

Caso Clínico

Cisto teratoide com epitélios respiratório, gastrointestinal e apêndices dérmicos: coristoma em paciente lactente



Glória Maria de França^{a,*}, Joaquim Felipe Júnior^a, Wesley Rodrigues da Silva^a, Hugo Costa Neto^b, Germano De Lelis Bezerra Junior^b, Hébel Cavalcanti Galvão^a

^a Programa de Pós-graduação em Ciências Odontológicas, área de concentração em Estomatologia e Patologia Oral, Departamento de Odontologia, Universidade Federal do Rio Grande do Norte, Natal-RN, Brasil.

^b Programa de Residência em Cirurgia e Traumatologia Buco-maxilofacial, Departamento de Odontologia, Universidade Federal do Rio Grande do Norte, Natal-RN, Brasil.

INFORMAÇÃO SOBRE O ARTIGO

Historial do artigo:

Recebido a 11 de outubro de 2019

Aceite a 12 de junho de 2020

On-line a 20 de julho de 2020

Palavras-chave:

Boca

Coristoma

Lactente

Teratoma

R E S U M O

Os cistos teratóides são hamartomas, que contém tecidos derivados do endoderma, mesoderma e ectoderma, relativamente raros na cavidade oral, onde são frequentemente encontrados na região da linha média do assoalho bucal. Este estudo relata um caso de cisto teratoide assintomático, localizado em região sublingual, em paciente do sexo feminino lactente, com 1 ano de idade, com histórico de dificuldade de amamentação. A lesão foi removida cirurgicamente e após 2 anos de acompanhamento não foram observados sinais de recidivas. Após a avaliação morfológica, foi classificado como coristoma por conter epitélio gastrointestinal, epitélio respiratório e anexos dérmicos. Concluímos enfatizando a relevância do correto diagnóstico do cisto teratoide para o estabelecimento da conduta adequada, considerando as implicações clínicas capazes de comprometer as funções de deglutição, mastigação e respiração do indivíduo afetado. (Rev Port Estomatol Med Dent Cir Maxilofac. 2020;61(1):38-44)

© 2020 Sociedade Portuguesa de Estomatologia e Medicina Dentária.

Publicado por SPEMD. Este é um artigo Open Access sob uma licença CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

* Autor correspondente.

Correio eletrónico: gloriafracam@gmail.com (Glória Maria de França).

<http://doi.org/10.24873/j.rpemd.2020.07.697>

1646-2890/© 2020 Sociedade Portuguesa de Estomatologia e Medicina Dentária. Published by SPEMD.

This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Teratoid cyst with respiratory epithelium, gastrointestinal epithelium and dermal appendices: choristoma in a breastfed infant

A B S T R A C T

Keywords:

Mouth
Choristoma
Infant
Teratoma

Teratoid cysts are hamartomas, which contain tissues derived from the endoderm, mesoderm, and ectoderm, and are relatively rare in the oral cavity, where they are often found in the midline region of the oral floor. This study reports a case of an asymptomatic teratoid cyst located in a sublingual region, in a 1-year-old female infant with a history of breastfeeding difficulty. The lesion was surgically removed, and, after 2 years of follow-up, no signs of recurrence were observed. After morphological evaluation, it was classified as a choristoma due to containing gastrointestinal epithelium, respiratory epithelium, and dermal appendages. We emphasize the importance of a correct diagnosis of the teratoid cyst for the establishment of appropriate management, considering the clinical implications that can compromise the swallowing, chewing, and breathing functions of the affected individual. (Rev Port Estomatol Med Dent Cir Maxilofac. 2020;61(1):38-44)

© 2020 Sociedade Portuguesa de Estomatologia e Medicina Dentária.

Published by SPEMD. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introdução

Os cistos teratoides são hamartomas que podem conter vários tecidos derivados do endoderma, mesoderma e ectoderma.¹ De acordo com a classificação de Meyer,² os cistos teratoides são cistos disontogenéticos orais. De todos os cistos disontogenéticos, cerca de 7% são encontrados na região de cabeça e pescoço, dos quais 25% deles é visto no assoalho bucal.³

Os cistos disontogenéticos representam menos de 0,01% de todos os cistos orais. Entre eles, os cistos teratoides são os de apresentação clínica mais incomum. A avaliação histopatológica demonstra que este cisto pode ser revestido por tecido gástrico, intestinal, epitélio respiratório, escamoso, ciliado ou até conter estruturas pancreáticas. Os cistos teratoides que contêm epitélio respiratório e gastrointestinal foram classicamente como coristomas (massas tumorais de células com organização arquitetural normal situadas em uma localização anormal).⁴

O diagnóstico diferencial para esse cisto, devido a sua localização, inclui a rânula, sialolitíase dos ductos da glândula submandibular, cisto do ducto tireoglossal, higroma cístico, cisto da fenda braquial, celulite do assoalho de boca, schwannoma e lipoma. Os principais diagnósticos diferenciais são o cisto dermóide, que se distingue histologicamente do cisto epidermóide apenas pela presença de anexos normais ou dismórficos dentro de suas paredes, geralmente glândulas sebáceas ou folículos capilares abortivos. O cisto teratóide é considerado quanto à presença de outros elementos, como músculo ou osso.⁵

O diagnóstico definitivo e a indicação do tratamento adequado requerem o uso de exames de imagem como ultrassonografia (US), tomografia computadorizada (TC), Imagem por Ressonância (RM) e exame histopatológico.⁶ A lesão é geralmente tratada por excisão cirúrgica conservadora,⁷ utilizando abordagem intraoral ou extraoral.⁸

O presente relato, tem o objetivo de descrever um achado incomum na literatura em paciente lactente, abordar aspetos referentes a sua origem, características clínicas e conduta terapêutica para o cisto teratóide em assoalho bucal.

Caso clínico

Paciente do sexo feminino, branca, 1 ano de idade, compareceu ao serviço de Cirurgia e Traumatologia Bucocomaxilofacial apresentando leve assimetria em hemiface direita ao exame extraoral (Figura 1) e pelo exame clínico intraoral, a paciente apresentava lesão congênita, assintomática, com histórico de crescimento exofítico, localizada em região sublingual, de coloração amarelada, consistência amolecida, implantação séssil, medindo cerca de 5x4 cm (Figura 2). A mãe da criança referiu dificuldades de sucção e respiração durante a amamentação, assim como preocupação com a invasividade local da lesão. A paciente estava se alimentando por meio de sonda desde o nascimento. Foi realizada a tomografia computadorizada de face com janela para partes moles para determinar e delimitar a extensão da lesão e o comprometimento das vias aéreas. A lesão mostrou-se hipodensa compatível com lesão cística no corte axial (Figura 3) e sem comprometimento de vias aéreas pelo corte sagital (Figura 4). Além disso, foi realizado punção aspirativa que evidenciou conteúdo amarelado e biópsia incisiva, que revelou lesão cística, bem delimitada, apresentando apêndices dérmicos. O epitélio de revestimento não apresentava atipia ou características de malignidade. A paciente foi submetida a anestesia geral em ambiente hospitalar, a qual foi feita a incisão com eletrocautério em região sublingual, dissecação romba dos planos musculares (Figura 5) e exérese completa da lesão (Figura 6), sem margens de segurança, por ser uma lesão cística, bem delimitada e benigna. A peça cirúrgica foi enviada para análise anatomopatológica (Figura 7). No mo-



Figura 1. O aspecto clínico extraoral exibe leve assimetria em hemiface direita.



Figura 4. Exame pré-operatório de tomografia computadorizada em face mostra a dimensão da lesão cística de modo a esclarecer o comprometimento das vias aéreas pelo corte sagital.



Figura 2. O aspecto clínico intraoral da lesão mostra um crescimento exofítico, localizado em região sublingual.

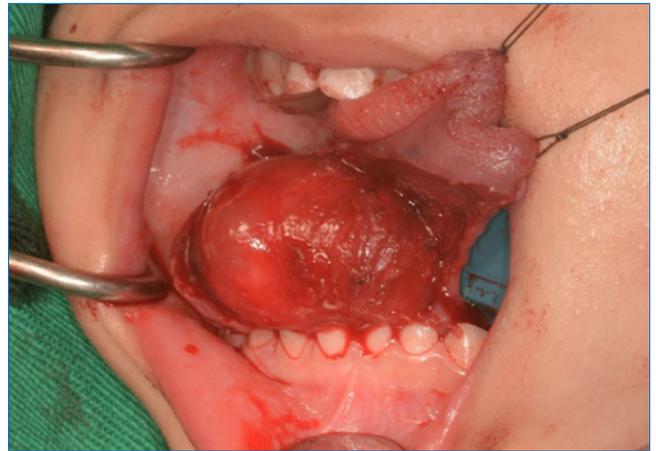


Figura 5. Fotografia correspondente ao trans-operatório, no qual foi realizada a Infiltração anestésica com lidocaína a 2% + epinefrina 1:100.000, incisão com eletrocautério em região sublingual, dissecação romba dos planos musculares.

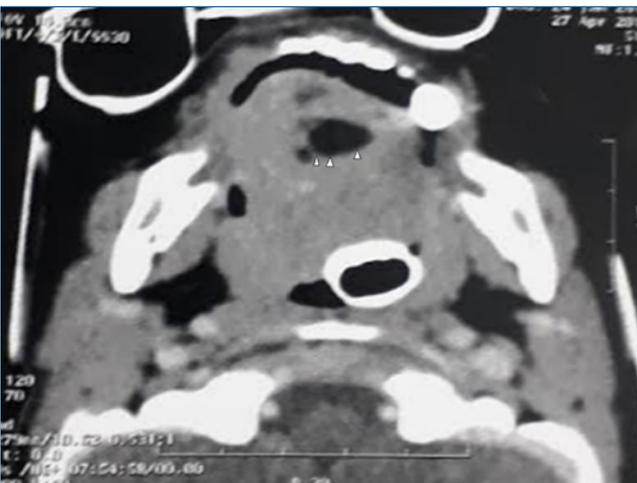


Figura 3. Exame pré-operatório de tomografia computadorizada em face mostra área hipodensa (setas) pelo corte axial correspondendo a lesão cística.

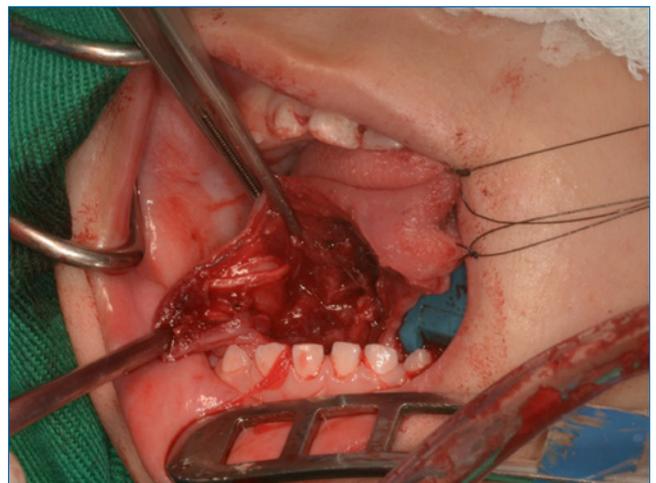


Figura 6. Exérese da lesão, coagulação elétrica dos pontos sangrantes, irrigação com soro fisiológico 0,9% e sutura por planos musculares com fio reabsorvível 3-0.



Figura 7. Peça cirúrgica medindo 4 cm em sua maior extensão.



Figura 8. Macroscopia: coloração acastanhada, forma e superfície regulares.



Figura 9. Macroscopia: lesão cística com presença de conteúdo liquefeito, branco-amarelado, em seu interior.

mento da macroscopia, pôde-se observar uma lesão cística, com forma e superfície regulares (Figura 8), que continha um material liquefeito em seu interior (Figura 9). O exame histopatológico corado com hematoxilina e eosina e visualizado em microscopia de luz revelou fragmento de lesão cística benigna do desenvolvimento contendo epitélios pavimentoso estratificado ortoceratinizado com apêndices da pele, tais como, folículos pilosos e glândulas sebáceas; epitélio cilíndrico ciliado semelhante ao epitélio do sistema respiratório; epitélio colunar alto com projeções em forma de microvilosidades lembrando estruturas do endoderma, tais como o revestimento gastrointestinal e elementos do tecido conjuntivo, tais como, músculos e vasos sanguíneos (Figura 10 a-f). A coloração histoquímica pelo ácido periódico de Schiff (PAS) foi realizada com marcação positiva nas células calciformes do trato gastrointestinal (Figura 10 g-h). Em virtude dos achados morfológicos supracitados, foi confirmado a hipótese diagnóstica de cisto teratoide. A paciente encontra-se há 2 anos sob acompanhamento e o controle pós operatório foi essencialmente clínico (Figura 11) uma vez que a lesão era encapsulada e foi totalmente removida durante a cirurgia para a enucleação. Não foi repetido o exame de tomografia computadorizada para não expor a paciente a radiação.

Discussão e conclusões

O termo “cisto teratoide” foi usado pela primeira vez por Meyer et al.,² na sua classificação, de 1955, de cistos disontogênicos de região cervicofacial, com base no tipo de camadas germinativas incluídas na parede cística, definindo três tipos histológicos distintos: epidermóide (simples), dermóide (composto) e teratoide (complexo). Os cistos teratóides são revestidos por epitélio que varia de escamoso ceratinizado a epitélio respiratório pseudoestratificado colunar com apêndices dérmicos na parede do tecido conjuntivo junto com derivados das três camadas germinativas (ectoderma, mesoderma e endoderme).² No presente relato, foi visualizada a presença dos epitélios gastrointestinal e respiratório, justificando a denominação coristomas, tão bem como a presença dos apêndices dérmicos.

Com relação à etiologia dos cistos dermóides e teratóides em assoalho bucal, a teoria mais aceita é um possível sequestro de tecido ectodérmico em linha média no momento da fusão do primeiro arco (mandibular) e segundo arco braquial (hióide),^{7,9-11} Desta forma, o presente caso está relacionado a teoria congênita que ocorreu devido ao aprisionamento das células dos três folhetos embrionários.

O principal diagnóstico diferencial para o caso apresentado foi de cisto do ducto tireoglossal, uma vez que este cisto se desenvolve abaixo do osso hióide e são mais visíveis no pescoço do que no assoalho bucal.¹²

Clinicamente, são assintomáticos, mas seu lento aumento pode causar obstrução com conseqüente displasia, disфонia e dispneia. As lesões mais profundas entre os músculos genio-hióide e milo-hióide produzem um aumento de volume no pescoço, dando origem à aparência de ‘queixo duplo’.⁷ Embora, a paciente sob cuidados da instituição fosse assintomática,

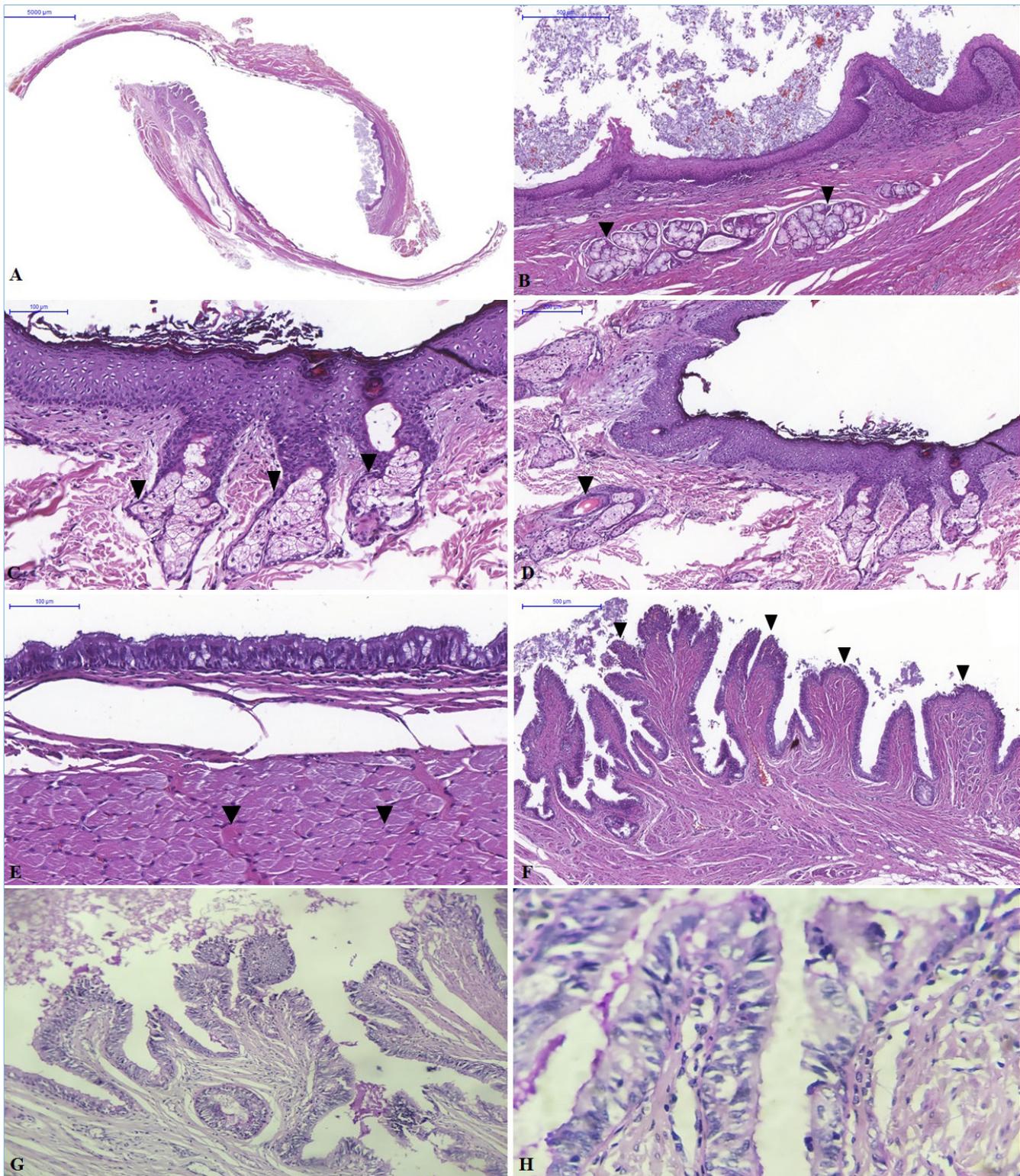


Figura 10. Aspectos morfológicos: A) presença de duas cavidades patológicas preenchidas com material compatível com ortoceratina (magnificação: 5000 μm); B) Características de um cisto teratoide com presença de epitélio pavimentoso estratificado ortoceratinizado e estruturas anexas como glândulas sudoríparas (setas) (magnificação: 500 μm); C) Maior detalhamento do epitélio com proeminente camada granulosa e glândulas sebáceas (setas) (magnificação: 100 μm); D) presença de folículo piloso (setas) (magnificação: 200 μm); E) epitélio pseudoestratificado cilíndrico ciliado semelhante ao epitélio do trato respiratório, assim como estruturas do endoderma como tecido conjuntivo muscular estriado esquelético (setas) (magnificação: 100 μm); F) Estruturas que lembram as vilosidades do epitélio gastrointestinal (setas) (magnificação: 500 μm); G) as células caliciformes do trato gastrointestinal apresentaram marcação positiva pelo PAS confirmando o diagnóstico de coristoma (Aumento 20x); H) Detalhes das células caliciformes coradas pelo PAS (Aumento 40x).



Figura 11. Acompanhamento clínico pós operatório de 2 anos. Os tecidos moles do assoalho de boca apresentam boa cicatrização e ausência de aumento de volume.

a mãe relata dificuldades de sucção, deglutição e respiração durante a amamentação da filha devido ao aumento de volume em assoalho e, este foi o principal motivo pelo qual optou-se pela sua remoção. Após a cirurgia a paciente apresentou significativa melhora em sua deglutição.

A paciente não realizou exames de ressonância magnética e ecografia porque apenas a tomografia computadorizada era o exame que tínhamos acesso. Em virtude disso, a paciente foi submetida a tomografia computadorizada usando a janela para partes moles para avaliação das dimensões da lesão. O laudo tomográfico foi de lesão hipodensa bem delimitada, sugerindo tratar-se de lesão cística e detalhava as distâncias em relação a glândula sublingual e nervos da região. A tomografia computadorizada é uma ferramenta de diagnóstico útil descrita na literatura e esse recurso também pode ser utilizado para aferir as dimensões da lesão.¹¹

O tratamento compreende excisão cirúrgica, as lesões podem ser acedidas por via intraoral ou extraoral dependendo do tamanho e localização, lesões pequenas costumam ser removidas por acesso intraoral.⁷ Foi realizado na paciente punção aspirativa, a qual evidenciou conteúdo amarelado, e biópsia incisional, a mesma foi hospitalizada devido à idade e optou-se por essa estratégia em virtude da maior segurança na manipulação dos tecidos moles pelo cirurgião. A lesão foi tratada por meio de exérese completa por via intraoral sem a inclusão de margens de segurança por se tratar de uma lesão cística, com bom prognóstico, indolente e sem potencial de recidivas e malignização.

Recorrência e transformação maligna são incomuns, no entanto, a recidiva pode acontecer caso o revestimento do cisto não seja completamente removido.^{13,14} No caso em questão, a lesão foi completamente removida, não apresentando características de malignidade e encontra-se há 2 anos sem recidiva da lesão.

Na macroscopia, observa-se que o cisto é encapsulado e a cavidade cística contém ceratina. O lúmen cístico pode conter material purulento, caseoso, sebáceo, presença de pelos, unhas e glóbulos de gordura.⁷ No caso em questão,

constatou-se a presença de material liquefeito, caseoso, branco-amarelado, semelhante a ceratina, no interior da cavidade cística.

Histologicamente, os cistos teratóides são caracterizados por apresentarem uma cavidade cística revestida por epitélio que pode variar entre escamoso, gástrico, intestinal, respiratório, ciliado e apêndices dérmicos. Pode conter também tecido ósseo e muscular, além da cápsula fibrosa. Essas características histológicas são decorrentes dos folhetos derivados do endoderma, mesoderma e ectoderma.^{4,15} A paciente em questão apresentou lesão com características histológicas compatíveis com o cisto teratóide.

A coloração histoquímica pelo PAS foi realizada para identificar células calciformes do trato gastrointestinal que não foram inicialmente identificadas pela coloração em H&E. Uma vez que as células da mucosa intestinal contém reservas de glicosaminoglicanos (carboidratos) que demonstra reação pelo PAS.¹⁶ A recomendação do uso do PAS ou do Alcian Blue no pH 2.5 para identificação das células calciformes do trato gastrointestinal apresenta controvérsias na literatura, visto que a maioria destas células são facilmente identificáveis na coloração H&E de rotina.¹⁶

Concluimos enfatizando a relevância do correto diagnóstico do cisto teratóide para o estabelecimento da conduta adequada, considerando as implicações clínicas capazes de comprometer as funções de sucção, deglutição e respiração do indivíduo afetado.

Responsabilidades éticas

Proteção de pessoas e animais. Os autores declaram que para esta investigação não se realizaram experiências em seres humanos e/ou animais.

Confidencialidade dos dados. Os autores declaram ter seguido os protocolos do seu centro de trabalho acerca da publicação dos dados de pacientes.

Direito à privacidade e consentimento escrito. Os autores declaram ter recebido consentimento escrito dos pacientes e/ou sujeitos mencionados no artigo. O autor para correspondência está na posse deste documento.

Conflito de interesses

Os autores declaram não haver conflito de interesses.

REFERÊNCIAS

1. He J, He Y, Zhu H, Wang Y, Qiu W. Congenital huge submandibular and neck teratoid cyst in newborn. *J Craniofac Surg.* 2015;26:565-7.
2. Walters BC. Dermoid cysts. *Surg Neurol.* 1985;23:202.
3. Liang Y, Yang YS, Zhang Y. Retrospective Analysis of Ten Cases of Congenital Sublingual Teratoid Cyst. *Eur J Paediatr Dent.* 2012;13(4):333-6.
4. Pentenero M, Marino R, Familiari U, Gandolfo S. Choristoma involving the floor of the mouth and the anterior tongue: A

- case of teratoid cyst with gastric and respiratory epithelia. *J Oral Maxillofac Surg.* 2013;71:1706-11.
5. Lin HW, Silver AL, Cunnane ME, Sadow PM, Kieff DA. Lateral dermoid cyst of the floor of mouth: unusual radiologic and pathologic findings. *Auris Nasus Larynx.* 2011;38:650-3.
 6. Chikui T, Shimizu M, Goto TK, Nakayama E, Yoshiura K, Kanda S, et al. Interpretation of the origin of a submandibular mass by CT and MRI imaging. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2004;98:721-9.
 7. Palaskar SJ, Garde J, Bartake A, Narang B. Teratoid cyst of the oral cavity: A rare entity. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2014;18:469-71.
 8. Teszler CB, El-Naaj IA, Emodi O, Luntz M, Peled M. Dermoid Cysts of the Lateral Floor of the Mouth: A Comprehensive Anatomic-Surgical Classification of Cysts of the Oral Floor. *J Oral Maxillofac Surg.* 2007;65:327-32.
 9. Dutta M, Saha J, Biswas G, Chattopadhyay S, Sen I, Sinha R. Epidermoid Cysts in Head and Neck: Our Experiences, with Review of Literature. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2013;65(Suppl 1):14-21.
 10. Gorini E, Mullace M, Migliorini L, Mevio E. Osseous Choristoma of the Tongue: A Review of Etiopathogenesis. *Case Rep Otolaryngol.* 2014;2014:1-5.
 11. Araújo Lima EN, Novaes MM, Germano AR, Silva JS, Souza LB. management and follow-up of extensive teratoid cyst in mouth floor. *Arq Bras Cir Dig.* 2016; 29:126-8.
 12. Gordon PE, Faquin WC, Lahey E, Kaban LB. Floor-of-mouth dermoid cysts: report of 3 variants and a suggested change in terminology. *J Oral Maxillofac Surg.* 2013;71:1034-41.
 13. Alsharif MJ, Zhao Y. Teratoid cyst of floor of the mouth: a clinicopathologic study of 20 Chinese patients. *Int J Surg Pathol.* 2009;17:111-5.
 14. Sahoo NK, Choudhary AK, Srinivas V, Tomar K. Dermoid cysts of maxillofacial region. *Med J Armed Forces India.* 2015;71(Suppl 2):S389-94.
 15. Modolo F, Alves Jr SM, Milani BA, Jorge WA, Sousa SOM, Mantesso A. Congenital Teratoid Cyst of the Floor of the Mouth. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2007;136(1):134-6.
 16. Srivastava A, Appelman H, Goldsmith JD, Davison JM, Hart J, Krasinskas AM. The use of ancillary stains in the diagnosis of Barrett Esophagus and Barrett Esophagus-associated Dysplasia. Recommendations from the Rodger C. Haggitt Gastrointestinal Pathology Society. *Am J Surg Pathol.* 2017;41:e8-21.