

Caso incomum de carcinoma cuniculatum afetando a cavidade oral de um menino de 11 anos^{☆,☆☆}



Prezado Editor,

O carcinoma cuniculatum oral (CCO) corresponde a uma variante rara e bem diferenciada do carcinoma espinocelular oral (CECO), incluído pela primeira vez na Classificação de Tumores de Cabeça e Pescoço da Organização Mundial da Saúde (OMS) em 2005. De acordo com a OMS, o CCO é definido como uma proliferação neoplásica maligna de epitélio escamoso estratificado formando amplos maciços epiteliais com centro ceratinizado e criptas preenchidas por ceratina que parecem penetrar no osso, sem características citológicas óbvias de malignidade.¹ Estima-se que o CCO seja responsável por até 2,7% de todos os CECOs.² Até o momento, menos de 60 casos foram relatados. O presente relato é de um caso incomum de CCO afetando a gengiva de uma criança.

Um menino de 11 anos de idade realizou uma consulta em decorrência de dor local e parestesia de lábio inferior esquerdo de evolução desconhecida. O paciente tinha história de ependimoma grau II, adequadamente tratado com cirurgia e radioterapia e controlado rotineiramente. Não apresentava sintomas sistêmicos, alergias conhecidas ou histórico médico de qualquer outra doença. O exame extraoral não revelou anomalias. Tumoração comprometendo a gengiva bucal e lingual foi identificada entre o segundo molar esquerdo inferior e o primeiro pré-molar esquerdo inferior. Uma extensa placa branca verrucosa cobria o lado bucal da massa, enquanto nódulos brancos com aparência cística, com vasos sanguíneos superficiais, também estavam presentes em ambos os lados lingual e bucal do tumor (fig. 1). Os dentes envolvidos na tumoração eram móveis. A tomografia computadorizada de feixe cônico revelou grande radiolucência bem definida envolvendo toda a espessura da mandíbula posterior esquerda perfurando a tábua óssea bucal (fig. 2). Uma biópsia incisional foi realizada, a qual mostrou massa tumoral composta por múltiplos maciços epiteliais contendo criptas ramificadas preenchidas por ceratina, revestidas por células epiteliais escamosas. O padrão de crescimento epitelial endofítico apresentava-se embutido profundamente no osso alveolar, formando uma rede complexa de canalículos conectados, lembrando tocas de coelho. As células epiteliais eram bem diferenciadas; não foram observadas atipia, mitoses, invasão perineural ou linfovascular. Um infiltrado inflamatório crônico consistindo principalmente de linfócitos com áreas locais de acúmulo de neutrófilos foi observado em algumas áreas do estroma (fig. 3). A lesão foi diagnosticada como carcinoma cuniculatum da cavidade oral. O diagnóstico diferencial com uma variante sólida de



Figura 1 Apresentação clínica: tumoração envolvendo a gengiva vestibular e lingual entre o segundo molar inferior esquerdo e o primeiro pré-molar esquerdo inferior.

cisto odontogênico ceratótico foi realizado em razão de sua semelhança histopatológica. O exame por tomografia computadorizada revelou a ausência de envolvimento de linfonodos e de metástases, e o paciente foi encaminhado para tratamento cirúrgico. O paciente foi acompanhado com regularidade e nenhuma recorrência foi observada após um período de seguimento de cinco anos.

O carcinoma cuniculatum (CC) é uma variante rara e de baixo grau do carcinoma espinocelular (CEC), mais comumente localizado na planta do pé, mas qualquer sítio anatômico pode ser afetado, incluindo a cavidade oral.² De acordo com uma revisão sistemática recente que analisou 43 casos de CCOs, o mesmo tem uma leve predileção por mulheres, e é mais frequente entre a sexta e a sétima décadas de vida.³ Nosso caso é o segundo relato de CCO em crianças. O primeiro caso foi relatado por Hutton et al.,⁴ em 2010, correspondendo a um CCO afetando a gengiva maxilar anterior em uma menina de 7 anos. Quando afeta a cavidade oral, a localização mais comum é a gengiva mandibular, seguida pela gengiva maxilar.³ Também foram relatados casos afetando a crista alveolar, a língua e o palato.⁵ Quando a gengiva é afetada, é comum o envolvimento ósseo. Exames de imagem geralmente mostram radiolucência com margens mal definidas, com reabsorção do osso cortical adjacente.⁶

O sintoma clínico mais comum é a dor, seguida de ulceração, inchaço e endurecimento.^{3,5,6} Nosso paciente, além dos sintomas mencionados, também relatou parestesia, que até onde sabemos, não havia sido relatada antes. O principal diagnóstico diferencial do CC é o carcinoma verrucoso (CV), outra variante incomum bem diferenciada do CEC. Porém, outras lesões ceratinizantes, como cistos odontogênicos ceratinizantes, precisam ser descartadas, principalmente por meio de pequenas biópsias incisoriais. No passado, pensava-se que o CC era um CV, mas agora é considerado uma entidade distinta do CEC.² Clinicamente, tanto o CC quanto o CV podem ter aparência verrucosa, embora o CC possa exibir uma superfície papilífera séssil rosa-avermelhada, o que não é observado no CV. Na histopatologia, o CC mostra um componente invasivo tortuoso (endofítico) com tampões de ceratina, que contrasta com o crescimento verrucoso mais exofítico e expansivo observado

[☆] Como citar este artigo: Niklander S, Sernuda LM, Martínez R. Unusual case of carcinoma cuniculatum affecting the oral cavity of an 11-year-old boy. *An Bras Dermatol*. 2021;96:799–801.

^{☆☆} Trabalho realizado na Facultad de Odontologia, Universidad Andres e Hospital de Quilpue, Servicio de Salud Viña del Mar-Quillota, Chile.

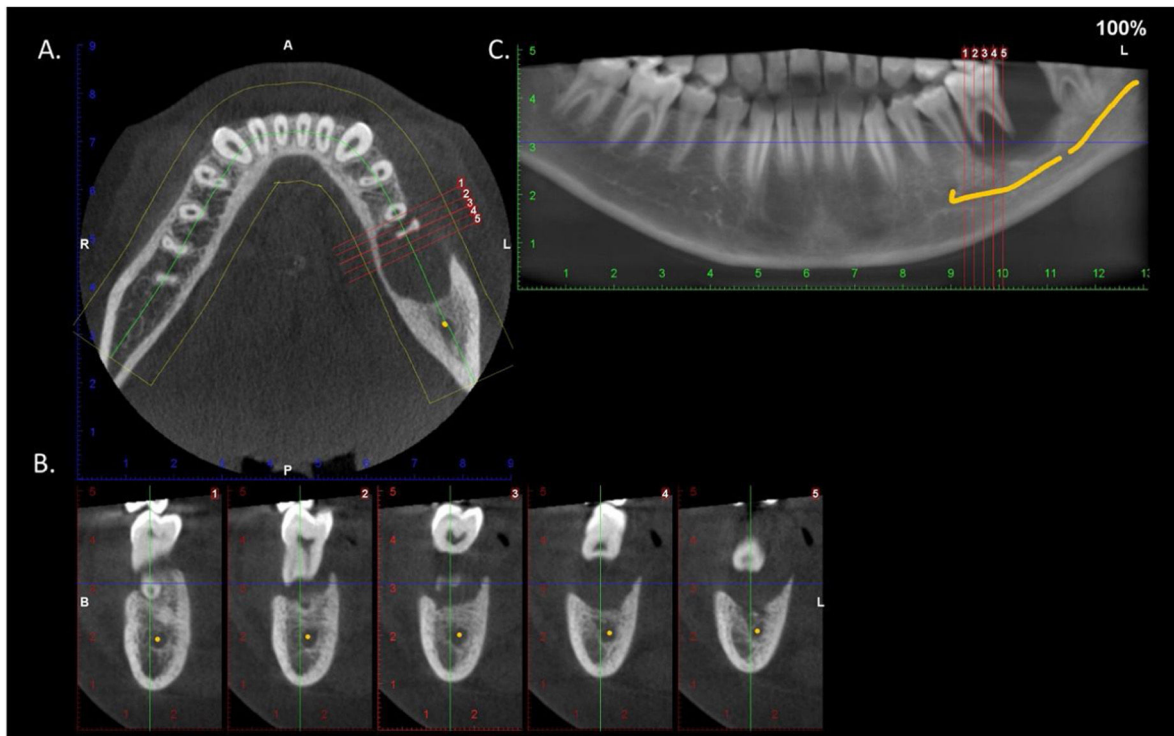


Figura 2 Tomografia computadorizada de feixe cônico. (A), Corte axial; (B), corte para-axial; e (C), reconstrução panorâmica. Há grande radiolusência bem definida envolvendo toda a espessura da mandíbula posterior esquerda perfurando a tábua óssea vestibular.

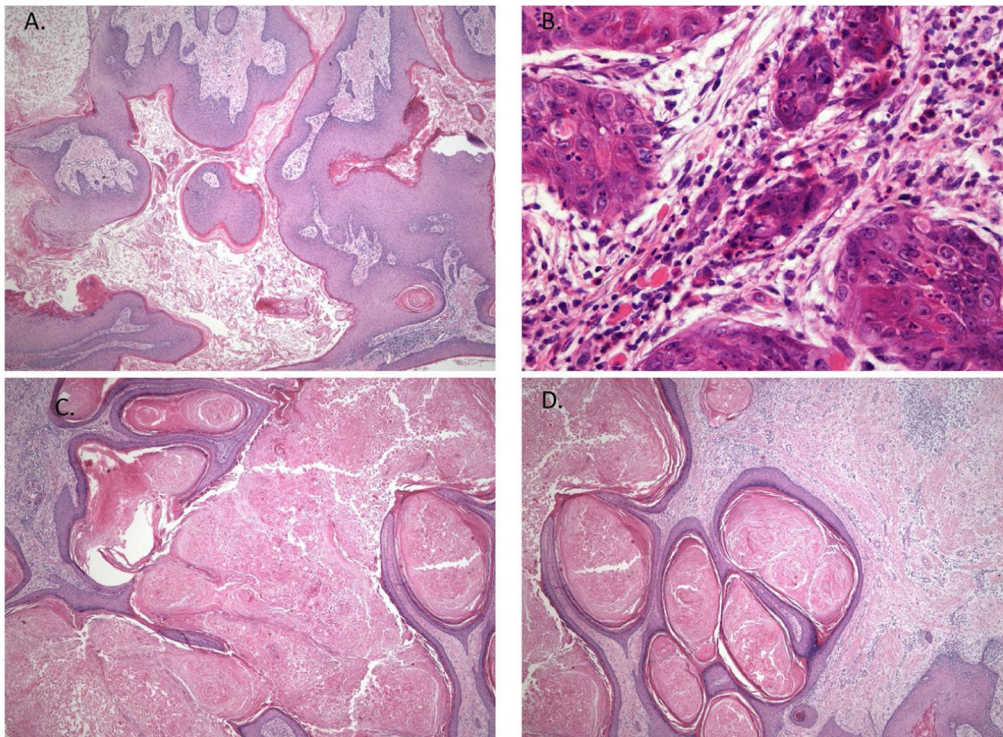


Figura 3 (A), Características histopatológicas mostrando tecido neoplásico com padrão endofítico de crescimento com ceratinização abundante (10×). (B), Infiltrado inflamatório misto composto primariamente de linfócitos e alguns neutrófilos vistos em algumas áreas (40×). (C e D), Crescimento epitelial endofítico formando uma rede complexa de canaliculos conectados, semelhantes a tocas de coelhos (10×).

no CV.⁵ Microabscessos preenchidos com neutrófilos também são comumente relatados no CC.²

O principal tratamento de escolha é a excisão cirúrgica. Embora o CCO possa ser localmente agressivo, metástases em linfonodos e à distância são incomuns,^{2,6} e foi relatado que a taxa de sobrevivência de cinco anos é acima de 90%.² Recorrências locais foram relatadas, mas não são muito comuns. Em relação ao presente caso, o paciente permaneceu livre da doença após um período de seguimento de cinco anos.

Suporte financeiro

Nenhum.

Contribuição dos autores

Sven Niklander: Elaboração e redação do manuscrito; aprovação da versão final do manuscrito.

Luz María Sernuda: Aprovação da versão final do manuscrito.

René Martinez: Elaboração e redação do manuscrito; aprovação da versão final do manuscrito.

Conflito de interesses

Nenhum.




Esta pesquisa não recebeu nenhum suporte financeiro específico de agências de fomento nos setores público, comercial ou sem fins lucrativos. O estudo foi realizado em Viña del Mar, Chile.

Agradecimentos

Gostaríamos de agradecer à Dra. Javiera Fuentes por sua ajuda na interpretação das imagens de tomografia computadorizada de feixe cônico.

Referências

1. Barnes L, Eveson J, Reichart P, Sidransky D, World Health Organization classification of tumours. Pathology and genetics of head and neck tumours. Lyon: WHO IARC Press; 2005. p. 163–75.
2. Sun Y, Kuyama K, Burkhardt A, Yamamoto H. Clinicopathological evaluation of carcinoma cuniculatum: a variant of oral squamous cell carcinoma. *J Oral Pathol Med.* 2012;41:303–8.
3. Farag AF, Abou-Alnour DA, Abu-Taleb NS. Oral carcinoma cuniculatum, an unacquainted variant of oral squamous cell carcinoma: A systematic review. *Imaging Sci Dent.* 2018;48:233–44.
4. Hutton A, McKaig S, Bardsley P, Monaghan A, Parmar S. Oral carcinoma cuniculatum in a young child. *J Clin Pediatr Dent.* 2010;35:89–94.
5. Padilla RJ, Murrain VA. Carcinoma cuniculatum of the oral mucosa: a potentially underdiagnosed entity in the absence of clinical correlation. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2014;118:684–93.
6. Pons Y, Kerrary S, Cox A, Guerre A, Bertolus C, Gruffaz F, et al. Mandibular cuniculatum carcinoma: apropos of 3 cases and literature review. *Head Neck.* 2012;34:291–5.

Sven Niklander ^{a,*}, Luz María Sernuda ^b
e René Martinez ^a

^a Departamento de Cirurgia e Patologia Oral, Facultad de Odontología, Universidad Andres Bello, Chile

^b Cirurgia Maxilofacial, Hospital de Quilpue, Servicio de Salud Viña del Mar-Quillota, Chile

* Autor para correspondência.

E-mail: sven.niklander@unab.cl (S. Niklander).

Recebido em 22 de julho de 2020; aceito em 10 de agosto de 2020

<https://doi.org/10.1016/j.abdp.2021.09.026>

2666-2752/ © 2021 Sociedade Brasileira de Dermatologia.

Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este é um artigo Open Access sob uma licença CC BY (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>).