

# RARO CASO DE CISTO LINFOEPITELIAL EM REGIÃO SUBMANDIBULAR: RELATO DE CASO

## RARE CASE OF LYMPHOEPITHELIAL CYST IN THE SUBMANDIBULAR REGION: CASE REPORT

CAIO DE ANDRADE HAGE<sup>1\*</sup>, MATEUS MARIANO SANTOS COIMBRA<sup>2</sup>, AMANDA VITÓRIA SOUSA CAVALCANTE<sup>2</sup>, MATHEUS SANTANA DE ANDRADE<sup>2</sup>, DOUGLAS MAGNO GUIMARÃES<sup>3</sup>, LUCAS RIBEIRO BITTENCOURT<sup>2</sup>, RODOLFO JOSÉ GOMES DE ARAÚJO<sup>4</sup>

1. Graduado em Odontologia pela Universidade Federal do Pará (UFPA); Mestre em Clínica Odontológica pelo Centro Universitário do Pará (CESUPA); Professor do curso de graduação em Odontologia pela Faculdade de Teologia, Filosofia e Ciências Humanas Gamaliel; 2. Acadêmico do curso de graduação em Odontologia da Faculdade de Teologia, Filosofia e Ciências Humanas Gamaliel; 3. Graduado em Odontologia pela Universidade Federal do Pará (UFPA); Doutor em Patologia e Estomatologia Básica Aplicada pela Universidade de São Paulo (USP); Professor do curso de graduação em Odontologia do Centro Universitário do Pará (CESUPA); 4. Graduado pela Universidade Federal do Pará (UFPA);Doutorando em Biologia Parasitária na Amazônia pela Universidade Estadual do Pará (UEPA).

\* Avenida 31 de Março, 34, Tucuruí, Pará, Brasil. CEP: 68456-110. [caio\\_hage@hotmail.com](mailto:caio_hage@hotmail.com)

Recebido em 25/03/2024. Aceito para publicação em 01/04/2024

### RESUMO

O cisto linfoepitelial consiste em uma lesão rara, que apresenta crescimento lento e é causada pela presença de um único ou vários cistos nos linfonodos que se associam as glândulas salivares. Localizado na região cervical lateral ou nas glândulas salivares, o cisto linfoepitelial causa edema unilateral e indolor, entretanto não apresenta potencial de invasividade e malignidade. O cisto linfoepitelial possui maior prevalência no sexo feminino e geralmente é diagnosticado entre a segunda e quarta década de vida. O presente trabalho relata um raro caso de cisto linfoepitelial, localizado na região submandibular direita, em um paciente HIV negativo atendido no Ambulatório de CTBMF do Hospital Municipal de Tucuruí-PA.

**PALAVRAS-CHAVE:** Cervical; fenda branquial; linfoepitelial; submandibular.

### ABSTRACT

The lymphoepithelial cyst consists of a rare lesion, which presents slow growth and is caused by the presence of a single or several cysts in the lymph nodes associated with the salivary glands. Located in the lateral cervical region or in the salivary glands, the lymphoepithelial cyst causes unilateral and painless edema, however it does not have the potential for invasiveness or malignancy. Lymphoepithelial cysts are more prevalent in females and are generally diagnosed between the second and fourth decade of life. The present work reports a rare case of lymphoepithelial cyst, located in the right submandibular region, in an HIV-negative patient treated at the CTBMF Outpatient Clinic of the Municipal Hospital of Tucuruí-PA.

**KEYWORDS:** Cervical; gill slit; lymphoepithelial; submandibular.

## 1. INTRODUÇÃO

O cisto linfoepitelial é considerado uma lesão rara, causada durante o desenvolvimento, devido ao aprisionamento dos linfonodos dentro do epitélio ou do tecido linfoide. A lesão torna-se evidente devido a proliferação do tecido epitelial, localizando-se nas glândulas salivares maiores e no pescoço<sup>1</sup>.

O cisto linfoepitelial cervical, também chamado de cisto da fenda branquial, localiza-se na região lateral do pescoço, é classificado como um cisto de desenvolvimento e sua patogenia é considerada incerta. Acredita-se que ele é formado a partir de remanescentes das fendas branquiais, já que sua localização é semelhante à dos arcos embrionários. Entretanto há uma segunda teoria afirmando que o cisto é desenvolvido a partir do aprisionamento do epitélio da glândula parótida, dentro dos linfonodos cervicais superiores, durante o desenvolvimento do embrião. A primeira teoria é mais aceita, já que exames imuno-histoquímicos a sustentam, sendo que 95% dos casos derivam do segundo arco branquial<sup>2</sup>.

Geralmente o inchaço acomete a junção entre o terço superior e os dois terços inferiores do músculo esternocleidomastoideo, entretanto pode ocorrer em qualquer região entre o hioide e a incisura supraesternal<sup>3</sup>. Clinicamente o cisto é caracterizado como uma massa amolecida e flutuante, com tamanho entre 1 e 10cm, e em casos de infecção secundária há a ocorrência de sintomas como dor e sensibilidade<sup>2</sup>.

Histologicamente, o cisto linfoepitelial apresenta, parede com revestimento epitelial, na maioria das vezes, estratificado escamoso, entretanto pode haver casos com presença de tecido epitelial colunar cuboide ou pseudoestratificado. A sustentação do epitélio é realizada pelos agregados linfoides, com a presença de um centro germinativo bem desenvolvido, além disso, no interior da lesão percebe-se a ocorrência de hiperplasia linfoide<sup>4</sup>.

Os cistos linfoepiteliais possuem maior prevalência na quinta década de vida, apresentando distribuição

igualitária entre os gêneros feminino e masculino. Atualmente, o cisto linfoepitelial é associado a aumentos na glândula parótida em pacientes infectados pelo HIV, e apresentam-se como inchaços lentos e indolores, ocorrendo de forma unilateral<sup>5</sup>.

Como os cistos linfoepiteliais são lesões benignas, geralmente os pacientes apresentam um bom prognóstico, sendo fundamental o diagnóstico precoce<sup>6</sup>. A modalidade de tratamento mais indicada para esse tipo de lesão consiste em ressecção completa da lesão, tomando precauções para evitar danos a estruturas anatômicas adjacentes, como o nervo facial<sup>7</sup>.

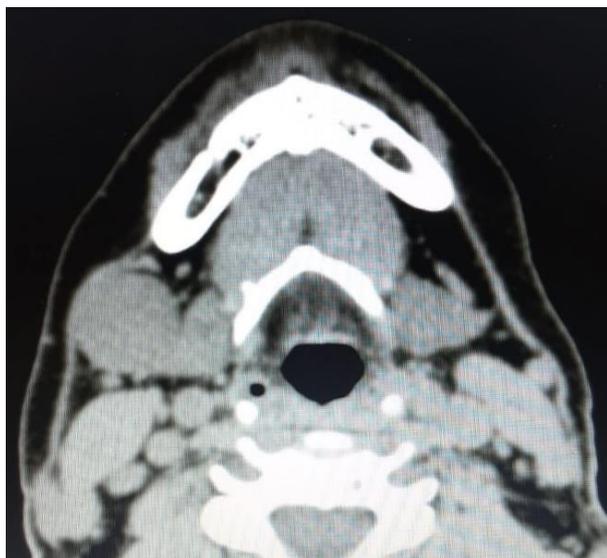
O presente trabalho tem como objetivo relatar um caso raro de cisto linfoepitelial localizado na região submandibular, em um paciente atendido no Ambulatório de CTBMF do Hospital Municipal de Tucuruí-PA.

## 2. CASO CLÍNICO

Paciente, melanoderma, com 51 anos, do sexo masculino compareceu ao Ambulatório de CTBMF do Hospital Municipal de Tucuruí-PA, queixando-se de um “caroço” localizado na região do pescoço há mais de um ano.



**Figura 1.** Lesão nodular localizada na região submandibular direita.



**Figura 2.** Corte axial, mostrando um nódulo na região submandibular direita.

Ao exame clínico observou-se a presença de uma lesão nodular, endurecida a palpação e indolor ao toque, localizada na região submandibular direita (Figura 1).

A tomografia computadorizada (TC) foi utilizada como exame complementar, auxiliando o diagnóstico. No corte axial, observa-se a presença de um nódulo do lado direito, próximo a região submandibular (Figura 2). Com base nas características clínicas e imagiológicas da lesão, a hipótese diagnóstica proposta foi de cisto linfoepitelial.



**Figura 3.** Remoção cirúrgica da lesão.

O tratamento proposto foi a remoção cirúrgica do cisto linfoepitelial. Realizou-se acesso submandibular para remoção da lesão (Figura 3 e 4). O material colhido foi fixado em formol 10% e enviado para biópsia.



**Figura 4.** Remoção cirúrgica da lesão.

Após 15 dias o paciente retornou ao ambulatório, apresentando uma boa cicatrização, sem queixas e ausência de sequelas pós-operatórias (Figura 5 e 6).



**Figura 5.** Após 15 dias, o paciente apresentou boa cicatrização e prognóstico.



**Figura 6.** Após 15 dias, o paciente apresentou boa cicatrização e prognóstico.

### 3. DISCUSSÃO

Segundo Wu *et al* (2020)<sup>8</sup>, o cisto linfoepitelial benigno é considerado uma lesão rara, que apresenta desenvolvimento lento, e consiste na presença de cistos únicos ou múltiplos no interior dos linfonodos associados as glândulas salivares, causando um edema unilateral e indolor, que se localiza na região cervical lateral e nas glândulas salivares. Os cistos linfoepiteliais também podem ocorrer em locais como o assoalho bucal, as amígdalas, o pâncreas, na glândula tireoide e na região intratorácica<sup>9</sup>.

Os cistos linfoepiteliais podem aumentar de tamanho, causando deformidade física e assimetria facial<sup>10</sup>. Entretanto estes cistos não possuem potencial para invasividade e malignidade, e dificilmente causam sintomas como paralisia facial e xerostomia<sup>9</sup>.

Também chamados de cistos cervicais laterais ou amigdaloides, os cistos linfoepiteliais são tumores císticos embrionários, causados por defeitos na absorção do segundo arco branquial. A maioria das anomalias branquiais são percebidas na infância, entretanto os cistos cervicais laterais geralmente são diagnosticados entre a segunda e quarta década de vida, quando apresentam crescimento devido a infecções secundárias ou outras causas<sup>3</sup>. No caso relatado o paciente apresentava 51 anos de idade.

Thong *et al* (2019)<sup>11</sup>, afirma que os cistos linfoepiteliais ocorrem com mais frequência em indivíduos do sexo feminino, além disso a maioria dos casos está associada ao vírus da imunodeficiência

humana (HIV), podendo ser um dos primeiros sintomas que indicam a infecção retroviral. Segundo Park *et al* (2019)<sup>4</sup> a ocorrência de cistos linfoepiteliais localizados na glândula parótida aumentou com a epidemia do vírus HIV, sendo presente entre 3 e 6% dos pacientes imunocomprometidos. Entretanto a prevalência do cisto linfoepitelial em indivíduos HIV negativos é considerada rara<sup>10</sup>.

O diagnóstico do cisto de fenda branquial é realizado através da história clínica do paciente, os sintomas presentes e a exclusão de patologias com características clínicas semelhantes. Além disso, podem ser realizados exames complementares que auxiliam no diagnóstico como a tomografia computadorizada, ressonância magnética, ultrassonografia e aspiração por agulha fina. A TC e a RM permitem a avaliação de toda extensão da lesão e sua associação a estruturas adjacentes, além de possibilitar a diferenciação dos cistos linfoepiteliais de outras lesões parafaríngeas, como o hemangioma, linfangioma, cisto dermóide e linfadenopatia metastática<sup>3</sup>. No presente caso, a TC foi o exame complementar escolhido para auxiliar na definição do diagnóstico.

A avaliação histopatológica da massa é fundamental para o diagnóstico definitivo dos cistos linfoepiteliais<sup>8</sup>. Histopatologicamente, os cistos da fenda branquial apresentam revestimento epitelial escamoso e a parede do cisto apresenta tecido linfoide, sendo comum a formação de centros germinativos precoce<sup>6</sup>.

A remoção cirúrgica, através da cervicotomia transversa, é considerada o padrão ouro para o tratamento dos cistos linfoepiteliais, entretanto na realização do procedimento é necessário cuidado para não lesionar estruturas como as artérias carótidas, os nervos glossofaríngeo, vago, hipoglosso e laríngeo superior. As complicações pós-operatórias consistem em recorrência e lesão de nervos cranianos, além disso, é importante que os pacientes que apresentam infecção secundária nos cistos façam uso de antibióticos antes da cirurgia, objetivando evitar a formação de fístulas persistentes<sup>3</sup>.

O tratamento do cisto linfoepitelial em pacientes infectados pelo HIV é frequentemente debatido na literatura e apresenta diferenças em relação ao manejo que os pacientes imunocompetentes recebem. Os pacientes imunocomprometidos possuem diversas opções de tratamento, como a escleroterapia, drenagem e aspiração repetida, radioterapia e terapia antirretroviral<sup>9</sup>.

Na escleroterapia há a aplicação de agentes esclerosantes no cisto, como etanol, morruato de sódio e bleomicina. Já a terapia antirretroviral é indicada quando o cisto está associado ao HIV, causando uma redução no tamanho ou até mesmo o desaparecimento dos cistos linfoepiteliais localizados na glândula parótida<sup>8</sup>.

### 4. CONCLUSÃO

O cisto linfoepitelial é uma lesão rara, que possui etiologia controversa e apresenta características

clínicas semelhante a outras patologias maxilofaciais, dessa forma, é necessário que o cirurgião-dentista conheça as características da lesão e solicite exames complementares como RM e TC que auxiliam no diagnóstico, além de possibilitar a avaliação da extensão da lesão. O tratamento cirúrgico é a intervenção mais recomendada, o profissional deve conhecer a anatomia da região em que será realizado o procedimento para evitar lesões a estruturas anatômicas adjacentes, como nervos e artérias, e a realização de exames histopatológicos é indispensável para confirmação do diagnóstico e descarte de patologias com características clínicas semelhantes.

## 5. REFERÊNCIAS

- [1] Regezi JA, Sciubba JJ, Jordan RCK. *Patologia Oral: Correlações Clinicopatológicas*. 7. ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan. 2022.
- [2] Neville BW, Damm DD, Allen CM, *et al.* *Patologia Oral e Maxilofacial*. 3. ed. Rio de Janeiro: Elsevier. 2009.
- [3] Najib Z; Berrabada O, Lahjaouj M., *et al.* Cervical lymphoepithelial cyst: Case report and literature review. *Annals of Medicine and Surgery*. 2021; 61:185–187.
- [4] Park YY, Yoon JS, Bang SS, *et al.* Branchial cleft cyst in the parotid gland in a human immunodeficiency virus-negative patient. *Arch Craniofac Surg*. 2019; 20(3):191-194.
- [5] Joshi J, Shan S, Agarwal D, *et al.* Benign lymphoepithelial cyst of parotid gland: Review and case report. 2018; 22:S91-7.
- [6] Liao Y, Li Y, Hu X *et al.* Benign lymphoepithelial cyst of parotid gland without human immunodeficiency virus infection: A case report. *World J Clin Cases* 2023 February 6; 11(4):931-937. DOI: 10.12998/wjcc.v11.i4.931
- [7] Delantoni A, Onder M, Orhan K. B-mode and color Doppler imaging of different types of branchial cleft cysts in children. A multicenter study and review of the literature. *J Ultrason* 2022; 22:e174–e178. DOI: 10.15557/JoU.2022.0028
- [8] Wu G, Yousaf A, Kessler E, *et al.* Recurrent lymphoepithelial cysts after parotidectomy in an undiagnosed HIV-positive patient. *Journal of Surgical Case Reports*, 2020; 8:1-3.
- [9] Iro S, Hmoura E, Slimani F. Parotid lymphoepithelial cysts revealing HIV infection in a 12-year-old girl: A case report. *Annals of Medicine and Surgery* 67 (2021) 102338
- [10] Carnelio S, Chandramouli M, Rodrigues G. Parotid Lymphoepithelial Cyst in a HIV Negative Individual: A Case Report. *IJMS*, Vol 43, Nº 6, Novembro, 2018
- [11] Thong HK., Athar PPSH, Mustaffa WMW. Benign Lymphoepithelial Cyst: An Unusual Cause of Parotid Swelling in Two Immunocompetent Patients. *Open Access Maced J Med Sci*. 2019 Jul 15; 7(13):2142-2145.