

Acta Otorrinolaringológica

ISSN: 2340-3438

Editada: Sociedade Gallega de
Otorrinolaringología.

Periodicidade: continuada.

Web: www.sgorl.org/revista

Correo electrónico:

actaorlgallega@gmail.com

SGORL PCF
Sociedade Gallega de Otorrinolaringología
y Patología Cervicofacial



Caso Clínico

Hemangioma capilar lobular do septo nasal em dois pa- cientes jovens

Lobular capillary haemangioma of the nasal septum in two young patients

Pedro Valente, Isabel Gomes Pinto, José Ferreira Penêda, Rita Gama,
João Lorangeiro, Eugénia Castro, Artur Condé

Serviço de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar de Vila Nova de
Gaia/Espinho, EPE

Recibido: 7/7/2018 Aceptado: 3/9/2018

Resumo

O hemangioma capilar lobular nasal (HCL), também conhecido por granuloma piogénico, é um tumor benigno localizado na cavidade nasossinusal. A ocorrência de HCLs no septo nasal é muito rara, particularmente em crianças, sendo os sintomas de apresentação mais comuns a dor, epistáxis recorrente e/ou obstrução nasal unilateral. Atualmente a sua etiologia e fatores predisponentes, nomeadamente trauma, gravidez ou fatores hormonais, estão ainda pouco esclarecidos. O tratamento envolve a excisão cirúrgica da lesão, que pode, no entanto, apresentar recorrência. O diagnóstico diferencial de uma massa intranasal engloba um diverso conjunto de processos congénitos, inflamatórios e neoplásicos, sendo que a distinção entre o HCL e as lesões malignas é dificultada pelo seu rápido crescimento e apresentação frequente em contexto de epistáxis. Um alto índice de suspeição, em conjunto com o exame histológico, são essenciais para garantir um tratamento adequado.

Palavras-chave: Hemangioma capilar lobular, granuloma piogénico, epistáxis

Abstract

Lobular capillary haemangioma (LCH), also referred as pyogenic granuloma, is a benign tumour, located in the sinonasal cavity. The occu-

Correspondencia: Pedro Valente

Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia/Espinho, EPE

Correo electrónico: pedrofmvalente@gmail.com

rence of LCH in the nasal septum is very rare, particularly in children and the most common presenting symptoms include pain, recurrent epistaxis and/or unilateral nasal obstruction. Currently, its etiology and the role of predisposing factors, namely trauma, pregnancy and hormonal disorders, remains unclear. The treatment entails the surgical excision of the lesion, that may recur. The differential diagnosis of an intra-nasal mass involves a number of congenital, inflammatory and neoplastic conditions, and the distinction between LCH and malignant lesions can be difficult due to their fast growth and presentation with epistaxis. A high index of suspicion, in conjunction with the histopathological exam, are the keys to ensure a proper management.

Keywords: Lobular capillary haemangioma, pyogenic granuloma, epistaxis

Introdução

O hemangioma capilar lobular (HCL) apresenta-se usualmente como uma lesão benigna, de crescimento rápido, que ocorre isoladamente na pele e mucosas. Descrita inicialmente por Poncet e Dor em 1897¹ como botriomicose humana e posteriormente designado de granuloma piogénico, o HCL consiste numa proliferação vascular de etiologia desconhecida, com uma arquitectura lobular característica ao exame microscópico. Numa série de casos pediátricos², estes tumores afectavam predominantemente a pele (88%) ou as mucosas (12%) e a maioria das lesões ocorreu na cabeça e pescoço (62%), tronco (19%) e membros (18%). Nestes doentes, a pele (81%) e mucosa da cavidade oral (13,5%) foram os locais mais comuns de envolvimento na cabeça e pescoço, sendo rara a sua presença na cavidade nasal (0,9%). A nível nasal, estas lesões ocorrem com maior frequência no septo (65%), parede nasal lateral (18%) e vestíbulo (16%)³.

Em termos epidemiológicos, esta lesão tem uma incidência mais elevada na terceira década de vida, com um predomínio no sexo feminino, contudo, após os 40 anos de idade a proporção de homens e mulheres afectados parece ser semelhante⁴. A sua ocorrência tem sido associada com a estimulação hormonal durante a gravidez ou devido a uso de contraceptivos orais. O HCL na cavidade nasal de crianças é bastante incomum⁵.

Caso Clínico

Caso 1

Criança com onze anos, género masculino, que recorreu ao Serviço de Urgência (SU) de ORL devido a epistáxis de repetição e obstrução nasal unilateral com cerca de três semanas de evolução. Sem antecedentes pessoais de relevo ou história de trauma nasal. À rinoscopia anterior observou-se na fossa nasal esquerda uma massa pediculada, friável ao toque, com implantação no septo nasal ao nível do vestíbulo (figura 1a). Esta lesão foi excisada, sob anestesia geral, através de uma incisão elíptica envolvendo o pericôndrio. No período pós-operatório verificou-se boa cicatrização do local da incisão, sem sinais de recidiva (figura 1b).



Figura 1a: Massa friável implantada na porção anterior do septo da fossa nasal esquerda.

Figura 1b: Evidência de boa cicatrização pós-operatória, em consulta após 1 mês.

Caso 2

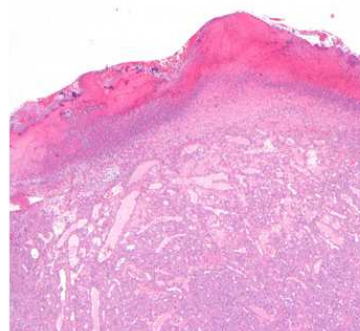
Jovem com 28 anos, do sexo feminino, que recorreu ao SU de ORL por queixas obstrução nasal e episódios recorrentes de epistáxis com cerca de um mês de evolução. Negava antecedentes pessoais ou medicação habitual. Ao exame objectivo observou-se uma lesão polipóide com origem septal, que ocupava o vestíbulo nasal direito (figura 2). A massa foi removida de forma semelhante ao caso anterior.



Figura 2: Massa da fossa nasal direita, com origem no septo nasal.

O exame histológico demonstrou, em ambos os casos, epitélio pavimentoso queratinizado, com proliferação capilar em padrão lobular compatível com o diagnóstico de HCL (figura 3). Os doentes mantiveram vigilância em consulta externa, sem sinais de recidiva da lesão após um ano de seguimento.

Figura 3: Seção histológica demonstrando lesão polipóide, rodeada por numerosos espaços vasculares e células inflamatórias, sugestivo de hemangioma capilar lobular (H&E).



Discussão

O hemangioma capilar lobular é considerado uma neoplasia vascular benigna e a sua ocorrência na cavidade nasal tem sido associada a sintomas de epistáxis (75%), obstrução nasal unilateral (36%) e dor (3%)⁶, com origem numa massa polipóide e friável com rápido crescimento.

A patogénese do HCL permanece desconhecida, embora existam teorias que suportam o papel do trauma local^{2,7}, dada a maior frequência de lesões na porção nasal anterior (área de Kiesselbach) em indivíduos com hábitos de *nose-picking* ou com antecedentes de tamponamento nasal. Em alguns casos, as alterações endócrinas também parecem desempenhar um papel etiológico^{2,4}, dada a associação de níveis aumentados de estrogénio e progesterona com a ocorrência de uma forma específica de HCL das mucosas durante a gravidez^{3,8}. Nenhum dos nossos doentes apresentava antecedentes de trauma nasal ou alterações hormonais.

A realização de estudos imagiológicos complementares, nomeadamente com tomografia computadorizada (TC) com contraste, é frequente para avaliação diagnóstica e planeamento cirúrgico. Em termos de características imagiológicas, a constatação de uma massa com captação intensa de contraste rodeada por um halo circunferencial, iso ou hipoatenuante, de espessura variável, foi verificada em 83% dos casos de HCL estudados retrospectivamente com recurso a TC⁹. A realização mandatória de um estudo imagiológico pré-operatório é objeto de controvérsia na literatura, existindo autores que o consideram imprescindível na avaliação diagnóstica¹⁰. Pelo contrário, numa série de 40 casos de HCL descrita por Puxeddu⁷, o autor obteve estudos imagiológicos apenas em 20% dos casos, e recomenda a sua realização unicamente para avaliação de lesões de grandes dimensões, especialmente se existir extensão superior em direcção à base do crânio. Nos casos descritos, dado que o local de inserção da lesão era anterior e claramente identificável, permitindo a sua excisão na totalidade, não foi considerado necessário a realização de estudo de imagem prévio.

O exame histopatológico é fundamental para o diagnóstico adequado do HCL e distinção de outros tipos de hemangiomas nasais, como o cavernoso que ocorre mais frequentemente na parede lateral da cavidade nasal. No caso do HCL, existe evidência de proliferação endotelial com espaços vasculares proeminentes, capilares em padrão lobular, ulceração do epitélio e um pedículo composto por tecido fibrovascular.

Os tratamentos mais utilizados para exérese destas lesões envolvem a curetagem, electrodissecção, crioterapia ou excisão a frio^{8,11}. A utilização de técnicas com recurso a laser ou embolização em casos seleccionados também são reportadas na literatura³. A excisão completa da lesão, complementada com a remoção do pericôndrio envolvente da base da lesão, minimiza as possibilidades de recorrência, que variam entre 0%⁷ e 42%⁶. Ao contrário das lesões cutâneas em que os métodos cirúrgicos, particularmente a excisão a frio, estão associados a taxas de recorrência inferiores¹², não existem estudos comparativos dos diversos métodos de excisão de HCL nasais. A evidência de outros fatores associados com um maior risco de recorrência é escassa, no entanto, num estudo retrospectivo com 34 casos, os doentes que apresentaram recorrência local eram significativamente mais velhos⁶. Embora a localização do HCL na parede nasal lateral tenha sido relacionada com um maior tamanho da lesão⁷, não existe evidência que relacione o risco

de recorrência com a localização intranasal do HCL.

As hipóteses de diagnóstico de uma massa intranasal incluem um vasto conjunto de patologias congénitas, inflamatórias e neoplásicas, nomeadamente pólipos nasais ou antrocoanales, meningoencefalocelo, sarcoidose, granulomatose com poliangeíte, papiloma, sarcoma de Kaposi, hemangiosarcoma, carcinoma espinocelular ou melanoma maligno da mucosa. Embora seja uma lesão rara, particularmente na população pediátrica, o HCL deve ser considerado no diagnóstico diferencial de lesões vasculares nasais associadas com epistaxis unilateral e obstrução nasal.

Declaração de conflito de interesses: Nenhum conflito de interesses a declarar.

Bibliografia

- 1- Poncet A, Dor L. Botryomycose humaine. Rev. Chir. 1897;18:996.
- 2- Patrice SJ, Wiss K, Mulliken JB. Pyogenic granuloma (lobular capillary hemangioma): a clinicopathologic study of 178 cases. *Pediatr. Dermatol.* 1991;8(4):267-276.
- 3- Delbrouck C, Chamiec M, Hassid S, Ghanooni R. Lobular capillary haemangioma of the nasal cavity during pregnancy. *J. Laryngol. Otol.* 2011;125(9):973-977.
- 4- Lopez A, Tang S, Kacker A, Scognamiglio T. Demographics and etiologic factors of nasal pyogenic granuloma. *Int Forum Allergy Rhinol.* 2016;6(10):1094-1097.
- 5- Marino-Sanchez F, Lopez-Chacon M, Jou C, Haag O. Pediatric intranasal lobular capillary hemangioma: Report of two new cases and review of the literature. *Respir Med Case Rep.* 2016;18:31-34.
- 6- Smith SC, Patel RM, Lucas DR, McHugh JB. Sinonasal lobular capillary hemangioma: a clinicopathologic study of 34 cases characterizing potential for local recurrence. *Head Neck Pathol.* 2013;7(2):129-134.
- 7- Puxeddu R, Berlucchi M, Ledda GP, Parodo G, Farina D, Nicolai P. Lobular capillary hemangioma of the nasal cavity: A retrospective study on 40 patients. *Am. J. Rhinol.* 2006;20(4):480-484.
- 8- Zarrinnesan AA, Zapanta PE, Wall SJ. Nasal pyogenic granuloma. *Otolaryngol. Head Neck Surg.* 2007;136(1):130-131.
- 9- Lee DG, Lee SK, Chang HW, et al. CT features of lobular capillary hemangioma of the nasal cavity. *AJNR Am. J. Neuroradiol.* Apr 2010;31(4):749-754.
- 10- Nayak DR, Bhandarkar AM, Shivamurthy A, Joy J. Intranasal lobular capillary haemangioma. *BMJ Case Rep.* Oct 10 2014;2014.
- 11- Ifeacho SN, Caulfield HM. A rare cause of paediatric epistaxis: lobular capillary haemangioma of the nasal cavity. *BMJ Case Rep.* 2011;2011.
- 12- Lee J, Sinno H, Tahiri Y, Gilardino MS. Treatment options for cutaneous pyogenic granulomas: a review. *J. Plast. Reconstr. Aesthet. Surg.* Sep 2011;64(9):1216-1220.