

RELATO DE CASO

RELATO DE LESÃO CONGÊNITA DE TECIDO ADIPOSE RARA EM RECÉM-NASCIDO

MULTIPLE TRICHOEPITHELIOMA IN A CHILD - CASE REVIEW

Nilson Ferreira de Oliveira Neto¹, Stéfani Santana², Luiz Fernando Barbosa de Paulo³, Adriano Mota Loyola⁴, Sérgio Vitorino Cardoso⁵, Ana Paula Turrioni⁶.



ACESSO LIVRE

Citação: Neto NFO, Santana S, Paulo LFB, Loyola AM, Cardoso SV, Turrioni AP. (2021) Relato de lesão congênita de tecido adiposo rara em recém-nascido. Revista de Patologia do Tocantins, 8(3).

Instituição: ¹Cirurgião-dentista e aluno de mestrado, Departamento de Odontologia Pediátrica, Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Uberlândia, Uberlândia, MG, Brasil. ² Cirurgiã-dentista, Rua Sacramento, 458 – Centro, CEP: 38760-000, Serra do Salitre, MG, Brazil. ³Cirurgião-dentista, Mestre em Clínica Odontológica Integrada com ênfase em Estomatologia pela Universidade Federal de Uberlândia (UFU), Doutor em Clínica Odontológica Integrada com ênfase em Patologia Bucal pela UFU, Residência em Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial pelo Hospital de Clínicas da Universidade Federal de Uberlândia - HC/UFU, Estomatologista do Hospital Odontológico/Hospital do Câncer da Universidade Federal de Uberlândia, Uberlândia, MG, Brasil. ⁴Cirurgião-dentista, Mestre em Patologia Bucal pela Universidade Federal do Rio de Janeiro (UFRJ), Doutor em Odontologia, com área de concentração em Patologia Bucal, pela Universidade de São Paulo (USP), Professor Titular do Departamento de Patologia Bucal, Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Uberlândia, Uberlândia, MG, Brasil. ⁵Cirurgião-dentista, Mestre e Doutor em Patologia pela Universidade Federal de Minas Gerais (UFMG), Pós-Doutorado no Laboratório de Patologia Bucal da Universidade Federal de Uberlândia (UFU), Docente permanente no Programa de Pós-Graduação (PPG) em Odontologia da UFU e Professor associado do Departamento de Patologia Bucal, Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Uberlândia, Uberlândia, MG, Brasil. ⁶Cirurgiã-dentista, Residência Multiprofissional em Saúde da Família e Comunidade pela Universidade Federal de São Carlos - UFSCar, Mestrado e Doutorado em Ciências Odontológicas - Odontopediatria pela Faculdade de Odontologia de Araraquara – Unesp, Docente permanente no Programa de Pós-Graduação (PPG) em Odontologia da UFU, Professor Adjunto do Departamento de Odontologia Pediátrica, Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Uberlândia, Uberlândia, MG, Brasil.

Autor correspondente: Ana Paula Turrioni. Faculdade de Odontologia, Universidade Federal de Uberlândia – UFU. Departamento de Odontologia Pediátrica Avenida Pará, 1720, Bloco 2G sala 02 - Campus Umuarama, CEP: 38405-320 Tel: +55 (34) 3225-8146. e-mail: apturrioni@ufu.br

Editor: Rosa A. C. G. Medicina, Universidade Federal do Tocantins, Brasil.

Publicado: 05 de novembro de 2021.

Direitos Autorais: © 2021 Neto et al. Este é um artigo de acesso aberto que permite o uso, a distribuição e a reprodução sem restrições em qualquer meio, desde que o autor original e a fonte sejam creditados

Conflito de interesses: os autores declararam que não existem conflitos de interesses.

RESUMO

Introdução: Hamartomas são crescimentos anormais compostos por diferentes tecidos e células que são geralmente endógenos ao local onde a lesão se desenvolve. Não possuem natureza inflamatória ou neoplásica, apresentam-se com crescimento autolimitante e, na maioria dos casos, não regredem espontaneamente. Hamartomas linguais são reportados raramente e são observados de forma isolada. Um achado ainda mais raro, são os hamartomas linguais que possuem predominância de tecido lipomatoso (adipócitos e/ou lipoblastos). Diante de sua apresentação incomum em cavidade oral, o diagnóstico diferencial para lesões lipomatosas benignas comuns na infância se faz necessário. **Desenvolvimento:** O presente estudo objetivou reportar um caso clínico referente ao diagnóstico de Hamartoma Lipoblastomatoso (HL) em recém-nascido saudável (três meses de idade, gênero feminino) a qual foi encaminhada à Universidade Federal de Uberlândia - Departamento de Odontologia Pediátrica, apresentando-se com lesão de crescimento rápido, localizada na língua e, de acordo com relato da mãe, presente desde o nascimento, e desta forma, dificultando a amamentação. No exame clínico, observou-se lesão (aproximadamente 0,5 cm de diâmetro) localizada no dorso de língua, pediculada, de consistência mole, superfície lisa e de mesma coloração do tecido de inserção. Devido à sucção limitada durante a amamentação e ao crescimento da lesão, a remoção cirúrgica foi realizada sob anestesia local e o espécime foi encaminhado para realização de análise histopatológica. A associação entre os achados clínicos e histopatológicos levou ao diagnóstico de Hamartoma lipoblastomatoso. Após seis meses de acompanhamento, viu-se que a amamentação ocorria de forma adequada e o local da cirurgia completamente cicatrizado sem sinal de recidiva. **Considerações finais:** O HL deve ser levado em consideração como diagnóstico diferencial para tumores com predominância de tecido adiposo em crianças com menos de dois anos de idade. A conduta de remoção cirúrgica da lesão se mostrou eficaz na resolução do caso do presente estudo.

Palavras-chave: Amamentação; Hamartoma; Recém-nascido

ABSTRACT

Introduction: Hamartomas are abnormal growths that are composed of a mixture of tissues and cells that are usually endogenous to the area in which the lesion develops. These growths do not have an inflammatory or neoplastic nature, presenting self-limiting growth and most of them do not regress spontaneously. Lingual hamartomas are rarely reported and usually exist as isolated clinical cases. Even less common, lingual hamartomas that consist predominantly of lipomatous tissue (adipocytes and/or lipoblasts). Because its uncommon presentation in oral tissues, differential diagnosis for lipomatous benign tumor in childhood and infancy is mandatory. **Development:** We present a clinical case concerning the diagnosis of lipoblastomatous hamartoma (LH) in otherwise healthy newborn. The patient (a three-month old female) was referred to the Federal University of Uberlândia (UFU - Minas Gerais, Brazil) - Department of Pediatric Dentistry with a rapidly-growing lesion on the tongue, which according to the mother, was present at birth and hindering breastfeeding. An intra-oral clinical examination showed a lesion (approximate diameter of 0.5 cm) on the dorsum of the tongue that was pediculated, soft, smooth, and with a color similar to that of the insertion tissue. Complete surgical excision and a subsequent biopsy were chosen given that the lesion was growing and inhibiting breastfeeding. Surgical removal was performed in an outpatient setting under local anesthesia and the specimen was sent to a laboratory for histopathological analysis. The association between clinical and histopathological findings led to a diagnosis of lipoblastomatous hamartoma. Six months of follow-up examinations showed that breastfeeding was adequate and that the surgery had healed completely with no sign of lesion recurrence. **Final comments:** LH should take into consideration as a differential diagnosis in fat tumors in children under two years old. The removal of the lesion was shown to be effective in resolving the case.

Keywords: Breastfeeding; hamartoma; newborn.

INTRODUÇÃO

A distinção entre neoplasias benignas e hamartomas nem sempre é uma tarefa fácil. No entanto, a história médica e os achados clínicos e histopatológicos atuam auxiliando no diagnóstico da lesão. As neoplasias costumam se desenvolver tardiamente, possuem crescimento autônomo e compõem-se, frequentemente, de um único tecido⁽¹⁾. Por outro lado, os hamartomas são lesões que apresentam aumento de volume e crescimento autolimitante e assumem assim um caráter congênito, geralmente em regiões próximas à linha média do corpo⁽²⁾.

Os hamartomas linguais são raramente encontrados na população pediátrica. Geralmente, são lesões assintomáticas, pequenas, polipóides, nodulares ou pediculadas⁽²⁾. Os hamartomas leiomiomatosos são os mais comuns na cavidade oral em relação aos demais tipos. Já aqueles constituídos predominantemente por tecido adiposo são achados ainda mais raros^(3,4). Devido à sua apresentação incomum nos tecidos orais, o hamartoma composto por tecido lipomatoso (adipócitos e / ou lipoblastos) não é bem conhecido, sendo o diagnóstico diferencial para tumor benigno lipomatoso na infância considerado de grande importância⁽⁵⁻⁷⁾. Os lipoblastomas, por exemplo, são constituídos, principalmente de células que lembram lipoblastos encontrados no tecido adiposo embrionário e que vêm sendo descrito em criança antes dos três meses de idade, em duas variantes distintas: lipoblastoma (localizado) e lipoblastomatose (difuso)⁽³⁾.

O presente estudo teve o intuito de reportar um caso clínico referente ao diagnóstico de hamartoma lipoblastomatoso (HL) em um bebê saudável, assim como realizar uma breve revisão da literatura a respeito do tema com ênfase no diagnóstico diferencial e natureza dessa lesão.

DESCRIÇÃO DO CASO

Um bebê saudável de três meses de vida, gênero feminino, foi encaminhado à Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Uberlândia (UFU – Minas Gerais, Brasil) – Departamento de Odontopediatria, devido à presença de lesão localizada em dorso de língua, e que segundo a mãe, a mesma dificultava a amamentação.

Os exames e consultas pré-natais foram realizados de forma adequada. Durante a gestação, a mãe foi diagnosticada com hipertireoidismo, diabetes gestacional e anemia. Ao nascer, o bebê não apresentou sinais de anóxia, cianose, hemorragia ou dificuldade de sucção e respiração.

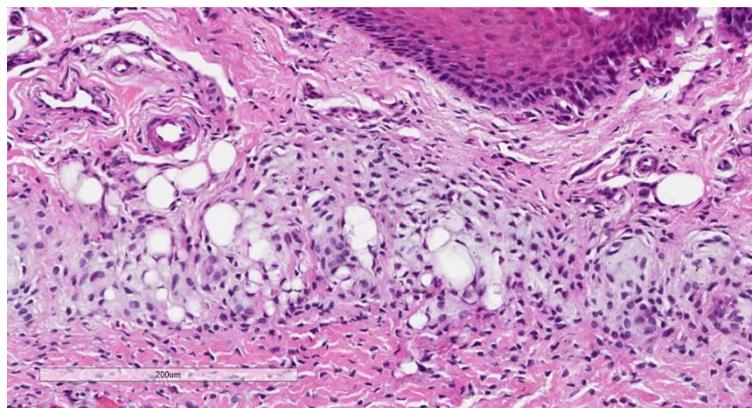
No exame clínico intra-oral, notou-se lesão em dorso de língua (fig. 1) da mesma coloração do tecido de inserção, pediculada, de consistência mole, superfície lisa, de aproximadamente 0,5 cm de diâmetro. Não foram observados sinais de invasão tecidual, infecção ou trauma na região.

Figura 1: Aspecto inicial e localização da lesão.



A remoção cirúrgica foi realizada sob anestesia local (Alphacaina 2%® Lidocaína com Epinefrina 1:100.000). A hemostasia da região foi realizada com o uso de gaze e fio de sutura absorvível (VICRYL®, Ethicon, Inc., SP, Brasil) e as orientações pós-operatórias foram repassadas à responsável. A análise histopatológica revelou a presença de vasos sanguíneos, agregados de células com citoplasma claro e núcleos ovóides. Em alguns ninhos celulares as células apresentaram citoplasma dilatado, em diferentes dimensões, apresentando aspecto de adipócitos. O tecido conjuntivo periférico observado era denso, não modelado, mostrando esparsos agregados de adipócitos. Ausência de exsudato inflamatório, atipias ou mitoses (fig. 2).

Figura 2: Microscopia do Hamartoma Lipoblastomatoso. Nota-se a presença de agregados celulares compostos por dois diferentes tipos de células: pequenas células com citoplasma leitoso de limites irregulares (lipoblastos), e células pequenas apresentando vacúolo citoplasmático proeminente o que lembra adipócitos maduros. Tais células estão envolvidas por uma matriz extracelular fibrosa contendo vasos sanguíneos, fibras nervosas periféricas e músculo esquelético.



A associação entre os achados clínicos e a análise histopatológica levou ao diagnóstico final de HL. Após seis meses do procedimento cirúrgico, observou-se ausência de recidiva (fig. 3) e amamentação ocorrendo de forma normal. Atualmente, a paciente segue em acompanhamento e nenhuma anormalidade foi observada.

Figura 3: Aspecto pós-operatório do dorso da língua seis meses após o procedimento cirúrgico.



DISCUSSÃO

Considerando os aspectos clínicos e histopatológicos e a presença de tecido adiposo na língua, os autores acreditam que o presente caso apresentado se refere a uma lesão de natureza hamartomatosa, similar ao que foi descrito por Zalzalet al (1994)⁽⁸⁾. Diante do diagnóstico incomum, o HL deve ser considerado como diagnóstico diferencial para casos de tumores pediátricos em indivíduos com menos de dois anos de idade.

No presente caso, o principal achado que diferencia o HL de um lipoblastoma⁽⁷⁾, o qual se trata de uma neoplasia benigna, é a presença de células lipoblásticas com aspectos morfológicos benignos, isto é, não se observou atipias celulares e alterações displásicas. Além disso, a lesão apresentada possuía um padrão de crescimento lobular. Diante da ausência de crescimento neoplásico, os agregados de células lipoblásticas foram interpretados como sendo de desenvolvimento embrionário.

A maioria dos hamartomas linguais é encontrada, frequentemente, em pacientes com menos de dois anos e há certa predileção pelo gênero masculino^(9,10). Horn et al. (2001)⁽¹¹⁾ avaliaram o diagnóstico de lesões linguais em pacientes pediátricos em prontuários médicos no período de dez anos e puderam notar que, em sua maioria, eram lesões sólidas e macroglossias, no entanto, apenas um caso de hamartoma foi registrado. Kaplan et al. (2015)⁽¹²⁾ avaliaram 50 diagnósticos de lesões hamartomatosas em um período de 12 anos e puderam inferir que tais lesões são tão raras quanto subnotificadas. Essas lesões são encontradas, geralmente, na linha média da língua, pois se trata do local de fusão de estruturas embrionárias durante o desenvolvimento do feto^(10,13,14).

Um estudo sobre lesões congênicas linguais mostrou que apenas um dos 18 hamartomas avaliados era composto por tecido adiposo, onde haviam vasos sanguíneos entremeados, adipócitos e glândulas salivares⁽¹³⁾, similar à descrição dos achados histopatológicos da lesão discutida no presente estudo. Mesmo diante de seu aspecto benigno, as lesões

hamartomatosas com conteúdo predominante de tecido adiposo possuem potencial de crescimento limitado⁽⁸⁾. Apresentam-se como lesões sésseis, assintomáticas e bem delimitadas, sendo encontradas em locais como pulmões⁽¹⁾, válvula mitral^(2,10) e pâncreas⁽¹⁵⁾.

Independentemente de seu comportamento benigno, o HL se trata de uma lesão pouco entendida e documentada. Na literatura, não houve relatos a respeito da etiologia dessa lesão. Contudo, diante das condições da mãe durante a gestação (anemia, hipertireoidismo, diabetes gestacional), estudos futuros poderão correlacionar tais fatores com o aparecimento de hamartomas na cavidade oral.

Lesões congênicas na língua são entidades clínicas raras e podem causar dificuldades na amamentação e obstrução das vias aéreas⁽¹⁶⁾. Geralmente, a enucleação da lesão é suficiente e recidivas não são relatadas^(6,9). A paciente do presente estudo não amamentava de forma adequada diante da presença da lesão, limitação esta, que se resolveu com a remoção cirúrgica da mesma, o que possibilitou que a amamentação ocorresse normalmente.

CONCLUSÃO

O HL é uma condição rara e pouco compreendida, mesmo apresentando comportamento benigno geralmente relatado. Diante disso, o HL deve ser levado em consideração como diagnóstico diferencial para tumores com predominância de tecido adiposo em crianças com menos de dois anos de idade. A conduta de remoção cirúrgica da lesão se mostrou eficaz na resolução do caso do presente estudo.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Napier SS, Devine JC, Rennie JS, Lamey P. Unusual leiomyomatous hamartoma of the hard palate: A case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol End.* 1996; 82 (3): 305-7.
2. Perez-Sayáns M, Blanco-Carrión A, Oliveira-Alves MG et al. Multicentre retrospective study of 97 cases of intraoral lipoma. *J Oral Pathol Med.* 2019; 48(6): 499-504.
3. Bourelle S, Viehweger E, Launay F. Lipoblastoma and lipoblastomatosis. *J Pediatr Orthop.* 2006; 15(5): 356-61.
4. Junaid M, Ahmed SQ, Kazi M, Haroon S. Oral neurovascular hamartoma: an extraordinary verdict in the oral cavity. *BMJ Case Report.* 2014; 2:1.
5. Fadzilah N, Azman M, See GB. Congenital Midline Tongue Mass in an infant: Lingual Hamartoma. *J Clin Diagn Res.* 2016; 10(9): 01-03.
6. Kreiger PA, Ernst LM, Elden LM, Kazahaya K, Alawi F, Russo PA. Hamartomatous Tongue Lesions in Children. *Am J Surg Pathol.* 2007; 31 (8): 1186-90.
7. Tjarks BJ, Gardner JM, Riddle ND. Hamartomas of skin and soft tissue. *Semin Diagn Pathol* 2019; 36(1): 48-61.
8. Zalzal GH, Patterson K, Cotton RT. Congenital tumors of the dorsum of the tongue. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 1994; 28 (2-3): 219-27.

9. Coffin CM. Lipoblastoma: an embryonal tumor of soft tissue related to organogenesis. *SeminDiagnPathol.* 1994; 11 (2): 98–103.
10. Nava-Villalba M, Ocampo-Acosta F, Seamanduras-Pacheco A, Aldape-Barrios BC. Leiomyomatoushamartoma: report of two cases and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol End.* 2008; 105(4): 39-45.
11. Horn C, Thaker HM, Tampakopoulou DA et al. Tongue lesions in the pediatric population. *Otolaryngology-Head and Neck Surgery.* 2001; 124 (2): 164-69.
12. Kaplan I, Allon I, Shlomi B, Raiser V, Kleinman S, Allon DM. A comparative study of oral hamartoma and choristoma. *J InterdisciplHistopathol.* 2014; 3:129.
13. Kobayashi A, Amagasa T, Okada N. LeiomyomatousHamartoma of the Tongue: Case Report. *J Oral Maxillofac Surg.* 2001; 59(3): 337-340.
14. De Faria PR, Batista JD, DuriguettoAF Jret al. Giant LeiomyomatousHamartoma of the tongue. *J Oral Maxillofac Surg.* 2008; 66 (7): 1476-1480.
15. Bhat SPS, Gowda SL, Chikkatur R, Nanjappa MC. Lipomatoushamartoma of mitral valve. *Asian Cardiovascular & Toracic Annals.* 2016; 26 (1): 34-35.
16. Alfano DF, Totaro M, Zagà C et al. Endobronchiallipomatoushamartoma diagnosed on computed tomography scan in young new mother — A case report. *International Journal of Surgery Case Reports.* 2014; 5 (12): 1113-16.