

## Caso clínico

# Um raro caso de cisto cirúrgico ciliado após 5 anos de extração dentária

Renato Marano\*, Saulo Ellery Santos, Renato Sawazaki e Márcio de Moraes

Faculdade de Odontologia de Piracicaba, Universidade de Campinas (FOP/UNICAMP), Piracicaba, SP, Brasil

### INFORMAÇÃO SOBRE O ARTIGO

#### Historial do artigo:

Recebido a 18 de abril de 2012

Aceite a 10 de junho de 2012

On-line a 11 de agosto de 2012

#### Palavras-chave:

Seio maxilar

Osteotomia Le Fort

Extrações dentárias

Cistos ósseos

#### Keywords:

Maxillary sinus

Le Fort osteotomy

Tooth extractions

Bone cysts

### R E S U M O

O cisto cirúrgico ciliado (CCC) ocorre geralmente como uma complicação tardia após intervenção cirúrgica realizada no seio maxilar onde o rompimento voluntário da membrana sinusal ocorre quando da realização de uma osteotomia. Desta forma, ocorre o encarceramento da membrana, levando à formação de uma lesão cística. Acomete quase que exclusivamente pacientes asiáticos. Este artigo relata um raro caso de CCC que acometeu uma paciente afrodescendente, após a extração de segundo molar superior, entretanto, sem rompimento da membrana de Scheineder. As características radiográficas e histológicas da lesão foram semelhantes às encontradas na literatura. As opções de tratamento descritas na literatura são: enucleação, marsupialização ou até mesmo osteotomia Le Fort I, seguida de fecho primário. Os critérios de escolha são baseados na localidade, tamanho e agressividade da lesão. Em nosso caso, a enucleação foi o tratamento de escolha e não houve recidiva.

© 2012 Sociedade Portuguesa de Estomatologia e Medicina Dentária. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos os direitos reservados.

### A rare case of surgical ciliated cyst 5 years after tooth extraction

#### A B S T R A C T

The surgical ciliated cyst (SCC) usually occurs as a late complication after surgical intervention performed in the maxillary sinus where the voluntary breakup of the sinus membrane is accomplished by means of osteotomy. Then there is the entrapment of this membrane, leading to formation of a cystic lesion. It affects almost exclusively Asian patients. This article reports a rare case of SCC, which affected a patient african descent, after extraction of upper second molar, without disruption of the scheinederian membrane. The radiographic and histological features of the lesion were similar to those found in the literature. Treatment options are described in the literature: enucleation, marsupialization or even osteotomie Le Fort I, followed by primary closure. The selection criteria are based on location, size and aggressiveness of the lesion. In our case, enucleation was the treatment of choice and no recurrence was observed.

© 2012 Sociedade Portuguesa de Estomatologia e Medicina Dentária. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

\* Autor para correspondência.

Correio eletrónico: [remarano@hotmail.com](mailto:remarano@hotmail.com) (R. Marano).

## Introdução

O cisto cirúrgico ciliado (CCC) foi primeiramente relatado por Kubo no Japão em 1927<sup>1</sup>. Depois disso, o autor acrescentou 3 casos e denominou-os Wangenzyste pós-operatório em 1933<sup>2</sup>. Esta entidade é comumente relatada na literatura asiática, entretanto, na literatura ocidental, menos de 20 casos são relatados, sendo bastante incomum ou até rara a sua descrição na literatura ocidental<sup>3,4</sup>. Este cisto é conhecido como cisto maxilar tardio ou cisto paranasal tardio a intervenções cirúrgicas. Acredita-se ser uma complicação que se manifesta num pós-operatório tardio, ocorrendo anos após uma intervenção cirúrgica no seio maxilar. Estes cistos também foram relatados após cirurgias do tipo Le Fort I, II e III, além de cirurgias para elevação do seio maxilar para posterior reabilitação com implantes dentários e osteotomias do terço médio da face<sup>5,6</sup>.

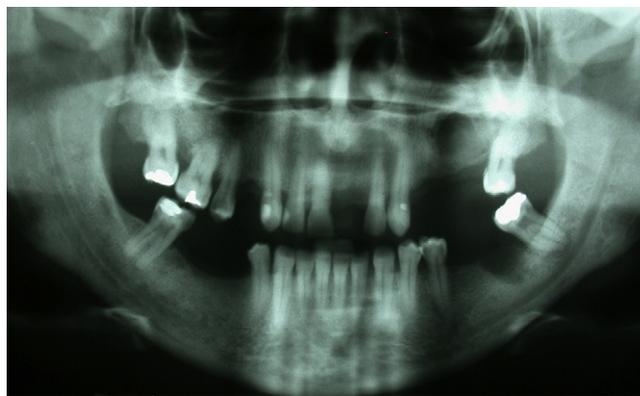
Esta lesão tem sido sugerida como resultado de um encarceramento da mucosa sinusal na ferida, durante a sutura. A maioria dos pacientes geralmente relata uma história prévia de cirurgia maxilar por meio de um acesso de Caldwell-Luc<sup>2,7,8</sup>. É localmente agressivo e os sintomas mais comuns no exame inicial são inchaço ou dor na mucosa jugal e na dobra mucogengival<sup>1</sup>. A tomografia computadorizada é o exame de imagem escolhido como meio complementar<sup>8</sup>. As modalidades de tratamento desta lesão são: enucleação e fecho primário por meio de um acesso de Caldwell-Luc e, dependendo de seu tamanho e localização, marsupialização<sup>3</sup> e osteotomia Le Fort I para CCC com um crescimento expansivo direcionado à fossa nasal<sup>7</sup>.

## Caso clínico

Uma paciente do gênero feminino, afrodescendente, 37 anos, foi encaminhada para a área de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Faciais da Faculdade de Odontologia de Piracicaba - UNICAMP queixando-se de inchaço em região de fundo de vestibulo do lado esquerdo e dor na mesma região, quando em uso de prótese dentária. O exame físico revelou ausências dentárias tanto em maxila quanto em mandíbula e confirmou

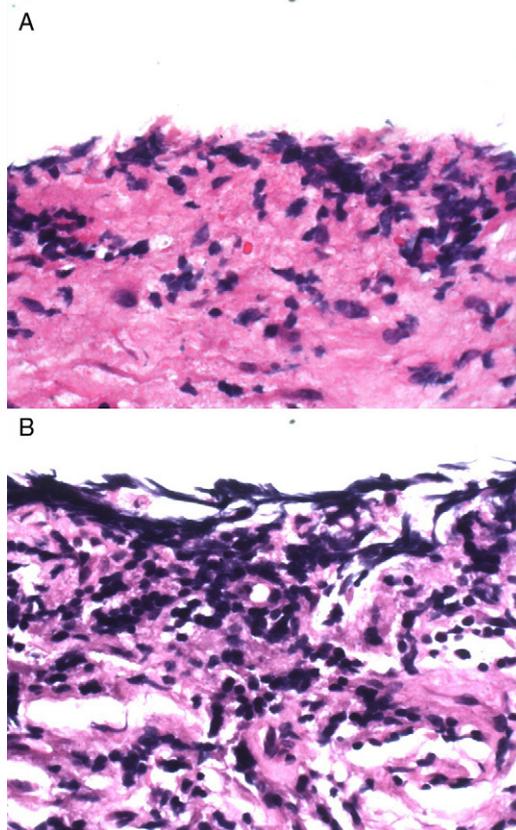


**Figura 1** – Foto da paciente 5 anos após a extração do 2.º molar superior esquerdo. Neste momento, ainda não tinha sido realizada a biópsia incisional.



**Figura 2** – Radiografia panorâmica antes da realização da biópsia.

o abaulamento da região (fig. 1). A paciente apresentava história prévia de extração dentária ocorrida há 5 anos. O dente extraído foi o segundo molar superior esquerdo (fig. 2), sendo que o procedimento decorreu sem intercorrências. No nosso atendimento (5 anos após a extração do 2.º molar esquerdo), realizamos uma biópsia incisional para análise anátomopatológica. Ao exame microscópico,



**Figura 3** – (A) Foto microscópica em alta ampliação (HE, x400) mostrando tecido conjuntivo revestido com epitélio colunar pseudo-estratificado (B) Foto microscópica em alta ampliação (HE, x400) mostrando tecido conjuntivo revestido com epitélio colunar pseudo-estratificado noutra região.

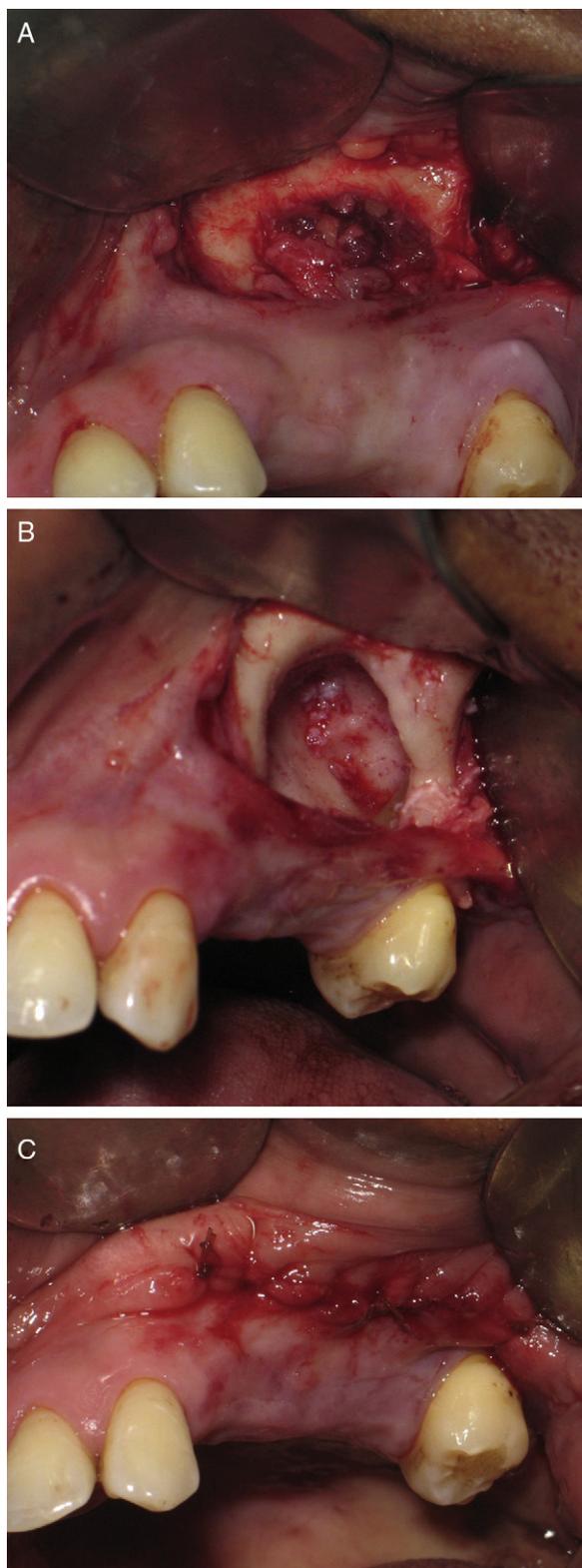


Figura 4 – (A) Foto intraoperatória mostrando a lesão cística. (B) Foto intraoperatória mostrando a total remoção da lesão por meio de enucleação.

as características histológicas revelaram uma formação cística revestida internamente por epitélio ciliado cilíndrico, com presença de células calciformes e material mucoide e ausência de atipia. A parede cística era composta por tecido conjuntivo fibroso com componente inflamatório linfoplasmocitário não-específico. Continha um material amorfo com macrófagos espumosos (fig. 3). Baseado no exame físico e características histológicas, a lesão foi diagnosticada como um cisto cirúrgico ciliado. Após o diagnóstico final, a paciente foi submetida à cirurgia para enucleação da lesão cística e fecho primário (fig. 4). O pós-operatório inicial de acompanhamento foi feito a cada 30 dias durante o primeiro ano e anualmente a partir do segundo ano. Em acompanhamento de 4 anos, a paciente apresentava-se em bom estado geral. Não havia sinais clínicos e/ou radiográficos de recidiva da lesão (figs. 5 e 6). A paciente também não relatou queixas estéticas ou funcionais.

### Discussão e conclusão

O CCC é uma das lesões císticas mais frequentemente encontradas no Japão<sup>3,9,10</sup>, mas em países europeus, africanos e americanos é muito rara<sup>1,4-6,10</sup>. Uma possível razão para uma maior ocorrência no Japão, é que a sinusite maxilar é mais predominante neste país, quando comparada com países do ocidente, necessitando muitas vezes de intervenção cirúrgica. Entretanto, a causa para esse maior aparecimento de sinusite em japoneses ainda não está esclarecida. Uma teoria é a de que a membrana do seio maxilar de japoneses pode ser mais suscetível à inflamação crônica<sup>10</sup>. O nosso relato de caso confronta com os achados da literatura, pois descrevemos um caso ocorrido numa paciente afrodescendente.

A faixa etária dos pacientes é 28-59 anos e a taxa de recorrência é baixa<sup>11</sup>. O CCC é relatado como tendo ocorrido em 3,4% dos pacientes que se submeteram a uma operação radical do seio maxilar, desta maneira, uma provável causa é a da presença de restos epiteliais encarcerados aquando do fecho da ferida<sup>12</sup>. Vários casos têm sido relatados sobre o CCC associados a cirurgia do tipo Le Fort I<sup>4,6,7</sup>; contudo, Bourgeois, em 2005<sup>12</sup> relatou um caso interessante de CCC em mandíbula após um procedimento de genioplastia. A possível etiologia desta lesão pode ser explicada pelo encarceramento da mucosa nasal ou sinusal no processo de reparo ósseo após uma osteotomia em determinada área. Deste modo, recomenda-se que, antes da osteossíntese e da sutura de qualquer acesso que rompa a membrana

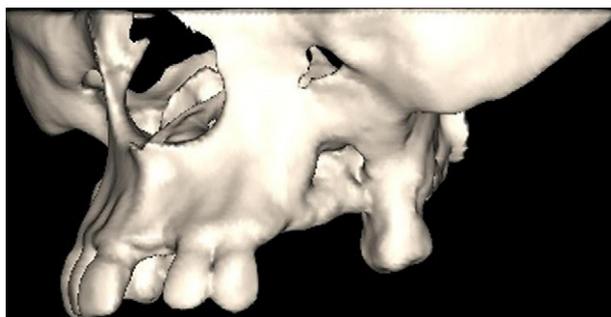
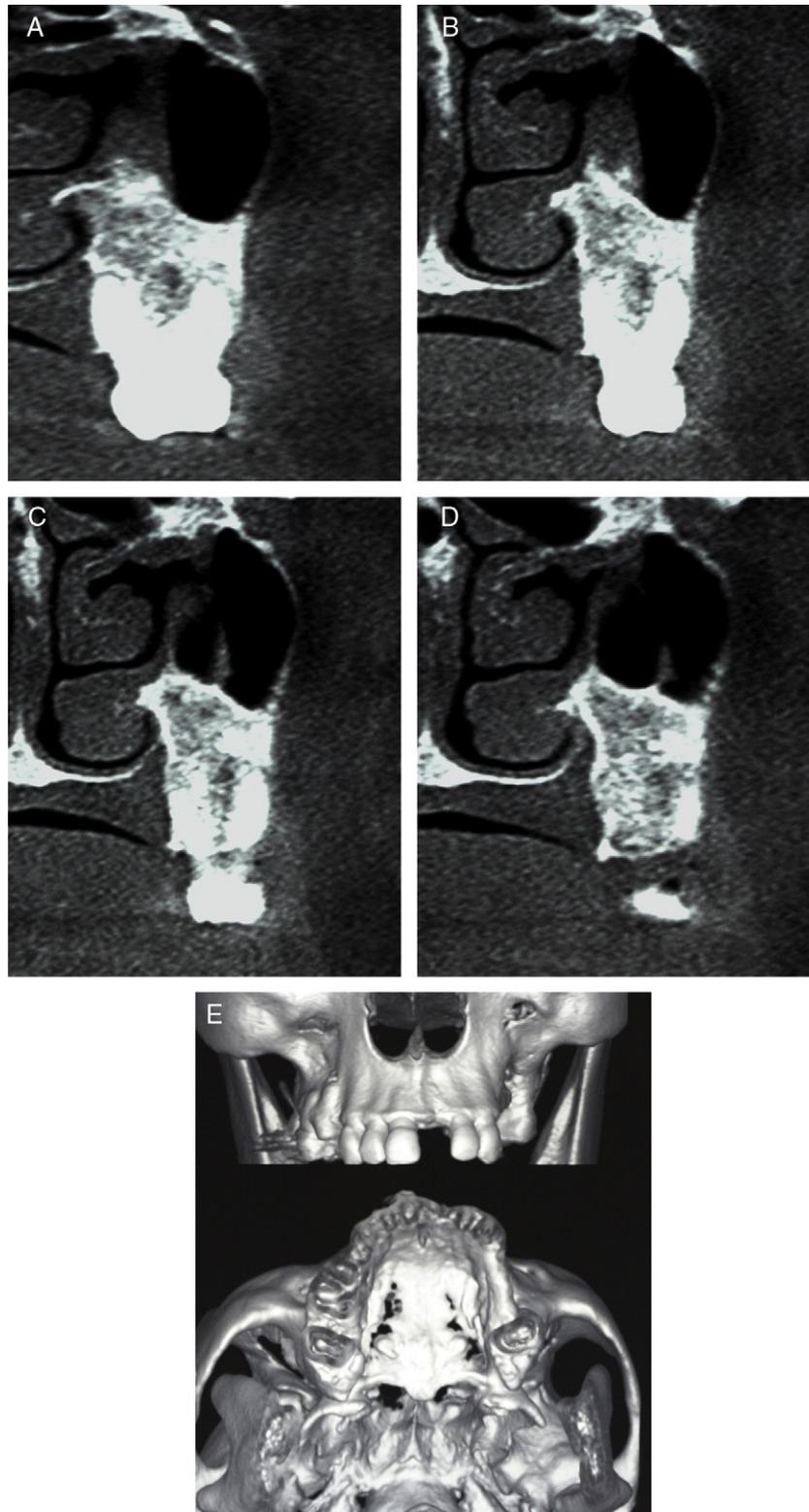


Figura 5 – Tomografia computadorizada com reconstrução 3-D mostrando o sítio operado.



**Figura 6 – Tomografia computadoriza em corte parassagital mostrando a região operada.**

nasal e/ou sinusal em cirurgias maxilares, seja realizada uma abundante irrigação com soro fisiológico, a fim de que haja uma rigorosa limpeza dos instrumentos e do sítio operado, diminuindo as hipóteses de que pequenos fragmentos epiteliais fiquem retidos indevidamente em alguma região

anatômica ectópica<sup>13-16</sup>. Esta foi outra diferença encontrada na literatura em comparação com o nosso relato de caso, uma vez que a possível etiologia da ocorrência cística no nosso relato se deu por meio de uma extração dentária de um dente molar superior. Além disso, não foi encontrado nenhum sinal

de comunicação bucossinusal prévia e após a extração em exames radiográficos pré e pós-operatórios. Desta forma, a membrana do seio maxilar manteve-se intacta tanto no pré quanto no pós-operatório. A sua estrutura pode ser unilocular ou multilocular<sup>17</sup>. No nosso caso, como pode ser observado no exame radiográfico, a lesão apresentava um aspeto unilocular, corroborando com trabalho de Yoshikawa et al.1982<sup>14</sup>.

Amin et al., 2003<sup>12</sup>, relataram uma lesão que apareceu 5 anos após um determinado procedimento cirúrgico, tempo semelhante ao nosso, diferindo no facto de que o procedimento realizado por Amin et al. foi uma cirurgia para avanço maxilar, procedimento este que, inevitavelmente, promove o rompimento da membrana sinusal. Devido ao grande tamanho da lesão descrita por Amin, a cavidade foi preenchida com uma gaze embebida em iodoformalina por 48 h antes do fecho primário<sup>7</sup>. Maruyama et al.<sup>18</sup> realizaram um estudo histológico e imuno-histoquímico de 360 cistos ciliados: 66% do seu comprimento era de epitélio pseudo-estratificado ciliado, epitélio de transição em 28%, e epitélio escamoso 6%. Encontravam-se presentes em abundância células calciformes em todos os cistos, exceto em áreas com epitélio escamoso. O número de células calciformes foi correlacionado com a presença de células inflamatórias. Os CCC também devem ser diferenciados de um cisto mucoso de retenção (pseudocisto ou mucocele) do seio maxilar, que aparece como uma acumulação de exsudatos inflamatórios, e apresenta um revestimento epitelial pseudoestratificado colunar ciliado e, às vezes, é correlacionado com uma história prévia de trauma<sup>11,18,19,20</sup>. No entanto, não se encontra numa localização intraóssea e mostra um comportamento mais benigno, sendo geralmente assintomático<sup>3</sup>. Essas características podem ser comprovadas por Basu et al. 1988<sup>19</sup>, que, no seu trabalho, relataram 23 casos de lesões císticas, todas na maxila. Estas lesões foram diagnosticadas como cistos cirúrgicos ciliados, a partir das características clínicas e histológicas. Com a exceção de um paciente cujo cisto foi detetado durante a radiografia de rotina, os pacientes restantes apresentaram dor branda, além de um edema intraoral e/ou extraoral. Todos os cistos apresentavam-se parcialmente revestidos por um tipo de epitélio respiratório-colunar ciliado com células calciformes proeminentes. Em todos estes casos de Basu et al. 1988<sup>19</sup>, o diagnóstico final somente foi dado após uma análise anatomopatológica detalhada da lesão. Isso porque, de acordo com Morimoto e Yamazaki<sup>20</sup>, o cisto cirúrgico ciliado é muito semelhante ao cisto radicular, quando em análise clínica e radiográfica, mas a diferenciação histológica não é difícil, porque um epitélio colunar ciliado pode ser visto na parede do CCC, mas não no radicular.

O tratamento do CCC é geralmente realizado por um otorrinolaringologista, principalmente em lesões de pequena dimensão, assintomáticas, descobertas em rinoscopias de rotina. Contudo, são muitas vezes descobertas lesões maiores e expansivas em consultas odontológicas, uma vez que sintomas como edema, dor e secreção purulenta são comuns e facilmente detetados num exame odontológico<sup>21-23</sup>. A cirurgia por meio de um acesso de Caldwell-Luc consistindo na remoção completa da parede cística e formação de uma janela intranasal tem sido o procedimento mais recomendado, dependendo do tamanho e localização da lesão<sup>3,9</sup>. Entretanto, a enucleação e fecho primário também se mostra eficaz e pode

ser realizada nos casos de cistos menores. A marsupialização pode ser indicada para o tratamento de cistos uniloculares com uma fina parede cística e com uma perfuração óssea extensa, ou quando os cistos estão localizados numa posição que é inacessível por uma abordagem intra-oral<sup>23-25</sup>.

## Responsabilidades éticas

**Confidencialidade dos dados.** Os autores declaram ter seguido os protocolos de seu centro de trabalho acerca da publicação dos dados de pacientes e que todos os pacientes incluídos no estudo receberam informações suficientes e deram o seu consentimento informado por escrito para participar nesse estudo.

**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 deve estar na posse deste documento.

## Conflito de interesses

Os autores declaram não haver conflito de interesses.

## BIBLIOGRAFIA

1. Kubo I. A buccal cyst occurred after radical operation of the maxillary sinus. *Z Otol Tokyo*. 1927;39:896-7.
2. Kubo I. Postoperative Wangenzyste. *Z Otol Tokyo*. 1993;39:1831-45.
3. Kaneshiro S, Nakajima T, Yoshikawa Y, Iwasaki H, Tokiwa N. The postoperative maxillary cyst: report of 71 cases. *J Oral Surg*. 1981;39:191-8.
4. Yoshikawa Y, Nakajima T, Kaneshiro S, Sakaguchi M. Effective treatment of the postoperative maxillary cyst by marsupialization. *J Oral Maxillofac Surg*. 1982;40:487-91.
5. Yamamoto H, Takagi M. Clinicopathologic study of the postoperative maxillary cyst. *Oral surg Oral med Oral Pathol*. 1986;62:544-8.
6. Heo MS, Song MY, Lee SS, Choi SC, Park TW. A comparative study of the radiological diagnosis of postoperative maxillary cyst. *Dentomaxillofac Radiol*. 2000;29:347-51.
7. Hayhurst D, Moenning JE, Summerlin D, Bussard DA. Surgical ciliated cyst. A delayed complication in a case of maxillary orthognathic surgery. *J Oral Maxillofac Surg*. 1993;51:705-8.
8. Miller R, Longo J, Houston G. Surgical Ciliated Cyst of the maxilla. *J Oral Maxillofac Surg*. 1988;46:310-2.
9. Smith G, Smith AJ, Basu MK, Rippin JW. The analysis of fluid aspirate glycosaminoglycans in diagnosis of the postoperative maxillary cyst (surgical ciliated cyst). *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1988;65:222-4.
10. Iinuma T., Personal communications.
11. Bourgeois SL, Nelson BL. Surgical ciliated cyst of the mandible secondary to simultaneous Le Fort I osteotomy and genioplasty: report of a case and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Oral Endod*. 2005;100:36-9.
12. Amin M, Witherow H, Lee R, Blenkinsopp P. Surgical ciliated cyst after maxillary orthognathic surgery: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg*. 2003;61:138-41.

13. Misch CM, Misch CE, Resnik RR. Post-operative maxillary cyst associated with a maxillary sinus elevation procedure: a case report. *J Oral Implantol.* 1991;17:432.
14. Iinuma T, Mitzutani A, Miyakawa K. Postoperative cysts of the maxilla: a review of 474 cases. *Practica Otol.* 1974;67:427.
15. Anastassov GE, Lee H. Respiratory mucocele formation after augmentation genioplasty with nasal osteocartilaginous graft. *J Oral Maxillofac Surg.* 1999;57:1263-5.
16. Hayhurst DL, Moenning JE, Summerlin DJ, Bussard DA. Surgical ciliated cyst: a delayed complication in a case of maxillary orthognathic surgery. *J Oral Maxillofac Surg.* 1993;51:705-8.
17. Ohba T, Yang RC, Chen CY, Uneoka M. Postoperative maxillary cyst. *Int J Oral Surg.* 1980;9:480-3.
18. Maruyama M, Onodera K, Ooya K. A histopathological and lectin histochemical study of the lining epithelium in postoperative maxillary cysts. *Oral Dis.* 2002;8:241-8.
19. Basu MK, Rout PG, Rippin JW, Smith AJ. The post-operative maxillary cyst. Experience with 23 cases. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 1988;17:282-4.
20. Morimoto M, Yamazaki J. Is it a radicular cyst or a postoperative maxillary cyst? (in Japanese) Kou Byou Shi. 1941;15:285-9.
21. Yamamoto H, Takagi M. Clinicopathologic study of the postoperative maxillary cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1986;62:544-8.
22. Tachibana T, Shimizu M, Shioda S. Clinical observation on the cyst of the jaws in childhood. *J Oral Maxillofac Surg.* 1980;26:337.
23. Samuels HS. Marsupialization. Effective management of large maxillary cysts: report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1965;20:676-83.
24. Pe MB, Sano K, Kitamura A, Inokuchi T. Computed tomography in the evaluation of postoperative maxillary cysts. *J Oral Maxillofac Surg.* 1990;48:67984.
25. Thio D, Phelps PD, Bath AP. Maxillary sinus mucocele presenting as a late complication of a maxillary advancement procedure. *J Laryngol Otol.* 2003;117:402-3.