



CISTO LINFOEPITELIAL NA SUPERFÍCIE LATERAL DA LÍNGUA: RELATO DE CASO

LYMPHOEPITHELIAL CYST IN LATERAL SURFACE OF THE TONGUE: REPORT OF CASE

Adilson Matheus Sales Cavalcante¹, Jamily Alves Vieira dos Santos¹, Pollianna Muniz Alves², Cassiano Francisco Weege Nonaka², Ricardo Luiz Cavalcanti de Albuquerque-Júnior³, John Lennon Silva Cunha².

¹ Acadêmico de Odontologia da Universidade Estadual da Paraíba, Campina Grande – Paraíba – Brasil

² Professor de Odontologia, Universidade Estadual da Paraíba, Campina Grande – Paraíba – Brasil

³ Professor de Odontologia, Universidade Federal de Santa Catarina, Florianópolis – Santa Catarina – Brasil

Correspondência: Nome completo do autor, Endereço; Cidade-estado, CEP, país. **E-mail:**

Editor Acadêmico: Thiago Lucas da Silva Pereira

Received: 05/05/2023 / **Review:** 30/06/2023 **Accepted:** 30/07/2023

Como citar este artigo: Cavalcante AMS, Santos AV, Alves PM, Nonaka CFW, Albuquerque-Junior RLC, Cunha JLS. Cisto linfoepitelial na superfície lateral da língua: Relato de caso. RevICO. 2023; 21:e008

RESUMO

Introdução: O cisto linfoepitelial oral (CLO) é um cisto não-odontogênico incomum da cavidade oral que ocorre com maior frequência na borda posterior da língua. **Objetivo:** Relatar um caso de CLO em língua e discutir a etiopatogênese, características clínicas e histopatológicas dessas lesões orais incomuns. **Relato de caso:** Um paciente do sexo masculino, 23 anos, caucasiano, compareceu a um consultório odontológico privado queixando-se de um pequeno caroço na língua que havia surgido há cerca de 6 meses. O exame intrabucal revelou um pequeno nódulo móvel assintomático de coloração levemente amarelada, superfície lisa, consistência firme, medindo aproximadamente 1,0 cm, localizado na borda posterior esquerda da língua. As hipóteses diagnósticas incluíram CLO e lipoma. A lesão foi removida por meio de biópsia excisional e o espécime cirúrgico enviado para análise histopatológica. Morfologicamente, observou-se lesão cística revestida por epitélio pavimentoso estratificado queratinizado exibindo interface epitélio-conjuntivo plana e intenso infiltrado linfocítico na cápsula fibrosa, por vezes, formando centros germinativos proeminentes. O diagnóstico final foi de CLO. O paciente foi acompanhado durante 3 anos e não foram observados sinais de recidiva. **Conclusão:** Apesar de incomuns, os CLOs devem ser considerados no diagnóstico diferencial de pápulas e nódulos amarelados em cavidade oral, especialmente quando localizados em língua.

Descritores: Cavidade Bucal. Língua. Cistos não odontogênicos.

Introdução



O cisto linfoepitelial (CL) é uma lesão incomum que corresponde a menos de 1% de todas as lesões que acometem a cavidade oral.¹ A maioria das lesões orais ocorre em adultos e se apresenta clinicamente como um pequeno nódulo submucoso assintomático amarelado na língua ou no assoalho da boca.¹⁻³

Microscopicamente, os CLOs são revestidos por epitélio escamoso estratificado com um marcante infiltrado linfocítico na cápsula fibrosa, muitas vezes contendo folículos linfóides.¹⁻⁴ Apesar do comportamento clínico indolente, sem tendência à recorrência após excisão cirúrgica conservadora,^{1,3,5,6} os CLOs são frequentemente confundidos na prática clínica devido à aparência semelhante com diversas lesões orais.^{1,5} Portanto, um diagnóstico preciso requer uma avaliação morfológica.¹

Apesar de várias teorias terem sido propostas sobre a patogênese dos CLOs, ainda não há consenso se essas lesões representam cistos verdadeiros que se desenvolvem a partir de epitélio glandular ectópico aprisionado no tecido linfóide normal da cavidade oral durante a embriogênese (anel de Waldeyer) ou pseudocistos que surgem devido à obstrução da uma cripta tonsilar.^{1,3} Portanto, o objetivo deste estudo é relatar um caso clássico de CLO em língua além de fornecer uma discussão crítica enfatizando a etiopatogênese, características clínicas e histopatológicas dessas lesões orais incomuns.

Relato de Caso

Um paciente do sexo masculino, 23 anos, caucasiano, compareceu a um consultório odontológico privado queixando-se de um pequeno caroço na língua que havia surgido há cerca de 6 meses. A história médica pregressa não foi contributiva. O exame intrabucal revelou um pequeno nódulo móvel assintomático de coloração levemente amarelada, superfície lisa, consistência firme, medindo aproximadamente 1,0 cm, localizado na borda posterior esquerda da língua (**Figura 1**). As hipóteses diagnósticas incluíram CLO e lipoma. A lesão foi removida por meio de biópsia excisional e o espécime cirúrgico enviado para análise histopatológica.

Morfológicamente, observou-se lesão cística revestida por epitélio pavimentoso estratificado queratinizado exibindo interface epitélio-conjuntivo plana e intenso infiltrado inflamatório na cápsula fibrosa, por vezes, formando centros germinativos proeminentes (**Figura 2**). O diagnóstico final foi de CLO. O paciente foi acompanhado durante 3 anos e não houve sinais de recidiva nesse período.





Figura 1. Aspecto clínico da lesão.

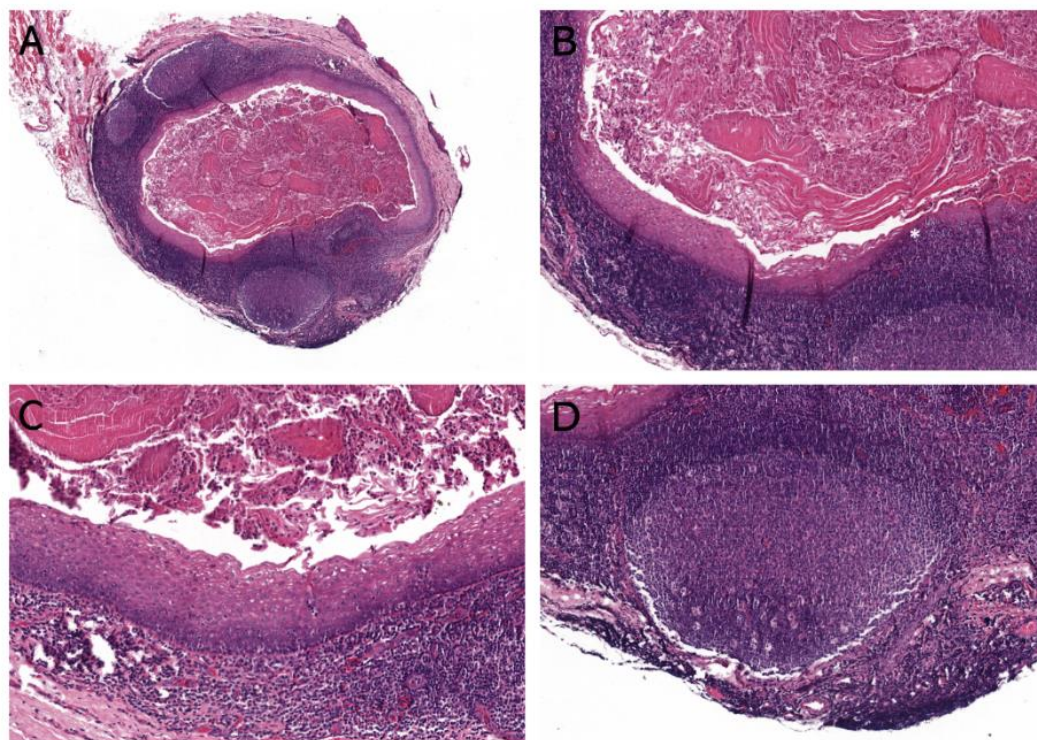


Figura 2. Aspectos histopatológicos do cisto linfoepitelial oral. (a) Fotomicrografia em menor aumento demonstrando cavidade cística revestida por epitélio escamoso paraqueratinizado e cápsula fibrosa contendo denso infiltrado linfocitário com formação de folículos linfóides. (b-c) Detalhe do revestimento epitelial e do lúmen cístico preenchido por numerosas células epiteliais descamadas e queratina. Note a interface epitélio-conjuntivo plana, áreas de atrofia epitelial (asterisco) e exocitose. (d) Detalhe dos folículos linfóides na cápsula cística (hematoxilina e eosina).

Discussão

Os CLOs são lesões incomuns, representando menos de 1% de todas as lesões diagnosticadas em serviços de patologia oral.^{1,3} Os CLOs tendem a ocorrer em adultos do sexo feminino entre a quinta e a sexta décadas de vida, sendo menos frequentes em pacientes pediátricos.¹⁻³ Clinicamente, a maioria dos CLOs se apresenta como um pequeno nódulo móvel indolor, geralmente menor que 1 cm de diâmetro, exibindo superfície lisa e cores que variam do amarelo ao branco localizados principalmente na língua ou no assoalho da boca,¹⁻⁷ semelhante ao presente caso. O tempo de evolução varia de algumas semanas a vários anos.^{1,3,5} No entanto, devido ao pequeno tamanho e à ausência de sintomas, a maioria dos CLOs costuma ser diagnosticado durante exames odontológicos de rotina.¹⁻³

Devido à sua baixa prevalência e semelhança com várias condições amarelo-esbranquiçadas da cavidade oral, os CLOs são frequentemente confundidos na prática clínica com outras lesões orais.^{1,6} O diagnóstico diferencial inclui neoplasias (lipoma ou tumor de células granulares), alterações de desenvolvimento (grânulos de Fordyce, cistos dermóides e epidermóides), massas calcificadas (sialólitos e tonsilólitos), condições reativas/inflamatórias e manifestações orais de doenças sistêmicas.^{1,6} Recentemente, Yang et al. (2012)



relataram uma série de 120 casos intraorais.⁵ Em nenhum deles, o CLO foi mencionado como um diagnóstico clínico provisório.⁵ Esses achados demonstram um desconhecimento dessas lesões entre os clínicos e enfatizam a necessidade de expandir os diagnósticos diferenciais de lesões amarelas da mucosa oral e incluir os CLOs.^{1,5}

Histologicamente, a maioria dos CLOs são revestidos por epitélio escamoso estratificado delgado queratinizado ou não queratinizados.¹⁻⁷ Menos frequentemente, alguns cistos são revestidos por epitélio colunar pseudoestratificado ciliado ou não ciliado, contendo células mucosas/caliciformes.^{1,3} O lúmen cístico exibe uma quantidade variável de células epiteliais descamadas, restos de queratina, células inflamatórias (linfócitos ou leucócitos polimorfonucleares) e material eosinofílico amorfo.¹⁻³ A cápsula fibrosa apresenta intenso infiltrado linfocitário que pode circundar total ou parcialmente o cisto.^{1,3,4,7} Em geral, o tecido linfóide apresenta um padrão folicular com centros germinativos bem formados.^{1-3,7} A maioria dessas características foi observada no presente caso.

Ao longo dos anos, várias teorias foram sugeridas sobre a patogênese dessas lesões na cavidade oral.^{1,3,8} Segundo Knapp (1970), os CLOs são pseudocistos que se originam da obstrução das criptas tonsilares devido ao acúmulo de células epiteliais descamadas e/ou queratina.⁸ A predileção de CLOs por áreas da cavidade oral que possuem agregados linfóides e a continuidade do revestimento cístico com o epitélio superficial observada em alguns casos corroboram essa hipótese.^{1,3,7,8} No entanto, outros estudos não demonstraram essa continuidade mesmo com a implantação de cortes histológicos seriados. Além disso, os CLOs podem surgir em outras localizações orais desprovidas de tecido linfóide oral.^{1,8} Portanto, nem sempre é possível explicar a patogênese dos CLOs com essa teoria.

Também foi sugerido que os CLOs podem surgir de inclusões epiteliais ou remanescentes epiteliais derivados de glândulas salivares aprisionados no tecido linfóide da cavidade oral (anel de Waldeyer) durante a embriogênese.⁹ Vickers e von Der Muhll (1966) estudaram a teoria do aprisionamento experimentalmente.¹⁰ Eles concluíram que a implantação de epitélio de glândula salivar autógena em linfonodos submandibulares poderia originar CLs em hamsters. A presença de CLOs exibindo epitélio colunar ciliado com células caliciformes, como observado em alguns estudos,^{1,3} sugere a participação do epitélio ductal na patogênese dessas lesões e reforça a teoria do aprisionamento. De fato, a metaplasia do epitélio ductal é comum e pode ser responsável pelo revestimento epitelial escamoso estratificado que é tão frequentemente observado nesses cistos.¹ No entanto, mais estudos com foco na histogênese do epitélio cístico (glandular ou revestimento superficial da mucosa oral) são necessários e uma abordagem interessante para confirmar esta hipótese.

Contudo, esta teoria também falha em explicar a ocorrência, mesmo rara, de CLOs em áreas da cavidade oral desprovidas de tecido linfóide normal, como a mucosa labial, como reportado em alguns estudos.^{1,3} A razão pela qual essas lesões se desenvolvem em locais desprovidos de agregados linfóides é ainda mais interessante. Talvez, o cisto também possa se originar dos ductos excretores de glândulas salivares menores ou implantação traumática de remanescentes epiteliais da mucosa oral no tecido conjuntivo subjacente, uma vez que ilhas epiteliais e estruturas semelhantes a ductos são frequentemente identificadas no tecido linfóide ou próximo a ele.^{1,3} A continuidade do epitélio cístico com os ductos das glândulas salivares menores observada em alguns casos previamente reportados favorece a última hipótese.^{1,3} Apesar da grande discussão sobre a patogênese dos CLOs, as lesões compartilham características morfológicas semelhantes, o que sugere que diferentes mecanismos podem desempenhar um papel no desenvolvimento dessas lesões.¹



O tratamento dos CLOs consiste em remoção cirúrgica conservadora.^{1-3,5-7} O prognóstico do CLO é excelente, sem relatos de recorrência ou transformação maligna.^{1-3,5,7} O paciente do presente caso foi tratado por meio de excisão cirúrgica conservadora (biópsia excisional) e acompanhado por 3 anos sem sinais de recidivas, o que é esperado para esta lesão.

Considerações finais

Os CLOs são incomuns na cavidade oral e devem ser tratados de forma conservadora. É crucial que o diagnóstico diferencial de entidades que apresentam coloração amarelada na mucosa oral inclua os CLOs.

Suporte Financeiro

Não houve suporte financeiro.

Conflitos de Interesse

Os autores declaram não ter conflitos de interesse

Disponibilização dos dados

Os dados usados para dar suporte aos achados deste estudo podem ser disponibilizados mediante solicitação ao autor correspondente.

ABSTRACT

Introduction: Oral lymphoepithelial cyst (OLEC) is an uncommon non-odontogenic cyst of the oral cavity that most frequently occurs at the posterior border of the tongue. **Objective:** The aim of this study is to report a case of OLEC in the tongue. Additionally, we provide a critical discussion emphasizing the etiopathogenesis, clinical and histopathological characteristics of these uncommon oral lesions. **Case report:** A 23-year-old Caucasian male patient attended a private dental clinic complaining of a small lump on the tongue that had appeared about 6 months ago. Intraoral examination revealed a small mobile nodule with a slightly yellowish color, smooth surface, firm consistency, located on the left posterior border of the tongue. Diagnostic hypotheses included OLEC and lipoma. The lesion was removed through excisional biopsy and the surgical specimen sent for histopathological analysis. Morphologically, a cystic lesion lined by stratified squamous epithelium exhibiting a flat epithelium-connective tissue interface and an intense lymphocytic infiltrate in the fibrous capsule, sometimes forming prominent germinal centers, was observed. The final diagnosis was OLEC. The patient was followed up for 3 years and there were no recurrences. **Conclusion:** Although uncommon, OLECs should be considered in the differential diagnosis of yellowish papules and nodules in the oral cavity, especially when located on the tongue.

Keywords: Oral Cavity. Tongue. Nonodontogenic cysts.

Referências

1. Cunha JLS, Roza ALOC, Cruz VMS, Ribeiro JL, Cavalcante IL, Cavalcante RB, et al. Oral Lymphoepithelial Cyst: A Collaborative Clinicopathologic Study of 132 Cases from Brazil. *Head Neck Pathol.* 2022 Mar;16(1):268-277.
2. Custódio M, Tobouti PL, Matuck B, de Sousa SCOM. Incidental finding of subgemmal neurogenous plaque upon retrospective evaluation of oral lymphoepithelial cysts. *Oral Maxillofac Surg.* 2018 Dec;22(4):429-433.



3. da Silva KD, Coelho LV, do Couto AM, de Aguiar MCF, Tarquínio SBC, Gomes APN, et al. Clinicopathological and immunohistochemical features of the oral lymphoepithelial cyst: A multicenter study. *J Oral Pathol Med*. 2020 Mar;49(3):219-226.
4. Moon JY, Kim N, Jeong JY, Kim JS, Heo SJ. Lymphoepithelial cyst in the palatine tonsil: A case report and literature review. *Medicine (Baltimore)*. 2022 May 20;101(20):e29246.
5. Yang X, Ow A, Zhang CP, Wang LZ, Yang WJ, Hu YJ, et al. Clinical analysis of 120 cases of intraoral lymphoepithelial cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2012 Apr;113(4):448-52.
6. Schafer DR, Glass SH. A Guide to Yellow Oral Mucosal Entities: Etiology and Pathology. *Head Neck Pathol*. 2019 Mar;13(1):33-46.
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 Aug 1;9(8):e1035-e1043.
8. Knapp MJ. Pathology of oral tonsils. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1970 Feb;29(2):295-304.
9. Bhaskar SN. Lymphoepithelial cysts of the oral cavity. Report of twenty-four cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1966 Jan;21(1):120-8.
10. Trottet L, Jayasooriya PR, Abeyasinghe UWAML, Mendis RBRN, Lombardi T. A Retrospective Clinico-Pathological Analysis with Review of Literature of Oral and Cervical Lympho-Epithelial Cysts from a Pathological Perspective. *Appl Sci*. 2022; 12(5):2525.