



RELATO DE CASO

Cavernous hemangioma in unusual location: pterygopalatine fossa[☆]



Hemangioma cavernoso em local incomum: fossa pterigopalatina

Bayram Şahin^{a,*}, Said Sönmez^a, Emine Dilek Yılmazbayhan^b e Kadir Serkan Orhan^a

^a University of Istanbul, Istanbul Medical Faculty, Department of Otorhinolaryngology & Head and Neck Surgery, Istanbul, Turquia

^b University of Istanbul, Istanbul Medical Faculty, Department of Pathology, Istanbul, Turquia

Recebido em 10 de janeiro de 2016; aceito em 10 de fevereiro de 2016

Disponível na Internet em 29 de maio de 2017

Introdução

Hemangiomas são tumores vasculares benignos e são os tumores benignos mais comuns da região da cabeça e do pescoço. Embora geralmente se apresentem por ocasião do nascimento ou surjam no início da vida, quase todos involuem espontaneamente antes da vida adulta. Normalmente, esses tumores estão localizados fora dos seios paranasais e da cavidade nasal, em locais como o aspecto lateral da base do crânio, parótida, laringe, língua e pele.¹ Foram descritos três subtipos principais: capilar, cavernoso e misto. Na maioria dos casos, o tipo cavernoso está associado à parede lateral da cavidade nasal ou à concha inferior.^{2,3}

Neste artigo, descrevemos um hemangioma com origem na fossa pterigopalatina, tratado por meio de abordagem endoscópica sem complicação. Até onde sabemos, casos de

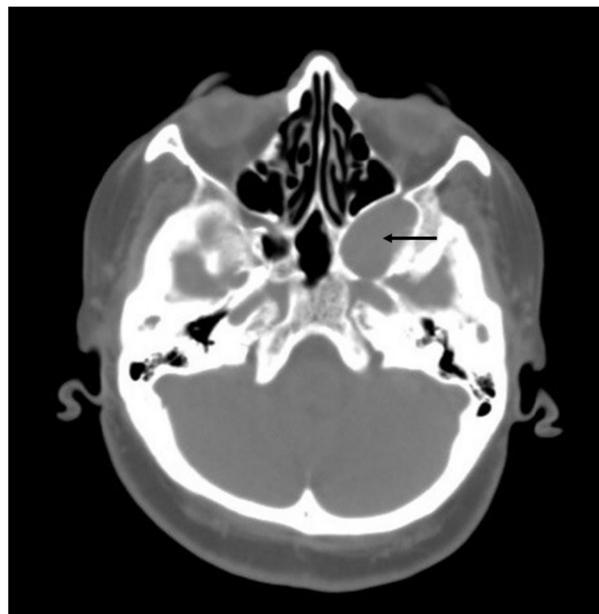


Figura 1 TC axial pré-operatória. O estudo demonstra lesão de tecido mole com localização na fossa pterigopalatina que causa expansão do seio cavernoso esquerdo. O tumor empurra a parede posterior do seio maxilar em uma direção anterior e a parede lateral do seio esfenoidal em uma direção medial (a seta indica o tumor).

DOI se refere ao artigo:

<http://dx.doi.org/10.1016/j.bjorl.2016.02.003>

[☆] Como citar este artigo: Şahin B, Sönmez S, Yılmazbayhan ED, Orhan KS. Cavernous hemangioma in unusual location: pterygopalatine fossa. Braz J Otorhinolaryngol. 2019;85:121–4.

* Autor para correspondência.

E-mail: drbayramshahin@gmail.com (B. Şahin).

A revisão por pares é da responsabilidade da Associação Brasileira de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial.

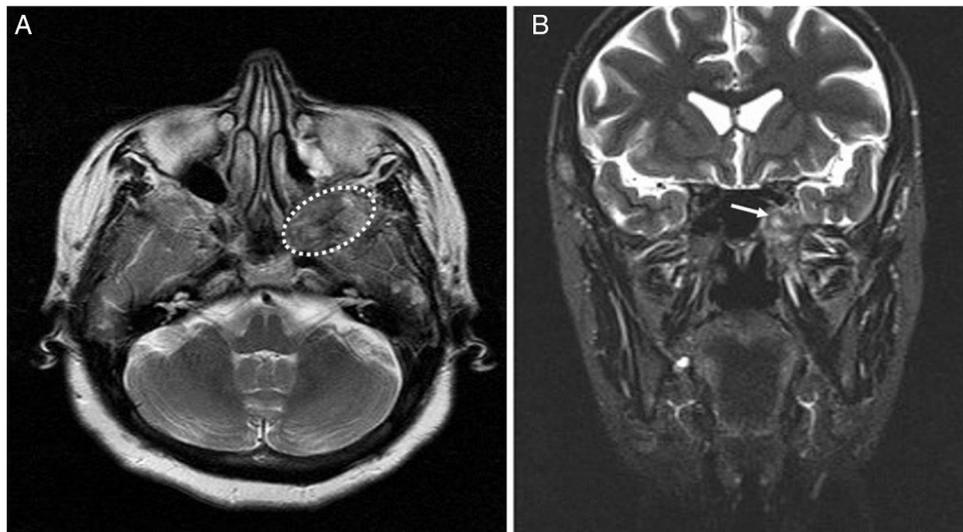


Figura 2 (A) IRM axial ponderada em T1 obtida antes da cirurgia. A lesão demonstra hipointensidade nas imagens ponderadas em T2 (a linha pontilhada assinala o tumor); (B) IRM coronal ponderada em T2 obtida antes da cirurgia. A lesão exibe leve hiperintensidade nas imagens ponderadas em T2 (a seta indica o tumor).

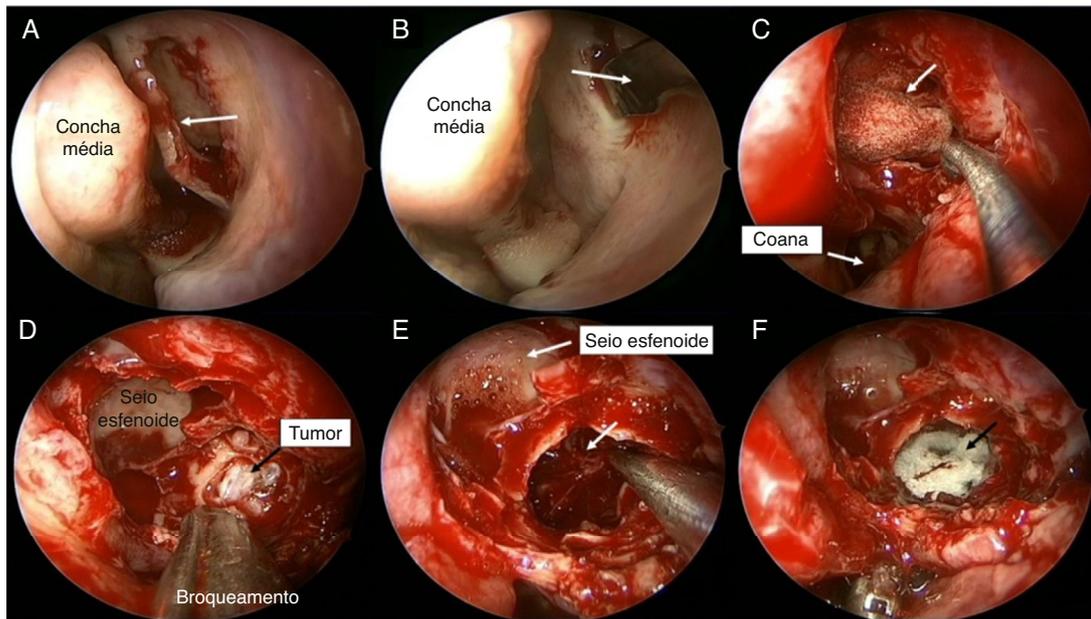


Figura 3 Vista intraoperatória. (A) O processo uncinado foi removido por uma pinça *backbiter*; subsequentemente, foi identificado o seio maxilar (a seta indica o processo uncinado); (B) A parede medial do seio maxilar foi removida e, em seguida, foi feita antrostomia meatal ampla (a seta indica o seio maxilar); (C) A parede anterior do seio esfenóide foi parcialmente removida, seguida por esfenoidotomia (a seta indica tamponamento nasal do seio esfenóide); (D) A parede posterior do seio maxilar foi parcialmente removida; com isso, o tumor foi visualizado na fossa pterigopalatina; (E) Excisão radical do tumor (a seta e o aspirador indicam a fossa pterigopalatina); (F) No fim da cirurgia, a fossa pterigopalatina foi preenchida com hemostático absorvível (a seta indica o hemostático absorvível).

hemangioma cavernoso da fossa pterigopalatina não foram ainda publicados na literatura inglesa.

Relato de caso

Mulher, 65 anos, se apresentou com cefaleia e sensação de plenitude facial com duração de alguns meses. Não

foi referida qualquer outra queixa. A endoscopia normal, a avaliação otológica e o exame dos nervos cranianos estavam normais. Os exames laboratoriais, o hemograma completo e a química rotineira do sangue estavam normais. A tomografia computadorizada revelou lesão de tecido mole bem circunscrita, média $3,4 \times 2,8$ cm, estendia-se desde a fossa pterigopalatina esquerda até o seio cavernoso esquerdo (fig. 1). A lesão provocava remodelamento na

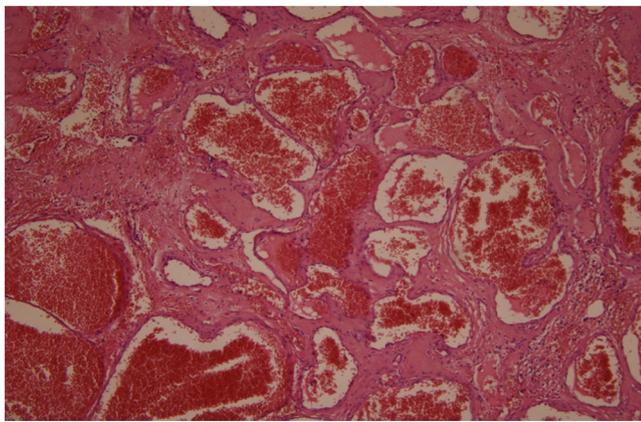


Figura 4 Exame histológico. Espaços vasculares ramificantes, consistentes com hemangioma, H-E, $\times 100$.

parede posterolateral do seio maxilar e expansão do seio cavernoso; além disso, empurrava a parede posterior do seio maxilar em uma direção anterior e a parede lateral do seio esfenoidal em uma direção medial.

O estudo de IRM contrastado revelou lesão densa-heterogênea, levemente hiperintensa nas imagens ponderadas em T2 e hipointensa nas imagens ponderadas em T1 (fig. 2).

Fizemos ressecção endonasal endoscópica da lesão vascular sob anestesia geral, sem qualquer complicação. Na primeira operação, removemos a parede medial do seio maxilar; em seguida fizemos uma antrostomia ampla. Acrescentamos uma etmoidectomia anterior e posterior com o objetivo de melhorar a visualização da parte posterior do seio maxilar. Depois desses procedimentos, fizemos esfenoidotomia e identificamos o recesso opticocarotídeo para avaliação da relação com o seio cavernoso. Removemos parcialmente a parede posterior do seio maxilar e o tumor foi visualizado na fossa pterigopalatina (FPP) (fig. 3). Nesse estágio, a artéria esfenopalatina foi cauterizada, devido à possibilidade de sangramento. Finalmente, o tumor foi dissecado das estruturas anatômicas vizinhas com cautério

bipolar, com excisão total. O exame histopatológico revelou um hemangioma cavernoso (fig. 4).

Discussão

Hemangiomas são tumores vasculares benignos, situados mais comumente na região da cabeça e do pescoço. Raramente, essas lesões têm origem na área sinonasal. Esses tumores podem surgir de partes ósseas, mucosas e submucosas da cavidade nasal e dos seios paranasais. Na literatura, já foram descritos numerosos sistemas de classificação para hemangiomas e a subtipagem histológica é o sistema mais adotado. Os hemangiomas são classificados em três subtipos, de acordo com o diâmetro vascular dominante na avaliação histológica: capilares, cavernosos e mistos.^{4,5}

Os hemangiomas capilares são os mais comuns, são observados mais frequentemente em crianças; em geral, localizam-se na mucosa oral, língua e pele. Normalmente, essas lesões podem regredir de forma espontânea, no início da infância; por essa razão, não é recomendado o tratamento cirúrgico.⁴ Os hemangiomas cavernosos são malformações congênitas raras, que podem se manifestar durante a vida adulta e não envolvem espontaneamente.^{3,6}

A abordagem cirúrgica à fossa pterigopalatina (FPP) é tarefa difícil, por questões anatômicas (fig. 5). A FPP está localizada anteriormente às placas pterigoides, posteriormente ao seio maxilar e inferiormente à fossa craniana média. Habitualmente, a FPP apresenta lesões com origem na base do crânio, cavidades nasal e oral e órbita. No diagnóstico diferencial para as massas na FPP, devem ser consideradas diversas moléstias – como cistos epidermóides, meningoceles, carcinomas, melanomas, schwannomas, neurofibromas, neurofibrossarcomas, cordomas e teratomas.⁷ A abordagem cirúrgica de rotina à FPP é o procedimento de Caldwell-Luc. No entanto, essa técnica oferece uma vista intraoperatória limitada e torna necessária uma incisão no sulco gengivolabial. A técnica também está associada a algumas complicações, como

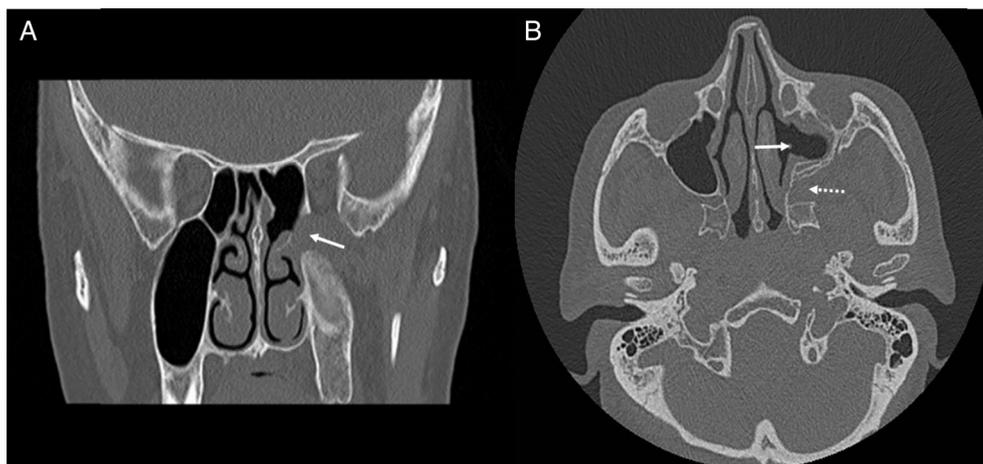


Figura 5 Imagens de TC obtidas após a cirurgia. (A) TC coronal. Não se nota recorrência do tumor na fossa pterigopalatina (a seta indica a fossa pterigopalatina); (B) TC axial. O seio maxilar e a fossa pterigopalatina esquerdos estão normais (a seta indica a antrostomia meatal ampla e a seta pontilhada indica a fossa pterigopalatina).

sinusite recorrente, dor ou dormência na face e dentes, inchaço facial e lesão ao nervo infraorbitário e vasos.^{8,9}

Em nosso caso, não recorremos à citologia de aspiração por agulha fina, tendo em vista que a massa estava localizada em uma área não acessível a essa técnica de biópsia. Assim, nos baseamos apenas na análise do sangue, nas modalidades imagiológicas e no exame clínico para o diagnóstico. No exame radiológico pré-operatório, a lesão foi considerada um tumor de tecido sólido. Empregamos a abordagem endoscópica transnasal para a excisão de um tumor de tecido mole que se prolongava desde a FPP até o seio cavernoso.

Podemos recorrer a estudos pré-operatórios como TC e IRM para definir a localização e a extensão de hemangiomas. Os achados de TC para hemangiomas cavernosos consistem em lesões com densidade de tecido mole (massa circunscrita) e também com realce após a injeção de contraste. Os hemangiomas da cavidade nasal e dos seios paranasais podem causar algumas alterações no osso adjacente. Em geral, essas alterações têm aspecto benigno nas modalidades imagiológicas. Dillon *et al.* reportaram que três de seis pacientes com hemangioma cavernoso da cavidade nasal se apresentaram com alterações ósseas adjacentes. Além disso, todos esses três casos exibiam mudanças benignas e consistiam em remodelagem e expansão.⁵ Por outro lado, os hemangiomas demonstram sinal isoíntenso ou hipointenso na IRM ponderada em T1 e sinal hiperintenso nas imagens ponderadas em T2. Além disso, esses tumores exibem grande intensificação por contraste.¹⁰

A angiografia e a embolização transarterial são técnicas preciosas para o diagnóstico e o tratamento dos hemangiomas, uma vez que a biópsia e a cirurgia podem causar sangramento. A embolização transarterial pode ser empregada como opção terapêutica opcional para hemangiomas cavernosos.

O tratamento apropriado de um hemangioma sinonasal consiste em excisão ampla do tumor, juntamente com o tecido mole ou mucosa subjacente, e na cauterização ou ligação dos vasos nutrizes. Em casos com lesões extensas, a embolização pré-operatória poderá ter utilidade.

Conclusão

Em conclusão, hemangiomas cavernosos são lesões benignas raras da cavidade nasal e seios paranasais. O presente caso é

o primeiro hemangioma cavernoso primário bem documentado da fossa pterigopalatina. Removemos completamente a lesão com o uso da abordagem transnasal endoscópica, sem emprego de embolização pré-operatória.

Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

Referências

1. Eivazi B, Ardelean M, Bäuml W, Berlien HP, Cremer H, Elluru R, et al. Update on hemangiomas and vascular malformations of the head and neck. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2009;266:187-97.
2. Archontaki M, Stamou AK, Hajioannou JK, Kalomenopoulou M, Korkolis DP, Kyrizakis DE. Cavernous haemangioma of the left nasal cavity. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2008;28:309-11.
3. Osborn DA. Haemangiomas of the nose. *J Laryngol Otol.* 1959;73:174-9.
4. Duvvuri U, Carrau RL, Kassam AB. Vascular tumors of the head and neck. In: Bailey BJ, Johnson JT, Newland SD, editors. *Head and neck surgery-otolaryngology.* Philadelphia, PA: Lippincott Williams & Wilkins; 2006. p. 1811-25.
5. Dillon WP, Som PM, Rosenau W. Hemangioma of the nasal vault: MR and CT features. *Radiology.* 1991;180:761-5.
6. Caylakli F, Cagici AC, Hurcan C, Bal N, Kizilkilic O, Kiroglu F. Cavernous hemangioma of the middle turbinate: a case report. *Ear Nose Throat J.* 2008;87:391-3.
7. Ozer E, Kanlikama M, Bayazit YA, Mumbuc S, Sari I, Gok A. A unique case of an epidermoid cyst of the pterygopalatine fossa and its management. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2003;67:1259-61.
8. Har-El G. Combined endoscopic transmaxillary-transnasal approach to the pterygoid region, lateral sphenoid sinus, and retrobulbar orbit. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2005;114:439-42.
9. Low WK. Complications of the Caldwell-Luc operation and how to avoid them. *Aust N Z J Surg.* 1995;65:582-4.
10. Kakimoto N, Tanimoto K, Nishiyama H, Murakami S, Furukawa S, Kreiborg S. CT and MR imaging features of oral and maxillofacial hemangioma and vascular malformation. *Eur J Radiol.* 2005;55:108-12.