

UNIVERSIDADE FEDERAL DO RIO GRANDE DO SUL
FACULDADE DE ODONTOLOGIA

VINICIUS DI DOMENICO

DESVENDANDO A ETIOLOGIA DO CISTO ÓSSEO ANEURISMÁTICO: REVISÃO
DE LITERATURA E UM RELATO DE CASO CLÍNICO

Porto Alegre

2019

VINICIUS DI DOMENICO

DESVENDANDO A ETIOLOGIA DO CISTO ÓSSEO ANEURISMÁTICO: REVISÃO
DE LITERATURA E UM RELATO DE CASO CLÍNICO

Trabalho de Conclusão de Curso
apresentado ao Curso de Graduação em
Odontologia da Faculdade de Odontologia
da Universidade Federal do Rio Grande do
Sul, como requisito parcial para obtenção do
título de Cirurgião-Dentista.

Orientador: Angelo Luiz Freddo

Porto Alegre

2019

VINICIUS DI DOMENICO

DESVENDANDO A ETIOLOGIA DO CISTO ÓSSEO ANEURISMÁTICO: UM
RELATO DE CASO CLÍNICO

Trabalho de Conclusão de Curso
apresentado ao Curso de Graduação em
Odontologia da Faculdade de Odontologia
da Universidade Federal do Rio Grande do
Sul, como requisito parcial para obtenção do
título de Cirurgião-Dentista.

Orientador: Angelo Luiz Freddo

Porto Alegre, 10 de julho de 2019.

Prof. Dr. Angelo Luiz Freddo
Universidade Federal Do Rio Grande Do Sul

Prof. Me. Fernando de Oliveira Andriola
Universidade Federal do Rio Grande do Sul

Prof. Dr. Heraldo Luís Dias da Silveira
Universidade Federal do Rio Grande do Sul

AGRADECIMENTOS

Aos meus pais, Jorge e Liciane, por tudo que fizeram por mim, todo o apoio em momentos difíceis. São a razão de eu ter chego aqui e sou eternamente grato. Amo vocês incondicionalmente.

Ao meu orientador, Angelo Luiz Freddo, por, além das orientações e ensinamentos, pela amizade e parceria de sempre. És um profissional pelo qual tenho profunda admiração e consideração.

Aos meus amigos e colegas de curso, que tornaram essa caminhada ao longo desses 5 anos muito mais agradável.

Aos meus amigos de Chapecó, que mesmo longe, sempre mantivemos contato e a amizade.

RESUMO

O cisto ósseo aneurismático é uma lesão benigna que atinge geralmente jovens e possui uma etiologia controversa onde não existe um consenso entre os autores na literatura atual. Suas características clínicas, radiográficas e histopatológicas são facilmente associadas à outras lesões, o que dificulta o diagnóstico e gera questionamentos com relação ao tratamento. Tendo em vista todos esses pontos, o objetivo do presente trabalho é realizar uma revisão de literatura sobre o cisto ósseo aneurismático, discutindo a etiologia da patologia bem como as características da doença e seu tratamento. Ademais, o trabalho será ilustrado com um caso clínico, onde se abordará as principais características clínicas, radiográficas e tratamento desse caso.

Palavras-chave: Cisto ósseo aneurismático. Etiologia. Tratamento. Cisto ósseo traumático. Cisto hemático multilocular. Granuloma reparativo de células gigantes.

ABSTRACT

Aneurysmal bone cyst is a benign lesion that usually affects young people and has a controversial etiology where there is no consensus among authors in the current literature. Its clinical, radiographic and histopathological characteristics are easily associated with other lesions, which makes diagnosis difficult and raises questions regarding the treatment. In view of all these points, the objective of the present study is to carry out a review of the literature on aneurysmal bone cyst, discussing the etiology of the pathology as well as the characteristics of the disease and its treatment. The study also illustrates a clinical case, where the main features of the disease will be discussed, such as its clinical and radiological features and treatment.

Keywords: Aneurysmal bone cyst. Etiology. Treatment. Traumatic bone cyst. Multilocular haematic cyst. Giant cell reparative granuloma.

LISTA DE FIGURAS

Figura 1 - Reconstrução panorâmica	15
Figura 2 - Tomografia Computadorizada – Corte Coronal.....	20
Figura 3 – Tomografia Computadorizada – Corte Sagital.....	20
Figura 4 - Tomografia Computadorizada – Corte Axial	21
Figura 5 – Tomografia Computadorizada – Visão Lateral	21
Figura 6 – Tomografia Computadorizada – Reconstrução 3D.....	22
Figura 7 – Imagem Transoperatória	25
Figura 8 – Imagem Transoperatória	25
Figura 9 – Imagem Transoperatória	26
Figura 10 – Imagem Transoperatória	26
Figura 11 – Peças Cirúrgicas	27
Figura 12 – Imagem Transoperatória	27

SUMÁRIO

1	INTRODUÇÃO	6
2	OBJETIVOS	10
2.1	OBJETIVOS GERAIS	10
2.2	OBJETIVOS ESPECÍFICOS	10
3	METODOLOGIA.....	11
4	REVISÃO DE LITERATURA	12
4.1	CLASSIFICAÇÃO E ETIOLOGIA	12
4.2	CARACTERÍSTICAS CLÍNICAS.....	13
4.3	CARACTERÍSTICAS RADIOGRÁFICAS E TOMOGRÁFICAS	14
4.4	CARACTERÍSTICAS HISTOPATOLÓGICAS	15
4.5	TRATAMENTO E PROGNÓSTICO.....	16
4.5.1	Tratamentos Cirúrgicos	16
4.5.1.1	Excisão Marginal ou “em bloco”	16
4.5.1.2	Procedimentos intralesionais e procedimentos minimamente invasivos	17
4.5.2	Tratamentos não cirúrgicos e adjuvantes	17
4.5.2.1	Escleroterapia.....	17
4.5.2.2	Crioterapia	18
5	RELATO DE CASO	19
6	DISCUSSÃO	29
7	CONCLUSÃO.....	31
	REFERÊNCIAS	32

1 INTRODUÇÃO

O nome cisto ósseo aneurismático (COA) é confuso, pois a lesão não é um cisto e também não é um aneurisma. Por definição, um cisto é uma cavidade revestida por um epitélio, e nesse caso essa camada de epitélio não está presente¹.

Ele é classificado como uma lesão benigna, osteolítica, agressiva e localmente destrutiva². O cisto ósseo aneurismático é um acúmulo intraósseo de espaços de tamanhos variáveis preenchidos por sangue e circundados por tecido conjuntivo fibroso celularizado que frequentemente se misturam com trabéculas de osso esponjo reativo³.

Sua incidência é baixa^{4,5}, representando cerca de 1,4% de todos os casos de tumores ósseos primários⁴, sendo mais comum em ossos longos e na coluna vertebral. Raramente se manifesta nos ossos maxilares, representando apenas 2% dos casos da lesão, sendo mais comum na mandíbula do que na maxila^{4,5}. É mais comum em pessoas jovens, mas pode ocorrer em qualquer idade, tendo maior incidência na segunda década de vida. Não há predileção significativa por gênero^{4,6}.

A etiologia do cisto ósseo aneurismático é controversa, existem várias teorias, porém ainda não se obteve um consenso entre os autores. Existem relatos que indicam que essa lesão evolui de alguma outra lesão óssea que já existia previamente, assim como alguns autores relatam se tratar de uma lesão primária, sem histórico anterior.

Clinicamente, a característica mais comum é o aumento de volume, que vem frequentemente acompanhado de dor, entretanto inicia-se como uma lesão assintomática até que comece a comprometer estruturas como vasos e nervos. Em alguns casos, também é possível observar parestesias, um abaulamento palpável da cortical óssea e compressão de outras estruturas, devido ao caráter expansivo de crescimento da lesão^{2,3}.

Nos ossos gnáticos, um método comum de identificar a lesão é através de exames rotineiros de imagem, já que apresenta-se assintomática em fase inicial, sendo os exames mais comuns a radiografia panorâmica e a tomografia computadorizada. Radiograficamente, observa-se uma área radiolúcida, na maior parte dos casos multiloculada mas podendo ser uniloculada também, com margens bem definidas e presença de áreas radiopacas no interior da lesão^{5,7}.

Como o cisto ósseo aneurismático apresenta características em comum com outras patologias, é importante realizar o diagnóstico diferencial. Algumas das doenças que podem ter características similares são o ceratocisto odontogênico, lesão central de células gigantes e o fibroma ameloblástico, portanto a necessidade do diagnóstico diferencial. O ameloblastoma e o mixoma odontogênico também são similares e podem ser incluídos no diagnóstico diferencial, embora sejam mais comuns em pacientes idosos⁸.

O tratamento de escolha para o cisto ósseo aneurismático é cirúrgico⁷. Existem diferentes opções de tratamento, porém ainda não se tem um consenso dos autores. Geralmente, é feito a ressecção total da lesão, a fim de evitar recidiva, podendo ou não ser feito um enxerto ósseo no local^{3,4,6}. Além disso, ainda existem relatos de tratamento com radioterapia^{6,7} porém é contra-indicada para esse tipo de lesão por se tratar de uma lesão benigna, já que a radiação não tem efeito em células que apresentam mitoses ou não estejam em divisão celular^{3,4,6}.

No presente trabalho, apresenta-se um caso de cisto ósseo aneurismático em região posterior de mandíbula em uma paciente jovem e também se discute os aspectos clínicos, radiográficos, histopatológicos e tratamento dessa patologia.

2 OBJETIVOS

2.1 OBJETIVOS GERAIS

Realizar uma revisão de literatura sobre o cisto ósseo aneurismático, incluindo sua classificação, suas características clínicas, radiográficas e histopatológicas e buscando um consenso sobre sua etiologia, que é controversa. Também será apresentado um caso clínico, relatando o diagnóstico e conduta adotada.

2.2 OBJETIVOS ESPECÍFICOS

- a) Abordar a classificação da patologia;
- b) dissertar sobre as possíveis etiologias da doença;
- c) discutir tratamentos de escolha para a lesão.

3 METODOLOGIA

Será realizada uma revisão de literatura entre os principais artigos relacionados ao cisto ósseo aneurismático, que serão pesquisados usando as principais bases de dados, entre elas: Pubmed, SciELO, Cochrane, LILACS e Bireme.

Os artigos utilizados serão datados de 1988 até o que se tem de mais recente na literatura atual, serão relacionados às características clínicas, radiográficas, histopatológicas, tratamento e prognóstico do cisto ósseo. Objetivou-se buscar a literatura mais recente para dar ênfase a possíveis novos conceitos e consensos, porém alguns conceitos seguem sem mudança há décadas.

Os artigos foram selecionados independentemente do tipo de estudo, baseando-se nas seguintes palavras-chave: cisto ósseo aneurismático; cisto ósseo traumático; etiologia; tratamento.

Será realizada uma abordagem sobre as maiores divergências relacionadas a essa patologia e, com isso, se fará uma discussão acerca delas para elucidar os temas abordados.

O presente trabalho visa fazer o acompanhamento de um relato de caso desde o momento da cirurgia até julho de 2019.

4 REVISÃO DE LITERATURA

Será apresentada uma revisão de literatura com publicações de 1988 até 2018.

4.1 CLASSIFICAÇÃO E ETIOLOGIA

Apesar de receber o nome de cisto, o cisto ósseo aneurismático (COA) não é classificado como um. O primeiro relato dessa lesão na literatura foi em 1942, quando Jaffe e Lichenstein descreveram uma lesão de pelve em que “ao expor a lesão e adentrar sua parede delgada, o cirurgião se deparou imediatamente com uma grande cavidade contendo muito sangue”¹⁰. Em 1997, Camargo classificava essa patologia como uma lesão pseudotumoral de relativa frequência¹¹.

O cisto ósseo aneurismático é um acúmulo intraósseo de espaços de tamanhos variáveis preenchidos com sangue circundados por tecido conjuntivo fibroso celularizado que frequentemente se misturam com trabéculas de osso esponjoso reativo³.

Atualmente, diversos autores o caracterizam como uma lesão benigna, de caráter expansivo e localmente destrutivo. ^{4,8,9,11}. Segundo a OMS (2013), o cisto ósseo aneurismático é uma lesão óssea cística composta por espaços preenchidos por sangue separados por septos de tecido conjuntivo contendo fibroblastos, células-gigantes osteoclásticas e tecido ósseo esponjoso reacional¹².

Na literatura, o COA é diferenciado em primário e secundário. Em geral, o COA secundário está associado à uma lesão pré-existente, como displasia fibrosa, lesão central de células gigantes, entre outras. O COA primário não está relacionado à outra lesão. Embora a forma em que a lesão se apresenta seja a mesma, alguns autores analisam fatores como idade do paciente e local do tumor para distinguir entre os dois¹³.

A etiologia do cisto ósseo aneurismático ainda não foi elucidada. Por muito tempo, pensou-se que o COA era causado por uma hemorragia subperiosteal devido à distúrbios de circulação no local, que ativavam células osteoclásticas e consequente reabsorção do tecido ósseo. Essa teoria deixou de ser aceita para

casos em que o COA é uma lesão primária, mas ainda é plausível para lesões secundárias¹⁴.

Em cistos ósseos aneurismáticos secundários, admite-se que alguma outra lesão óssea primária antecedente não relatada possa desencadear uma malformação vascular, resultando no cisto ósseo aneurismático⁸.

O trauma também foi proposto como um fator etiológico, porém existem poucas evidências para subsidiar essa teoria⁴. O trauma pode ser o gatilho que leva ao desenvolvimento do COA. Em uma revisão de literatura, apenas 28% dos pacientes relataram histórico de trauma no local¹⁵.

Estudos genéticos indicam ainda que o COA é mais um tumor do que uma lesão primária. Uma pré-disposição a um defeito genético pode ser parte de uma etiologia multifatorial¹⁵. Foi evidenciado que em casos onde o COA é primário, na banda do cromossomo 17, mais especificamente no oncogene **USP6**, existe um rearranjo variável em cerca de 70% dos casos, enquanto que em cistos ósseos aneurismáticos secundários, de 17 casos avaliados, nenhum apresentava esse rearranjo¹⁶.

4.2 CARACTERÍSTICAS CLÍNICAS

O COA é mais prevalente em jovens com menos de 20 anos, sendo 90% dos casos em pacientes de até 30 anos^{11,17}. Não há diferença significativa entre gêneros^{4,6}. Existe uma predileção por ossos longos, entretanto, é uma lesão que pode acometer praticamente todos os ossos, incluindo os maxilares¹⁷. O COA tem uma baixa incidência, apenas cerca de 1,4% de todos os tumores ósseos e, desse número, apenas 2% afetam os ossos gnáticos^{4,5}.

A maioria dos autores relata como uma lesão assintomática^{1,2,3}, porém dependendo da sua localização e devido ao seu caráter expansivo, o COA pode comprimir nervos e apresentar alguns sintomas, sendo os mais comuns edema da região e dor^{2,17}. Outros sintomas também podem vir acompanhados, porém são menos comuns, como parestesia ou um abaulamento palpável da cortical óssea^{2,3}.

Geralmente, o COA apresenta-se como uma lesão solitária¹⁷, podendo ser primária, quando não há relação com outras lesões ou secundária, quando está relacionado com outra lesão pré-existente, sendo as mais comuns o osteblastoma e o tumor de células gigantes³.

Uma revisão de 123 casos com diagnóstico de COA revelou que 70% das lesões eram primárias, sendo 30% associadas a outra lesão, porém o número de cistos ósseos aneurismáticos secundários pode ser maior segundo os autores, pois há uma diferença entre os materiais coletados para análise anatomopatológica, principalmente quando o tratamento de escolha para a lesão é a curetagem¹⁸.

4.3 CARACTERÍSTICAS RADIOGRÁFICAS E TOMOGRÁFICAS

As características radiográficas do COA podem ser inespecíficos e confundidos com outras patologias⁴. Os exames de imagem, através de radiografias panorâmicas ou tomografias computadorizadas, permitem analisar imagens sugestivas e não-patognomônicas de cisto ósseo aneurismático⁷.

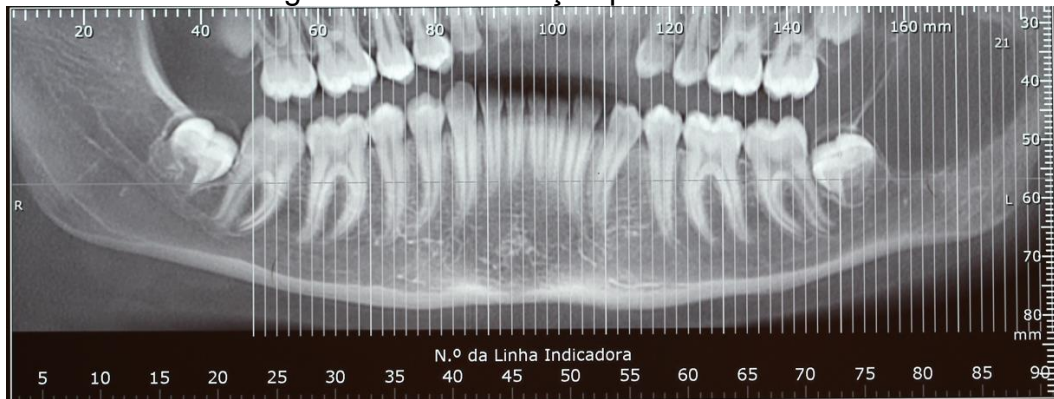
ASAUMI, et. al. relatam que as características radiográficas de um COA da mandíbula podem mostrar uma área radiolúcida unicística, unilocular, com formato de bolha de sabão ou de um favo de mel causando expansão, perfuração ou destruição da cortical óssea. Essas características não são conclusivas para um diagnóstico. Radiograficamente, há a necessidade de diagnóstico diferencial de tumor de células gigantes, ameloblastoma, granuloma de células gigantes, mixoma, displasia fibrosa e possivelmente outras patologias⁵.

Podem apresentar-se como uma distensão balonizante ou com aspecto de "sopro para fora", presença de uma imagem radiolúcida cística, geralmente multilocular, com uma malha cística dividida por grossos septos de tecido ósseo⁷.

Uma revisão que analisou 26 casos de cisto ósseo aneurismático na mandíbula revelou que 96% das lesões eram solitárias, cerca de $\frac{3}{4}$ das lesões eram uniloculares e 25% eram multiloculares, o que dá à lesão um aspecto de tumor. O diâmetro da lesão em radiografias panorâmicas variou de 1,5cm a 8cm, com uma média de 3,5cm¹.

Na figura 1, temos uma reconstrução panorâmica do caso da paciente que será relatado nesse trabalho onde é possível observar os aspectos acima descritos.

Figura 1 - Reconstrução panorâmica



Aspecto de lesão radiolúcida em ramo de mandíbula do lado esquerdo, unilocular, causando expansão das corticais ósseas

Fonte: do autor, abril/2018.

4.4 CARACTERÍSTICAS HISTOPATOLÓGICAS

Assim como os achados radiográficos, as análises histopatológicas do COA podem ser inconclusivas, salientando a importância da utilização de todos os recursos possíveis para um diagnóstico preciso. A confirmação histológica do tipo de lesão é fundamental para o tratamento, no entanto a biópsia pré-operatória de cisto ósseo aneurismático não é indicada pelo risco de sangramento, então em alguns casos só se tem a certeza de diagnóstico após a intervenção cirúrgica⁶. No entanto, há a possibilidade de biópsia por punção aspirativa com o objetivo de afastar a possibilidade de lesão vascular.

Quando analisado microscopicamente, o cisto ósseo aneurismático caracteriza-se por espaços de tamanhos variados preenchidos por sangue. Circundando esses espaços há um tecido fibroblástico com trabéculas de osso imaturo e células gigantes multinucleadas. Em aproximadamente 20% dos casos, existe outra patologia associada à lesão, sendo mais comum uma lesão fibro-óssea ou granuloma de células gigantes³.

Histologicamente, são encontradas hemácias e hemossiderina marrom-clara em abundância, preenchendo espaços semelhantes a cistos limitados por septos de fibroblastos, células fusiformes mitoticamente ativas, osteóides, calcificações e células gigantes multinucleadas dispersas¹². O COA tem a aparência histopatológica de uma malha parcialmente cística, dividida por septos de tecido ósseo⁴.

Em análises imunohistoquímicas, foi observado que as células gigantes multinucleadas presentes no interior da lesão possuem atividade osteoclástica⁷.

4.5 TRATAMENTO E PROGNÓSTICO

A literatura apresenta diferentes formas de tratamento para o COA, porém o tratamento mais utilizado ainda é o cirúrgico^{7,19}. Dentre as diferentes técnicas de tratamento cirúrgico, temos a excisão marginal ou remoção “em bloco”, que é a remoção cirúrgica da lesão com margens de segurança; procedimentos cirúrgicos intralesionais, como a curetagem que é um procedimento menos invasivo; ou ainda procedimentos minimamente invasivos, como é o caso da curetagem agressiva no momento da biópsia^{16,19}.

Mesmo se tratando de uma lesão benigna, o simples acompanhamento do caso não é possível devido à característica de expansão que a lesão apresenta, o que acaba causando sintomatologia caso não se realize o tratamento.

Além dessas alternativas, encontramos outros métodos que podem ser adjuvantes ao tratamento cirúrgico ou são relatados como tratamento da lesão, como a radioterapia e a escleroterapia. Entretanto, esses métodos de tratamento não apresentam taxas de sucesso tão satisfatórias como a cirurgia¹⁶.

4.5.1 Tratamentos Cirúrgicos

4.5.1.1 Excisão Marginal ou “em bloco”

Alguns autores preconizam a ressecção total da lesão como o tratamento mais apropriado para o COA, com uma excelente taxa de controle da lesão que é próxima de 100%. Embora tenha uma boa taxa de sucesso, praticamente sem recidivas, esse tratamento é também o mais invasivo e acompanhado de maiores riscos, como sangramento, dor e distúrbios de crescimento na região. Além disso, em alguns casos também é necessário realizar uma nova intervenção cirúrgica para corrigir o defeito ósseo deixado, sendo assim, preferem-se tratamentos menos invasivos e com menores complicações, mesmo não tendo a taxa de sucesso tão alta^{16,18}.

Nessa técnica, os autores ainda sugerem a colocação de um enxerto ósseo autógeno ou alógeno para um melhor prognóstico^{19,20}.

4.5.1.2 Procedimentos intralesionais e procedimentos minimamente invasivos

A excisão intralesional é uma opção menos invasiva utilizada em casos de cistos ósseos aneurismáticos que permitem um acesso adequado à lesão e que também apresenta boa taxa de sucesso. Essa taxa de sucesso é discutível, algumas revisões extensas apresentam índices de até 90% de sucesso²⁰, enquanto outros autores relatam uma variação de 0 a 100% nas taxas de sucesso com essa escolha de tratamento¹⁶. Esse procedimento consiste na curetagem da lesão e, devido à sua taxa de sucesso ainda controversa, os autores utilizam de tratamentos adjuvantes para um melhor prognóstico^{16,19,20}.

Algumas opções de procedimentos minimamente invasivos também têm se mostrado efetivos na resolução do COA, embora estes tratamentos sejam incomuns nos ossos gnáticos e mais realizados em ossos longos. Alguns autores relatam que é possível obter a cura com um procedimento chamado de curopsia, que consiste na curetagem percutânea durante a biópsia, resultando em taxas de sucesso de até 81% sem a necessidade de um segundo momento cirúrgico além da biópsia²⁰.

4.5.2 Tratamentos não cirúrgicos e adjuvantes

4.5.2.1 Escleroterapia

A escleroterapia é a injeção de esclerosantes com o objetivo de danificar o endotélio vascular causando trombose de pequenos vasos, levando à uma cadeia de eventos ainda não muito bem entendida que resulta na cura da lesão¹⁶. A opção de agente esclerosante que temos como melhor opção é o Polidocanol, alcançando taxas de até 97% de cura²¹, obtendo-se um resultado igualmente efetivo à excisão total da lesão mas com menos comorbidades ao paciente²². Da mesma forma que a curopsia, a escleroterapia é mais utilizada em ossos longos, não foi encontrado relatos de tratamento de lesões nos ossos gnáticos com esse método.

4.5.2.2 Crioterapia

A crioterapia, ou criocirurgia, é um tratamento adjuvante para lesões ósseas que consiste na aplicação de nitrogênio líquido diretamente no interior do osso após a curetagem da lesão. O nitrogênio líquido estimula uma necrose óssea que é tão efetiva quanto uma excisão ampla¹⁹. Em um estudo de 80 casos de COA tratados com curetagem e crioterapia, houve uma taxa de recorrência da lesão de apenas 5%²³. Outro estudo que comparou a taxa de sucesso quando se utilizava a crioterapia e quando não se usava resultou em uma recorrência de 59% e 14%, respectivamente²⁰.

5 RELATO DE CASO

O presente caso clínico foi realizado na unidade de Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial (CTBMF) do Hospital de Clínicas de Porto Alegre (HCPA) pelo acompanhamento da equipe de residentes. Refere-se a um caso de cisto ósseo aneurismático cujo tratamento foi cirúrgico de curetagem da lesão e uso da crioterapia.

Consulta 01 (23/04/2018)

Paciente K. M. P., sexo feminino, 13 anos foi referenciada ao serviço de Cirurgia Bucomaxilofacial do HCPA no dia 23/04/2018 com a queixa principal de um tumor em mandíbula no lado esquerdo. A lesão foi um achado radiográfico em exame rotineiro de imagem. Paciente não apresentava sintomatologia dolorosa.

Com relação ao histórico médico da paciente, a mesma alegou não possuir comorbidades sistêmicas, não realizar uso de quaisquer medicações, não possuir alergias, não apresentar histórico de desmaios ou convulsões e nega ter realizados cirurgias prévias.

Nessa primeira consulta foi solicitado o exame de tomografia computadorizada (TC) e realizado o agendamento de uma biópsia no Centro Cirúrgico Ambulatorial (CCA) do HCPA. Também foram solicitados exames de sangue da paciente.

Ao exame tomográfico, observou-se presença de uma imagem hipodensa irregular, próxima da coroa do dente 38 com expansão para o ramo mandibular no lado esquerdo da mandíbula (Figuras 2, 3 e 4). Também foi observado um abaulamento das corticais ósseas no sentido vestibulo-lingual, deslocamento do canal mandibular (Figura 4), rompimento da cortical óssea lingual. A primeira hipótese de diagnóstico a partir desse exame foi de ameloblastoma unilocular ou ceratocisto odontogênico.

A Figura 5 representa uma visão de perfil da paciente, do lado esquerdo dos ossos do crânio da paciente, onde é possível observar a extensão da lesão e seu caráter destrutivo. Na Figura 6, temos uma reconstrução tridimensional do lado esquerdo dos ossos do crânio e da face da paciente. É possível observar defeito ósseo na cortical vestibular.

Figura 2 - Tomografia Computadorizada – Corte Coronal

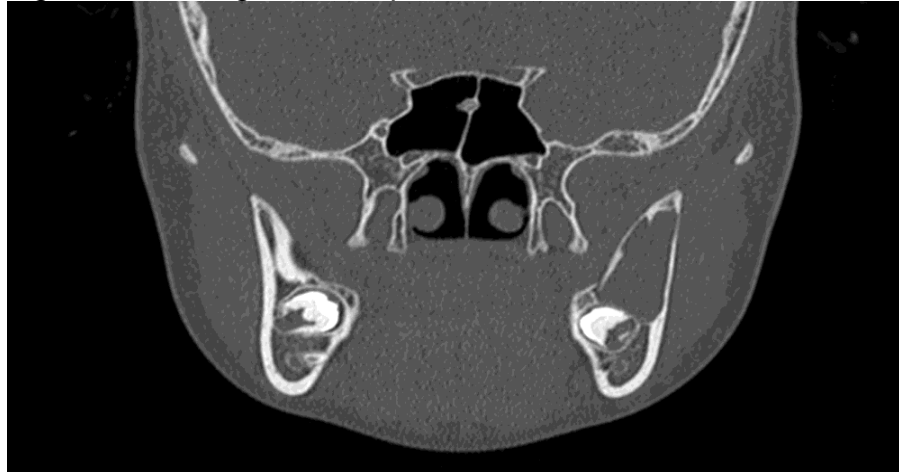


Imagem hipodensa em corpo e ângulo de mandíbula do lado esquerdo
Fonte: do autor, abril/2018.

Figura 3 – Tomografia Computadorizada – Corte Sagital

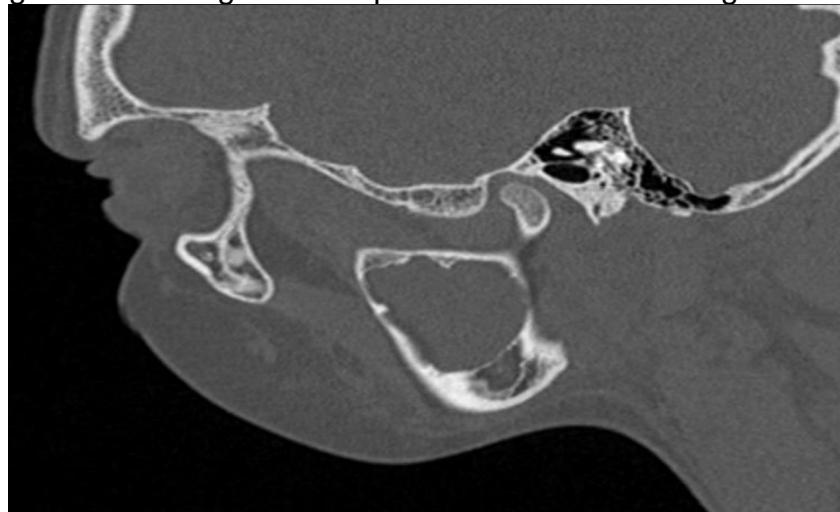


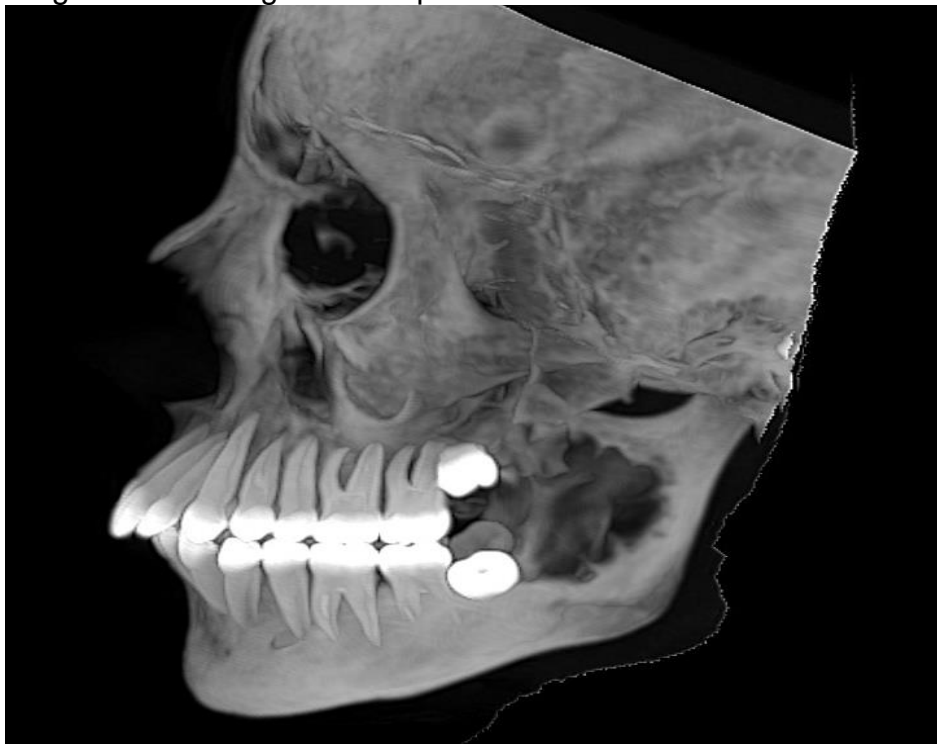
Imagem hipodensa evidenciando a extensão da lesão no sentido antero-posterior
Fonte: do autor, abril/2018

Figura 4 - Tomografia Computadorizada – Corte Axial



Imagem hipodensa unilocular em mandíbula do lado esquerdo
Fonte: do autor, abril/2018.

Figura 5 – Tomografia Computadorizada – Visão Lateral



Reconstrução tomográfica em MIP evidenciando lesão de grande proporção em
mandíbula do lado esquerdo
Fonte: do autor, abril/2018.

Figura 6 – Tomografia Computadorizada – Reconstrução 3D



Fonte: do autor, abril/2018.

Consulta 02 (04/05/2018)

A paciente compareceu ao CCA para realizar a biópsia incisional da lesão. Foi feito a osteotomia do teto da lesão e remoção de peça para biópsia. Durante a cirurgia, um dos achados operatórios foi uma cápsula friável, bem delgada, porém que não se tratava de um epitélio.

Paciente retornou no dia 14/05/2018 para remoção de sutura e negou ter tido quaisquer complicações pós-cirúrgicas ou dor. Apresentava boa higiene do local e sem presença de sinais inflamatórios.

Consulta 03 (21/05/2018)

Com 3 semanas de pós-operatório da biópsia realizada no local, compareceu em consulta no ambulatório para avaliação.

Paciente relata sentir “inchado” por dentro da boca e também choques ocasionalmente na região da mandíbula. Não refere dor ou gosto ruim na boca. Ao

exame clínico, constatou-se a presença de uma área ulcerada sugestiva de mordiscamento.

Consulta 04 (18/06/2018)

No dia 18 do mês seguinte, a paciente compareceu novamente ao ambulatório para avaliação e análise do laudo do exame anatomopatológico. Ela não apresentava nenhuma queixa e clinicamente apresentava boa cicatrização e ausência de sinais de infecção.

O laudo do exame anatomopatológico apresentou como diagnóstico:

1- Exsudato fibrinoneutrocitário apresentando tecido ósseo desvitalizado com sinais de hemorragia antiga e inflamação crônica.

2- Tecido ósseo esclerótico apresentando ao centro osteogênese reacional.

A paciente foi colocada na lista de espera para remoção da lesão no bloco cirúrgico do HCPA, sob anestesia geral.

Consulta 05 (06/08/2018)

Última consulta pré-cirúrgica, a cirurgia estava marcada para o dia 09. Foi retomado o histórico médico, onde a paciente continuou negando comorbidades sistêmicas, uso de medicações e alergias. Paciente estava sem sintomatologia no momento da consulta, mas relatava o aparecimento de uma fístula e dor esporadicamente.

Nessa consulta, foi explicado como seria o procedimento cirúrgico e os riscos envolvidos, sendo o maior deles a parestesia, devido à proximidade do nervo alveolar inferior com a lesão.

Consulta 06 (09/08/2018)

A paciente foi ao bloco cirúrgico do HCPA para realizar a cirurgia de acesso e remoção da lesão. Seguindo as recomendações pré-operatórias, ela estava em jejum de 12 horas.

No bloco cirúrgico, com a presença de um médico anestesiológico, a paciente foi submetida à anestesia geral com intubação nasotraqueal para que então a equipe da CTBMF pudesse remover a lesão.

Foi realizada uma incisão por vestibular que se estendeu do ângulo da mandíbula até a região do primeiro molar do lado esquerdo inferior (Figura 7), seguido do descolamento mucoperiosteal (Figura 8), obtendo um campo cirúrgico com boa visualização e acesso. A janela óssea que observamos na Figura 8 é decorrente da intervenção cirúrgica para a biópsia da lesão, realizada em maio do mesmo ano.

Com a cortical vestibular exposta, prosseguiu-se então para a osteotomia para de fato acessar o sítio da lesão, que era intra-óssea (Figuras 9 e 10).

Foi realizada a exodontia do dente 38 no ato cirúrgico pois o mesmo encontrava-se praticamente englobado pelo COA, como é possível observar na imagem tomográfica da Figura 2. A remoção da lesão foi feita por curetagem e após, como tratamento coadjuvante, foi utilizada a aplicação de nitrogênio líquido na ferida transoperatória, técnica conhecida como crioterapia, com eficácia reconhecida na redução das taxas de recorrência dessa lesão¹⁹.

Na Figura 11, podemos observar o material coletado durante a remoção da lesão. Podemos ver os septos de tecido ósseo que estavam no interior da lesão, assim como o dente 38 que foi extraído no procedimento. As peças cirúrgicas refletem o aspecto da lesão, que é uma cavidade inundada de sangue sem presença de cápsula cística. Os materiais foram enviados novamente para exame anatomopatológico.

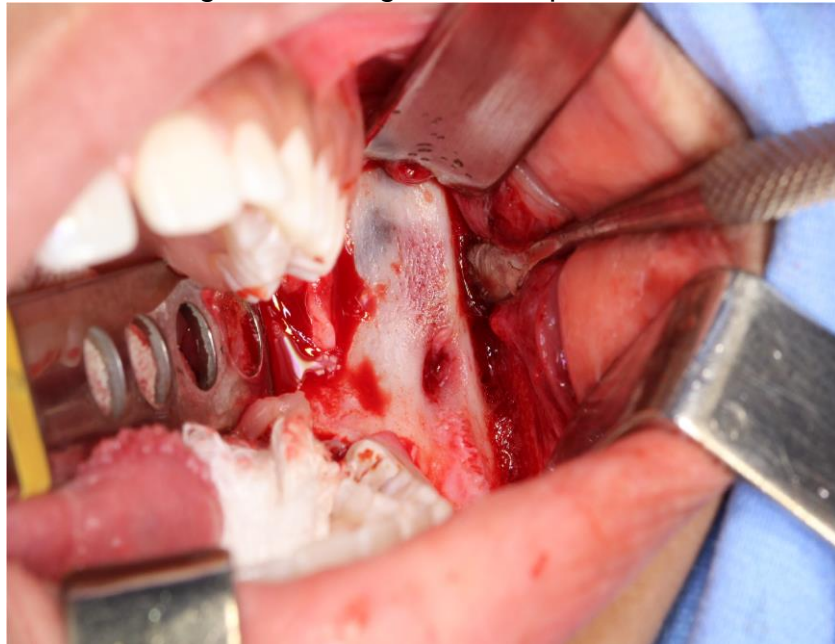
Após curetagem e crioterapia, foram tomados os cuidados com a ferida operatória, reposicionamento do retalho e sutura com fio de poliglactina 4.0 (Figura 12)

Figura 7 – Imagem Transoperatória



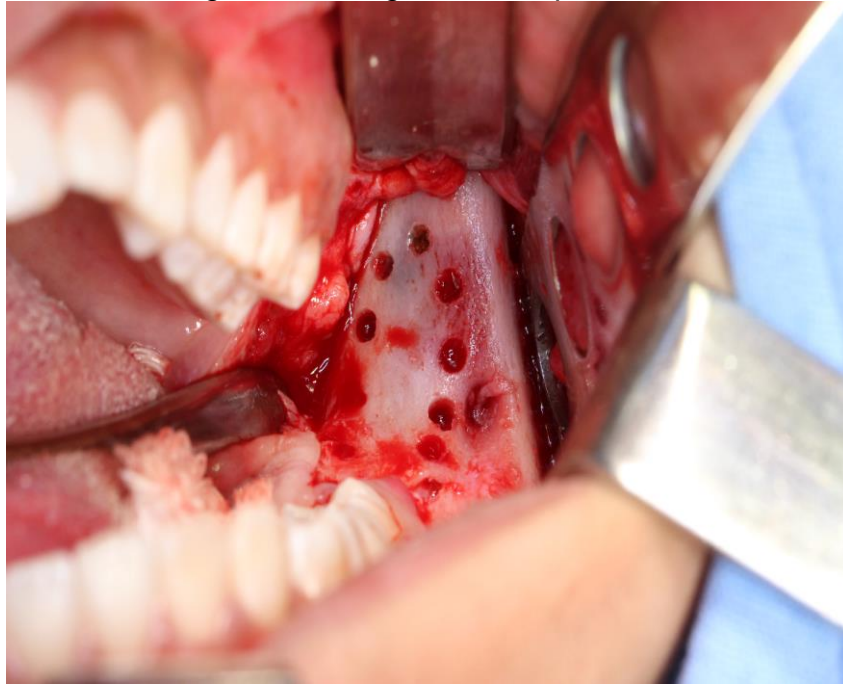
Imagem intra-oral do lado esquerdo da paciente com a incisão realizada
Fonte: do autor, agosto/2018.

Figura 8 – Imagem Transoperatória



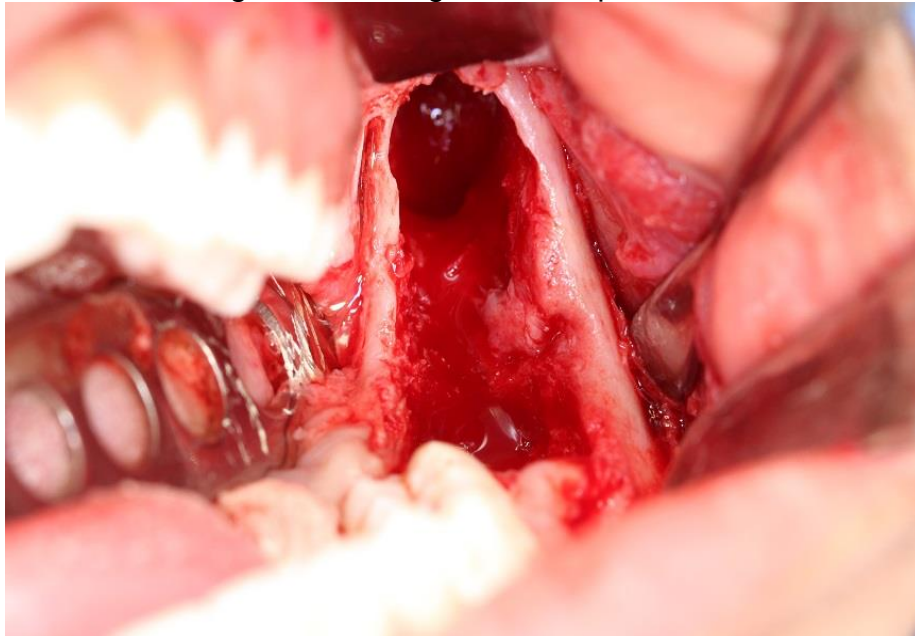
Descolamento dos tecidos exposição da cortical óssea vestibular
Fonte: do autor, agosto/2018.

Figura 9 – Imagem Transoperatória



Perfurações para guiar a osteotomia
Fonte: do autor, agosto/2018.

Figura 10 – Imagem Transoperatória



Lesão exposta após remoção da cortical óssea, inundada de sangue
Fonte: do autor, agosto/2018.

Figura 11 – Peças Cirúrgicas



Septos de tecido ósseo removidos durante a cirurgia e o dente 38 que foi extraído
Fonte: do autor, agosto/2018.

Figura 12 – Imagem Transoperatória



Sutura pós-operatória
Fonte: do autor, agosto/2018.

Consulta 07 (03/09/2018)

Normalmente, a primeira consulta pós-operatória é realizada após uma semana da intervenção, porém a paciente não compareceu na consulta 7 dias depois, retornando somente após 3 semanas da remoção cirúrgica da lesão. Não relata sintomatologia dolorosa nem desconfortos. Consegue se alimentar normalmente.

Clinicamente, a mucosa não apresenta sinais inflamatórios ou infecciosos. Foi feito a remoção total da sutura e orientado melhor higiene no local.

O laudo anatomopatológico voltou confirmando o diagnóstico de COA e identificou um cisto dentígero associado ao dente 38.

Consulta 08 (08/10/2018)

Paciente com 60 dias de pós operatório, retorna para avaliação. Não relata nenhuma queixa, a cicatrização é compatível com o período, sem edema ou dor à palpação.

Foi solicitado uma radiografia panorâmica para controle e retorno da paciente em 30 dias, entretanto, a equipe da CTBMF do HCPA não conseguiu mais realizar contato com a paciente. A equipe vai seguir tentando contato para acompanhamento da paciente, mas até a finalização do presente trabalho, não foi possível localizar a mesma. A paciente também não procurou mais o serviço para relatar qualquer alteração no local da cirurgia.

6 DISCUSSÃO

O direcionamento para o diagnóstico do COA muitas vezes é feito no transoperatório, aliando os aspectos clínicos às características radiográficas e confirmados no histopatológicos^{6,17}. No caso relatado no corpo desse trabalho havia uma hipótese diagnóstica inicial de ceratocisto odontogênico. Essa hipótese foi descartada no momento cirúrgico, devido a inexistência de uma cápsula cística revestindo a lesão e ausência de ceratina. Além disso, as características tomográficas e as peças cirúrgicas coletadas e analisadas confirmaram o diagnóstico de COA.

A grande maioria dos autores classifica a lesão como benigna, apesar do seu caráter expansivo e destrutivo não existe disseminação para outros tecidos^{4,8,11}. Alguns estudos genéticos sugerem que a lesão pode se tratar de um tumor, com base em alterações encontradas em um oncogene específico, porém ainda não está claro o que leva à essa alteração e ela não está presente em todos os casos de COA.

Mesmo tratando-se de uma lesão benigna, concorda-se que em alguns casos ela possa apresentar um caráter expansivo e destrutivo, como podemos ver nas imagens tomográficas, onde houve expansão e até uma ruptura da cortical óssea. No presente caso, a paciente não relatou sintomatologia dolorosa, porém, dependendo da localização da lesão, essa expansão pode comprimir nervos e causar dor e até mesmo limitações de movimento¹.

Sua etiologia segue desconhecida, a paciente não relatou histórico de trauma no local ou histórico familiar desse tipo de lesão, sendo causada provavelmente por um distúrbio de circulação no local, baseado no que existe na literatura atual, onde essa segue sendo a teoria mais aceita para a etiologia do COA.^{8,18,19}

Das diversas teorias apresentadas para justificar sua etiologia, um distúrbio de circulação sanguínea no local segue sendo a mais provável, mesmo não se tendo certeza do que pode desencadear esse distúrbio. O mais provável no presente caso, é que o COA não tenha relação com a presença do dente 38 incluso e o cisto dentígero encontrado nesse dente, com base na idade da paciente e local da lesão. Um trauma não relatado pela paciente também é uma possibilidade. A etiologia segue sendo um ponto de discussão entre os autores onde é necessário novos

estudos que se aprofundem mais na origem da doença. Ainda não é possível afirmar com certeza a origem da lesão com base nos achados da literatura.

Como o laudo anatomopatológico revelou, existia a presença de um cisto dentígero associado ao folículo pericoronário do dente 38, podendo ou não estar relacionado com o COA. Na literatura existem relatos de dentes inclusos associados à lesão e a necessidade de diagnóstico diferencial entre cisto dentígero e o cisto ósseo aneurismático, porém não evidencia que o cisto dentígero tenha relação com a etiologia da lesão óssea¹.

É possível observar nas imagens tomográficas (Figuras 1 a 3) aspectos relatados na literatura, como o aspecto unilocular, que ocorre na maioria dos casos de COA¹, uma expansão e ruptura da cortical óssea⁵ e o aspecto de “sopro para fora”⁷.

A paciente era jovem (13 anos), idade condizente com a maior incidência da patologia, que geralmente acomete pacientes na segunda década de vida^{11,13}.

O tratamento de escolha da lesão para este caso, que foi a curetagem da lesão com posterior crioterapia com nitrogênio líquido, está fortemente sustentado pela literatura existente^{7,14,18,20}, obtendo taxas de cura de até 90%²⁰ com índices de recidiva muito baixos, cerca de 5% quando realizado o tratamento adjuvante com nitrogênio líquido²³.

Embora não tenha sido possível localizar a paciente para o controle pós-operatório, com base nas duas consultas realizadas após a cirurgia, onde a paciente apresentou uma evolução boa e sem complicações, e com base em extensas revisões de literatura que relatam baixas taxas de falha para o tipo de tratamento de escolha associados à uma também baixa taxa de recidiva da lesão, acredita-se que foi obtido sucesso no tratamento, porém não há como afirmar tal fato sem um acompanhamento da paciente. A equipe de CTBMF vai seguir tentando localizar e acompanhar a paciente.

7 CONCLUSÃO

A obtenção das imagens radiográficas e tomográficas é essencial para auxiliar no diagnóstico e para delimitar a área e localização da lesão, bem como sua relação com estruturas anatômicas adjacentes. Visto sua semelhança com diversas outras lesões, como ceratocisto odontogênico, lesão central de células gigantes e o fibroma ameloblástico, é essencial a realização do diagnóstico diferencial para proporcionar o tratamento adequado para cada lesão.

Diferente da etiologia, o tratamento para essa lesão está bem consolidado na literatura, sendo o mais indicado atualmente a curetagem intralesional, que apresenta excelentes taxas de cura, e a utilização de uma terapia adjuvante, como a crioterapia ou solução carnoy no local com o objetivo de reduzir as chances de recorrência da lesão.

O prognóstico também é favorável, ao longo dos anos, com um melhor entendimento da doença e das opções de tratamento.

Infelizmente, no presente caso, não foi possível realizar o acompanhamento pós-operatório pois não foi possível localizar a paciente para contato. O tratamento de escolha foi a curetagem com posterior crioterapia, portanto, baseado nos achados literários, espera-se um sucesso no tratamento. O HCPA segue de portas abertas para receber a paciente e continuará tentando contato com ela.

REFERÊNCIAS

- 1- Martins-Filho PRS, Santos TS, Araújo VLC, Santos JS, Andrade ESS, Silva LCF. Cisto ósseo traumático da mandíbula: revisão de 26 casos. *Braz. j. otorhinolaryngol.* 2012 Abr; 78(2):16-21.
- 2 – Próspero, JD. Tumores ósseos. São Paulo, SP: Roca; 2001.
- 3 – Neville, B. Patologia Óssea. In: Patologia Oral e Maxilofacial. 4th ed. Amsterdam: Elsevier; 2016. p. 636–7.
- 4 - De Oliveira, E. Cisto ósseo aneurismático: relato de caso e revisão da literatura. *Revista de Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial.* 2007;7(4):9–18.
- 5- Asaumi J-I, Konouchi H, Hisatomi M, Matsuzaki H, Shigehara H, Honda Y, et al. MR features of aneurysmal bone cyst of the mandible and characteristics distinguishing it from other lesions. *European Journal of Radiology.* 2003;45(2):108–12.
- 6 - Ghazi M, Rahsepar B, Zamiri B. Aneurysmal bone cyst-plus lesions (report of three cases). *International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery.* 2005;34:139.
- 7- Caubi A, Gonçalves F, Andrade A, Landim F, Guillen M. Cisto ósseo aneurismático: relato de caso. *Rev. cir. traumatol. buco-maxilo-fac.* 2011 Set;1(3):9-13.
- 8 - Regezi J, Sciubba J, Jordan R. Patologia Oral. 7th ed. St. Louis, Mo.: Elsevier; 2017.
- 9- Camargo OP, Croci AT, Oliveira NR, Oliveira CR. Etchebehere, M, Baptista AM, Santos Neto FJ. Cisto ósseo aneurismático: análise retrospectiva de 98 casos tratados no IOT-HC-FMUSP de 1950 a 1997. *Rev. bras. ortop;* nov. 1997. 32(11):857-62.
- 10- Park HY, Yang SK, Sheppard WL, et al. Current management of aneurysmal bone cysts. *Curr Rev Musculoskelet Med.* 2016;9(4):435-444.
- 11- Heyd R, Seegenschmiedt M.H. Aneurysmal Bone Cyst (ABC). In: Seegenschmiedt M.H., Makoski HB., Trott KR., Brady L.W. (eds) *Radiotherapy for Non-Malignant Disorders. Medical Radiology (Radiation Oncology).* Springer, Berlin, Heidelberg: 2008. 352-353
- 12- Fletcher BJA, Hogendoorn PCW, Mertens F (Eds.). *WHO classification of tumours of soft tissue and bone.* Lyon: IARC, 2013.
- 13- Sasaki H et al. Diagnosing and discriminating between primary and secondary aneurysmal bone cysts. *Oncol Lett.* 2017 Apr;13(4):2290-229.

- 14-Mascard E, Gomez-Brouchet A, Lambot K. Bone cysts: unicameral and aneurysmal bone cyst. *Orthopaedics and Traumatology: Surgery and Research*, 2015;101(1),119-127.
- 15- Sun ZJ, Sun HL, Yang RL, Zwahlen RA, Zhao Y F. Aneurysmal Bone Cysts of the Jaws. *International Journal of Surgical Pathology*. 2009;17(4),311-322.
- 16- Oliveira AM et al. USP6 and CDH11 oncogenes identify the neoplastic cell in primary aneurysmal bone cysts and are absent in so-called secondary aneurysmal bone cysts. *Am J Pathol*. 2004 Nov;165(5):1773-80.
- 17 - Mark J, Kransdorf DE. Sweet aneurysmal bone cyst: concept, controversy, clinical presentation, and imaging. *AJR* 1995;164:573-580.
- 18- Martinez V, Sissons HA. Aneurysmal bone cyst: a review of 123 cases including primary lesions and those secondary to other bone pathology. *Cancer*. 1988 Jun 1;61(11):2291-304.
- 19- Drumond JM. Tumores ósseos benignos e lesões ósseas Pseudotumorais: tratamento atual e novas tendências. *Rev. bras. ortop.* 2009 Oct ; 44(5):386-390.
- 20 - Reddy KI, Sinnaeve F, Gaston CL, Grimer RJ, Carter SR. Aneurysmal bone cysts: do simple treatments work? *Clin Orthop Relat Res*. 2014;472(6):1901-1910.
- 21- Rastogi S, Varshney MK, Trikha V, Khan SA, Choudhury B, Safaya R. The Journal of Bone and Joint Surgery. British volume. 2006 88-B:9,1212-1216.
- 22- Varshney MK, Rastogi S, Khan SA, Trikha V. Is sclerotherapy better than intralesional excision for treating aneurysmal bone cysts? *Clin Orthop Relat Res*. 2010 Jun;468(6):1649-59.
- 23- Peeters S, Van der Geest I, de Rooy J, Veth R, Schreuder H. Aneurysmal bone cyst: the role of cryosurgery as local adjuvant treatment. *J. Surg. Oncol*. 2009; 100:719-724.
- 24- Frassica FJ, Amadio PC, Wold LE, Beabout JW. Aneurysmal bone cyst: clinicopathologic features and treatment of ten cases involving the hand. *Journal of Hand Surgery*. 1988;13(5),pp. 676-683.
- 25- Excision en bloc. (n.d.) *Miller-Keane Encyclopedia and Dictionary of Medicine, Nursing, and Allied Health, Seventh Edition*. (2003). [acesso 2019 jun 24]. Disponível em: <https://medical-dictionary.thefreedictionary.com/excision+en+bloc>.
- 26- Tsagozis P, Brosjö O. Current strategies for the treatment of aneurysmal bone cysts. *Orthop Rev (Pavia)*. 2015;7(4):6182.