



UNIVERSIDADE ESTADUAL DE CAMPINAS
FACULDADE DE ODONTOLOGIA DE PIRACICABA

HENRIQUE HEIJI SATAKE

**HEMANGIOLINFANGIOMA DE LÍNGUA EM UMA CRIANÇA:
RELATO DE CASO**

PIRACICABA

2019

HENRIQUE HEIJI SATAKE

**HEMANGIOLINFANGIOMA DE LÍNGUA EM UMA CRIANÇA:
RELATO DE CASO**

Trabalho de Conclusão de Curso apresentado à Faculdade de Odontologia de Piracicaba da Universidade Estadual de Campinas como parte dos requisitos exigidos para obtenção do título de Cirurgião Dentista.

Orientador: Prof. Dr. Márcio Ajudarte Lopes

Coorientadora: Prof^a. Dr^a Isabel Schausltz Pereira Faustino

ESTE EXEMPLAR CORRESPONDE À VERSÃO FINAL DO TRABALHO DE CONCLUSÃO DE CURSO APRESENTADO PELO ALUNO HENRIQUE HEIJI SATAKE E ORIENTADO PELO PROF. DR. MÁRCIO AJUDARTE LOPES.

PIRACICABA
2019

FICHA CATALOGRÁFICA

Ficha catalográfica
Universidade Estadual de Campinas
Biblioteca da Faculdade de Odontologia de Piracicaba
Marilene Girello - CRB 8/6159

Sa81h Satake, Henrique Heiji, 1995-
Hemangiolinfangioma de língua em uma criança : relato de caso / Henrique Heiji Satake. – Piracicaba, SP : [s.n.], 2019.

Orientador: Márcio Ajudarte Lopes.
Coorientador: Isabel Schausltz Pereira Faustino.
Trabalho de Conclusão de Curso (graduação) – Universidade Estadual de Campinas, Faculdade de Odontologia de Piracicaba.

1. Hemangioma. 2. Linfangioma. 3. Escleroterapia. 4. Eletrocoagulação. I. Lopes, Márcio Ajudarte, 1967-. II. Faustino, Isabel Schausltz Pereira, 1987-. III. Universidade Estadual de Campinas. Faculdade de Odontologia de Piracicaba. IV. Título.

Informações adicionais, complementares

Título em outro idioma: Hemangiolymphangioma of tongue in a child: a case report

Palavras-chave em inglês:

Hemangioma

Lymphangioma

Sclerotherapy

Electrocoagulation

Área de concentração: Estomatologia

Titulação: Cirurgião-Dentista

Data de entrega do trabalho definitivo: 01-10-2019

DEDICATÓRIA

Dedico este trabalho aos meus pais, Takashi Satake e Liliane Santos, que me incentivaram e me apoiaram durante a minha graduação.

AGRADECIMENTOS

Gostaria de agradecer principalmente ao meu orientador Prof. Dr. Marcio Ajudarte Lopes, ao Prof. Dr. Alan Roger dos Santos Silva e a Prof^a. Dr^a Isabel Schausltz Pereira Faustino por todo o conhecimento e ensinamentos transmitidos durante todo este tempo que passei na faculdade.

RESUMO

O hemangiolinfangioma é uma lesão benigna rara que envolve dois tipos de neoplasias: vascular e linfática. Aproximadamente 50% destas lesões são descobertas durante a infância e 90% se desenvolvem por volta dos dois anos de idade. O local de acometimento mais comum intra-oral é a língua. O tratamento dos hemangiolinfangiomas varia de acordo com tamanho, localização e envolvimento de estruturas anatômicas adjacentes. Neste trabalho, consta uma breve revisão de artigos científicos sobre hemangioma, linfangioma e hemangiolinfangioma e um relato de caso clínico de uma menina de 7 anos que foi encaminhada ao Orocentro com lesão nodular localizada no dorso da língua. Clinicamente, observou-se uma única lesão medindo 3cmx1cmx0,5cm, com coloração mista (vermelho na região anterior e normocromática na posterior) e superfície vesicular na área normocromática. A lesão estava presente desde o nascimento. Realizou-se biópsia incisional e foi estabelecido o diagnóstico de hemangiolinfangioma. Decidiu-se realizar somente acompanhamento clínico. Após 7 anos, a lesão permaneceu com características semelhantes. No entanto, a paciente começou a queixar-se do aspecto estético. Foram então realizadas três sessões de escleroterapia com oleato de etanolamina em intervalos de 1 mês entre elas. Apesar da significativa redução, a paciente ainda estava insatisfeita. Foram então realizadas três cirurgias com eletrocautério para remoção da lesão remanescente. A paciente está em acompanhamento e satisfeita com o resultado. O tratamento dessas lesões é um desafio e este relato de caso clínico mostrou que eventualmente a associação de escleroterapia e a cirurgia pode ser uma boa opção.

Palavras-chave: Hemangiolinfangioma. Linfangioma. Hemangioma. Escleroterapia. Eletrocautério.

ABSTRACT

Hemangiolympangioma is a rare benign lesion involving two types of neoplasms: vascular and lymphatic. Approximately 50% of these lesions are discovered during childhood and 90% develop around the age of two. The most common intra-oral site of involvement is the tongue. The treatment of hemangiolympangioma varies according to size, location and involvement of adjacent anatomical structures. In this paper, there is a brief review of scientific articles on hemangioma, lymphangioma and hemangiolympangioma and a case report of a 7-year-old girl who was referred to the Orocenter with a nodular lesion located on the dorsum of the tongue. Clinically, a single lesion measuring 3cmx1cmx0.5cm was observed, with mixed color (red in the anterior region and normochromatic in the posterior region) and vesicular surface in the normochromic area. The lesion was present since birth. An incisional biopsy was performed and the diagnosis of hemangiolympangioma was established. It was decided to perform clinical follow-up only. After 7 years, the lesion remained with similar characteristics. However, the patient began to complain about the aesthetic aspect. Three sessions of ethanolamine oleate sclerotherapy were then performed at 1 month intervals between them. Despite the significant reduction, the patient was still unsatisfied. Three electrocautery surgeries were then performed to remove the remained lesion. The patient is in follow-up and satisfied with the result. Treating these lesions is challenging and this case report has shown that eventually the association of sclerotherapy and surgery may be a good option.

Key words: Hemangiolympangioma. Hemangioma. Lymphangioma. Sclerotherapy. Electrocautery.

SUMÁRIO

1 INTRODUÇÃO	9
2 REVISÃO DA LITERATURA	10
2.1 Hemangioma	10
2.2 Linfangioma	12
2.3 Hemangiolinfangiomias	14
3 PROPOSIÇÃO	16
4 RELATO DE CASO CLÍNICO	17
5 DISCUSSÃO	21
6 CONCLUSÃO	24
REFERÊNCIAS	25
ANEXOS	
Anexo 1 – Verificação de originalidade e prevenção de plágio	29
Anexo 2 – Comitê de Ética em Pesquisa	30

1 INTRODUÇÃO

O hemangiolinfangioma é uma lesão benigna rara que envolve dois tipos de tecidos: vascular e linfático. O tipo de vaso predominante vai determinar a nomenclatura da lesão, podendo ser chamada de hemangiolinfangioma ou linfangiohemangioma. Aproximadamente 50% destas lesões são descobertas durante a infância e 90% se desenvolvem por volta dos dois anos de idade. O local de acometimento mais comum é no triangulo posterior do pescoço. Outros locais como duodeno, colón, testículos e região maxilofacial foram reportados (Murphy et al., 2017).

A aparência do hemangiolinfangioma pode variar de acordo com a predominância dos componentes vasculares e linfáticos envolvidos, quanto maior for o componente sanguíneo presente, mais avermelhada será a lesão e o mesmo é para componentes linfáticos. Microscopicamente, observa-se espaços linfovasculares dilatados subepiteliais com numerosas células sanguíneas no lúmen e agregados linfóides (Sobhana et al., 2012; Shin et al., 2012).

O diagnóstico destas lesões é baseado na associação entre os achados clínicos e histopatológicos obtidos através de biópsia incisional (Mulliken e Glowacki, 1982).

O tratamento dos hemangiolinfangiomias varia de acordo com tamanho, localização, envolvimento de estruturas anatômicas importantes e de infiltração para os tecidos circundantes. Para lesões pequenas e sem acometimento estético e funcional, pode-se optar pelo acompanhamento do paciente. Quando a queixa estética está presente, a remoção cirúrgica pode ser indicada (Marler et al., 2005).

2 REVISÃO DA LITERATURA

2.1 Hemangioma

Hemangioma é uma lesão benigna de vasos sanguíneos relativamente comum na região de cabeça e pescoço. Aproximadamente 60% de todos hemangiomas ocorrem nestas áreas e o local mais comum de acometimento na cavidade oral são lábios, língua, mucosa jugal, gengiva e palato. O hemangioma é o tumor mais comum na infância, acometendo de três a cinco vezes mais as mulheres e possui uma maior prevalência em bebês prematuros, bebês caucasianos e gêmeos. Existem diversas classificações de hemangiomas, tais como: hemangioma da infância, hemangioma congênito não involutivo, hemangioma congênito rapidamente involutivo, granuloma piogênico e angioma em tufos (Tabela 1). (Mulliken e Glowacki, 1982; Buckmiller, 2004).

Tabela 1 Classificação de tumores vasculares.

TUMORES VASCULARES	
BENIGNO	OUTROS
Hemangioma infantil / Hemangioma da Infância	Localmente agressivo, por exemplo, hemangioendotelioma Kaposiforme
Hemangioma congênito:	
<ul style="list-style-type: none"> • Involuindo rapidamente (RICH) • Não Involutivo (NICH) • Parcialmente Involuído (PICH) 	Maligno, por exemplo, Angiossarcoma
Angioma em tufos	
Hemangioma de células fusiformes	
Hemangioma epitelióide	
Granuloma piogênico (Hemangioma capilar lobular)	
Outros	

Biologicamente possuem uma característica única e fundamental: evoluem rapidamente, regridem devagar (nem todos regridem) e nunca recorrem. Durante as primeiras semanas de vida, o hemangioma tem um crescimento rápido e dentro de 6 a 12 meses, tende a crescer proporcionalmente ao crescimento da

criança, seguido de involução lenta. Existem duas variações de hemangiomas chamados de hemangiomas congênitos, os quais são totalmente desenvolvidos durante a infância. O hemangioma congênito de involução rápida possui involução rápida durante as primeiras semanas e meses de vida. Já o hemangioma congênito não involutivo, menos comum, não sofre involução (Mulliken et al., 2005).

Os hemangiomas podem ser encontrados na cavidade oral e serem capazes de ulcerar, causar dor, sangramento, infecção secundária e deformação tecidual. Normalmente são lesões firmes à palpação, e após aplicação de pressão, o sangue não pode ser evacuado. No entanto, a apresentação clínica dos hemangiomas pode variar em termos de coloração, tamanho, morfologia e extensão. Quando o hemangioma é superficial à pele, a lesão tende a ser elevada, firme, bocelada e com coloração vermelha clara (“hemangioma em morango”). Além disso, hemangiomas mais profundos podem se apresentar como crescimentos com pequenas elevações, quentes, com tonalidade azulada. Cerca de metade destas lesões irá exibir resolução completa aos cinco anos de idade e a pele normal será reestabelecida em cerca de 50% dos pacientes (Marler et al., 2005; Correa et al., 2007).

Microscopicamente, o hemangioma é caracterizado pela dilatação do lúmen vascular e por numerosas células endoteliais volumosas, podendo ser classificados em capilar, cavernoso ou misto. A forma mais frequente é o hemangioma capilar, que microscopicamente é composto por proliferação de pequenos capilares revestidos por uma camada de células endoteliais dentro de um estroma de tecido conjuntivo, demonstrando vasos bem formados, localizados na pele ou na mucosa (Neville et al., 2016).

A maioria dos hemangiomas pode ser diagnosticado através da história clínica do paciente e o exame clínico detalhado. Os exames de ultrassonografia, arteriografia e ressonância magnética podem auxiliar no diagnóstico e tratamento, demonstrando se a lesão é de baixo/alto fluxo sanguíneo, diferenciando de malformações venosas e linfáticas e indicando artérias de alimentação de fluxo rápido. Além disso, a tomografia computadorizada pode ser útil para avaliação de envolvimento tecidual do hemangioma (Enjolras et al., 1993).

Devido à boa parte dos hemangiomas serem pequenos e involutivos, o tratamento usual é apenas o acompanhamento. Aproximadamente cerca de 20% dos hemangiomas irão gerar complicações tais como expansão cutânea, compressão ou obstrução de estrutura importantes, destruição tecidual e/ou ulcerações. A intervenção é indicada quando estas lesões causam deformações estéticas e/ou quando geram problemas funcionais tais como interferências visuais e respiratórias (Buckmiller, 2004).

A farmacoterapia com corticosteróide é uma opção de tratamento para lesões pequenas e localizadas, podendo ser aplicado através de uma aplicação intralesional e/ou por via sistêmica. Para hemangiomas de grande tamanho, com maior risco de vida e não responsivos à corticoterapia, o tratamento com vincristina intravenosa possui melhor indicação. O laser de luz pulsante pode ser efetivo no tratamento de hemangiomas ulcerativos, principalmente na fase proliferativa, ajudando a prevenir e curar ulcerações. Remoção cirúrgica é raramente indicada e depende de diversos fatores, tais como tamanho da lesão, localização, hemodinâmica da lesão, idade do paciente entre outras (Mulliken et al., 2005).

Outra opção de terapia conservadora para hemangiomas, com bom resultado estético, é a escleroterapia. É um tratamento conservador e efetivo no tratamento de lesões benignas vasculares. Além disso, é uma técnica pouca invasiva, segura, de baixo custo, que pode causar regressão completa ou parcial da lesão a ser tratada. A escleroterapia consiste em substituir o componente vascular por tecido fibroso através de uma resposta inflamatória intra e extra vascular causada pelo agente esclerosante escolhido. Um dos agentes esclerosantes mais utilizados no tratamento dessas lesões é o oleato de monoetanolamina (Johann et al., 2005; Fernandes et al., 2018).

2.2 Linfangioma

Os linfangiomas são crescimentos benignos hamartomatosos dos vasos linfáticos. Acredita-se que seu surgimento ocorre a partir de vasos linfáticos malformados que não se comunicam adequadamente com o resto do sistema linfático. Os linfangiomas podem ser classificados de acordo com o tamanho do

espaço cístico, entre eles: linfangioma capilar, linfangioma cavernoso e higroma cístico. Aproximadamente 90% destas lesões se desenvolvem por volta dos 2 anos de idade e cerca de 50% delas são notadas ao nascimento. Na cavidade oral, o local de maior acometimento são os dois terços anteriores da língua, podendo resultar em macroglossia (Bhayya et al., 2015).

Clinicamente se apresentam como tumefações nodulares e indolores. Estes tumores normalmente são localizados superficialmente e possuem uma superfície pedregosa e irregular, permitindo a visualização de várias vesículas translúcidas, em alguns casos essas vesículas podem ser arroxeadas devido a hemorragia secundária presente nos espaços linfáticos (Brock et al., 1987).

Microscopicamente, o linfangioma oral é caracterizado pela presença de vasos linfáticos dilatados logo abaixo do epitélio de superfície. Esta localização resulta na aparência clínica das vesículas translúcidas. A presença de hemácias em alguns espaços císticos pode gerar incerteza na diferenciação entre vasos linfáticos e sanguíneos. A utilização de imunohistoquímica permite diferenciar vasos linfáticos e sanguíneos, o marcador D2-40 é um anticorpo monoclonal utilizado para identificar o antígeno M2A, presente apenas nas células endoteliais linfáticas. O marcador pan-endotelial CD34 é utilizado para identificação de microvasos e não está presente nos vasos linfáticos (Kollay et al., 2018).

O diagnóstico destas lesões é baseado na história clínica e sua apresentação clínica. Quando notado durante a infância e associado com uma massa com vesículas translúcidas, o diagnóstico se torna previsível (Kennedy et al., 2001).

O tratamento dos linfangiomas varia de acordo com tamanho, localização, envolvimento de estruturas anatômicas importantes e de infiltração para os tecidos circundantes. Para lesões pequenas e sem acometimento estético e funcional, o acompanhamento do paciente é o tratamento mais indicado. Quando necessário, o tratamento cirúrgico é a opção primária para todos os linfangiomas. A remoção cirúrgica completa da lesão pode ser um desafio devido ao tamanho de lesão e ao envolvimento de estruturas nobres. O tratamento cirúrgico para linfangiomas pode ser feito com a utilização de bisturi, eletrocautério, laser cirúrgico, entre outros

dispositivos. A localização e o envolvimento de múltiplas estruturas anatômicas são fatores importantes para o sucesso do tratamento cirúrgico, tumores que acometem apenas um sítio tendem a recidivar menos que uma lesão envolvendo vários sítios (Burezq et al., 2006).

A escleroterapia com agente esclerosante OK-432 tem demonstrado bons resultados para tratamento de linfangiomas macrocísticos. Este agente é originado através de uma cepa de baixa virulência de *Streptococcus pyogenes* tratado com benzilpenicilina potássica. Contudo, esta técnica pode gerar efeitos adversos como febre por 2 a 3 dias e inflamação local reacionária. A utilização de radioterapia foi reportada no passado, porém devido aos potenciais riscos que esta modalidade pode causar em crianças, o seu uso é limitado (Greinwald et al., 1999; Laranne et al., 2002).

2.3 Hemangioliinfangiomias

O hemangioliinfangioma é um crescimento benigno raro que envolve dois tipos de tecidos: vascular e linfático. Clinicamente e microscopicamente a lesão apresenta componentes linfáticos e sanguíneos, o tipo de vaso mais predominante vai determinar a classificação da lesão, podendo ser chamada de hemangioliinfangioma ou linfangiohemangioma. Aproximadamente 50% destas lesões são descobertas durante a infância e 90% se desenvolvem por volta dos dois anos. O local de acometimento mais comum é no triangulo posterior do pescoço. Outros locais como duodeno, colón, testículos, região maxilofacial foram reportados (Murphy et al., 2017).

A aparência do hemangioliinfangioma pode variar de acordo com a predominância dos componentes vasculares e linfáticos envolvidos, quanto maior for o componente sanguíneo presente, mais avermelhada será a lesão e o mesmo é para componentes linfáticos. Microscopicamente, observam-se espaços linfovasculares dilatados com numerosas células sanguíneas no lúmen e agregados linfóides na parede (Sobhana et al., 2012; Shin et al., 2012).

O diagnóstico destas lesões é baseado na histórica clínica e sua apresentação clínica, quando notada durante a infância e associada com uma

massa com vesículas translúcidas agregado à um componente vascular, o diagnóstico se torna previsível (Mulliken e Glowacki, 1982).

O tratamento dos hemangiolinfangiomas varia de acordo com tamanho, localização, envolvimento de estruturas anatômicas importantes e de infiltração para os tecidos circundantes. Para lesões pequenas e sem acometimento estético e funcional, o acompanhamento do paciente é o tratamento mais indicado. Quando necessário, a remoção cirúrgica é opção mais utilizada. A remoção cirúrgica completa da lesão pode ser um desafio devido ao risco de hemorragia e envolvimento de estruturas nobres (Marler et al., 2005).

3 PROPOSIÇÃO

O objetivo deste trabalho foi relatar um caso clínico de uma criança com hemangiolinfangioma de língua, apresentando os aspectos clínicos, histopatológicos e as condutas terapêuticas desde o primeiro atendimento até a finalização do tratamento.

4 RELATO DO CASO CLÍNICO

Paciente N.A.S.S, gênero feminino, cor de pele parda, 7 anos de idade, foi encaminhada ao Orocentro (Clínica de Diagnóstico e Tratamento de Lesões Bucais) da Faculdade de Odontologia de Piracicaba-UNICAMP em agosto do ano de 2009 por um cirurgião de dentista da Prefeitura do Município de Leme para avaliação de lesão em dorso de língua.

Durante a anamnese, o responsável referiu que a lesão estava presente desde o nascimento e a queixa principal da paciente era sobre a presença de vários “caroços” na língua. Não tinha histórico de trauma associado nem sintomas.

Ao exame intraoral foi observado aumento de volume localizado em dorso de língua, medindo 3cm x 1cm x 0,5 cm, com dois aspectos distintos: um nódulo vermelho, firme e borrachoso à palpação na região anterior da lesão e na porção posterior uma superfície pedregosa com vesículas normocrômicas (Figura 1).

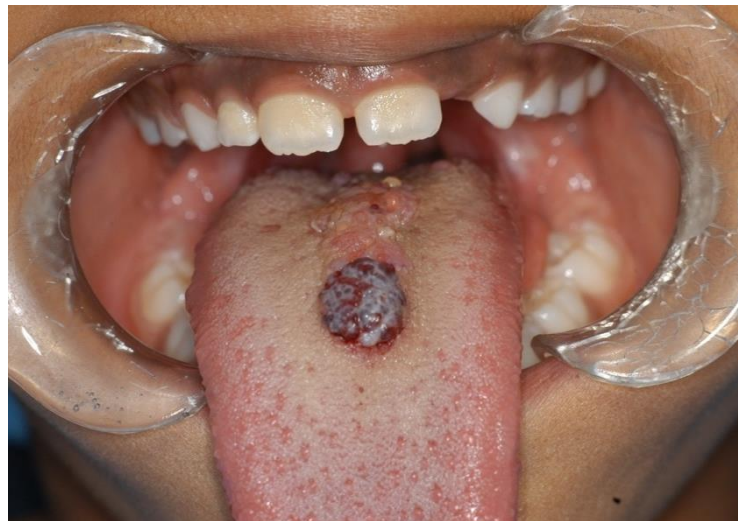


Figura 1- Imagem clínica inicial (2009), exibindo lesão nodular avermelhada na região anterior e normocrômica com superfície pedregosa na parte posterior.

Para confirmação de diagnóstico foi realizada uma biópsia incisional da região posterior. O exame microscópico demonstrou presença de vasos linfáticos dilatados logo abaixo do epitélio de superfície e na profundidade do tecido conjuntivo, compatível com linfangioma (Figura 2). Não foi realizada biópsia na região anterior da lesão pela evidência clínica de ter vasos sanguíneos e ser

clínicamente componente de hemangioma. A combinação das características clínicas e microscópicas possibilitaram estabelecer o diagnóstico final foi de hemangiolinfangioma.

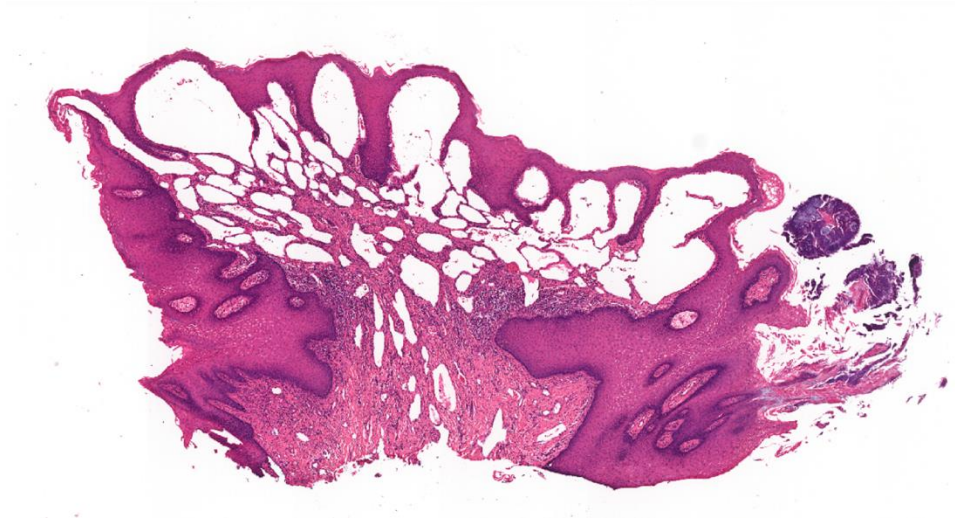


Figura 2 – Fotomicrografia (HE, objetiva x2). Presença de vasos linfáticos dilatados subepiteliais e no tecido conjuntivo.

Com o diagnóstico estabelecido, decidiu-se realizar o acompanhamento da paciente e não instituir nenhum tratamento. Por 7 anos a lesão permaneceu estável (Figura 3). No entanto, a paciente expressou interesse em tratar a lesão devido a queixas estéticas.



Figura 3 - Aspecto clínico após 7 anos de seguimento, onde vemos que a lesão permaneceu estável.

Desta forma, foi proposto tratamento de escleroterapia com oleato de etanolamina a 5% (Ethamolin® 5%). A paciente foi medicada com dexametasona 4 mg previamente ao procedimento. Foi realizada anestesia local com lidocaína feita aplicação de 0,2 ml de Ethamolin® 5% na porção anterior da lesão e 0,3 ml na porção posterior. O controle de analgesia foi realizado com prescrição de dipirona sódica 500mg. Após um mês a paciente retornou para avaliação e após um mês de acompanhamento não observou-se melhora significativa da lesão. Dessa forma, foram propostas novas aplicações de Ethamolin®. No total foram realizadas três aplicações, com um total aplicado de 1,7 ml, em um intervalo de 3 meses entre a primeira e terceira aplicação. Após estes procedimentos foi observada regressão significativa do componente vascular da região anterior de dorso de língua. A evolução do tratamento durante o tratamento com Ethamolin® está ilustrada na Figura 4.



Figura 4 - Aspectos clínicos durante o tratamento com escleroterapia. Aspecto da lesão inicial após a 1ª sessão (A), após a 2ª sessão de escleroterapia (B) e padrão clínico final após a 3ª sessão com Ethamolin®5% (C).

No entanto, não houve regressão da região posterior da lesão e a paciente ainda tinha o desejo de remover a lesão remanescente. Desta forma, foi proposta a excisão cirúrgica com auxílio de um eletrocautério. A paciente foi submetida a 3 cirurgias com eletrocautério obtendo-se resultado satisfatório. A paciente está em acompanhamento clínico por 10 anos sem apresentar sinais de recidiva e sem queixas (Figura 6).



Figura 6 - Aspecto final após 10 anos de acompanhamento.

5 DISCUSSÃO

Hemangiomas e linfangiomas foram descritos como lesões com surgimento principalmente na região de cabeça e pescoço, notada durante infância, sendo a língua um dos locais mais comuns de acometimento, com prevalência de hemangiomas no sexo feminino (Mulliken et al., 2005). Entretanto, os relatos de hemangiolinfangioma são escassos, com características clínicas e epidemiológicas divergentes o que torna um desafio estabelecer um perfil clinicopatológico e evolutivo destas lesões (Vilalta et al., 1985; Sobhana et al., 2012; Murphy et al., 2017,). O presente relato vem para acrescentar a descrição de um hemangiolinfangioma congênito em dorso de língua, numa criança de 7 anos do sexo feminino, corroborando parcialmente com o perfil epidemiológico descrito na literatura de indivíduos acometidos por esta doença, com divergência apenas em relação a cor da paciente ser parda e não branca como sugere Correa et al. (2007).

Com relação à aparência clínica, hemangiomas são lesões nodulares, vermelhas firmes e borrachosas à palpação. Linfangiomas se apresentam como tumefações nodulares e indolores, normalmente são localizados superficialmente e possuem uma superfície pedregosa e irregular, permitindo a visualização de várias vesículas translúcidas, com aspecto de ovos de rã ou pudim de tapioca (Buckmiller, 2004; Williams et al., 2006). No presente estudo, observamos características clínicas semelhantes ao descrito na literatura, com a união dos aspectos clínicos de linfangioma e hemangioma presentes em uma única lesão, caracterizando um hemangiolinfangioma.

O entendimento sobre o tratamento de lesões vasculares orais é de grande importância para nós cirurgiões dentistas, considerando que a intervenção pode levar a sangramentos. Para hemangiomas de tamanho pequeno, que não causam deformações cosméticas e funcionais, é realizado apenas o acompanhamento clínico do paciente. O tratamento é geralmente indicado em casos que causam alterações estéticas, risco de sangramento por trauma funcional, e que interfira com as funções fisiológicas, como a fonação e a mastigação (Buckmiller, 2004; Mulliken et al., 2005). O tratamento com agentes esclerosantes e a excisão cirúrgica são as condutas mais utilizadas para esses tipos de lesões (Enjolras et al., 1997). Desta forma, alguns aspectos devem ser considerados, como o tamanho, a

localização, a idade do paciente, fluxo da lesão (rápido ou lento), além da viabilidade da técnica a ser utilizada (Wang et al., 1998). Corroborando com a literatura, no presente estudo a conduta terapêutica inicial foi de apenas acompanhamento clínico da paciente, visto que não havia episódios de sangramento por trauma. Entretanto, levando-se em consideração a queixa estética tardia, foi realizado tratamento com escleroterapia e eletrocauterização.

Johann (2005) e Fernandes (2018) demonstraram através dos seus estudos sobre lesões vasculares benignas orais tratadas por escleroterapia com oleato de etanolamina uma grande eficácia no tratamento dessas lesões, observando-se regressão clínica completa em aproximadamente 90% a 100% dos casos apresentados. O número de aplicações necessárias variou de acordo com o tamanho da lesão e hemodinâmica presente (alto ou baixo fluxo), lesões pequenas e de baixo fluxo necessitaram de menos aplicações. No presente estudo, o tratamento de escleroterapia com oleato de etanolamina foi bastante eficaz na redução do componente vascular presente na região anterior da lesão, sendo necessárias três aplicações para remissão considerável. No entanto, não houve regressão do componente linfático da região posterior da lesão, corroborando com estudos feitos por Greinwald Jr (1999), Larrane (2002) e Burezq (2006). De acordo com estes estudos, linfangiomas microcísticos (mais comuns na cavidade oral) tendem a ter uma resposta ruim ao tratamento de escleroterapia. Acredita-se que lesões microcísticas possuam uma menor comunicação entre os espaços císticos e desta forma não ocorre difusão adequada do agente esclerosante.

O tratamento dos linfangiomas varia de acordo com tamanho, localização, envolvimento de estruturas anatômicas importantes e de infiltração para os tecidos circundantes. Para lesões pequenas e sem acometimento estético e funcional, o acompanhamento do paciente é o tratamento mais indicado. Quando necessário, o tratamento cirúrgico é a opção primária para todos os linfangiomas. A remoção cirúrgica completa da lesão pode ser um desafio devido ao grande tamanho de lesão e ao envolvimento de estruturas (Mulliken et al., 2005; Burezq et al., 2006).

Yang (2014) e Ono (2014) relataram na literatura sobre o sucesso obtido em pacientes com linfangiomas submetidos à cirurgia de eletrocauterização. Observou-se que este tratamento tem como principais vantagens excelente controle

de hemostasia, prevenção de extravasamento linfático e redução de risco transcirúrgico. No presente estudo, a eletrocauterização permitiu praticamente a remissão completa do hemangiolinfangioma, sem causar sequelas para o paciente, demonstrando ser uma boa opção de tratamento conservador para linfangiomas. Apesar do sucesso clínico obtido após tratamento da paciente, o manejo de hemangiolinfangiomas continua sendo um desafio devido à tendência de recidiva do componente linfático presente nos linfangiomas (Mulliken et al., 2005). Desta forma, o acompanhamento de pacientes tratados com esta doença deve ser contínuo e prolongado para resolução completa do caso.

6 CONCLUSÃO

Embora o hemangiolinfangioma não seja uma doença rara, existem pouquíssimos relatos científicos na literatura. O tratamento dessas lesões é um desafio para nós, dentistas, devido às recidivas. O tratamento usual é apenas o acompanhamento. No entanto, este relato de caso clínico mostrou que eventualmente a associação de escleroterapia e a cirurgia pode ser uma boa opção, principalmente pela presença dos dois componentes.

REFERÊNCIAS*

Bhayya H, Pavani D, Avinash Tejasvi ML, Geetha P. Oral lymphangioma: A rare case report. *Contemp Clin Dent*. 2015 Oct-Dec;6(4):584-7. doi: 10.4103/0976-237X.169851.

Buckmiller LM. Update on hemangiomas and vascular malformations. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg*. 2004 Dec;12(6):476-87.

Burezq H, Williams B, Chitte SA. Management of cystic hygromas: 30 year experience. *J Craniofac Surg*. 2006 Jul;17(4):815-8.

Brock ME, Smith RJ, Parey SE, Mobley DL. Lymphangioma. An otolaryngologic perspective. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 1987 Dec;14(2-3):133-40.

Campos M, Ortiz V, Correa MS, Santiago Borrero PJ, Garcia I, Garcia L, Valcárcel M. Evidenced based management of neonatal hemangiolymphangioma: a case report. *Bol Asoc Med P R*. 2008 Apr-Jun;100(2):57-9.

Corrêa PH, Nunes LC, Johann AC, Aguiar MC, Gomez RS, Mesquita RA. Prevalence of oral hemangioma, vascular malformation and varix in a Brazilian population. *Braz Oral Res*. 2007; 21:40-45.

David LR, Malek MM, Argenta LC: Efficacy of pulse dye laser therapy for the treatment of ulcerated hemangiomas: a review of 78 patients. *The British Association of Plastic Surgeons*. *Br J Plast Surg* 2003, 56:317–327.

Emer J, Gropper J, Gallitano S, Levitt J. A case of lymphangioma circumscriptum successfully treated with electrodesiccation following failure of pulsed dye laser. *Dermatol Online J*. 2013 Mar 15;19(3):2.

Enjolras O, Mulliken JB. The current management of vascular birthmarks. *Pediatr Dermatol*. 1993 Dec; 10(4):311-3.

Enjolras O, Gelbert F. Superficial hemangiomas: associations and management. *Pediatr Dermatol*. 1997 May-Jun;14(3):173-9.

Eren S, Cebi AT, Isler SC, Kasapoglu MB, Aksakalli N, Kasapoglu C. Cavernous lymphangioma of the tongue in an adult: a case report. *J Istanbul Univ Fac Dent*. 2017 Apr 3;51(2):49-53. doi: 10.17096/jiufd.64259.

* De acordo com as normas da UNICAMP/FOP, baseadas na padronização do International Committee of Medical Journal Editors - Vancouver Group. Abreviatura dos periódicos em conformidade com o PubMed.

Fernandes DT, Elias RA, Santos-Silva AR, Vargas PA, Lopes MA. Benign oral vascular lesions treated by sclerotherapy with ethanolamine oleate: A retrospective study of 43 patients. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2018 Mar 1;23(2):e180-e187. doi: 10.4317/medoral.22253.

Greinwald JH Jr, Burke DK, Sato Y, Poust RI, Kimura K, Bauman NM, Smith RJ. Treatment of lymphangiomas in children: an update of Picibanil (OK-432) sclerotherapy. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 1999 Oct;121(4):381-7.

Hassanein AH, Mulliken JB, Fishman SJ, Quatrano NA, Zurakowski D, Greene AK. Lymphatic malformation: risk of progression during childhood and adolescence. *J Craniofac Surg*. 2012 Jan;23(1):149-52. doi: 10.1097/SCS.0b013e3182413ea8.

Johann AC, Aguiar MC, do Carmo MA, Gomez RS, Castro WH, Mesquita RA. Sclerotherapy of benign oral vascular lesion with ethanolamine oleate: an open clinical trial with 30 lesions. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2005 Nov;100(5):579-84.

Kennedy TL, Whitaker M, Pellitteri P, Wood WE. Cystic hygroma/lymphangioma: a rational approach to management. *Laryngoscope*. 2001 Nov;111(11 Pt 1):1929-37.

Kolay SK, Parwani R, Wanjari S, Singhal P. Oral lymphangiomas - clinical and histopathological relations: An immunohistochemically analyzed case series of varied clinical presentations. *J Oral Maxillofac Pathol*. 2018 Jan;22(Suppl 1):S108-S111. doi: 10.4103/jomfp.JOMFP_157_17.

Laranne J, Keski-Nisula L, Rautio R, Rautiainen M, Airaksinen M. OK-432 (Picibanil) therapy for lymphangiomas in children. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2002 May;259(5):274-8.

Marler JJ, Mulliken JB. Current management of hemangiomas and vascular malformations. *Clin Plast Surg*. 2005 Jan;32(1):99-116, ix.

Mitsukawa N, Satoh K. New treatment for cystic lymphangiomas of the face and neck: cyst wall rupture and cyst aspiration combined with sclerotherapy. *J Craniofac Surg*. 2012 Jul;23(4):1117-9. doi: 10.1097/SCS.0b013e31824e6d20.

Miyake Y, Shinozuka K, Ueki K, Teraoka J, Zama M, Ogisawa S, Shinozaki Y, Aoki J, Yanagawa K, Shimizu O, Kaneko T, Tonogi M, Ohki H. Retrospective clinical study of 296 patients with mass lesions of the tongue. *J Oral Sci*. 2018 Dec 27;60(4):574-578. doi: 10.2334/josnusd.17-0317.

Mulliken JB, Glowacki J. Hemangiomas and vascular malformations in infants and Children: a classification based on endothelial characteristics. *Plast Reconstr Surg*. 1982 Mar; 69(3):412-22

Murphy T, Ramai D, Lai J, Sullivan K, Grimes C. Adult neck hemangiolympangioma: a case and review of its etiology, diagnosis and management. *J Surg Case Rep*. 2017 Aug 31;2017(8):rjx168. doi:10.1093/jscr/rjx168.

Patologia Oral & maxillofacial / Brad Neville... [et.al]; [traducao Renata Tucci, Monica Israel]. - 4.ed.- Rio de Janeiro: Elsevier,2016.

Ono S, Tsuji Y, Baba K, Usui Y, Yanagisawa S, Maeda K. New operative strategy for refractory microcystic lymphangioma. *Surg Today*. 2014 Jun;44(6):1184-7. doi: 10.1007/s00595-013-0806-z.

Portaro S, Naro A, Guarneri C, Di Toro G, Manuli A, Calabrò RS. Hemangiomas of the tongue and the oral cavity in a myotonic dystrophy type 1 patient: A case report. *Medicine (Baltimore)*. 2018 Nov;97(48):e13448. doi: 10.1097/MD.00000000000013448.

Seruga T, Lucev J, Jevsek M. Treatment of tongue cavernous haemangioma with direct puncture and sclerotization with ethanol. *Radiol Oncol*. 2015 Mar 3;49(1):75-9. doi: 10.2478/raon-2014-0006.

Shin YS, Doo AR, Kim MK, Jeong YB, Kim HJ. Cavernous Hemangiolympangioma of the Testis without Cutaneous Hemangiomatosis in an Elderly Patient. *Korean J Urol*. 2012 Nov;53(11):810-2. doi: 10.4111/kju.2012.53.11.810.

Sobhana CR, Beena VT, Soni A, Choudhary K, Sapru D. Hemangiolympangioma of buccal mucosa: Report of a rare case and review of literature on treatment aspect. *Natl J Maxillofac Surg*. 2012 Jul;3(2):190-4. doi:10.4103/0975-5950.111379.

Steele L, Zbeidy S, Thomson J, Flohr C. How is the term haemangioma used in the literature? An evaluation against the revised ISSVA classification. *Pediatr Dermatol*. 2019 Sep;36(5):628-633. doi: 10.1111/pde.13885.

Tseng JJ, Chou MM, Ho ES. Fetal axillary hemangiolympangioma with secondary intralesional bleeding: serial ultrasound findings. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2002 Apr;19(4):403-6.

Vilalta J, Mascaro JM. Hemangiolympangioma of the tongue treated by transfixion technique. *J Dermatol Surg Oncol*. 1985 Feb;11(2):168-70.

V P, Puppala N, Deshmukh SN, B J, S A. Cavernous hemangioma of tongue: management of two cases. *J Clin Diagn Res*. 2014 Oct;8(10):ZD15-7. doi: 10.7860/JCDR/2014/10216.5005.

Wang L, Oliveira DT, Consolaro A, Perez F. Tratamento de hemangioma bucal com agente esclerosante. *Revista Robrac*. 1998; 24: 20-22.

Yang X, Jin Y, Chen H, Li S, Ma G, Hu X, Qiu Y, Yu W, Chang L, Wang T, Lin X. Highly selective electrocoagulation therapy: an innovative treatment for lymphangioma circumscriptum. *Dermatol Surg*. 2014 Aug;40(8):899-905. doi: 10.1111/dsu.0000000000000061.

ANEXOS

Anexo 1 – Verificação de originalidade e prevenção de plágio

TCC Henrique

RELATÓRIO DE ORIGINALIDADE

8%	7%	2%	2%
ÍNDICE DE SEMELHANÇA	FONTES DA INTERNET	PUBLICAÇÕES	DOCUMENTOS DOS ALUNOS

FONTES PRIMÁRIAS

1	repositorio.unicamp.br Fonte da Internet	5%
2	Submitted to Universidade Estadual de Campinas Documento do Aluno	1%
3	Gontijo, Bernardo, Cláudia Márcia Resende Silva, and Luciana Baptista Pereira. "Hemangioma da infância", Anais Brasileiros de Dermatologia, 2003. Publicação	<1%
4	Juliana dos Reis DERCELI, Lígia Antunes Pereira PINELLI, Elisa Maria Aparecida GIRO, Juliana CABRINI et al. "Oral rehabilitation in a patient with special needs", RGO - Revista Gaúcha de Odontologia, 2015 Publicação	<1%
5	J. C. MESLIN. "ACTION DE LA FLORE BACTÉRIENNE SUR LA MORPHOLOGIE ET LA SURFACE DE LA MUQUEUSE DE L'INTESTIN GRÊLE DU RAT", annales de	<1%

Anexo 2 – Comitê de Ética em Pesquisa



COMITÊ DE ÉTICA EM PESQUISA
FACULDADE DE ODONTOLOGIA DE PIRACICABA
UNIVERSIDADE ESTADUAL DE CAMPINAS



CERTIFICADO

O Comitê de Ética em Pesquisa da FOP-UNICAMP certifica que o projeto de pesquisa "Hemangioliinfangioma de língua em uma criança: Relato de caso", CAAE 13423619.5.0000.5418, dos pesquisadores Henrique Heiji Satake, Márcio Ajudarte Lopes e Isabel Schauslitz Faustino, satisfaz as exigências das resoluções específicas sobre ética em pesquisa com seres humanos do Conselho Nacional de Saúde – Ministério da Saúde e foi aprovado por este comitê em 14/05/2019.

The Research Ethics Committee of the Piracicaba Dental School of the University of Campinas (FOP-UNICAMP) certifies that research project "Hemangiolympangioma of tongue in a child: a case report", CAAE 13423619.5.0000.5418, of the researcher's Henrique Heiji Satake, Márcio Ajudarte Lopes and Isabel Schauslitz Faustino, meets the requirements of the specific resolutions on ethics in research with human beings of the National Health Council - Ministry of Health, and was approved by this committee on May, 14 2019.

Profa. Fernanda Miori Pascon

Vice Coordenador
 CEP/FOP/UNICAMP

Prof. Jacks Jorge Junior

Coordenador
 CEP/FOP/UNICAMP

Nota: O título do protocolo e a lista de autores aparecem como fornecidos pelos pesquisadores, sem qualquer edição.
 Notice: The title and the list of researchers of the project appears as provided by the authors, without editing.