há casos de recorrência rara oito anos após o diagnóstico primário (Kamath; Abraham, 2012; Foroughi et al., 2015).

4 DISCUSSÃO

O TOEC é um tumor odontogênico raro que afeta principalmente pacientes adultos, com pico de prevalência na quinta década de vida e sem predileção por sexo (Akhtar et al., 2010; Tanaka et al., 2013; Almazyad et al., 2018; Dib et al., 2020). Existe uma predileção acentuada pela área molar e pré-molar da mandíbula (Akhtar et al., 2010; Hada et al., 2014; Foroughi et al., 2015; Rocha et al., 2016; Chrcanovic e Gomez, 2017; Chatterjee et al., 2017).

O TOEC é uma neoplasia benigna caracterizada por três características histológicas diferentes. A primeira estrutura compreende camadas epiteliais sólidas ou ilhas com espessura variável e bordas proeminentes. As células epiteliais poliédricas exibem polimorfismo nuclear e citoplasma eosinofílico, mas as mitoses são raras. A segunda marca consiste em uma ponte estromal hialinizada acelular, intercalada com focos de uma substância semelhante a amilóide. A terceira marca registrada compreende uma quantidade variável de calcificações redonda, conglomerada ou laminar concêntrica (anel de Liesegang) (Ching et al., 2000; Tanaka et al. 2013; Sperandio; Giudice, 2018).

É responsável por menos de 1% de todos os tumores odontogênicos (Philipsen e Reichart, 2006; Deboni et al., 2006; Tanaka et al., 2013; Misra et al., 2013) e mais frequentemente localizado na mandíbula posterior (Akhtar et al., 2010). Quando na maxila e com envolvimento do seio maxilar é considerado uma lesão agressiva e requer tratamento igualmente agressivo e acompanhamento a longo prazo (Rani et al., 2016; Chrcanovic e Gomez, 2017; Chatterjee et al., 2017).

A transformação maligna é rara (Philipsen e Reichart, 2006; Akhtar et al., 2010; Tanaka et al., 2013), mas estudos relataram caso de transformação maligna desenvolvido a partir da maxila posterior esquerda com extensão ao seio maxilar e mucosa vestibular (Munteanu et al., 2016; Rani et al., 2016; Chrcanovic e Gomez, 2017).

A presença de um dente incluso, geralmente um molar inferior, tem sido descrita em cerca de 50% dos casos (Akhtar et al., 2010; Foroughi et al., 2015) e, nestas situações, as calcificações habitualmente localizam-se próximas à coroa do dente incluso (Tanaka et al., 2013; Dib et al., 2020).

A apresentação clínica típica do TOEC é uma massa de aumento lento

que causa expansão do local afetado e é assintomática (Ching et al., 2000; Kamath; Abraham, 2012; Chatterjee et al., 2017). Uma variante cística do TOEC foi relatada por alguns autores (Channappa et al., 2012; Shetty et al., 2014; Kamboj et al., 2020), assim como uma variante de células claras (Rydin et al., 2016; Chrcanovic e Gomez, 2017; Chatterjee et al., 2017).

O diagnóstico do TOEC é baseado no exame histológico, revelando células neoplásicas poliédricas que possuem citoplasma eosinofílico abundante e finamente granular com pleomorfismo nuclear e nucléolos proeminentes (Akhtar et al., 2010; Pereira et al., 2013). Outros achados característicos são a presença de substâncias do tipo amilóide e anéis concêntricos calcificados de Liesegang (Chatterjee et al., 2017).

Radiografias simples e imagens transversais obtidas através da realização de imagens por TC e RM podem ajudar a determinar o diagnóstico (Ching et al., 2000; Froughi et al., 2015; Rocha et al., 2016).

Os exames de imagem desempenham um papel importante na avaliação da extensão dos ossos faciais e do envolvimento do crânio e têm um papel crucial no planejamento da cirurgia do TOEC (Kamath; Abraham, 2012; Sousa et al., 2015). Um achado radiográfico frequente nesses tumores tem sido a presença de estruturas calcificadoras de tamanhos variados no interior das lesões. Além disso, os casos relatados na literatura têm sido indolores, de evolução lenta e em área intraóssea (Pereira et al., 2013; Tanaka et al., 2013; Kamath; Abraham, 2012; Ando et al., 2017).

Radiograficamente, o TOEC pode apresentar comportamento clínico variável e características semelhantes a outras neoplasias odontogênicas (Froughi et al., 2015; Rocha et al., 2016) e se caracteriza como uma área unilocular ou multilocular que frequentemente apresenta focos radiopacos em seu interior (Nascimento et al., 2009; Sousa et al., 2015; Froughi et al., 2015). Rotineiramente, este tumor é confundido com cisto dentígero ou ameloblastoma (Akhtar et al., 2010; Kamath; Abraham, 2012; Shetty et al., 2014; Sousa et al., 2015)

A TC deste tumor geralmente mostra uma massa bem definida com afinamento das placas corticais e contém focos radiopacos dispersos. A ressonância magnética (RM) mostra predominantemente imagens ponderadas em T2 hiperintensas e hipointensas em T1 (Sahni et al., 2012; Kamath; Abraham, 2012). O estudo de Ching et al. (2000) mostrou aparências de imagem por RM comparáveis à

maioria dos tumores sinusais descritos em outros lugares, sendo predominantemente baixa intensidade de sinal nas imagens ponderadas em T1 e alta intensidade de sinal nas imagens ponderadas em T2. O realce heterogêneo do contraste, observado na massa, é um achado comum em casos de tumores sinusais. Curiosamente, as extensas calcificações e o dente maxilar não irrompido, situado no centro da massa, foram claramente observados em tomografias e imagens de RM no nosso caso. Nas tomografias, eram vistas como alta atenuação difusa, sugerindo calcificações e ossificação. Nas imagens de RM ponderadas em T1 e T2, elas foram vistas como áreas de baixa intensidade de sinal.

No caso clínico apresentado por Deboni et al. (2006), as imagens de TC revelaram características importantes que não foram detectadas pela radiografia panorâmica, como detecção de espaços multiloculares e fenestração e calcificação do córtex lingual. A visualização da estrutura interna da lesão e o envolvimento de estruturas vizinhas foram considerados muito úteis para o diagnóstico clínico e o planejamento do tratamento.

Seu tratamento envolve curetagem e cirurgia radical (Somayaji et al. 2013), sendo a ressecção local conservadora, o atual plano de tratamento cirúrgico de escolha (Foroughi et al., 2015).

A tomada de decisão cirúrgica geralmente depende de parâmetros do caso, como a localização anatômica do tumor, o tamanho e a duração, os achados histopatológicos, a idade do paciente e a consideração dos métodos de reconstrução após o procedimento cirúrgico, com margens livres de doença (Kamath; Abraham, 2012; Sahni et al., 2012; Munteanu et al., 2016; Almazyad et al., 2018).

Ser capaz de prever o risco de recorrência ou destruição locorregional pode permitir que o cirurgião apresente um plano de tratamento eficaz, especialmente em casos destrutivos da mandíbula superior (Somayaji et al., 2013; Foroughi et al. 2015).

A literatura é unânime em recomendar acompanhamento a longo prazo do paciente (5-10 anos) (Shanmuga et al., 2009; Somayaji et al., 2013; Pereira et al., 2013; Rocha et al., 2016; El-Naggar et al., 2017; Almazyad et al., 2018; Sperandio e Giudice, 2018), com exames clínicos e radiográficos periódicos (Kamath; Abraham, 2012).

5 CONCLUSÃO

O tumor odontogênico epitelial calcificante é um tumor benigno raro, que pode ocorrer tanto na maxila quanto na mandíbula.

As características citológicas em conjunto com o quadro radiológico são de suma importância no diagnóstico pré-operatório e no gerenciamento do tumor.

Portanto, deve-se avaliar clínica, microscópica e radiologicamente os tumores para elaborar um plano de tratamento adequado, que pode variar de uma simples enucleação ou curetagem à uma ressecção local conservadora.

Na maioria dos estudos a tomografia computadorizada foi útil em mostrar calcificações, dentes não irrompidos e erosão óssea.

A ressonância demonstrou eficácia na apresentação da invasão do músculo bucinador e tecido subcutâneo na bochecha.

REFERÊNCIAS

- Akhtar K, Khan N, Zaheer S, Sherwani R, Hasan A. Pindborg tumor in an adolescent. *Oman Med J* 2010 jan; 25(1):47-8.
- Almazyad A, LI CC, Tapia ROC et al. Primordial odontogenic tumour: report of two cases. *Rev Histopathol.* 2018; 10(1):134-41.
- Almeida OP. Patologia oral. In: Kriger L, Moysés SJ, Moysés ST. (Orgs). São Paulo: Artes Médicas; 2016.
- Ando T, Shrestha M, Nakamoto T. et al. A case of primordial odontogenic tumor: a new entity in the latest WHO Classification (2017). *Rev Pathol Int.* 2017. 67:365-9.
- Azevedo RS, Pires FR. Tumores odontogênicos. IN: Kriger L, Moyses ST, Moysés ST. *Odontologia essencial parte básica. Patologia oral.* São Paulo: Artes Médicas; 2016.
- Barnes L, Everson JW, Reichard P. et al. World Health Organization classification of tumours: pathology and genetics, head and neck tumours. Lyon: IARC Press; 2005. p.283-327.
- Carvalhosa AA, Tucci R, Stucchi N, Oliveira FA, Gomes da Silva KB. Cisto de Gorlin: revisão de literatura. *Pesq Bras Odontopediatr Clin Integ.* 2005; 5(3):291-295.
- Channappa NK, Krishnapillai R, Rao JBM. Cystic variant of calcifying epithelial odontogenic tumor. *J Invest Clin Dent.* 2012; 3:152–156.
- Chatterjee RP, Gayen S, Kundu S, Chattaraj M, Pal M, Das S. A unique case of clear cell variant of calcifying epithelial odontogenic tumor involving the maxilla. *Dent Res J* 2017; 14(4):293-296.
- Ching AS, Pak MW, Kew J, Metreweli C. CT and MR imaging appearances of an extraosseous calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg tumor). *Am J Neuroradiology – AJNR* 2000; 21(2):343-45.
- Chrcanovic BR, Gomez RS. Calcifying epithelial odontogenic tumor: an updated analysis of 339 cases reported in the literature. *J Craniomaxillofac Surg* 2017; 45(8):1117-1123.
- Deboni MCZ, Homem MGN, Pinto Jr DS, Traina AA, Cavalcanti MGP. Clinical, radiological and histological features of calcifying epithelial odontogenic tumor: case report. *Braz Dent J* 2006; 17(2):171-4.
- Dib LL, Souza RS, Moraes SNS. Cistos e tumores odontogênicos. In: Kignel, S.

Estomatologia. Bases do diagnóstico para clínico geral. São Paulo: Gen/Santos, 2020. Cap. 11.

El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR et al. WHO classification of tumours of the head and neck. Lyon: IARC Press; 2017. p.261-73.

Fazeli SR, Giglou KR, Soliman ML, Ezzat WH, Salama A. et al. Calcifying epithelial odontogenic (Pindborg) tumor in a child: a case report and literature review. Head Neck Pathol 2019 dec; 13(4):580-86.

Foroughi R, Shakib PA, Darzi AB, Seyedmajidi M, Jamaatlou N. Calcifying epithelial odontogenic tumor: report of a recurrent destructive case with review of literature. J Dent, 2015 jan; 12(1):78-84.

Gupta R, Singh S, Jain S, Mandal AK. Recurrent calcifying epithelial odontogenic tumor of the maxilla: report of a case with cytologic diagnosis. Acta Cytol. 2006; 50(5):545-7.

Hada MS, Sable M, Kane SV, Pai PS, Juvekar SL. Calcifying epithelial odontogenic tumor: a clinico-radio-pathological dilemma. J Cancer Res Ther. 2014; 10(1):194-6.

Henriques ACG, Cazal C, Fonseca DDD, Bello DMA, Araújo NC, Castro JFL. Considerações sobre a classificação e o comportamento biológicos dos tumores odontogênicos epiteliais: revisão da literatura. REv Bras Cancer 2009; 55(2):175-184.

Kamath G, Abraham R. Recurrent CEOT of the maxilla. Dent Res J. 2012 mar; 9(2):233-6.

Kamboj M, Yadav AB, Narwal A, Neera J. Unusual cystic variant of calcifying epithelial odontogenic tumor. J Dent 2020 jun; 21(2):147-152.

Misra SR, Lenka S, Sahoo SR, Mishra S. Giant Pindborg tumor (calcifying epithelial odontogenic tumor): An unusual case report with radiologic-pathologic correlation. J Clin Imaging Sci 2013; 3(Suppl.1):11.

Munteanu C, Pirici D, STepan AE, Camen A, Margaritescu C. Maxillary calcifying epithelial odontogenic tumor with sinus and buccal vestibule extension: a case report and immunohistochemical study. Diagn Pathol 2016 nov; 11(1):134.

Nascimento GJF, Pereira KMA, Nonaka CFW, Medeiros AMC. et al. Tumor odontogênico epitelial calcificante da maxila. Braz J Otorhinolaryngol 2009. 75(3):468.

Nery Neta HM, Coutinho KES, Ramos TCF, Cancio AV, Farias JG, Cardoso JA. Tumor odontogênico epitelial calcificante (tumor de Pindborg) na mandíbula: relato de caso. In: Santos EC. Prática problematizadora e ensino participativo na

odontologia. Ponta Grossa, PR: Atena; 2020. Cap. 16.

Pereira OHG, Carvalho LPB, Brasileiro Jr VL, Figueiredo CRLV. Calcifying epithelial odontogenic tumor. *Case Rep Pathol* 2013; 2013:725380.

Philipsen HP, Reichart PA. Classification of odontogenic tumours. A historical review. *J Oral Pathol Med*. 2006; 35(9):525-9.

Pontes HAR, Pontes FSC, Carneiro Jr JT, Fonseca FP, Carneiro NCM. Tumor odontogênico cístico calcificante em mandíbula: relato de caso e revisão de literatura. *Rev. Hosp Universitário João de Barros Barreto*. 2009; 23(1):a205-9.

Rani V, Masthan MK, Aravindha B, Leena S. Aggressive calcifying epithelial odontogenic tumor of the maxillary sinus with extraosseous oral mucosal involvement: a case report. *Iran J Med Sci* 2016 mar; 41(2):145-9.

Rocha MS, Avila TM, Gomes DAV. Tumor odontogênico epitelial calcificante: revisão de literatura sobre diagnóstico. *Dossiê Anais de Eventos Ulbra Campus Torres 2016 jul-set*; 2:1-2.

Rydin K, Sjostrom M, Warfvinge G. Clear cell variant of intraosseous calcifying epithelial odontogenic tumor: a case report and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2016; 122(4):e125-30.

Sahni P, Nayak MT, Sharma J. Clear cell calcifying epithelial odontogenic (Pindborg) tumor involving the maxillary sinus: a case report and review of literature. *J Oral Maxillofac Pathol* 2012 sep-dec; 16(3):454-459.

Santana SF, Nascimento YL, Ferreira KM, Silva MC, Lisboa Neto JÁ. Aspectos clínico-histopatológicos do tumor odontogênico epitelial calcificante: revisão de literatura. *IJOL, Ciência, Clínica e Diagnóstico*, 2018; 1(1):1-2.

Shanmuga OS, Ravikumar A, Krishnarathnam K, Rajendiran S. Intraosseous calcifying epithelial odontogenic tumor in a case with multiple myeloma. *J Oral Maxillofac Pathol*. 2009 jan; 13(1):10-3.

Shetty D, Jayade BV, Gopalkrishnan. Peripheral calcifying epithelial odontogenic tumor. Case report. *J Oral Bioil Craniofac Res* 2014; 4(2):147-50.

Somayaji G, Rajeshwary A, Ramesh S, Dinesh S. Recurrent Pindborg tumor of the maxilla: a case report and review of the literature. *Ear Nose Throat J*. 2013 feb; 92(2):84-7.

Sousa AA, Serpa MR, Queiroz NV, Manzi FR, Horta MCR, Souza PEA. Tumor odontogênico calcificante cístico associado a odontoma: relato de caso. *REv Port Estomacol, Med Dent Cirur Maxilofacial* 2015 sept; 56(3):188-194.

Sperandio, FF, Giudice, FS. Atlas de Histopatologia oral básica. São Paulo: Gen/Santos; 2018.

Szporek BJ, Cieslik T, Jedrzejewski PW, Lipiarz LZ. Calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg tumor). Wiad Lek, 2005; 58(7-8):458-61.

Tanaka AKO, Yaedu RYF, Sant'Ana E, Lara VS. Tumor odontogênico epitelial calcificante: relato de caso clínico. Resumos. Bauru, 2013.

Uchiyama Y, Murakami S, Kishino M, Furukawa S. CT and MR imaging features of a case of calcifying epithelial odontogenic tumor. JBR-BTR 2012; 95(5):315-9.

Utumi ER, Pedron IG, Silva LPN, Machado GG, Rocha AC. Distintas manifestações do tumor odontogênico cístico calcificante. Einstein. 2012; 10(3):366-70