

Aspectos clinicopatológicos de cisto linfoepitelial oral: relato de caso

Clinical-pathological aspects of oral lymphoepithelial cyst: case report

Lourival C. O. N. Rocha; Gabriel G. Silva; Mariana C. Xerez; Caio César S. Barros; Juliana C. Pinheiro; Laudence L. Pereira; Antônio L. L. Costa

Universidade Federal do Rio Grande do Norte (UFRN), Natal, Rio Grande do Norte, Brasil.

RESUMO

O cisto linfoepitelial oral (CLEO) é uma lesão incomum, cuja patogênese ainda é pouco elucidada. O objetivo deste estudo é relatar um caso de CLEO. Paciente do sexo feminino, leucoderma, 62 anos, apresentou aumento de volume nodular assintomático de consistência amolecida, em borda lateral da língua. Sob a hipótese clínica de hiperplasia de tecido linfoide, biópsia excisional foi realizada. O exame histopatológico revelou cavidade patológica revestida por epitélio e uma cápsula cística de tecido conjuntivo, contendo tecido linfoide. O diagnóstico de CLEO foi estabelecido. A paciente não apresentou sinais de recidiva após a remoção cirúrgica da lesão.

Unitermos: tecido linfoide; diagnóstico bucal; cistos.

ABSTRACT

Oral lymphoepithelial cyst (OLEC) is an uncommon lesion whose pathogenesis remains poorly understood. The purpose of this paper is to report a case of OLEC. Female patient, white, 62 years old, presented asymptomatic nodular swelling of soft consistency in the lateral border of the tongue. Under the clinical hypothesis of lymphoid tissue hyperplasia, an excisional biopsy was performed. Histopathological examination revealed a pathological epithelial-lined cavity and a cystic connective tissue capsule containing lymphoid tissue. The diagnosis of OLEC was established and the patient showed no signs of recurrence after surgical removal of the lesion.

Key words: lymphoid tissue; oral diagnosis; cysts.

RESUMEN

El quiste linfoepitelial (QLE) oral es una lesión infrecuente, cuya patogénesis es aún poco conocida. El objetivo del presente estudio es reportar un caso de QLE oral. Mujer blanca de 62 años presentó un crecimiento nodular asintomático de consistencia blanda, en borde lateral de la lengua. Bajo la hipótesis clínica de hiperplasia del tejido linfoide, se realizó una biopsia excisional. El examen histopatológico reveló cavidad patológica revestida de epitelio y una cápsula quística de tejido conectivo, conteniendo tejido linfoide. Se estableció el diagnóstico de QLE oral. La paciente no ha presentado recidiva tras extirpación quirúrgica de la lesión.

Palabras clave: tejido linfoide; diagnóstico bucal; quistes.

INTRODUÇÃO

O cisto linfoepitelial oral (CLEO) é uma lesão incomum, cuja patogênese ainda é pouco elucidada⁽¹⁾. A maioria dos casos é diagnosticada entre a segunda e a sexta décadas de vida. Clinicamente, apresentam-se como um nódulo móvel, assintomático, com coloração que varia do branco-amarelado ao róseo, ocasionalmente transparentes ou translúcidos. Essas lesões são pequenas e têm tempo de evolução que pode variar de duas semanas a 10 anos^(1,2).

Histologicamente, os CLEOs exibem cavidade patológica revestida por epitélio pavimentoso estratificado, que pode ser não ceratinizado ou ortoceratinizado. O lúmen cístico exhibe quantidade variável de células epiteliais descamadas e células inflamatórias, e a interface epitélio-conjuntivo se apresenta plana. A cápsula fibrosa demonstra intenso infiltrado linfocítico, o qual pode circunscrever completa ou parcialmente o revestimento epitelial e, em geral, não se estende aos tecidos circunvizinhos. O infiltrado linfocítico é o principal componente da lesão e, normalmente, centros germinativos são observados⁽³⁾. Raramente, os CLEOs podem se apresentar em associação a outras lesões císticas, como o cisto epidermoide⁽⁴⁾.

O tratamento de escolha para o CLEO é a excisão cirúrgica conservadora, e a qualidade de vida dos pacientes durante o período de acompanhamento é considerada satisfatória^(1,2).

O objetivo do presente trabalho é relatar um caso de CLEO, bem como discutir as teorias de surgimento dessa lesão e suas características clínicas e histopatológicas.

RELATO DE CASO

Paciente do sexo feminino, leucoderma, 62 anos, compareceu ao Serviço de Diagnóstico Oral da Faculdade de Odontologia da Universidade Federal do Rio Grande do Norte (UFRN), exibindo aumento de volume nodular assintomático, com coloração levemente amarelada e consistência amolecida, em borda lateral posterior direita da língua, medindo aproximadamente 0,5 cm (**Figura 1**). A paciente não soube relatar com precisão o tempo de evolução. Sob a hipótese clínica de hiperplasia de tecido linfóide, biópsia excisional foi realizada. O exame histopatológico revelou cavidade patológica revestida por epitélio pavimentoso estratificado paraceratinizado e cápsula cística de tecido conjuntivo fibroso denso, contendo tecido linfóide, o qual circunscrevia completamente o epitélio cístico de revestimento (**Figura 2A, 2B e 2C**). Adicionalmente, presença de folículos

linfóides secundários com centros germinativos proeminentes distribuídos ao longo da cápsula cística foi observada (**Figura 2A e 2D**). A partir dos achados microscópicos, o diagnóstico definitivo de CLEO foi estabelecido. A paciente não apresentou sinais de recidiva após a remoção cirúrgica da lesão.



FIGURA 1 – Aspecto clínico intraoral: lesão nodular amarelada, medindo 0,5 cm em borda lateral posterior direita da língua

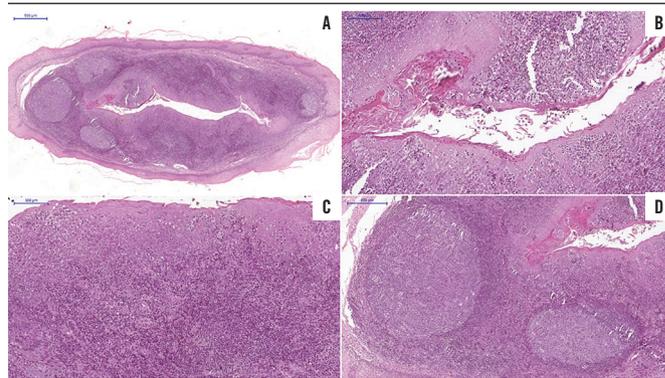


FIGURA 2 – Aspectos microscópicos, HE

A) 500 µm: cavidade patológica revestida por epitélio e cápsula de tecido conjuntivo fibroso denso com tecido linfóide circunscrevendo completamente o epitélio de revestimento; B) 100 µm: cavidade cística revestida por epitélio pavimentoso estratificado paraceratinizado e presença de ceratina no lúmen cístico; C) 100 µm: tecido linfóide na cápsula cística circunscrevendo o epitélio de revestimento; D) 200 µm: folículos linfóides secundários com centros germinativos proeminentes em meio a cápsula cística.

HE: hematoxilina e eosina.

DISCUSSÃO

O CLEO é uma lesão rara e foi relatado inicialmente por Bhaskar e Bernier (1959)⁽⁵⁾, sendo inserido no grupo de cistos branquiais. Posteriormente, Gold (1962)⁽⁶⁾ o localizou na mucosa bucal e o classificou como cisto branquial fissurado. Essa lesão

pode acometer várias partes do corpo, porém é mais comum nas glândulas parótidas. Quando acomete a região bucal, é considerada CLEO, um cisto de desenvolvimento raro em toda a população mundial^(1, 2, 7, 8). A maioria dos casos de CLEO é diagnosticada entre a terceira e a sexta décadas de vida^(1, 2).

A teoria mais aceita para explicar a etiopatogenese dessa lesão foi postulada por Knapp (1970)⁽⁹⁾, que afirma que os CLEOs são pseudocistos e não surgem de linfonodos, mas se originam a partir de agregados linfóides localizados no interior da mucosa do assoalho bucal, na superfície ventral da língua e do palato mole e em outras regiões da cavidade bucal e da orofaringe, formando o chamado tecido linfóide associado à mucosa (MALT)⁽⁹⁾. Bhaskar (1966)⁽¹⁰⁾ corrobora a possibilidade dessas lesões terem origem a partir de ductos excretores de glândulas salivares menores e de o infiltrado linfocítico representar apenas uma resposta imunológica secundária⁽¹¹⁾. A cavidade bucal, a nasofaringe e a conjuntiva ocular são portais para diferentes tipos de antígenos que entram na região da cabeça e do pescoço. Essa região é rica em tecido linfóide estrategicamente posicionado, compondo uma cadeia de múltiplos linfonodos regionais, os quais formam o chamado anel de Waldeyer, além do MALT, de maneira que ambos desempenhem um papel importante no levantamento e na eliminação de antígenos potencialmente perigosos^(8, 12). Por essa razão, essas entidades clínicas podem surgir na cavidade bucal, cujo componente linfóide é o principal achado; no caso dos CLEOs, está presente na parede cística.

Na cavidade bucal, os sítios mais frequentes são assoalho bucal e borda lateral da língua. Nesses locais, nódulos costumam ser indolores, de cor normal amarelo ao róseo e de consistência macia a firme. Geralmente medem menos de 1 cm e são transparentes ou translúcidos^(2, 7).

Sykara *et al.* (2017)⁽⁷⁾ realizaram um estudo com 26 casos diagnosticados ao longo de 37 anos em um serviço de patologia oral na Grécia e encontraram uma leve predileção pelo sexo feminino: 14 mulheres (56%) e 11 homens (44%). Já Pinheiro *et al.* (2018)⁽⁸⁾ diagnosticaram 16 casos de CLEO em uma população brasileira: 13 (81,2%) no sexo feminino e três (18,8%) no masculino, corroborando os achados de Sykara *et al.* Em um estudo conduzido por Yang *et al.* (2012)⁽²⁾, 120 casos de CLEO foram analisados, com base nos achados da literatura mundial. Desses pacientes, 37 eram do sexo masculino e 83, do feminino, com uma relação homem-mulher de 1:2,24. A maioria dos casos diagnosticados como CLEO (70%) manifestou-se entre a quarta e a sexta décadas de vida; esses achados são semelhantes aos de Sykara *et al.* e Pinheiro *et al.* Em nosso estudo, a paciente é do sexo feminino e tem 62 anos de idade.

No estudo de Sykara *et al.*, 26 casos de CLEO foram diagnosticados e se apresentaram clinicamente como nódulos (92%) de consistência mole (24%) ou firme (76%), exibindo cor

rosada (20%), amarela (32%) ou tons brancos (20%), na língua (69,23%) ou no assoalho da boca (30,77%), com duração de 20 dias a cinco anos. Nos 120 casos analisado por Yang *et al.* (2012)⁽²⁾, o tamanho das lesões variou de 0,2 a 2 cm (média: 0,8 cm); 96,7% das lesões foram menores que 1 cm. Os sítios anatômicos mais frequentes foram língua (50%) e assoalho da boca (38,3%); esses também foram os sítios mais acometidos pelo CLEO^(1, 3, 7, 8). De forma semelhante ao relatado na literatura, nosso caso apresentou um aumento de volume nodular assintomático, com coloração levemente amarelada e de consistência amolecida, em borda lateral posterior da língua, medindo aproximadamente 0,5 cm. A paciente não soube relatar com precisão quando a lesão havia surgido.

Devido à ampla variedade de características clínicas que podem ser apresentadas pelo CLEO, é possível realizar diagnóstico clínico diferencial com outras lesões benignas, como mucocele, lipoma, fibroma, sialolitíase, cisto de glândula sublingual e cisto dermoide. Para o correto diagnóstico do CLEO, a biópsia é fundamental⁽²⁾.

Microscopicamente, os CLEOs são caracterizados pela presença de uma cavidade patológica (que pode conter fragmentos de ceratina) revestida por epitélio escamoso estratificado paracaratizado, que exibe uma interface plana com a lâmina própria. A cápsula cística de tecido conjuntivo fibroso geralmente é espessa e apresenta grande quantidade de linfócitos, às vezes exibindo a formação de centros germinativos⁽³⁾. No estudo realizado por Sykara *et al.* (2017)⁽⁷⁾, a maioria dos CLEOs foi revestida por epitélio pavimentoso paracaratizado (92,31%) ou não ceratinizado (7,69%), exibindo células epiteliais descamadas em seu lúmen. Também se observou que o tecido linfóide circunscreeu o epitélio completa (65,38%) e parcialmente (34,62%), muitas vezes em um padrão folicular, apresentando-se em folículos linfóides secundários com centros germinativos proeminentes em 53,85%. Os folículos linfóides podem ser classificados como primários, quando não apresentam centros germinativos; e secundários, nos quais os centros germinativos estão presentes⁽⁸⁾. Os centros germinativos constituem centros ativados, onde os linfócitos B são estimulados por antígenos e linfócitos T auxiliares para gerar células de memória⁽¹³⁾. No presente caso, o quadro histológico é de uma lesão cística revestida por epitélio pavimentoso estratificado com presença de tecido linfóide na cápsula, circunscreeu completamente o epitélio, exibindo a formação de folículos linfóides secundários com centros germinativos proeminentes.

Em geral, o CLEO é tratado por excisão cirúrgica e apresenta relatos de transformação neoplásica ou recorrência após a sua excisão^(1, 2). No estudo de Yang *et al.* (2012)⁽²⁾ e Bhaskar (1966)⁽¹⁰⁾, a ressecção cirúrgica completa da lesão foi o tratamento de escolha. Não houve relatos de recorrência após o tratamento das lesões. Nossa paciente também não exibiu recidiva da lesão após a biópsia excisional.

CONSIDERAÇÕES FINAIS

O CLEO é uma lesão de origem linfoide incomum, de natureza indolente, que costuma acometer mais o sexo feminino e pode se confundir com outras lesões com características clínicas

semelhantes. Dessa forma, os achados clínicos e a história da lesão podem conduzir o clínico a uma hipótese diagnóstica consistente. O cirurgião-dentista deve estar preparado para diagnosticar aumentos de volume significativos na cavidade bucal, a fim de manejar corretamente o paciente, estabelecendo o melhor tratamento.

REFERÊNCIAS

1. Juliassi LER, Resende ACM, Maia AP, Nonaka CFW, Galvão HC, Pinto LP. Oral lymphoepithelial cyst: report of 4 cases and review of 119 cases reported in the literature. *J Bras Patol Med Lab.* 2010; 46(2): 129-134.
2. Yang X, Ow A, Zhang C, Wang L, Yang W, Hu Y, Zhong L. Clinical analysis of 120 cases of intraoral lymphoepithelial cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2012; 113(4): 448-52.
3. Castro JG, Ferreira GM, Mendonça EF, Castro LA. A rare occurrence of lymphoepithelial cyst in the palatine tonsil: a case report and discussion of the etiopathogenesis. *Int J Clin Exp Pathol.* 2015; 8(4): 4264-8.
4. Epivatianos A, Zaraboukas T, Antoniadis D. Coexistence of lymphoepithelial and dermoid cysts on the floor of the mouth: report of a case. *Oral Dis.* 2005; 11: 330-3.
5. Bhaskar SN, Bernier JL. Histogenesis of branchial cysts: a report of 468 cases. *Am J Pathol.* 1959; 35: 407-23.
6. Gold C. Branchial cleft cyst located in the floor of the mouth. Report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1962; 15: 1118-20.
7. Sykara M, Ntovas P, Kalogirou EM, Tosios KI, Sklavounou A. Oral lymphoepithelial cyst: a clinicopathological study of 26 cases and review of the literature. *J Clin Exp Dent.* 2017; 9(8): e1035-43.
8. Pinheiro JC, da Silva Barros CC, Rolim LSA, Pereira Pinto L, de Souza LB, de Andrade Santos PP. Oral lymphoid lesions: a 47-year clinicopathological study in a Brazilian population. *Med Mol Morphol.* 2019; 52(3): 123-34.
9. Knapp MJ. Pathology of oral tonsils. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1970; 29: 295-304.
10. Bhaskar SN. Lymphoepithelial cysts of the oral cavity: report of twenty-four cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1966; 21: 120-8.
11. Buchner A, Hansen LS. Lymphoepithelial cysts of the oral cavity: a clinicopathologic study of thirty-eight cases. *Oral Surg.* 1980; 50: 441-9.
12. Victora GD, Nussenzweig MC. Germinal center. *Annu Rev Immunol.* 2012; 30: 429-57.
13. Giunta J, Cataldo E. Lymphoepithelial cysts of the oral mucosa. *Oral Surg.* 1973; 35: 77-84.

AUTOR CORRESPONDENTE

Juliana Campos Pinheiro  0000-0001-5687-7635
e-mail: juliana.patologia92@gmail.com



This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License.