# Artigo Caso Clínico

## Linfangioma Microcístico em Língua: Relato de Caso

Microcystic Lymphangioma of the Tongue: Case Report

Recebido em 07/10/16 Aprovado em 01/03/16

#### Caio de Andrade HAGE

Cirurgião-Dentista Graduado pela Universidade Federal do Pará - Residente em Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário João de Barros Barreto (UFPA).

## Jennifer Sanzya Silva de ARAÚJO

Cirurgiã-Dentista Graduada pela Universidade Federal do Rio Grande do Norte - Residente em Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário João de Barros Barreto (UFPA).

#### Priscilla Flores SILVA

Mestre em Patologia Oral; Cirurgiã Buco-Maxilo-Facial Staff da Residência de Cirurgia e Traumatologia Buco-maxilo-Facial do Hospital Universitário João de Barros Barreto (UFPA).

#### Fábio Luiz Neves GONÇALVES

Mestre em Patologia Oral; Cirurgião Buco-Maxilo-Facial Staff da Residência de Cirurgia e Traumatologia Buco-maxilofacial do Hospital Universitário João de Barros Barreto (UFPA).

## Helder Antonio Rebelo PONTES

Doutor em Odontologia (Patologia Bucal); Coordenador da Residência de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário João de Barros Barreto (UFPA).

#### ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA

Caio de Andrade Hage Hospital Universitário João de Barros Barreto

Departamento de Patologia Bucal Rua dos Mundurucus, 4487, Bairro Guamá, Belém-PA. CEP: 66.073-000

Fone: +55 91 3201-6786 Email: caio\_hage@hotmail.com

#### **RESUMO**

Linfangiomas são malformações hamartomatosas dos vasos linfáticos, raras, benignas, congênitas e de etiologia desconhecida. Tratam-se de proliferações benignas que envolvem o sistema linfático tendo uma predileção pela cabeça, pescoço e cavidade oral. Há um prognóstico bom em relação as lesões em língua na maioria dos casos, exceto quando lesões volumosas podem comprometer as vias aéreas. O objetivo deste estudo é relatar um caso clínico de linfangioma localizado na língua, bem como revisar a literatura pertinente enfocando os aspectos clínicos e possibilidades terapêuticas. **Palavras-Chave**: Linfangioma; Má-formação congênita; Macroglossia.

#### **ABSTRACT**

Lymphangiomas are hamartomatous malformations of the lymphatic vessels, rare, benign, congenital and of unknown etiology. These are benign proliferations involving the lymphatic system having a predilection for the head, neck and oral cavity. There is a good prognosis in relation to injuries to the tongue in most cases, except when bulky lesions may compromise the airway. The objective of this study is to report a case of lymphangioma located on the tongue, as well as review the literature focusing on the clinical and therapeutic possibilities. **Keywords:** Lymphangioma; congenital malformation; macroglossia.

## **INTRODUÇÃO**

Linfangioma é uma malformação rara, benigna, congênita e de etiologia desconhecida, que se origina a partir de vasos linfáticos. Esta entidade foi primeiramente descrita por Virchow em 1854 e têm uma predileção marcada para a região da cabeça e pescoço, respondendo por cerca de 75% de todos os casos, sendo que cerca de 50% destas lesões são observadas no nascimento e cerca de 90 % desenvolvem após os dois anos de idade<sup>1,2</sup>. Entretanto, o diagnóstico de linfangioma em adultos é uma ocorrência rara<sup>2,3</sup>.

Quando ocorre na cavidade oral, a língua é o local mais afetado<sup>4,5</sup>. Clinicamente, o linfangioma da cavidade oral é muito raro e evidencia macroglossia. Geralmente, as lesões se apresentam superficialmente com aparência pedregosa ou vesiculosa, chamada de"ovos de rã "ou "pudim de tapioca". Quando localizado mais profundamente,pode se apresentar como uma massa submucosa e apesar de ser uma lesão benigna, pode tornar-se um caso complicado devido à sua natureza infiltrativa, às margens indefinidas eao envolvimento de estruturas vitais<sup>5,6</sup>.

Vários métodos de tratamento do linfangioma têm sido relatados na literatura, entre eles, a abordagem cirúrgica convencional, ablação cirúrgica por radiofrequência, terapia a laser e escleroterapia. De acordo com Fliegelman (1999)<sup>7</sup>, a excisão completa destas lesões é muitas vezes difícil, caso a lesão seja infiltrante, tendo dessa forma, uma alta taxa de recorrência. Já o prognóstico é bom para a maioria dos pacientes, embora os tumores grandes do pescoço ou da língua possam resultar em obstrução das vias aéreas e óbito. <sup>8</sup>

Neste artigo, pretendemos abordar um caso de linfangioma em língua com tratamento cirúrgico.

#### **RELATO DE CASO**

Paciente, 14 anos de idade, sexo feminino, cor negra, procurou o serviço de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário João de Barros Barreto (UFPA) para avaliação de lesão em língua, com aproximadamente 02 anos de evolução, indolor a palpação, histórico de sangramento auto-limitante durante a alimentação, causando dislalia e disfagia. No exame físico intraoral, observou-se lesão de formato irregular, exofítica, de coloração arroxeada, apresentando

30mm no maior diâmetro, envolvendo ápice e bordo lateral direito de língua, extendendo-se ao ventre lingual (Figura I).



**Figura 1** - A: Aspecto clínico intra-oral dorso lingual; B: Aspecto clínico intra-oral de ventre lingual; C: Cortes histológicos revelando grandes vasos linfáticos dilatados (seta)

Realizou-se biópsia incisional da lesão e a peça enviada para análise histopatológica que apresentou hipótese diagnóstica de linfangioma tipo cavernoso com aspecto clínico do tipo microcístico (<2cm³).

O plano de tratamento inlcuiu excisão cirúrgica sob anestesia geral e acompanhamento periódico. Realizou-se então o procedimento com demarcação das margens da lesão com aréa de segurança de 3mm para cada lado da lesão devido sua invasividade. Após a demarcação realizou-se infiltração de anestésico local com vasoconstritor (Cloridrato de levobupivacaína 0,5% com hemitartarato de epinefrina 1:200.000), as bordas laterais foram tracionadas com fio de seda 2-0 para melhor manipulação da lingua, aexérese foi realizada através de incisão em cunha em V com eletrocautério, os bordos da ferida cirúrgica foram cauterizados (Figura II).



**Figura 2** - A: Demarcação da área de incisão; B: Incisão com eletrocautério; C: Peça cirúrgica

Realizou-se sutura com fio sintético e reabsorvível de Vycril® (poliglactin 910) 3-0 com pontos simples internos na musculatura e no bordo da ferida cirúrgica (dorso e ventre). A paciente encontrase atualmente sob acompanhamento de 12meses, sem recidivas, apresentando discreta hipoestesia de ápice lingual, contorno anatômico satisfatório, com melhora na fala e alimentação. (Figura III)



**Figura 3** - A: Vista pós-operatória imediata mostrando contorno anatômico restabelecido; B: Aspecto intra-oral após 12 meses (dorso lingual) ; C: Aspecto intra-oral após 12 meses (ventre lingual)

## **DISCUSSÃO**

De acordo com sua apresentação clínica, os linfangiomas são classificados em macrocísticos (cavidades maiores do que cerca de 2cm3), microcísticas (cavidades menores que cerca de 2cm3) e mista, em que combinam estes dois tipos2. Neste relato, a paciente apresentava lesão com cavidades menores que 2cm³, caracterizando-a como um linfangioma do tipo microcístico, além devisíveis áreas de equimose superficial, provavelmente devido ao constante trauma local.

Os objetivos do tratamento desta macroglossia estão na preservação do paladar, a restauração do tamanho da língua para articulação da fala, correção de deformidades mandibulares, dentárias e cosméticas². Contudo, ressalta-se que a paciente deste relato não apresentava macroglossia ou outras características que pudessem classificála como portadora de quaisquer das síndromes citadas acima.

Histopatologicamente, o linfangioma é classificado como capilar, cavernoso ou cístico. A evidente dilatação dos vasos linfáticos é visualizada histopatologicamente, tal como pôde ser exemplificado na Figura 1-C. Vasos capilares de pequeno calibre, grandes canais linfáticos dilatados e grandes espaços císticos macroscópicos são, respectivamente, classificados em linfangioma capilar, cavernoso e cístico, sendo que o tipo cavernoso é o mais comum que acomete a cavidade oral <sup>2,9</sup> - o mesmo evidenciado em nosso resultado histopatológico.

O tratamento do linfangioma depende do seu tipo, tamanho, envolvimento de estruturas anatômicas e infiltração para os tecidos circundantes. Lesões microcísticas não respeitam planos de tecido, são difusas e difíceis de erradicar ao passo que lesões macrocísticas são localizadas e facilmente excisadas. As várias modalidades de tratamento são a excisão cirúrgica, radioterapia,

crioterapia, a electrocauterização, a escleroterapia, administração de esteróides, laserterapia e técnica de ablação por radiofrequência.<sup>2</sup>

## **CONSIDERAÇÕES FINAIS**

Embora existam diversas modalidades de tratamento não-cirúrgicas, a excisão cirúrgica continua a ser parte integrante no manejo destas lesões, em muitos casos<sup>10</sup>.

No caso apresentado, optou-se pela excisão cirúrgica devido ao traumatismo local constante com sangramentos que dificultavam a função. A margem foi estabelecida de forma a remover toda a lesão clinicamente visível e possível infiltração circunjacente, contudo a abordagem foi limitada a fim de afetar o mínimo possível as funções estomatognáticas da paciente.

## **REFERÊNCIAS**

- 1. Supriya M Kheur, Samapika R, Yashwant I, Desai RS. Lymphangioma of Tongue: A Rare Entity. *Indian Journal of Dental Advancements*.2011;3(3):635-37.
- 2. Usha V, Sivasankari T, Jeelani S, Asokan GS, Parthiban Lymphangioma of the Tongue a case report and review of literature. *Journal of Clinical and Diagnostic Research*. 2014 Sep, 8(9): ZD12-ZD14.
- 3. Sunil S, Devi Gopakumar, Sreenivasan BS. Oral lymphangioma Case reports and review of literature. *Contemporary Clinical Dentistry*. 2012;3(1):116-18.
- 4. Hudson JW, Meszaros EJ. Submucosal lymphangioma of the maxillary sinus. J Oral Maxillofac Surg 2003;61:390-2.
- Catafalmo L, Lombardo G, Siniscalchi EN, Saverio DPFS, Nava C, Iudicello V. Tonge Lynphangioma in adult. *The Journal of Craniofacial Surgery*. 23(6), 2012.
- 6. Bozkaya S, Ugar D, Karaca I, et al. The treatment of lymphangioma in the buccal mucosa by radiofrequency ablation: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2006;102:e28-e31.
- 7. Fliegelman LJ, Friedland D, Brandwein M, et al. Lymphatic malformation: predictive factors for recurrence. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1999;123:706-710.
- 8. NevilleBW,DammDD,AllenCM,Bouquot,JE.

- *Patologia Oral e Maxilofacial*. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan, 2008. pp.456-458. 2ed..
- 9. Guelmann M, Katz J. Macroglossia combined with lymphangioma case report. *J Cli Pediatr Den.* 2003;27:167–70.
- 10. Mosca RC, Pereira GA, Mantesso A. Cystic hygroma: characterization by computerized tomography. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2008;105(5):65-9.