

Osteotomia Le Fort I para tratamento cirúrgico do angiofibroma juvenil nasofaríngeo: Relato de três casos

Le Fort I osteotomy for surgical treatment of juvenile nasopharyngeal angiofibroma: Report of three cases

RESUMO

O angiofibroma juvenil nasofaríngeo é um tumor benigno altamente vascularizado, de crescimento lento, mas localmente invasivo e destrutivo. De baixa prevalência, geralmente se localiza na nasofaringe de indivíduos jovens do gênero masculino. As características clínicas mais comuns são obstrução nasal e epistaxe. Possui diagnóstico baseado, principalmente, nos achados clínicos e imaginológicos, já que a biópsia é dificultada pelas características vasculares da lesão. Seu tratamento de escolha é a excisão cirúrgica, que pode ser realizada por diversas técnicas: via endoscópica, degloving médio-facial, via transpalatina, rinotomia lateral ou através da Osteotomia Le Fort I. O objetivo deste trabalho é relatar a utilização da Osteotomia Le Fort I como acesso para o tratamento cirúrgico de três pacientes do gênero masculino portadores de extensos angiofibromas localizados na nasofaringe que procuraram atendimento no ambulatório de cirurgia buco-maxilo-facial do Hospital Universitário Presidente Dutra (HUUFMA).

Palavras-chave: Angiofibroma; Nasofaringe; Osteotomia; Acesso.

Elesbão Ferreira Viana Júnior

Residente do serviço de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário Presidente Dutra, São Luís, MA, Brasil

André Luís Costa Cantanhede

Residente do serviço de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário Presidente Dutra, São Luís, MA, Brasil

Roque Soares Martins Neto

Residente do serviço de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário Presidente Dutra, São Luís, MA, Brasil

Raíssa Pinheiro Moraes

Residente do serviço de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário Presidente Dutra, São Luís, MA, Brasil

Bruce Bezerra Martins

Médico Cirurgião Vascular e Radiologista Intervencionista do Hospital Universitário Presidente Dutra, São Luís, MA, Brasil

Eider Guimarães Bastos

Coordenador da Residência em Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário Presidente Dutra. Professor Doutor do Departamento II do curso de Odontologia da Universidade Federal do Maranhão, São Luís, MA, Brasil

Endereço para correspondência

Elesbão Ferreira Viana Júnior
Travessa Aldenor Monteiro, 53 – Lourdes
Campo Maior/PI
CEP: 64280-000
E-mail: elesbao_jr@hotmail.com

ABSTRACT

Juvenile nasopharyngeal angiofibroma is a slow-growing, highly invasive and vascularized benign tumor. With low prevalence rate, it is usually located in the nasopharynx of young men. The most common clinical characteristics are nasal obstruction and epistaxis. Its diagnosis is based mainly on the clinical and imaging findings, for the biopsy is hindered due to the vascular characteristics of the lesion. Thus, the treatment of choice is its surgical excision, which can be performed by many techniques: endoscopic, medial-facial degloving, transpalatine, lateral rhinotomy or through the Le Fort I Osteotomy. This paper aims to depict the use of Le Fort I Osteotomy approach for the surgical treatment of three male patients with extensive angiofibroma located in nasopharynx who sought care at the Oral and Maxillofacial Surgery Department of Presidente Dutra University Hospital.

Key Words: Angiofibroma; Nasopharynx; Osteotomy; Access.

INTRODUÇÃO

O angiofibroma juvenil nasofaríngeo (ANJ) é um tumor vascular raro, benigno, não encapsulado, submucoso e localmente destrutivo. Sua incidência é maior em pacientes entre 14 e 25 anos de idade¹, correspondendo a 0,05% de todos os tumores da cabeça e do pescoço^{2,3,4}. Acomete, quase que exclusivamente, indivíduos do sexo masculino, sugerindo relação etiológica com os hormônios desse gênero.^{1,2} Entretanto, sua etiologia ainda permanece incerta, sendo propostas também origens congênita, vascular e genética.²

As características clínicas mais comuns são obstrução nasal (91% dos casos) e epistaxe (63%).^{2,5} Outros sinais e sintomas menos comuns são: corrimento nasal, dor, sinusite, ou problemas auditivos.^{1,2,5} O seu diagnóstico é baseado, principalmente, na associação dos achados clínicos com os resultados dos exames de imagem, já que a biópsia é dificultada pelas características vasculares da lesão.^{1,2,3,4,5}

Dessa forma, a tomografia computadorizada, a ressonância nuclear magnética e os estudos angiográficos assumem papel importante no diagnóstico dessa patologia, bem como na sua classificação por meio da avaliação da extensão do tumor e do envolvimento das estruturas que o circundam, o que influenciará na determinação da melhor abordagem.⁵

A cirurgia radical com remoção completa em associação com a embolização prévia do tumor é considerada o tratamento de eleição para essa entidade^{1,2,3}, podendo ser realizada por diversas abordagens cirúrgicas, como a via transpalatal, a rinotomia lateral, degloving médio-facial^{1,3,4} ou a osteotomia Le Fort I^{1,2,3,4,6}. Nesse aspecto, essa osteotomia oferece excelente exposição tumoral por meio do acesso direto e amplo aos seios maxilares e etmoidais, possibilitando o manuseio da região da origem habitual do tumor assim como do seu pedículo vascular, composto, principalmente, pela artéria maxilar.^{2,6}

O objetivo do presente trabalho é descrever aspectos importantes em relação ao uso da Osteotomia Le Fort I como acesso para a exérese do ANJ, demonstrando nosso protocolo mediante três casos clínicos.

RELATO DO CASO

TÉCNICA CIRÚRGICA

Os pacientes foram internados em ambiente hospitalar 48 a 72 horas antes da cirurgia para realização de embolização preventiva do pedículo vascular nutriente das lesões (artéria maxilar). Para

tanto, o serviço de hemodinâmica do HU-UFMA (Unidade Presidente Dutra) utilizou a deposição de micropartículas de PVA por meio de acesso transfemoral.

Com os pacientes sob anestesia geral e intubação orotraqueal, foi realizada derivação submentoniana (Fig. 1-A). Após antissepsia e aposição dos campos estéreis, o fundo de vestibulo maxilar foi infiltrado com bupivacaína 0,5% 1: 200.000, e, após alguns minutos, incisado, utilizando-se eletrocautério. A técnica utilizada por nosso serviço difere da clássica, por possuir a incisão labialmente posicionada (alta) com extensão de canino a canino. A exposição da maxila é obtida por descolamento e tunelização subperiosteal (Fig. 1-B).

Após adequada visualização da abertura piriforme e pilares zigomáticos, a osteotomia Le Fort I convencional foi realizada com micro Serra (Fig. 1-C), seguida pela modelagem e instalação das placas de titânio em “L” sistema 2.0 mm (Engiplan®) nos pilares caninos, visando estabelecer seu posicionamento adequado após remoção da lesão e reposicionamento da maxila (Fig. 1-D). As placas de fixação foram retiradas e prosseguiu-se com a realização do “Downfracture” da maxila, utilizando-se a técnica “twist” descrita por Alfaro e Hernandez⁷ (Fig. 1-E e F). A exposição das lesões foi finalizada pela incisão e dissecação da mucosa nasal, realizando-se a exérese dos tumores por clivagem direta.

Hemostasia local foi implementada com celulose oxidada (Surgicel®) e termocoagulação. A seguir, realizou-se: bloqueio maxilomandibular (BMM) com parafusos e fio de aço (Fig. 1-G); fixação com placas de titânio previamente modeladas (Fig. 1-H); remoção do BMM; checagem da oclusão; sutura com fios bioabsorvíveis e curativos compressivos. Como manobra complementar de hemostasia, foi realizado o tamponamento nasal posterior dos pacientes com sonda de Foley, por um período de 24 a 48 horas.

Os tumores removidos durante as cirurgias foram enviados para a realização de exame histopatológico pelo serviço de patologia do HU-UFMA, recebendo posterior comprovação dos achados clínicos e imaginológicos.

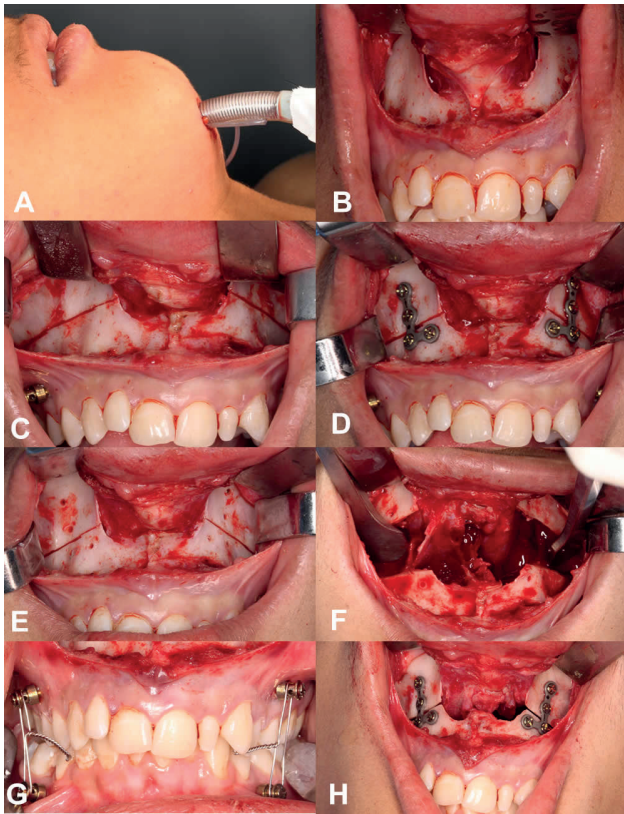


Figura 1 - (A) Intubação orotraqueal com derivação submentoniana; (B) Acesso circovestibular maxilar delimitado de canino a canino; (C) Osteotomia Lefort I; (D) Instalação das placas de titânio em "L" do sistema 2.0 mm nos pilares caninos; (E) Orifícios referentes aos parafusos do sistema 2.0 mm instalados previamente, que servirão como guia para o reposicionamento da maxila; (F) Downfracture da maxila; (G) Bloqueio maxilo-mandibular com parafusos e fios de aço; (H) Reposicionamento da maxila e instalação das placas de titânio do sistema 2.0 mm.

CASO CLÍNICO I

Paciente P.V.S.P 18 anos, leucoderma, gênero masculino procurou o ambulatório de Cirurgia Bucomaxilofacial do HUUFMA-HUPD em setembro 2015, queixando-se de obstrução nasal esquerda (Fig. 2-A). Tomografia com contraste da face evidenciou lesão de aproximadamente 5 x 3.5 x 1.5 cm expansiva com realce intenso e heterogêneo, ocupando a porção posterior da nasofaringe esquerda e extensão para a fossa pterigopalatina ipsilateral (Fig. 2-B); a angiografia evidencia a artéria maxilar como principal mantenedora da lesão (Fig. 2-C). O paciente foi submetido à embolização profilática da lesão 24 horas antes da cirurgia. Ocorreu remoção completa da lesão (Fig. 2-D), seguindo-se a instalação de Sonda de Foley para tamponamento nasal posterior por 48 horas, no pós-operatório. O paciente permaneceu internado por 3 dias, com retorno ambulatorial até o décimo quinto dia pós-operatório, sem apresentar nenhum sinal de

sangramento, mobilidade maxilar, alteração oclusal, infecção ou queixas de obstrução nasal (Fig. 2-E e F). A lesão enquadrava-se na classificação tipo II de Andrews.

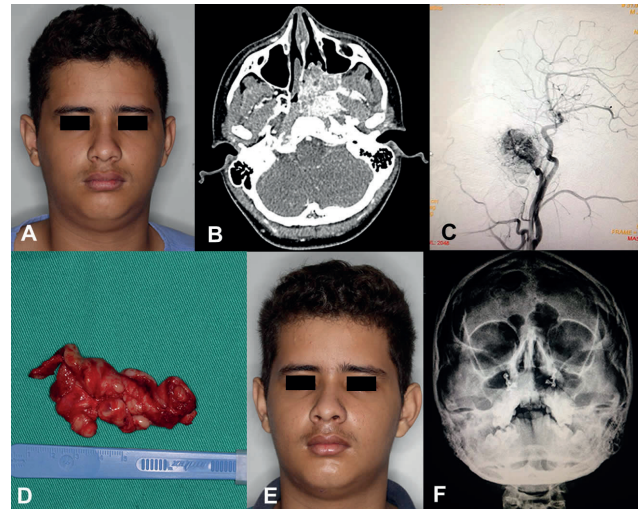


Figura 2 - (A) Visão frontal pré-operatória; (B) Corte axial da tomografia com contraste evidenciando a lesão em região posterior de nasofaringe; (C) Angiografia da artéria maxilar; (D) Lesão após exérese; (E) Visão frontal pós-operatória de 15 dias; (F) Radiografia pós-operatória.

CASO CLÍNICO II

Paciente J.M.S.L 20 anos, melanoderma, gênero masculino queixava-se de obstrução nasal esquerda e epistaxe recorrente (mais de cinco episódios semanais) (Fig. 2-G). Após a realização de ressonância nuclear magnética da face, evidenciou-se lesão hipersinal, ocupando a rinofaringe e fossa pterigopalatina direita com invasão parcial lado contralateral com margens delimitadas, medindo aproximadamente 2x3 cm (Fig. 2-H). A embolização foi realizada 48 horas antes da cirurgia, por acesso transfemoral. Não houve intercorrências no transoperatório, tendo a lesão sido totalmente removida. Sonda de Foley foi instalada; paciente queixou-se de epistaxe até o sétimo dia pós-operatório. No acompanhamento de 1 ano, paciente não relatava queixas, alteração oclusal, sangramentos ou obstrução nasal. Lesão classificada como tipo II de Andrews. (Fig. 2 - I, J e K)

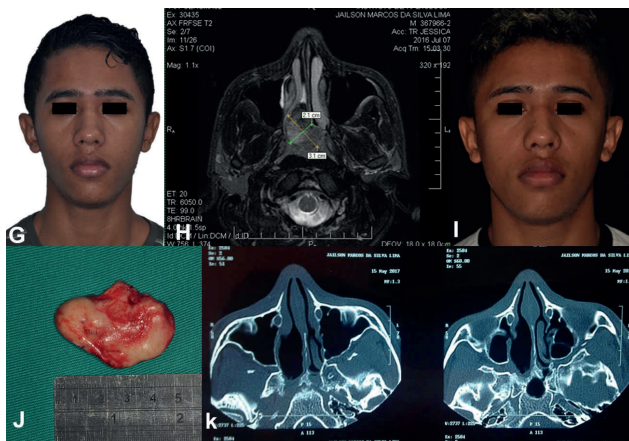


Figura 2 - (G) Visão frontal pré-operatória; (H) Corte axial da RNM evidenciando lesão em região de rinofaringe e fossa pterigopalatina; (I) Visão frontal pós-operatória de 01 ano; (J) Lesão após exérese; (K) Tomografia pós-operatória.

CASO CLÍNICO III

Paciente J.A.A, 20 anos, gênero masculino, leucoderma, queixando-se de epistaxe bilateral com evolução de 1 ano (Fig. 3-A e B). A lesão vista através dos exames de imagem assumia contornos irregulares, características expansivas, realce intenso, ocupando totalmente a nasofaringe direita e estendendo-se para a fossa infratemporal do mesmo lado (Fig. 3-C). Paciente também foi internado 48 horas antes para embolização. Não apresentou complicações durante procedimento cirúrgico e pós-operatório imediato. Após 6 meses da cirurgia, evoluiu com sinusite crônica, que foi satisfatoriamente tratada pela equipe de Otorrinolaringologia da nossa instituição; nesse interim, não houve alterações na oclusão, episódios de epistaxe ou evidências de recorrências. A lesão, nesse caso, foi classificada como tipo IIIa de Andrews. (Fig. 3-D, E, F e G)

Com exceção do primeiro caso clínico, que abandonou o acompanhamento clínico após 30 dias de follow up, os demais pacientes encontram-se em acompanhamento pós-operatório, haja visto o caráter recidivante dessa patologia.



Figura 3 - (A) Visão frontal pré-operatória; (B) Oclusão pré-operatória; (C) Cortes Coronais evidenciando lesão em nasofaringe direita com extensão infratemporal.

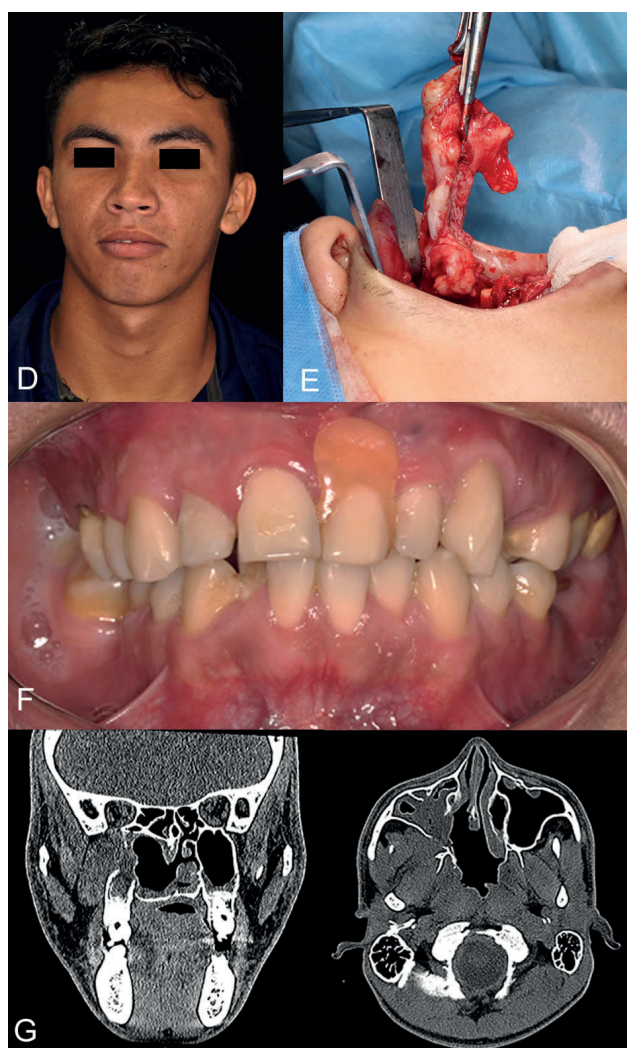


Figura 3 - (D) Visão frontal pós-operatória de 01 ano; (E) Exérese da lesão através do acesso fornecido pela Osteotomia Le Fort I e posterior Downfracture maxilar; (F) Oclusão pós-operatória sem nenhuma alteração em relação à oclusão pré-operatória; (G) Tomografia pós-operatória (06 meses) evidenciando a total remoção da lesão.

DISCUSSÃO

O AJN possui características clínicas e imaginológicas bem definidas (Tabela 1), como a presença de epistaxe e obstrução nasal, sintomas relatados por todos os pacientes do nosso estudo. A faixa etária destes era situada entre 18 e 20 anos, o que também é fator importante na caracterização dessa patologia, que possui diagnóstico clínico imaginológico.^{1,2,3,5}

Tabela 1 - Características clínicas e imaginológicas do Nasoangiofibroma

Diagnóstico clínico	Diagnóstico imaginológico
Homens (1ª e 2ª década)	CT: delimitação óssea do tumor; erosão óssea (fossa pterigomaxilar, infratemporal, seio esfenoidal); curvatura da parede posterior do seio maxilar (sinal de Holman-Miller)
Obstrução nasal (91%)	
Epistaxe (63%)	MRI: delimitação tecidual do tumor; relação com estruturas nobres (a. carótida interna, seio cavernoso, glândula pituitária); escolha para avaliar recorrências.
Corrimento nasal	
Sinusite	
Dores de cabeça	Angiografia: especifica os pedículos nutrientes do tumor (ramos distais da A. maxilar interna); auxílio na embolização prévia do tumor.
Proptose	

Quanto às classificações existentes, três mostram-se mais comumente citadas na literatura (tabela 2): Fisch, Andrews e Radkowsk.^{8,9,10} Estas baseiam-se, principalmente, na extensão dos tumores e nas estruturas circundantes, que estão envolvidas com a lesão. São importantes na determinação da melhor forma de tratamento e abordagem cirúrgica, bem como na comunicação entre profissionais e na produção científica sobre o tema.⁵ Nos casos relatados, temos dois classificados como tipo II e um tipo IIIa de Andrews.

Fisch (1983)	Andrews et al (1989)	Radkowski et al (1996)
Estágio I – Tumor limitado à cavidade nasal, nasofaringe sem destruição óssea.	Estágio I – Tumor limitado à cavidade nasal, nasofaringe.	Estágio IA – Limitada ao nariz e área nasofaríngea.
Stage II – Tumor invadindo a fossa pterigomandibular, seios paranasais com destruição óssea.	Estágio II – Extensão do tumor na fossa pterigopalatina, maxilar, esfenóide ou seio etmoidal.	Estágio IB – Extensão em um ou mais seios.
Estágio III – Tumor invadindo a fossa infratemporal, órbita, lateralmente ao seio cavernoso.	Estágio IIIa – Extensão na órbita ou fossa infratemporal sem extensão intracraniana.	Estágio IIA – Extensão mínima na fossa pterigopalatina.
Estágio IV – Tumor invadindo o seio cavernoso, quiasma óptico, fossa pituitária.	Estágio IIIb – Estágio IIIa com pequeno envolvimento extradural intracraniano.	Estágio IIB – Ocupação da fossa pterigopalatina com ou sem erosão orbitária.
	Estágio IVa – Larga extensão intracraniana extradural ou intradural.	Estágio IIC – Extensão pela fossa infratemporal com ou sem envolvimento da lâmina pterigoide.
	Estágio IVb – Extensão no seio cavernoso, pituitária ou quiasma óptico.	Estágio IIIA – Erosão da base do crânio (fossa craniana média ou pterigoide).

O tratamento a ser instituído é a exérese total da lesão, uma vez que esta apresenta altas taxas de recidiva (Pode variar de 1 a 57%)^{2,3,5} quando parcialmente removida, assim como potencial osteolítico e evolução rápida.² A remoção da lesão poderá ser realizada por diversas vias. No nosso serviço, utilizamos a osteotomia Le Fort I como via de acesso ao tumor, uma técnica versátil muito utilizada para a correção das deformidades dentofaciais⁷, mas que teve sua criação ligada à remoção de lesões patológicas.

Como vantagens da Osteotomia Le Fort I, podemos citar: uma mínima remoção de tecido ósseo; diminuição do risco de lesão neurovascular direta; bem como o favorecimento da estética facial, uma vez que é realizada por acesso intrabucal; criando um espaço adicional para

a remoção da lesão em um fragmento único.² Raras são as complicações relacionadas à técnica, mas podemos citar: hemorragia, enfisema subcutâneo, necrose avascular da maxila ou comprometimento oftalmológico.^{2,7}

Em virtude do caráter vascular do angiofibroma juvenil nasofaríngeo, a embolização preventiva dos vasos mantenedores assume papel importante na condução desses casos^{1,2,4}. No nosso serviço, é realizada 24 horas antes do procedimento cirúrgico, idealmente 48 horas antes. Isso faz com que haja diminuição drástica do sangramento transoperatório, além de a lesão adquirir uma fibrose inicial e se tornar firme, o que facilita sua clivagem. Caso a embolização seja realizada com antecedência superior a 48 horas, existe o risco de revascularização colateral da lesão⁴. Técnicas complementares de hemostasia podem se fazer necessárias no momento da cirurgia, entre elas: hemostáticos locais, termocoagulação e tamponamento nasal posterior.

Outro ponto importante é a realização da técnica do twist descrita por Alfaro e Martinez (2012)⁷ para a realização da disjunção pterigomaxilar e downfracture. Essa abordagem, quando executada por profissionais treinados, permite a realização de acessos minimamente invasivos, uma vez que é realizada por acesso frontal e não, pela clássica utilização de cinzeis curvos, que requer maior exposição da maxila e, por conseguinte, acarreta maior morbidade ao paciente.⁷

A manutenção da oclusão pré-operatória geralmente é conseguida pela modelagem prévia das placas de titânio e pela posterior fixação nos locais anteriormente perfurados.² Entretanto, podem se observar discretas mudanças oclusais, quando essa medida é usada isoladamente. Para assegurar o controle da oclusão, realizamos também o bloqueio maxilomandibular no transoperatório, e, para tanto, faz-se necessária a realização de derivação submentoniana, uma vez que a intubação orotraqueal convencional impossibilita o BMM, e a intubação nasotraqueal pode interferir no acesso à cavidade nasal.

Como alternativa à osteotomia Le Fort I, temos a via endoscópica^{1,2,3,4,5}, que tem se tornado mais popular entre otorrinolaringologistas, principalmente em pacientes mais jovens, onde o uso de osteotomias e fixação interna rígida poderia afetar negativamente o crescimento facial.⁶ No entanto, o seu uso satisfatório é maior em nasoangiofibromas em estágio inicial (I, II e III) e requer profissionais com treinamento específico e equipamentos adequados, que nem sempre estão

acessíveis a todos os usuários do SUS. As vantagens descritas seriam tempo reduzido de hospitalização, menor perda sanguínea (redução de 50%) e taxas de recorrência equivalente ou menores que a via aberta.^{3,4,5}

CONSIDERAÇÕES FINAIS

A osteotomia Le Fort I mostrou-se efetiva para a realização da exérese do angiofibroma juvenil nasofaríngeo, possibilitando bom acesso cirúrgico, com possibilidade de manipulação do pedículo vascular e com baixa morbidade, sendo uma excelente opção para o tratamento dessa patologia. Deve-se salientar a importância da embolização preventiva da lesão, diminuindo significativamente o sangramento transoperatório e facilitando a sua remoção.

REFERÊNCIAS

1. Gaillard Al, et al. A seven-year experience with patients with juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2010; 76(2): 245-50.
2. Mello-Filho FV, Araújo FCF, Marques Netto PB, Pereira-Filho FJF, Toledo-Filho RC, Faria AC. Resection of juvenile angiofibroma by Le Fort I osteotomy: experience with 40 cases. *J Craniofac Surg* 2015;43: 1501–1504.
3. Glad H, Vainer B, Buchwald C, *et al*. Juvenile nasopharyngeal angiofibromas in Denmark 1981–2003: diagnosis, incidence, and treatment. *Acta Otolaryngol* 2007;127(3):292–9.
4. Garofalo P, Pia F, Policarpo M, Tunesi S, Valletti PA. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: Comparison between endoscopic and open operative approaches. *J Craniofac Surg* 2015;26: 918–921.
5. Blount A, Riley KO, Woodworth BA. Juvenile Nasopharyngeal Angiofibroma. *Otolaryngol Clin N Am*, 2011;44(1): 989-1004.
6. Lowlicht RA, Jassin B, Kim M, Sasaki CT. Long-term effects of Le Fort I osteotomy for resection of juvenile nasopharyngeal angiofibroma on maxillary growth and dental sensation. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;128(8):923–7.

7. Hernández-Alfaro F, Guijarro-Martínez R. “Twist Technique” for Pterygomaxillary Dysjunction in Minimally Invasive Le Fort I Osteotomy. *JOMS*. 2013; 71(1): 389- 392
8. Fisch U. The infratemporal fossa approach for nasopharyngeal tumors. *Laryngoscope*. 1983;93:36-44.
9. Andrews JC, Fisch U, Valavanis A, Aepply U, Makek MS . The surgical management of extensive nasopharyngeal angiofibromas with the infratemporal fossa approach. *Laryngoscope* 1989;99(4):429–37.
10. Radkowski D, McGill T, Healy GB, et al. Angiofibroma. Changes in staging and treatment. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1996;122(2):122–9.