

Tumor odontogênico adenomatoide: relato de um caso clínico destacando os seus principais diagnósticos diferenciais

Adenomatooid odontogenic tumor: case report emphasizing the main differential diagnoses

Priscilla Rodrigues Câmara,¹ Sabrina Nogueira Dutra,² André BozikiChavier do Carmo,³ Ademar Takahama Júnior,¹ Rebeca de Souza Azevedo¹

¹Laboratório de Patologia Oral, Faculdade de Odontologia, Instituto de Saúde de Nova Friburgo, Universidade Federal Fluminense, Nova Friburgo, Rio de Janeiro, Brasil

²Faculdade de Odontologia, Centro Universitário Fluminense, UNIFLU, Campos dos Goytacazes, Rio de Janeiro, Brasil

³Serviço de Cirurgia Buco-Maxilo-Facial, Hospital Municipal Raul Sertã, Nova Friburgo, Rio de Janeiro, Brasil

• O autores declaram que não há conflito de interesse.

RESUMO

Objetivo: relatar caso clínico de tumor odontogênico adenomatoide (TOA), enfatizando suas características e diagnósticos diferenciais. Relato de caso: paciente masculino, 16 anos, apresentando lesão radiolúcida, unilocular, associada ao dente 24 incluso. Sob as hipóteses de TOA, cisto dentígero, tumor odontogênico cístico calcificante e ameloblastoma unicístico, foi realizada biópsia excisional. Na microscopia, observou-se parênquima contendo estruturas tubulares e áreas semelhantes à roseta e cribriformes, estabelecendo o diagnóstico de TOA. Conclusão: o reconhecimento das características clínicas, radiográficas e histopatológicas do TOA é essencial para guiar o processo para se estabelecer o diagnóstico definitivo e, conseqüentemente, permitir o tratamento adequado do paciente.

Palavras-chave: Tumores odontogênicos; Diagnóstico diferencial; Cistos odontogênicos; Características radiográficas.

ABSTRACT

Objective: to report a case of adenomatooid odontogenic tumor (AOT), highlighting its features and differential diagnosis. Case report: a 16-year-old male with a unilocular radiolucent lesion involving the unerupted 24th tooth. Considering AOT, dentigerous cyst, calcifying cystic odontogenic tumor, and unicystic ameloblastoma as the clinical diagnoses, an excisional biopsy was performed. Microscopic analysis revealed a parenchyma containing tubular structures and roset-like areas, establishing a diagnosis of AOT. Conclusion: the acknowledgement of clinical, radiographic, and microscopic features of AOT is essential to guide a definitive diagnosis and, as a consequence, to enable a suitable treatment of the patient.

Keywords: Odontogenic tumors; Differential diagnosis; Odontogenic cysts; Radiographic features.

Introdução

O tumor odontogênico adenomatoide (TOA) é um tumor odontogênico benigno, de origem epitelial, que, desde a sua primeira descrição, exibiu diferentes nomenclaturas –adamantioma, adenoameloblastoma, tumor adenomatoide ameloblástico e ameloblastoma adenomatoide.^{1,2} Durante um período, foi considerado uma variante do ameloblastoma, no entanto, em 1971, foi incluído como um tumor odontogênico distinto sob a nomenclatura TOA na primeira edição do livro de Tumores de Cabeça e Pescoço elaborado pela Organização Mundial de Saúde (OMS), sendo mantido e definido em sua versão mais recente do ano de 2005 como um tumor odontogênico composto apenas por epitélio odontogênico em uma variedade de padrões histoarquiteturais.^{2,3}

O TOA é um tumor odontogênico incomum com frequência relativa variando entre 2 e 7% de todos os tumores odontogênicos.^{2,4} Clinicamente, a lesão é caracterizada por um aumento de volume, de crescimento lento e progressivo, podendo haver ou não a presença de sintoma.⁵ Acomete principalmente a região anterior da maxila de pacientes do sexo feminino na segunda década de vida, especialmente adolescentes,⁴⁻⁶ e geralmente é descoberto em exame radiográfico de rotina como uma lesão radiolúcida unilocular envolvendo a coroa de um dente canino incluso.⁷

O diagnóstico definitivo é obtido pelo exame microscópico, que revelará uma proliferação de epitélio odontogênico em uma variedade de padrões arquiteturais, sendo o mais comum composto por células epiteliais fusiformes, colunares ou cuboidais, formando ninhos ou estruturas semelhantes a ductos e a rosetas.^{1,2,5}

O aspecto clínico e radiográfico do TOA é relativamente constante e pode ser sugestivo, mas, ainda assim, geralmente inclui uma variedade de cistos e tumores odontogênicos em seu diagnóstico diferencial. Dessa forma, o objetivo deste artigo é, por meio do relato de um caso clínico, evidenciar as características clínicas, radiográficas e histopatológicas do TOA e seus diagnósticos diferenciais no processo de diagnóstico de lesões radiolúcidas uniloculares intraósseas.

Relato de Caso

Paciente do sexo masculino, 16 anos de idade, feoderma, procurou atendimento odontológico para avaliação de retenção do dente decíduo e atraso na erupção do dente permanente. Ao exame físico extraoral, observou-se discreta assimetria facial com aumento de volume no terço médio da face do lado esquerdo. Ao exame físico intraoral, foi possível observar aumento de volume de consistência firme que se estendia do primeiro molar decíduo superior esquerdo ao primeiro molar permanente superior esquerdo e promovia o apagamento do fundo de vestíbulo. A radiografia panorâmica revelou a presença de uma lesão radiolúcida unilocular, bem definida, com bordas escleróticas, medindo, aproximadamente, 3 cm de diâmetro e en-



volvendo todo o primeiro pré-molar superior não erupcionado (Figura 1A). Observou-se ainda leve deslocamento das raízes dos dentes adjacentes e reabsorção da raiz do segundo pré-molar superior esquerdo (Figura 1A). Levando em consideração a delimitação clínica e radiográfica da lesão e sob os diagnósticos diferenciais de TOA, cisto dentífero, tumor odontogênico cístico calcificante e ameloblastoma unicístico, respectivamente, o paciente foi submetido à biópsia excisional da lesão sob anestesia local. Durante o transcirúrgico, notou-se que a lesão se destacou facilmente do osso e que estava envolvida completamente por uma espessa cápsula (Figura 1B).

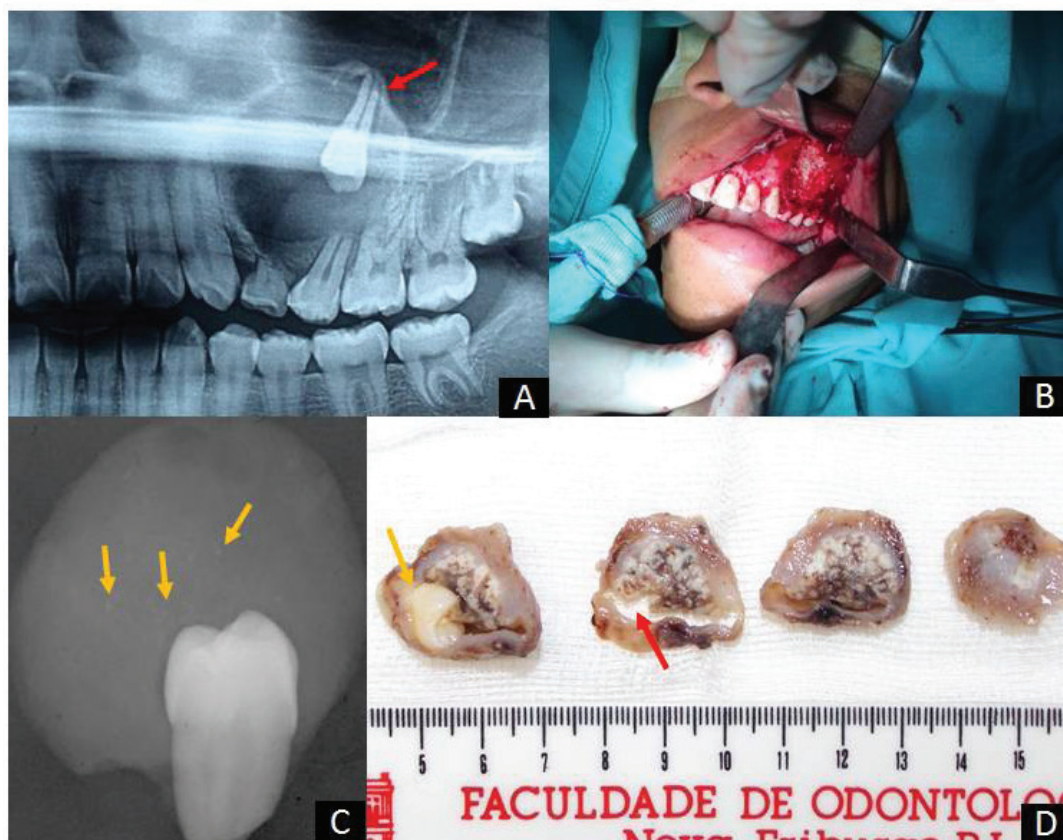


Figura 1. Aspectos clínicos, radiográficos e macroscópicos

(A) Radiografia panorâmica destacando a presença de uma lesão radiolúcida unilocular envolvendo a coroa do dente incluído 24 retido. Note a extensão da lesão ultrapassando a linha amelocementária (seta vermelha); (B) imagem transcirúrgica evidenciando o aumento de volume presente na região média de maxila e o procedimento cirúrgico conservador; (C) radiografia da peça cirúrgica evidenciando os focos radiopacos da lesão (setas); (D) imagem macroscópica após clivagem da peça cirúrgica destacando a presença do dente 24 envolvido por uma área sólida (seta amarela) e outra área aparentemente cística (seta vermelha)

No exame macroscópico, a peça cirúrgica era constituída de um material sólido de consistência irregular e cor esbranquiçada medindo 29x24x23 mm e que estava associado ao dente pré-molar removido com a lesão. Foi realizada uma radiografia da peça cirúrgica, que permitiu identificar a presença de pequenos focos radiopacos no interior da lesão (Figura 1C). Após a clivagem da peça cirúrgica, visualizou-se a presença de áreas sólidas e de área cística associada ao dente envolvido (Figura 1D).

O exame microscópico revelou uma proliferação sólida de ninhos em arranjo nodular associados a focos de material calcificado e a uma área cística revestida por epitélio estratificado pavimentoso não queratinizado (Figuras 2 A e B). As áreas sólidas eram compostas por células epiteliais fusiformes exibindo pouco tecido conjuntivo ao redor, podendo formar cavidades pseudocísticas, áreas semelhantes a rosetas e estruturas tipo-ductais com material eosinofílico e calcificação no seu interior (Figura C). Na periferia da lesão, também foi observada uma área em padrão cribriforme (Figuras 2D). Tais achados foram suficientes para o estabelecimento do diagnóstico de TOA.

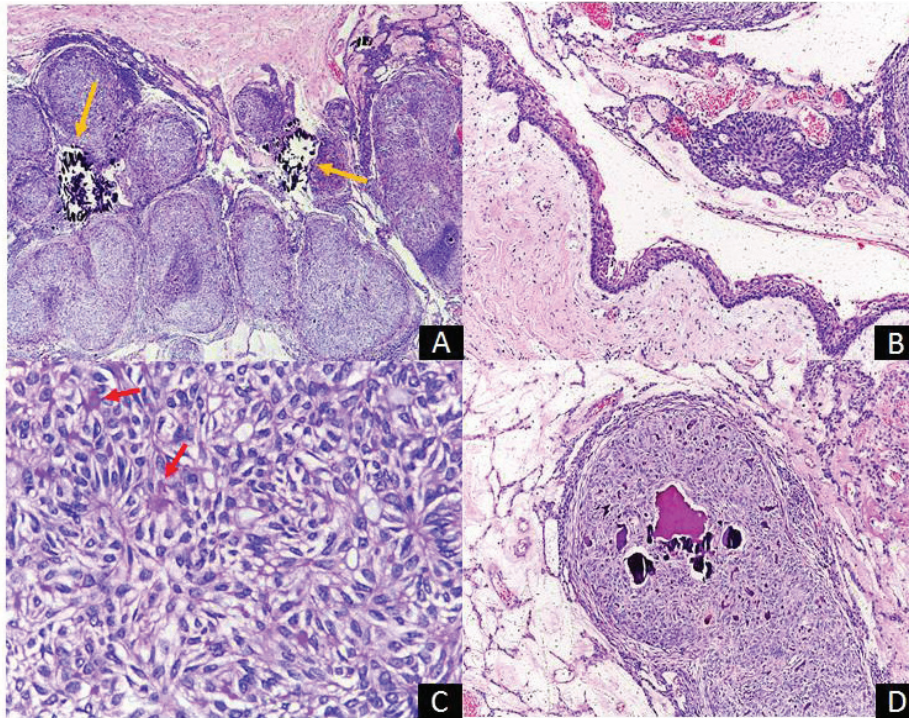


Figura 2. Aspectos histopatológicos (hematoxilina e eosina)

(A) Proliferação sólida de ninhos em arranjo nodular associada a focos de material calcificado (setas amarelas, objetiva 4x); (B) presença de cavidade cística revestida por epitélio pavimentoso estratificado não queratinizado (abaixo, objetiva 10x); (C) áreas semelhantes a rosetas destacando a presença de pequenos espaços tipo-ductais, dois deles contendo material eosinofílico em seu interior (setas vermelhas, objetiva 40x); (D) presença de gotículas hialinas e de material calcificado no centro de outro ninho sólido. Note que o estroma é frouxo e com um padrão cribriforme (objetiva 10x)

Discussão

O TOA é uma lesão odontogênica benigna, incomum, que compreende, aproximadamente, 3% de todos os tumores odontogênicos.⁶⁻⁸ A maioria dos casos ocorre em pacientes do sexo feminino numa proporção que pode variar, mas gira em torno de 2:1,^{4,8} com menos de 30 anos de idade, com cerca de 70% dos casos envolvendo pacientes jovens na segunda década de vida, com uma média de 16 anos idade.^{1,6} O caso relatado também envolveu um adolescente, porém do sexo masculino, que apesar de ser um achado incomum, já foi previamente relatado.⁹

Radiograficamente, o TOA apresenta três variantes, uma folicular, intraóssea e que está associada a um dente incluído, representando a variante mais comum (até 70% dos casos);^{4,6} uma extrafolicular, que apesar de também ser intraóssea, não está associada a um dente incluído;^{4,6} e uma variante periférica, que é extraóssea e, geralmente, está localizada em gengiva superior anterior,⁶ e representa a variante menos comum (0 a 6,7% dos casos).^{5,8} As variantes intraósseas costumam apresentar-se como lesões radiolúcidas uniloculares bem delimitadas, que podem exibir ou não a presença de pequenos focos radiopacos.^{1,2}

A variante folicular do TOA ocorre com maior frequência na região anterior de maxila, geralmente associada a um dente canino incluído,^{1,2} características similares ao caso relatado, que, no entanto, envolvia um dente pré-molar incluído. É importante ressaltar que, de acordo com Kalia *et al.*,¹⁰ apenas 9% dos casos de TOA costumam acometer os dentes pré-molares superiores.

O TOA pode causar afastamento das raízes dos dentes e não costuma promover reabsorção radicular.⁶ No caso descrito, apesar do TOA ter provocado o afastamento das raízes dos dentes adjacentes, foi observada também a reabsorção da raiz do dente 25. De fato, este é um evento raramente relatado na literatura, mas que pode estar associado ao crescimento deste tumor odontogênico.¹

O TOA pode fazer diagnóstico diferencial com alguns cistos e tumores odontogênicos. O principal diagnóstico diferencial é o cisto dentígero,⁷ que corresponde ao cisto odontogênico de desenvolvimento mais comum,¹¹ e de fato, 77% dos casos de TOA são inicialmente diagnosticados como cisto dentígero.¹² De forma similar ao TOA, o cisto dentígero acomete principalmente pacientes jovens, especialmente adolescentes e do sexo masculino.¹¹ O cisto dentígero pode ocorrer em maxila, assim como o TOA, no entanto, a maioria dos casos, ocorre geralmente em mandíbula.¹¹ Radiograficamente, tanto o TOA quanto o cisto dentígero, apresentam-se como uma área radiolúcida, unilocular, bem definida que envolve a coroa de um dente incluído.¹¹ Desta forma, um aspecto que ajuda na diferenciação entre essas duas lesões é que o TOA geralmente está as-

sociado ao dente além da junção amelocementária, envolvendo também parte da raiz do dente incluso acometido,² enquanto que o cisto dentífero, não ultrapassa a junção amelocementária.¹¹ Adicionalmente, como já descrito acima, no TOA o dente mais comumente associado é o canino,^{1,12} enquanto que no cisto dentífero, apesar de também poder estar associado a um dente canino superior, é observado mais frequentemente envolvendo terceiros molares inferiores.¹¹ Outra característica que pode auxiliar na diferenciação entre essas duas lesões é a presença de focos radiopacos, que são identificados em, aproximadamente, 65% dos casos de TOA, e inexistem no cisto dentífero.^{1,11,13}

Seguindo na linha dos diagnósticos diferenciais do TOA e levando em consideração a presença destes focos radiopacos, um dos diagnósticos diferenciais do caso relatado foi o tumor odontogênico cístico calcificante, outrora denominado cisto odontogênico calcificante, que pode também apresentar calcificação no exame radiográfico em cerca de 65% dos casos.² Além disso, assim como o nosso paciente e os casos de TOA, há um pico de prevalência na segunda e terceira décadas de vida,¹⁴ mas não costuma apresentar predileção por sexo nem por localização, quando comparados o acometimento entre maxila e mandíbula, ainda que haja predileção pela região anterior.² O tumor odontogênico cístico calcificante também costuma estar associado a um dente canino, assim como o TOA, ou a um pré-molar incluso, como no caso que relatamos, podendo também promover afastamento e reabsorção das raízes.^{2,14} Apesar disso, assim como o cisto dentífero e os casos de TOA foliculares, apresenta-se como uma lesão radiolúcida com envolvimento pericoronário.¹⁴


O ameloblastoma unicístico, outro diagnóstico diferencial do TOA e do caso relatado, também acomete principalmente pacientes jovens, na segunda década de vida, no entanto, assim como o cisto dentífero, costuma envolver um terceiro molar inferior incluso, estando também associado ao dente pela junção amelocementária.² Além disso, um outro aspecto que pode auxiliar na diferenciação entre o ameloblastoma unicístico e o TOA é que o ameloblastoma unicístico não exhibe focos de radiopacidade em seu interior.² Tal aspecto também não foi observado na radiografia panorâmica que guiou o manejo clínico e cirúrgico deste caso, mas identificado na radiografia realizada na peça cirúrgica durante os procedimentos laboratoriais para obtenção da lâmina histológica e, conseqüente, estabelecimento do diagnóstico definitivo, etapa fundamental no diagnóstico deste tumor odontogênico, que, como explicitado acima, pode mimetizar clínica e radiograficamente diferentes lesões.

Microscopicamente, o TOA possui uma variedade de características possíveis de serem identificadas. A lesão geralmente é circundada por uma espessa cápsula fibrosa e seu padrão microscópico mais marcante é o sólido. Este padrão é composto por células de epitélio odontogênico fusiformes, cúbicas ou colunares formando ninhos ou estruturas como rosetas. No centro das estruturas semelhantes a rosetas e entre as células epiteliais dos nódulos, pode ser observado um material eosinofílico hialino. Podem ser observadas também estruturas tubulares ou semelhantes a ductos, de tamanhos variados que são revestidas por uma única camada de células epiteliais colunares, com os núcleos polarizados em direção oposta a superfície luminal. Estas estruturas apesar de serem características do TOA, nem sempre estão presentes e não são ductos verdadeiros, não havendo elementos glandulares neste tumor odontogênico.² Um outro padrão que pode ser observado por entre e conectando os ninhos e, em particular, na periferia do tumor, é composto por cordões de células basaloides, com uma a duas camadas, formando uma configuração trabecular ou cribriforme.^{1,12} No caso relatado, as características microscópicas, de uma forma geral, foram similares ao descrito acima, apresentando áreas semelhantes a rosetas, ductos e também calcificações, no entanto, assim como observado na macroscopia e na microscopia do caso, foi observada também uma área cística revestida por epitélio. Nesse contexto, sabe-se que o TOA pode ser parcialmente cístico²⁴ mimetizando o cisto dentífero, sendo às vezes difícil estabelecer se houve uma transformação do cisto dentífero para o TOA ou se é apenas uma área de cisto dentífero no TOA.¹⁵

Autores relatam que o TOA pode surgir a partir do revestimento epitelial de um cisto, principalmente pelo fato dele apresentar com frequência áreas de outras lesões associadas, como a área de cisto dentífero acima citada, ou ainda áreas de tumor odontogênico cístico calcificante, tumor odontogênico epitelial calcificante e odontoma.²

Por fim, o tratamento desta lesão inclui apenas a remoção cirúrgica completa, sendo o prognóstico excelente e a recidiva raramente relatada.^{1,12}

Conclusão

O reconhecimento das características clínicas e radiográficas dos cistos e tumores odontogênicos é de grande importância visto que são lesões que podem possuir características bem semelhantes, fazendo com que haja inúmeras possibilidades diagnósticas, o que reforça a necessidade do diagnóstico definitivo ser estabelecido a partir da análise anatomopatológica. O TOA possui uma variedade de padrões histopatológicos e apesar de nem sempre todas as características microscópicas que podem compor a lesão estarem presentes, e de áreas de outros cistos ou tumores odontogênicos poderem estar associadas ao TOA, suas características histopatológicas são distintas e não devem ser confundidas com nenhum outro tumor odontogênico, visando, desta forma, o direcionamento do paciente para o tratamento adequado. 

Referências ::

1. Rick GM. Adenomatoidodontogenic tumor. *Oral MaxillofacSurgClin North Am.* 2004;16(3):333-54.
2. Barnes L, Eveson J, Reichart P, Sidransky D. World Health Organization Classification of Tumours. Pathology and Genetics – Head and Neck Tumours. IARC Press: Lyon; 2005.
3. Pindborg JJ, Kramer JR, Torloni H. Histological typing of odontogenic tumours, jaw cysts and allied lesions. Geneva: WHO; 1971
4. Mohamed A, Singh AS, Raubenheimer EJ, Bouckaert MMR. Adenomatoid odontogenic tumour: review of the literature and an analysis of 33 cases from South Africa. *Int J Oral MaxillofacSurg.* 2010;39(9):843-6.
5. Leon JE, Mata GM, Fregnani ER, Carlos-Bregni R, de Almeida OP, Mosqueda-Taylor A, et al. Clinicopathological and immunohistochemical study of 39 cases of Adenomatoid Odontogenic Tumour: a multicentric study. *Oral Oncol.* 2005;41(8):835-42.
6. Matos FR, Nonaka CFW, Pinto LP, Souza LB, Freitas RA. Adenomatoid Odontogenic Tumor: Retrospective Study of 15 Cases with Emphasis on Histopathologic Features. *Head Neck Pathol.* 2012;6(4):430-7.
7. Swasdison S, Dhanuthai K, Jainkittivong A, Philipsen HP. Adenomatoid odontogenic tumors: an analysis of 67 cases in a Thai population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral RadiolEndod.* 2008;105(2):210-5. Epub 2007 Jul5.
8. Adisa AO, Lawal AO, Effiom OA, Soyele OO, Omitola OG, Olawuyi A, et al. A retrospective review of 61 cases of adenomatoid odontogenic tumour seen in five tertiary health facilities in Nigeria. *Pan Afr Med J.* 2016;31(24):102.
9. Chuan-Xiang Z, Yan G Adenomatoid odontogenic tumor: a report of a rare casewith recurrence. *J Oral Pathol Med.* 2007;36(7):440-3.
10. Kalia V, Kalra G, Kaushal N, Sharma V, Vermani M. Maxillary adenomatoid odontogenic tumor associated with a premolar. *Ann Maxillofac Surg.* 2015;5(1):119-22.
11. Shear M, Speight P. Cysts of the Oral and Maxillofacial Regions. Blackwell Munksgaard: 4thed, 2007.
12. Philipsen HP, Reichart PA, Siar CH, Ng KH, Lau SH, Zhang X, et al. An updated clinical and epidemiological profile of the adenomatoid odontogenic tumour: a collaborative retrospective study. *J Oral Pathol Med.* 2007;36(7):383-93.
13. Manjunatha BS1, Harsh A, Purohit S, Naga MV. Adenomatoid odontogenic tumor associated with a dentigerous cyst. *J Cancer Res Ther.* 2015;11(3):649.
14. Chindasombatjaroen J, Poomsawat S, Kakimoto N, Shimamoto H. Calcifying cystic odontogenic tumor and adenomatoid odontogenic tumor: radiographic evaluation. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2012;114(6):796-803.
15. Murali S, Sekar B, Augustine D. Adenomatoid odontogenic tumor mimicking an odontogenic cyst - A case report. *JIACS.* 2010;1:59-62.

Recebido em: 24/09/2016 / Aprovado em: 15/11/2016

Autor Correspondente

Rebeca de Souza Azevedo

E-mail: rsazevedo@id.uff.br