

Leiomioma vascular oral: relato de caso e estudo imunohistoquímico

Oral vascular leiomyoma: a case report and immunohistochemistry study

Pollianna Muniz Alves^I | Márcio Menezes Novaes^{II} | Alfredo Lucas Neto^{III} | Gustavo Pina Godoy^{IV} |
Diego do Amaral Costa^V | Ana Miryan Costa Medeiros^{VI} | Lélia Maria Guedes Queiroz^{VI}

RESUMO

Leiomiomas são tumores benignos do músculo liso e raros na cavidade oral. Este artigo relata um caso clínico de leiomioma vascular oral que acometeu um paciente do sexo masculino, 24 anos de idade, o qual se queixava da presença de uma lesão que crescia e sangrava há 4 anos. Ao exame clínico intraoral, observou-se a presença de um tumor de 4cm na maxila direita, assintomático, com sangramento fácil, coloração normal e consistência fibrosa. Na radiografia, observou-se área radiolúcida com pontos de reabsorção óssea no local da lesão. Executou-se biópsia incisional, exame histopatológico e imunohistoquímico para a conclusão do diagnóstico de leiomioma vascular oral. O paciente foi encaminhado para a remoção total da lesão, sendo acompanhado há 4 anos, sem índice de recidivas.

Descritores: Angiomioma; Leiomioma Vascular; Neoplasias Bucais; Cavidade Oral; Boca.

47

ABSTRACT

Leiomyomas are benign tumors of smooth muscle and are rare in the oral cavity. This paper reports the case of an oral vascular leiomyoma in a 24-year-old male who presented an oral lesion, which "had been growing and bleeding" for four years. On intra-oral clinical examination a 4-cm tumor was observed, located in the right maxilla, asymptomatic, bleeding, with a normal coloration and fibrous consistency. Radiography revealed a radiolucent area with points of bone reabsorption at the site of the lesion. An incisional biopsy, as well as histopathology and immunohistochemistry studies, was carried out, leading to a diagnosis of vascular leiomyoma of the oral cavity. The patient was referred for total removal of the lesion and has been followed for 4 years with no recurrence.

Keywords: Angiomyoma; Mouth Neoplasms; Mouth.

^IProf. Dr. Oral Pathology, Department of Dentistry, Paraíba's State University, Campina Grande, PB, Brazil.

^{II}Undergraduate Dentistry, Paraíba's State University, Campina Grande, PB, Brazil.

^{III}Oral and Maxillofacial Surgeon, Recife, Pernambuco, Brazil.

^{IV}Prof. Dr. Oral Pathology, Department of Dentistry, Paraíba's State University, Campina Grande, PB, Brazil.

^VOral and Maxillofacial Surgeon, Natal, Rio Grande do Norte, Brazil.

^{VI}Prof. Dr. of Post-graduation in Oral Pathology, Department of Dentistry, Federal University of Rio Grande do Norte, Natal, Brazil.

INTRODUÇÃO

Leiomiomas são tumores benignos de origem do músculo liso, os quais podem se desenvolver em qualquer região do corpo onde há músculo liso, incluindo as paredes dos vasos sanguíneos e linfáticos maiores. Os leiomiomas são comumente encontrados no útero, na pele e no trato gastrointestinal⁶.

No útero, o leiomioma ocorre com uma incidência de 95% de todos os casos, sendo, na cavidade oral, neoplasias raras, com prevalência de menos de 1% dos tumores de músculo liso. O primeiro caso de leiomioma da cavidade oral foi relatado por Blanc em 1884, e, até o ano corrente, foram registrados aproximadamente 139 casos de leiomioma na cavidade oral^{8,23}. Acredita-se que a origem do leiomioma na cavidade oral surge a partir do músculo liso vascular e dos ductos excretores das glândulas salivares^{13,17}.

Quanto aos aspectos morfológicos, a Organização Mundial de Saúde (2005) classifica o leiomioma como: leiomioma sólido, angiomioma ou leiomioma vascular e leiomioma epitelióide.

Dentre os tipos de leiomioma que ocorre na cavidade oral, o leiomioma tipo vascular é o mais frequente. Clinicamente, pode se apresentar como nódulos assintomáticos de tamanho variável e de crescimento lento, localizados, principalmente, na língua, nos lábios, no palato e na mucosa bucal. Pelo fato de se tratar de uma lesão circunscrita, muitas vezes com recorrência rara, a excisão cirúrgica é o tratamento de escolha^{3,5}.

Histologicamente, a proliferação de células musculares lisas pode assemelhar-se a outras lesões benignas, como o neurofibroma ou neurilemoma. Para diagnóstico do leiomioma vascular, pode-se utilizar marcadores histoquímicos de rotina, como tricrômico de Masson. No entanto, o teste de imuno-histoquímica tem sido considerado como uma importante ferramenta para o diagnóstico. A realização do exame imuno-histoquímico é relevante

por causa da raridade dos leiomiomas na cavidade oral e semelhança com outras lesões que ocorrem mais frequentemente nesse sítio^{4,18}.

Portanto, o objetivo deste artigo é relatar um caso de leiomioma vascular que ocorreu na cavidade oral de um paciente jovem bem como realizar uma revisão da literatura científica pertinente.

RELATO DO CASO

Paciente do sexo masculino, 24 anos de idade, melanoderma procurou o serviço odontológico especializado, queixando-se de uma lesão na cavidade oral que estava crescendo lentamente há aproximadamente 4 anos, porém sem relato de dor. Ao exame extraoral, não foi identificada nenhuma alteração. No exame intraoral, foi constatada uma lesão de aspecto tumoral, na região maxilar posterior direito, de coloração normal, com pontos hemorrágicos dispersos pela lesão, consistência fibrosa, com aproximadamente 4 cm de diâmetro (Figura 1A). O segundo molar superior direito, que estava envolvido na lesão, apresentava mobilidade excessiva. Foi realizada uma radiografia panorâmica, observando-se a presença de pequenos focos radiopacos na região próxima à lesão, compatível com áreas de reabsorção óssea (Figura 1B). Mediante os achados clínicos, a hipótese diagnóstica recaiu sobre uma lesão de origem vascular. Executou-se uma biópsia incisiva da lesão, e, ao exame histopatológico, observou-se a presença de numerosos vasos sanguíneos de calibre e morfologia variada. As células endoteliais projetavam-se para o lúmen desses vasos, lembrando o aspecto de “pedra de lápide” e o formato de alguns vasos, mimetizando “chifres de veado”, quadro histológico semelhante ao hemangiopericitoma. Numa visão de maior aumento, observou-se, ao redor desses vasos, uma espessa camada de fibras musculares lisas (Figura 2). Na análise imunohistoquímica, constatou-se positividade para a calponina e o H-caldesmon e

negatividade para endogleina e CD34 (Figura 3). O diagnóstico final foi de leiomioma vascular oral. O paciente foi submetido à excisão cirúrgica total da lesão, estando sob proervação durante o período de 36 meses, sem evidências de recidiva.

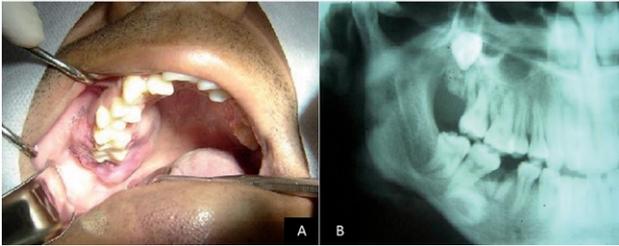


Figura 1: A) Aspecto clínico da lesão em palato posterior direito, exibindo coloração normal, com pontos hemorrágicos espalhados por toda parte, consistência fibrosa e diâmetro aproximado de 4 cm. B) Radiografia panorâmica dos maxilares, exibindo pontos radiopacos em região próxima à lesão e áreas de reabsorção óssea.

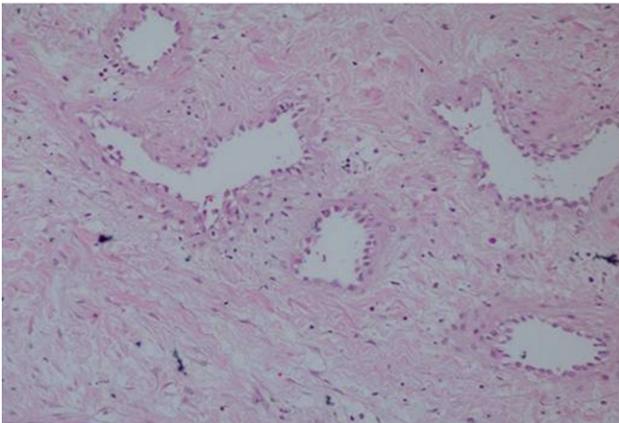


Figura 2: Aspectos histológicos demonstrando diversos vasos sanguíneos de morfologias variadas com camadas espessas de tecido muscular liso. Células endoteliais se projetando para o lúmen desses vasos.

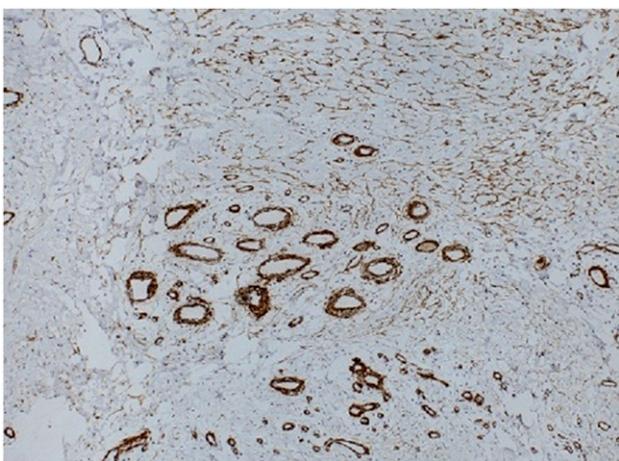


Figura 3: Imunohistoquímico, exibindo positividade para o H- Caldesmon.

DISCUSSÃO

Os leiomiomas são tumores benignos do músculo liso, mais comumente encontrados no útero, na pele, no trato gastrointestinal, sendo na cavidade oral extremamente raro. No entanto, quando ocorre na cavidade oral, todos os casos são do tipo sólido ou do tipo vascular e representam cerca de aproximadamente 75% de todos os casos orais, dos quais 80% desses casos localizados em lábios, língua, palato e bochechas^{14,19}.

A etiologia dos leiomiomas é incerta, no entanto se acredita na relação com a túnica média das paredes dos vasos sanguíneos de músculos lisos, além de outras possíveis fontes, como as papilas circunvaladas da língua, os ductos linguais e o tecido embrionário heterotópico^{11,20}. O leiomioma vascular pode representar somente um estágio de um contínuo processo de proliferação de músculo liso, e que, um número apreciável pode estar relacionado à má-formação vascular⁷.

O leiomioma ocorre em qualquer idade, sendo mais frequente na quinta e na sexta décadas de vida, com média de 45 anos, com predomínio do sexo masculino (54%), sendo os locais mais comuns de apresentação os lábios (27%), seguida da língua (18,3%), da bochecha, do palato (15,49%), da gengiva (8,45%) e da mandíbula (5,63%)³. Entretanto, o caso clínico aqui descrito é de um leiomioma vascular em maxila posterior, em paciente da segunda metade de vida e do sexo masculino.

Como diagnóstico diferencial clínico, o leiomioma vascular apresenta o fibroma, neurofibroma e lipoma. Histopatologicamente, pode se assemelhar ao leiomiossarcoma e hemangiopericitoma⁹.

Ainda se falando das características clínicas dessa lesão, sabe-se que crescimentos assintomáticos em tecidos moles podem representar uma infinidade de patologias, lesões benignas ou potencialmente malignas. O leiomioma possui características clínicas semelhantes a estas, portanto não específicas, o que torna seu diagnóstico diferencial, bastante difícil

e somente um apurado exame histopatológico pode definir as características dessa lesão^{1,10,15,18}.

Contudo há dificuldade de interpretação devido à semelhança de seu quadro histopatológico com outras neoplasias, em especial de linhagem neural ou fibroblástica, salientando que as colorações especiais de comprovado valor diagnóstico, muitas vezes não são bem sucedidas na demonstração das miofibrilas. Portanto, outras técnicas são usadas por outros autores para elucidação diagnóstica, como a microscopia eletrônica de transmissão e a imuno-histoquímica^{10,16}.

Para o caso relatado neste artigo, fez-se necessária a realização de biópsia e estudo anatomopatológico. Tal exame realizado permitiu uma observação de numerosos vasos sanguíneos de calibre e morfologia variados, com células endoteliais, que se proliferavam para o lúmen desses vasos, lembrando o aspecto de “pedra de lápide”, e o formato de alguns vasos mimetizando “chifres de veado”. Em acordo com a literatura, o histopatológico não foi suficiente para o diagnóstico final, visto que as características histológicas supracitadas se assemelham a diversas patologias, a exemplo do hemangiopericitoma.

Alguns marcadores têm sido utilizados em imunohistoquímica para identificar leiomiomas vasculares, tais como a vimentina, desmina, actina e miosina²².

A coloração histoquímica, utilizando-se o Tricromo de Masson, não é específica para o leiomioma, porque depende de vários fatores como uma fixação adequada e da técnica utilizada, podendo fornecer resultados falso-positivos, porém se podem empregar anticorpos contra actina de músculo liso, desmina e vimentina, apesar de este último não ser específico para músculo liso.³

Vários marcadores têm sido utilizados no estudo de tumores de células mioepiteliais, como proteína S-100, miosina, proteínas fibrilares glial ácida, desmina e citoqueratina, porém nenhum

destes tem-se mostrado específico na identificação de linhagens de células mioepiteliais, tendo sido demonstrado que a actina específica de músculo liso está presente nas células mioepiteliais normais de glândulas salivares².

A calponina é uma proteína 34 kD envolvida no sistema de regulação da contração do músculo liso, restrita à célula muscular, não encontrada nenhum análogo em outros tecidos²⁴. O H-caldesmon é uma proteína amplamente distribuída em células musculares lisas e não lisas, e acredita-se que também está envolvida na regulação da contração muscular. A sua isoforma, caldesmon de alto peso molecular (Cd-H), mostrou-se específica para células musculares lisas e tumores do músculo liso do tecido mole e nunca se expressa em miofibroblastos²¹.

Para se fechar o diagnóstico, fez-se necessário exame mais detalhado, optando-se pelo ensaio imuno-histoquímico, utilizando Calponina, H-caldesmon, endogleina e CD34. O caso relatado apresentou positividade para a Calponina e o H-Caldesmon. Estando de acordo com a literatura, no que se refere a exames laboratoriais específicos, pôde-se fechar o diagnóstico em leiomioma vascular oral.

Com difícil diagnóstico diferencial, o leiomioma, caso não seja tratado, pode evoluir para uma lesão mais grave devido ao seu possível potencial de malignidade. Logo, a excisão cirúrgica conservadora é o tratamento de escolha. Apurado exame histopatológico e preservação do paciente são descritos na literatura como fundamentais para o correto tratamento.

REFERÊNCIAS

1. Almeida LE, Costa DL, Madureira JF, Oliveira Filho MA. Leiomioma vascular em lábio superior-relato de caso e revisão de literatura. Rev ABO Nac. 2008 ago/set; 16(4): 240-2.

2. Araújo NS, Araújo VC. Patologia das glândulas salivares. In: Patologia bucal. São Paulo: Artes Médicas; 1984. p. 169-88.
3. Baden E, Doyle JL, Lederman DA. Leiomyoma of the oral cavity: a light microscopic and immunohistochemical study with review of the literature from 1884 to 1992. *Eur J Cancer B Oral Oncol.* 1994 Jan;30B(1):1-7.
4. Bouquot J, Nikai H. Lesion of the oral cavity. In: Gnepp DR. Diagnostic surgical pathology of the head and neck. Philadelphia: Saunders; 2000. p.141-238.
5. Brooks JK, Nikitakis NG, Goodman NJ, Levy BA. Clinicopathologic characterization of oral angioleiomyomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2002 Aug;94(2):221-7.
6. Damm DD, Neville BW. Oral leiomyomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1979 Apr;47(4):343-8.
7. Duhig JT, Ayer JP. Vascular leiomyoma. A study of sixtyone cases. *Arch Pathol* 1959 Oct;68:424-30.
8. Farman AG. Benign smooth muscle tumours. *S Afr Med J.* 1975 Aug 2;49(33):1333-40.
9. Felix F, Gomes GA, Tomita S, Fonseca Júnior A, Miranda LA El H, Arruda AM. Painful tongue leiomyoma. *Rev Bras Otorrinolaringol.* 2006 Sep/Oct; 72(5): 715.
10. Jaeger MMM, Jaeger RG, Araújo VC. Estudo morfológico, subcelular e imuno-enzimático de leiomioma vascular bucal. *Na Bras Dermatol.* 1991 mar/abr; 66(2): 61-4.
11. Kotler HS, Gould NS, Gruber B. Leiomyoma of the tongue presenting as congenital airway obstruction. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 1994 Apr;29(2):139-45.
12. Leung KW, Wong DY, Li WY. Oral leiomyoma: case report. *J Oral Maxillofac Surg.* 1990 Jul;48(7):735-8.
13. Lloria-Benet M, Bagán JV, Lloria de Miguel E, Borja-Morant A, Alonso S. Oral leiomyoma: a case report. *Med Oral.* 2003 May-Jul;8(3):215-9.
14. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Patologia oral e maxilofacial. Barueri: Elsevier; 2000.
15. Orsini G, Fioroni M, Rubini C, Piattelli A. Leiomyoma of the lip: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg.* 2001 Jan;59(1):80-3.
16. Luaces Rey R, Lorenzo Franco F, Gómez Oliveira G, Patiño Seijas B, Guitián D, López-Cedrún Cembranos JL. Oral leiomyoma in retromolar trigone. A case report. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2007 Jan 1;12(1):E53-5.
17. González Sánchez MA, Colorado Bonnin M, Berini Aytés L, Gay Escoda C. Leiomyoma of the hard palate: a case report. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2007 May 1;12(3):E221-4.
18. Silveira VAS, Amadei SU, Machado ACP, Prado RF, Neves AC, Quirino MRS, Carvalho YR. Leiomioma vascular bucal-relato de dois casos, revisão de literatura, e estudo imunohistoquímico. *J Bras Patol Med Lab.* 2007 maio/jun; 43(3): 211-7.
19. Srinath VS, Meher R, Sabherwal A, Sharma N. Angiomyoma of soft palate- a case report. *Ind J Surg.*2004;66:293-4.
20. Stout AP. Leiomyoma of the oral cavity. *Am J Cancer.* 1938; 34:31-6.
21. Watanabe K, Tajino T, Sekiguchi M, Suzuki T. h-Caldesmon as a specific marker for smooth muscle tumors. Comparison with other smooth muscle markers in bone tumors. *Am J Clin Pathol.* 2000 May;113(5):663-8.

22. Werner B, Campos AC, Nadji M, Torres LFB. Uso prático da imuno-histoquímica em patologia cirúrgica. J Bras Patol Med Lab. 2005 out; 41(5): 353-64.
23. Wertheimer-Hatch L, Hatch III GF, Hatch KF, Davis GB, Blanchard DK, Foster Jr RS, Skandalakis JE. Tumors of the oral cavity and pharynx. World J Surg. 2000; 24:395-400.
24. Zarbo RJ, Prasad AR, Regezi JA, Gown AM, Saveria AT. Salivary gland basal cell and canalicular adenomas: immunohistochemical demonstration of myoepithelial cell participation and morphogenetic considerations. Arch Pathol Lab Med. 2000 Mar;124(3):401-5.

52

ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA

Pollianna Muniz Alves

R. Celestino Martins Costa, 147 - Catolé

Campina Grande-PB/Brasil

CEP: 58410-156

Email: polliannaalves@ig.com.br

Tel: +558333373790