

## Linfangioma de cavidade bucal: relato de caso clínico

### Oral lymphangioma: case report

Erika Martins Pereira<sup>1</sup>, Melaine de Almeida Lawall<sup>2</sup> e Waltair Maria Martins Pereira<sup>3</sup>

#### Resumo

**Introdução:** Os linfangiomas são malformações linfáticas congênitas que geralmente são diagnosticados na infância e quando observadas na idade adulta são mais raras. São localizados na região de cabeça e pescoço, podendo afetar a cavidade bucal, principalmente a região lingual; sendo a mucosa jugal uma área incomum. **Relato do caso:** Paciente do gênero masculino, 25 anos de idade, leucoderma, procurou atendimento odontológico na FOU SP queixando-se de aumento de volume na região de mucosa jugal direita. A lesão apresentava-se assintomática com 15 mm de diâmetro e, segundo o paciente, a data de aparecimento era desconhecida. O diagnóstico clínico foi mucocele e a biópsia excisional teve o diagnóstico de linfangioma. O reparo tecidual transcorreu normalmente e a paciente permanece em acompanhamento clínico. **Conclusão:** Este caso torna-se importante por apresentar uma faixa etária acima da descrita na literatura, assim como a localização da lesão em local mais raro. Em virtude destes fatos nota-se a importância de um correto diagnóstico para efetivar o tratamento coerente e estabelecer um excelente prognóstico para estes pacientes.

**Palavras-Chave:** Linfangioma. Hamartoma. Mucosa Bucal.

#### Abstract:

**Introduction:** Lymphangiomas are congenital lymphatic malformations. These lesions are most frequently diagnosed during childhood, when this lesion are observed in old age are more rare. The most commonly located are in the head and neck region, affecting oral cavity, especially the tongue and are extremely rare in buccal mucosa. **Case report:** Male patient of 25 years old. Case report: A male patient was 25 years old, Caucasian, sought dental care in FOU SP complaining of swelling in the right region of the buccal mucosa. The lesion is asymptomatic with 15 mm diameter and the patient date of onset was unknown. The clinical diagnosis was mucocele and the excisional biopsy was diagnosed with lymphangioma. Tissue repair went smoothly and the patient remains in clinical follow-up. **Conclusion:** This case is important because it has an age above described in the literature as well as the location of the lesion site most often. In view of these facts it is noted the importance of a correct diagnosis to make effective consistent treatment and establish an excellent prognosis for these patients.

**Keywords:** Lymphangioma. Hamartoma. Mouth Mucosa.

## Introdução

Os linfangiomas são tumores hamartomatosos benignos que afetam os vasos linfáticos. Existem, ainda hoje, dúvidas se este tumor benigno pode ser classificado como uma neoplasia verdadeira, entretanto a maioria dos autores classifica esta lesão como uma má formação congênita originária de seqüestros de tecido linfático que não se comunica normalmente com o resto do sistema linfático<sup>1,2,3,4,5,6,7</sup>.

Dentre as características clínicas, esta lesão tem predileção pela região de cabeça e de pescoço, representando 50% a 75% de todos os casos. E a faixa etária mais afetada ocorre do nascimento até dois anos de idade, sendo o gênero masculino mais afetado do que o feminino em uma proporção de 2:1 de todos os casos<sup>1,2,3,4,5</sup>.

Os linfangiomas bucais podem acometer diversas localizações, sendo a mais comum os dois terço anteriores da língua; seguido pelo rebordo alve-

olar e posteriormente lábio e mucosa bucal. Nestas regiões, as lesões apresentam-se como tumefações, indolores, nodulares com uma superfície pedregosa como descrita por Neville *et al.*<sup>2</sup> Nos tumores profundos, a tumefação apresenta-se amolecida e mal definida<sup>5,8,9,10</sup>.

Dentre os três subtipos histológicos de linfangiomas, o mais comum na cavidade bucal é o cavernoso, em virtude do tecido conjuntivo circunjacente e os músculos esqueléticos, limitarem a expansão vascular<sup>5</sup>.

Histopatologicamente podemos observar vasos linfáticos apresentando uma considerável dilatação localizado logo abaixo do epitélio de superfície e geralmente substituindo as papilas conjuntivas. Complementando o quadro notam-se vasos linfáticos dilatados no tecido conjuntivo mais profundo e na musculatura esquelética<sup>1,2,3,4,5,8,9,10</sup>.

O diagnóstico diferencial deve incluir o carcinoma de células basais e tumor de glândulas salivares com degeneração cística. Estas lesões podem ser

<sup>1</sup> Prof<sup>a</sup>. Dr<sup>a</sup>. do Departamento de Odontologia II, Curso de Odontologia da Universidade Federal do Maranhão - UFMA.

<sup>2</sup> Prof<sup>a</sup>. Dr<sup>a</sup>. do Curso de Odontologia do Instituto Florence de Ensino Superior.

<sup>3</sup> Prof<sup>a</sup>. Dr<sup>a</sup>. do Curso de Medicina da Universidade Federal do Pará - UFPA.

Contato: Erika Martins Pereira. E-mail: kelpereira2@yahoo.com.br

diferenciadas pelas características celulares neoplásicas encontradas na biópsia aspirativa<sup>2</sup>. Os linfangiomas que ocorrem na região cervical também demandam diferenciação com cisto tireoglossal, rânula mergulhante e as linfadenopatias. Também, podem assemelhar-se ao hemangioma quando há um componente capilar significativo e, quando a lesão for pequena, pode ser confundida com mucocele<sup>2</sup>.

Várias modalidades de tratamento têm sido propostas para a resolução das lesões linfangiomatosas da cavidade bucal. Estes tratamentos são indicados, especialmente, para portadores adultos e cujas lesões não regridam espontaneamente. Excisão cirúrgica, terapia por radiação, crioterapia, administração de esteroides e agentes esclerosantes, interferon ou bleomicina, embolização, ligação, e cirurgia a *laser* também têm sido utilizados para o tratamento destas lesões<sup>1,3,8,9,10,11</sup>.

A remoção cirúrgica dos linfangiomas é a melhor forma de tratamento, mas a remoção total da lesão nem sempre é possível devido, em muitos casos, a lesão envolver estruturas vitais na sua extensão.<sup>2</sup> Muitos linfangiomas são parcialmente circunscritos o que facilita a remoção cirúrgica. Entretanto, são frequentes as recorrências pós-cirúrgicas (10% a 38%) como resultado da remoção incompleta do tumor<sup>1,3</sup>.

O objetivo do presente trabalho é descrever um caso clínico de linfangioma bucal, enfatizando a importância de um correto diagnóstico para efetivar o tratamento coerente e estabelecer um excelente prognóstico para estes pacientes, em virtude deste caso representar faixa etária e localização topográfica incomuns.

### Relato do caso

O caso clínico descrito a seguir teve aprovação do Comitê de Ética em Pesquisa da Faculdade de Odontologia da Universidade de São Paulo, sob o número 144/2010 e teve a autorização do paciente através da assinatura do termo de consentimento livre e esclarecido.

Paciente do gênero masculino, 25 anos de idade, leucoderma, procurou atendimento odontológico na FOUSP queixando-se de aumento de volume na região de mucosa jugal direita. A lesão apresentava-se assintomática com 15 mm de diâmetro e, segundo o paciente, a data de aparecimento era desconhecida.

O exame físico extrabucal não mostrou alterações faciais. No exame físico intrabucal, observou-se aumento de volume difuso na mucosa jugal posterior direita, medindo aproximadamente 15 mm de diâmetro, de coloração rósea, de superfície vesicular e firme à palpação (Figura 1a). O diagnóstico clínico presuntivo consistiu nas hipóteses de mucocele e hiperplasia fibrosa inflamatória.

O paciente foi submetido à biópsia excisional e o exame anatomo-patológico revelou uma proliferação de vasos linfáticos de pequeno e médio calibre, contendo linfa no seu interior (Figuras 1b e 1c). O reparo tecidual transcorreu normalmente e o paciente permanece em acompanhamento clínico.

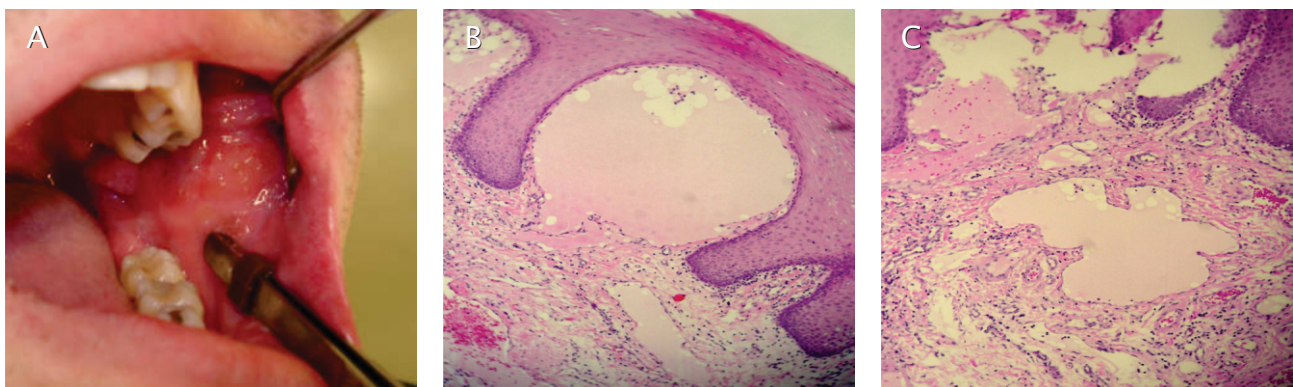
### Discussão

Segundo as teorias de formação dos linfangiomas, eles são geralmente de natureza congênita, entretanto outros autores indicam que podem ser lesões tipo hamartomatosas<sup>1,2,3,4,5,6,7,8</sup>. Neste caso em questão, o paciente afirma que não nasceu com esta alteração, com isso podemos supor que sua origem está mais relacionada com uma lesão benigna hamartomatosa.

Para Paula e Silva<sup>4</sup> a predominância destes casos é em pacientes do gênero masculino, o que corrobora com nosso caso e a faixa etária mais acometida é de crianças, o que difere do caso em questão já que o paciente apresentava 25 anos de idade.

Segundo Aciole *et al.*<sup>1</sup>, a localização mais frequente é a língua, seguida pelo lábio e uma área mais rara sendo a mucosa jugal, sendo esta área envolvida no nosso caso, o que torna este caso mais raro do que a maioria já relatada na literatura<sup>9,10,11</sup>.

O tratamento de escolha para os linfangiomas é a cirurgia radical, e opções como escleroterapia são usadas como única terapia ou de forma adjuvante nas formas císticas e cavernosas. Aciole *et al.*<sup>1</sup> em 2010 demonstrou que o tratamento de linfangioma com laser de CO<sub>2</sub> foi bem aceito e não apresentou recidiva nos períodos de 12 e 18 meses pós-cirúrgico; entretanto citou-se como desvantagens, os custos do equipamento e a falta de qualificação de cirurgiões-dentistas nesta especialidade cirúrgica. No caso apresentado, o tratamento proposto foi a remoção cirúrgica convencional e não se observou recidiva da lesão nos 12 meses seguintes em que o paciente



**Figura 1:** Aspecto clínico da mucosa jugal direita (A), Fotomicrografia dos vasos linfáticos subepiteliais (B) e Fotomicrografia dos vasos linfáticos (C).

esteve em acompanhamento<sup>11</sup>.

O prognóstico desta lesão é favorável para a maioria dos pacientes, embora as grandes lesões localizadas no pescoço ou na base de língua possam determinar obstrução das vias aéreas. Na maior parte dos casos, linfangiomas pequenos não causam incapacidade física, estética e funcional. No entanto, estas lesões devem ser tratadas, pois, tendem a evoluir.

A excisão cirúrgica é o tratamento de escolha. Entretanto, as lesões podem mostrar recidivas após sua remoção, cuja tendência parece crescer com o

aumento da idade do paciente. Enfatiza-se, portanto, o diagnóstico e o tratamento precoce, pois, minimizam as complicações decorrentes destas lesões, em relação à adaptação funcional e estética do indivíduo.

Este caso torna-se importante por apresentar uma faixa etária acima da descrita na literatura, assim como a localização da lesão em local mais raro. Em virtude destes fatos, nota-se a importância de um correto diagnóstico para efetivar o tratamento coerente e estabelecer um excelente prognóstico para estes pacientes.

## Referências

1. Aciole GTS, Aciole JMS, Soares LGP, Santos NRS, Santos JNS, Pinheiro ANS. Surgical treatment of oral lymphangiomas with CO2 laser: report of two uncommon cases. *Braz Dent J*, 2010; 21(4): 365-369.
2. Neville WJ *et al*. Patologia Oral e Maxilofacial. 3ª Ed. Rio de Janeiro, Elsevier, 2009.
3. Gassen HT, Caye LFS, Rovani G, Silva SO, Silva-Júnior AN, Miguens-Jr SAQ, Hernández PAG. Linfangioma de cavidade bucal: relato de caso clínico. *Stomatos*, 2010; 16(30): 82-88.
4. Paula e Silva FWG, Arnez MFM, Queiroz AM, Borsatto MC. Principais tumores não odontogênicos que acometem a cavidade bucal de crianças. *Rev Odontol Univ Cidade S Paulo*, 2010; 22(2): 138-46.
5. Vasconcelos MG, Santos BC, Lemos LCP, Ribeiro BF, Iglesias DPP, Vasconcelos RG, Medeiros AMC. Oral lymphangiomas: case report. *RSBO*, 2011; 8(3): 352-6
6. Shetty DC, Urs AB, Rai HC, Ahuja N, Manchanda A. Case series on vascular malformation and their review with regard to terminology and categorization. *Contemp Clin Dent*, 2010; 1(4): 259-62.
7. Zhou Q, Zheng JW, Mai HM, Luo QF, Fan XD, Su LX, Wang YA, Qin ZP. Treatment guidelines of lymphatic malformation of the head and neck. *Oral Oncol*, 2011; 47(12): 1105-09.
8. Rathan JJ, Vardhan BG, Muthu MS, Venkatachalapathy, Saraswathy K, Sivakumar N. Oral lymphangioma: case report. *J Indian Soc Pedod Prev Dent*, 2005; 23(4): 185-9.
9. Goswami M, Singh S, Gokkulakrishnan S, Singh A. Lymphangioma of the tongue. *Natl J Maxillofac Surg*, 2011; 2(1): 86-88.
10. Puricelli E, Ponzoni D, De Paris MF, de Abreu MC, Togni L. Surgical treatment of tougue lymphangioma in a pediatric patient: a case report. *J Dent Child*, 2011; 78(2): 120-3
11. Tewari A, Munjal M, Kamakshi, Garg S, Sood D, Katyal S. Anaesthetic consideration in macroglossia Due to lymphangioma of tougue: a case report. *Indian J Anaesth*, 2009; 53(1): 78-83.