

PRESENTACIÓN DE CASO

**Linfangioma quístico en el reborde alveolar en recién nacido.
Presentación de un caso clínico**

Cystic Lymphangioma of the alveolar ridge in a neonate. A case report

Ailín Torres Íñiguez ¹, Elmis Pérez Tamayo ², Yamila Tejeda Tamayo ³, Milagros Olivera Pérez ⁴, Julio Ramón Martínez Pupo⁵

1. Maestría de Urgencias Estomatológicas. Especialista de Primer Grado en Cirugía Maxilofacial. Profesor Auxiliar. Hospital Pediátrico Octavio de la Concepción de la Pedraja. Holguín. Cuba.
2. Especialista de Primer Grado en Cirugía Maxilofacial. Instructor. Hospital Pediátrico Octavio de la Concepción de la Pedraja. Holguín. Cuba.
3. Especialista de Primer Grado en Estomatología General Integral. Instructor. Hospital Pediátrico Octavio de la Concepción de la Pedraja. Holguín. Cuba.
4. Licenciada en Prótesis Estomatológica. Instructor. Hospital Pediátrico Octavio de la Concepción de la Pedraja. Holguín. Cuba.
5. Especialista de Primer Grado en Prótesis Estomatológica. Instructor. Hospital Militar de Holguín. Holguín. Cuba.

RESUMEN

El linfangioma es una lesión benigna que se origina del tejido linfático. Se considera también una proliferación hematomatosa de los vasos linfáticos y tejidos asociados, por lo que representa una anomalía del desarrollo o malformación congénita que aparece en niños durante los primeros años de vida. La mayoría aparece desde el nacimiento y aproximadamente en el 90% de los casos surgen hasta los 2 años de edad. Esta lesión se presentó en el reborde alveolar inferior de una niña recién nacida, con su base en la zona de los incisivos inferiores, de 3 cm de diámetro, valorada por el cirujano maxilofacial del Hospital Pediátrico Octavio de la Concepción de la

Pedraja, de Holguín, en enero del 2006. Se le realizó una intervención quirúrgica a las 16 horas de nacida, pues el linfangioma impedía su alimentación. La biopsia corroboró este diagnóstico. Se evolucionó por varios años hasta la actualidad sin presentar recidivas ni secuelas. No necesitó otros tratamientos.

Palabras clave: linfangioma, anomalía del desarrollo, malformación congénita, intervención quirúrgica.

ABSTRACT

Lymphangioma is a benign lesion that originates from lymphatic tissue. It is also considered a hematomatous proliferation of lymphatic vessels and associated tissues, so it is a developmental anomaly or congenital malformation that appears in children during the first years of life. Most of these lesions appear from birth and approximately 90% of cases arise up to 2 years of age. This lesion was located in the lower alveolar ridge of a newborn girl, with its base in the area of the lower incisors, 3 cm in diameter, assessed by the maxillofacial surgeon of the Pediatric University Octavio de la Concepción de la Pedraja Hospital, on January 2006. Surgical intervention was carried out at 16 hours from birth, since the lymphangioma prevented its feeding. The biopsy corroborated this diagnosis. The patient was consulted for several years to date without recurrence or sequelae. The patient did not need other additional treatments.

Keywords: lymphangioma, development anomaly, congenital malformation, surgical process.

INTRODUCCIÓN

Los linfangiomas son lesiones benignas que se originan del tejido linfático. Se ha estudiado su naturaleza neoplásica y se considera que esas lesiones constituyen proliferaciones hematomatosas de los vasos linfáticos y tejido asociado, lo que representa, por lo tanto, una anomalía del desarrollo o malformación congénita, que se produce generalmente en niños durante los primeros años de la vida. Su surgimiento precoz se debe a que el sistema linfático empieza su desarrollo durante la sexta semana embrionaria, de esta forma, la mayoría de las lesiones aparecen desde el nacimiento y aproximadamente en el 90% de los casos surgen hasta los 2 años de edad, probablemente como resultado de ser este un período de gran desarrollo del sistema linfático.¹ Se localizan más frecuentemente en cabeza y cuello, y resulta la región cervical un área de

predilección del linfangioma quístico o higroma. En la boca son pocos frecuentes, se observan principalmente en el dorso de la lengua, paladar, mucosa yugal, y labios.²

Clínicamente, los linfangiomas bucales se presentan como lesiones nodulares, aisladas o múltiples, superficiales o profundas, los más profundos están, por lo general, recubiertos por una mucosa de color normal y los superficiales aparecen como nódulos de tamaño variado, parecidos a vesículas, aislados o múltiples, suaves a la palpación y generalmente asintomáticos, su coloración puede variar de rosa pálido al rojo púrpura, contienen la linfa en su interior y raramente sangre, excepto en los casos que sufren trauma.³

El diagnóstico se establece mediante la anamnesis, el examen físico y la biopsia, que proveerá material para el examen histopatológico. Los exámenes complementarios, como radiografía o ecografía, pueden indicarse en lesiones superficiales.

También para localizar lesiones más grandes o más profundas se solicitan exámenes especiales por imagen, como la tomografía computadorizada, resonancia magnética o angiografía.

Histopatológicamente se distinguen 3 tipos de linfangioma, según la dimensión de los canales linfáticos: el quístico, el cavernoso y el capilar o simple. En el linfangioma quístico o higroma ocurre considerable dilatación de los canales linfáticos, que crean espacios macroscópicos semejantes a quistes.⁴

Las opciones terapéuticas para el tratamiento del linfangioma bucal son extirpación quirúrgica, esclerosis y crioterapia, electrocauterización y láser. El tratamiento puede ser mediante escisión quirúrgica o esclerosis de la lesión, por acción de esclerosantes, como el OK-432, también llamado Picibanil. Se han descrito otras sustancias como la bleomicina oleosa microemulsionada, adhesivos de fibrina y el alcohol de Zein²⁰⁻²². Existen trabajos novedosos con el uso de interferón y ciclofosfamida, al considerar esta lesión como un tumor endotelial en casos fuera del alcance quirúrgico y médico, además de haber usado los esteroides.^{5,6}

El linfangioma en el reborde alveolar no es muy conocido en la literatura y puede aparecer en la segunda semana o a los 6 meses de vida; su apariencia puede cambiar con el tiempo, llegar a ser eritematoso y en otros casos fibroso. No se ha reportado en niños mayores y parece que resuelve espontáneamente o con un trauma masticatorio o con el brote dentario. Aunque de etiología desconocida, en los casos bilaterales se piensa que sea congénita. Que se desarrolle en la zona donde existen dientes, hace pensar que tenga relación con el aparato odontogénico.⁷⁻⁹

El tratamiento quirúrgico es necesario; no es peligroso ni por la aspiración ni por el sangramiento, ni ocasiona la pérdida de dientes. Si interfiere en la masticación o respiración, hay que eliminarlos rápidamente. El pronóstico del linfangioma está relacionado con la localización y extensión del tumor.^{10,11}

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente femenina del área de salud de Pedro Díaz Coello, Holguín, de 16 horas de nacida, valorada en enero del 2006 por un cirujano maxilofacial del Hospital Pediátrico Octavio de la Concepción de la Pedraja, de Holguín, a las 10 horas de su nacimiento, por presentar un aumento de volumen de aproximadamente 3 cm de diámetro que emergía del reborde alveolar inferior con su base en la zona de los incisivos inferiores. De consistencia duro elástica, coloración rosada, con un vaso sanguíneo que lo nutría. ([Fig.1](#))



Fig.1. Lesión original.

Por su localización, le impedía la alimentación, por lo que se extirpó con anestesia local a las 16 horas de nacida, teniendo en cuenta que la base era pequeña. ([Fig. 2](#)) La [figura 3](#) muestra a la paciente con la lesión recién extirpada. El diagnóstico de anatomía patológica fue un linfangioma del reborde alveolar. ([Fig. 4](#)) La paciente evolucionó favorablemente, la lesión no recidivó y no necesitó de otros tratamientos.



Fig.2. Extirpación de lesión.



Fig. 3. Lesión extirpada.

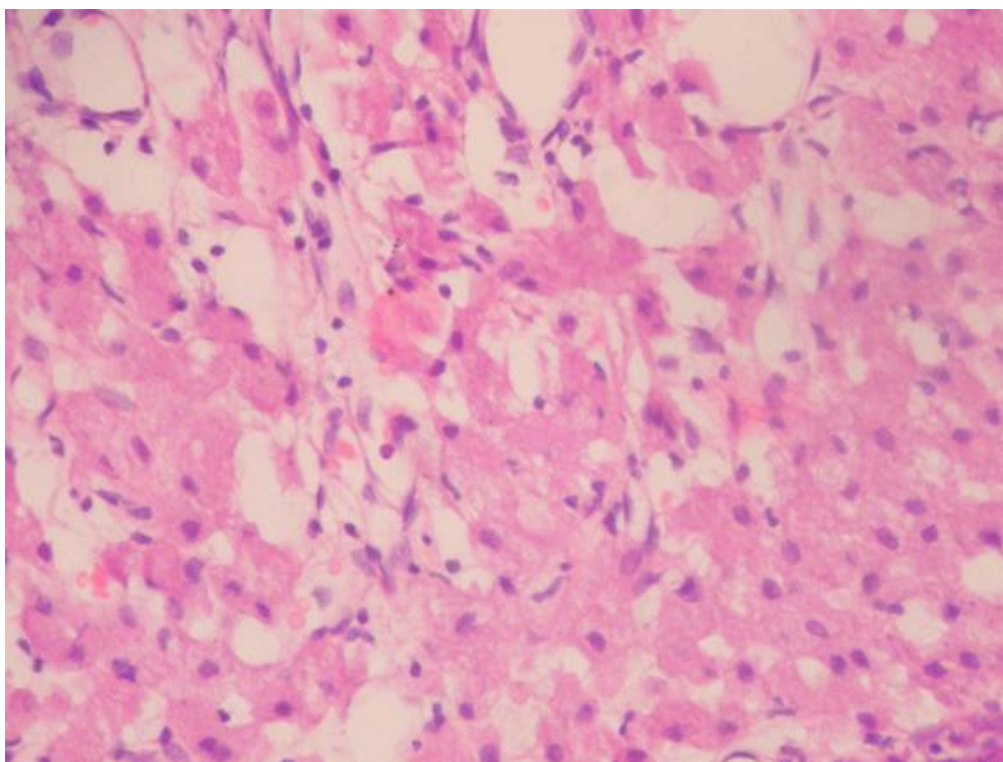


Fig. 4. Muestra de tejido del linfangioma.

DISCUSIÓN

El linfangioma es una lesión benigna de origen linfático o proliferación hematomatosa de los vasos linfáticos y tejidos asociados, que representa una malformación congénita en los primeros años de vida.¹ Son más frecuentes en la cabeza y cuello, no así en la boca, donde se hallan principalmente en el dorso de la lengua, paladar, mucosa yugal, y labios.² Clínicamente, los linfangiomas bucales se presentan como lesiones nodulares, aisladas o múltiples, superficiales o profundos, los más profundos están generalmente recubiertos por una mucosa de color normal y los superficiales aparecen como nódulos de tamaño variado, parecidos a vesículas, aislados o múltiples, suaves a la palpación y generalmente asintomáticos, su color puede variar de rosa pálido al rojo púrpura, contienen linfa en su interior y raramente sangre, excepto en los casos que sufren trauma.³

El linfangioma en el reborde alveolar puede aparecer en la segunda semana o a los 6 meses de vida; su apariencia puede cambiar con el tiempo y llegar a ser eritematoso y a veces fibroso. No se han reportado en niños mayores y parece que se resuelve espontáneamente o con un trauma masticatorio o el brote dentario.

Su pronóstico está relacionado con la localización y extensión del tumor.

La lesión de la recién nacida le impedía la alimentación normal y se extirpó con anestesia local a las 16 horas del nacimiento, teniendo en cuenta que la base era pequeña. El diagnóstico histopatológico fue un linfangioma del reborde alveolar, su evolución favorable, la lesión no recidivó ni necesitó de otros tratamientos.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Bloom D, Carvalho D, Edmonds J. Neonatal der-moid cyst of the floor of the mouth extending to the midline neck. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2002[citado 23 mar 2017]; 128(1):68–70. Disponible en: <http://archotol.jamanetwork.com/article.aspx?articleid=482678>
2. Ogita K, Suita S, Taguchi T, Yamanouchi T, Masumoto K, Tsukimori K, *et al.* Out-come of fetal cystic hygroma and experience of intrauterine treatment. *Fetal Diagn Ther*. 2001[citado 23 mar 2017]; 16(2):105–110. Disponible en: <https://www.karger.com/Article/Abstract/53891>
3. Hendrickson M, Azarow K, Ein S, Shandling B, Thorner P, Daneman A. Congenital thy-mic cysts in children—mostly misdiagnosed. *J Pediatr Surg* .1998[citado 23 mar 2017]; 33(6):821–825. Disponible en: <http://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468%2898%2990650-9/pdf>
4. Johnson MP , Johnson A, Holzgreve W, Isada NB, Wapner RJ, Treadwell MC. First trimester simple hygroma: cause and outcome. *Am J Obstet Gynecol*. 1993[citado 23 mar 2017]; 168(1):156–161. Disponible en: <http://www.ajog.org/article/S0002-9378%2812%2990906-0/pdf>
5. Gallagher PG, Mahoney MJ, Gosche JR. Cystic hygroma in the fetus and newborn. *Semin Perinatol*. 1999[citado 23 mar 2017]; 23(4):341–356. Disponible en: <http://www.seminperinat.com/article/S0146-0005%2899%2980042-1/abstract>
6. Rojo Aliaga J, Fernández Solís J, Valencia Laseca E, Sánchez López JD, Quesada Bravo J, Antonio Sicilia M. Linfangioma en territorio de cabeza y cuello: A propósito de siete casos. 2001[citado 23 mar 2017]; 23(6): 358-364. Disponible en: <http://dialnet.unirioja.es/servlet/articulo?codigo=2236288>
7. López Díaz ZS. Tumores neonatales bucomaxilofaciales. *Rev Cubana Estomatol*.2007 [citado 6 oct 2015];44(4). Disponible en: http://scielo.sld.cu/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0034-75072007000400004&Ing=es

8. Emery PJ, Bailey CM, Evans JN. Cystic hygroma of the head and neck: a review of 37 cases. J Laryngol Otol .1984 [citado 23 mar 2017];98(6):613-619.Disponible en: <http://journals.cambridge.org/action/displayAbstract?fromPage=online&aid=1115440>
9. Trần Ngọc T, Xuân Ninh T. Cystic hygroma in children: a report of 126 cases. J Pediatr Surg. 1974[citado 23 mar 2017]; 9(2):191-195.Disponible en: [http://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468\(74\)80120-X/pdf](http://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468(74)80120-X/pdf)
10. Kennedy TL, Whitaker M, Pellitteri P, Wood WE. Cystic hygroma/ lymphangioma: a rational approach to management. Laryngoscope. 2001[citado 23 mar 2017]; 111(11):1929-1937. Disponible en: <http://onlinelibrary.wiley.com/journal/10.1002/%28ISSN%291531-4995>
11. Molitch HI, Unger EC, Witte CL, vanSonnenberg E. Percutaneous sclerotherapy of lymphangioma. Radiology. 1995[citado 23 mar 2017]; 194(2):343-347.Disponible en: <http://pubs.rsna.org/doi/abs/10.1148/radiology.194.2.7529933>

Recibido: 12 de julio de 2016

Aprobado: 18 de octubre de 2016

MSc. *Yamila Tejeda Tamayo*. Hospital Pediátrico Octavio de la Concepción de la Pedraja. Holguín, Cuba.

Correo electrónico: ytejeda@infomed.hlg.sld.cu