## Caso Clínico



# Higroma cístico de face com involução após infecção local\*

Involution of a cystic hygroma of the face following local infection

Bárbara Nader Vasconcelos <sup>1</sup> Aline Lopes Bressan <sup>3</sup> Marcela Duarte Villela Benez <sup>2</sup> Elisa Fontenelle de Oliveira <sup>4</sup>

Resumo: Relatamos um caso de higroma cístico na face de uma criança de quatro meses de idade. Havia história de aumento de volume congênito na hemiface direita que involuiu consideravelmente após sinais de infecção. O higroma cístico ou linfangioma é uma malformação congênita rara do sistema linfático, presente ao nascimento em 50% dos casos. Localiza-se preferencialmente na região cervical e na face. Geralmente evolui com crescimento lento e progressivo, podendo comprimir e infiltrar estruturas adjacentes. Sua regressão espontânea ocorre em apenas 6% dos casos.

Palavras-chave: Bleomicina; Infecção; Linfangioma cístico; Sistema linfático

**Abstract:** This report describes the case of a cystic hygroma on the face of a four-month old child. There was a history of congenital swelling of the right hemiface that decreased considerably following signs of infection. The cystic hygroma or lymphangioma is a rare congenital malformation of the lymphatic system that is present at birth in 50% of cases. It is usually located on the neck or face. It generally grows slowly and progressively and may compress and infiltrate adjacent structures. Its spontaneous regression occurs in only 6% of cases.

Keywords: Bleomycin; Infection; Lymphangioma, cystic; Lymphatic system

### INTRODUÇÃO

O higroma cístico ou linfangioma é uma malformação congênita rara do sistema linfático, presente ao nascimento em 50% dos casos.

#### **RELATO DE CASO**

Lactente feminina de quatro meses de idade, branca, apresentava aumento congênito do volume da hemiface direita que se acentuou subitamente, acompanhado de febre. Ao exame físico, mostrava-se ativa e reativa, com aumento de volume da hemiface direita (Figura 1), de consistência amolecida bem delimitada com área de hiperemia central dolorosa, que se esten-

dia até a região submandibular (Figura 2). Não havia alterações dos outros órgãos e sistemas. Foi submetida à ultrassonografia de partes moles que evidenciou formação expansiva cística multiseptada e lobulada, com alguns finos ecos em suspensão, ocupando a região bucinadora direita e com aparente aumento de ecogenicidade do subcutâneo adjacente, sem evidência de fluxo ao eco-doppler, sugerindo linfangioma facial da região bucinadora. A tomografia computadorizada de face e pescoço com contraste venoso mostrou formação expansiva, de aspecto cístico, septada, medindo 5,8 x 4.8 x 4.0cm, na topografia da parótida

Recebido em 10.10.2009.

Aprovado pelo Conselho Consultivo e aceito para publicação em 11.05.2010.

- \* Trabalho realizado no Hospital Municipal Jesus e Hospital Universitário Pedro Ernesto (HUPE) Rio de Janeiro (RJ), Brasil. Conflito de interesse: Nenhum / Conflict of interest: None
  Suporte financeiro: Nenhum / Financial funding: None
- Residência de clínica médica pelo Hospital Central da Policia Militar Pós-graduação em dermatologia pelo Hospital Universitário Pedro Ernesto Universidade do Estado do Rio de Janeiro (HUPE UERJ) Rio de Janeiro (RJ), Brasil.
- <sup>2</sup> Residência de clínica médica pelo Hospital Central do Exército Pós-graduação em dermatologia pelo Hospital Universitário Pedro Ernesto Universidade do Estado do Rio de Janeiro (HUPE UERJ) Rio de Janeiro (RJ), Brasil.
- Residência de clínica médica pelo Hospital de Força Área do Galeão (HFAG) Pós-graduação em dermatologia pelo Hospital Universitário Pedro Ernesto Universidade do Estado do Rio de Janeiro (HUPE UERJ) Rio de Janeiro (RJ), Brasil.
- Professora substituta de dermatologia do Hospital Universitário Pedro Ernesto Universidade do Estado do Rio de Janeiro (HUPE-UERJ), dermatologista do Hospital Municipal Jesus, responsável pelo ambulatório de Dermatologia Pediátrica da Santa Casa de Misericórdia do Rio de Janeiro (IDPRDA) Rio de Janeiro (RJ), Brasil.



FIGURA 1: Higroma cístico de face. Aumento de volume da hemiface direita

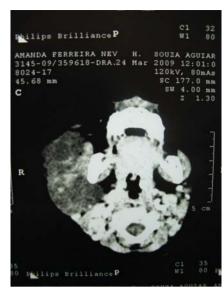


FIGURA 3: Tomografia computadorizada de face com contraste venoso. Formação expansiva, de aspecto cístico, septada, medindo 5,8 x 4.8 x 4.0cm, na topografia da parótida direita

direita (Figura 3), a qual não se distinguia da lesão; linfonodomegalia nas cadeias submandibular direita e jugular interna bilateralmente; além de velamento do seio maxilar e de células etmoidais à direita. Apresentava ainda, leucocitose sem desvio para esquerda e VHS aumentado. Recebeu oxacilina e foi proposto tratamento com bleomicina intralesional. Porém, um mês após a infecção da massa expansiva houve involução da lesão sem nenhuma outra intervenção terapêutica (Figura 4). No momento a paciente encontra-se em acompanhamento clínico.

#### **DISCUSSÃO**

O higroma cístico ou linfangioma é uma malformação congênita rara do sistema linfático diagnosticada em crianças abaixo dos dois anos de idade, sendo 50% presentes ao nascimento. Localiza-se preferencialmente na região cervical e na face, podendo acometer axila, região lateral do tórax e mediastino.¹ Ocorre, provavelmente, devido a não formação da comunicação entre o sistema linfático e a veia jugular no décimo quarto dia de gestação, levando à estase linfática e formação cística. ² É composto por cistos linfáticos revestidos por endotélio. De acordo com seu tamanho, é classificado em macrocístico (higroma cístico), microcístico (cavernosos e capilares) e formas intermediárias.³

Sua detecção pré-natal pode ser feita pela ultrassonografia a partir do 4º mês de gestação.² Alguns casos diagnosticados no período pré-natal estão associados a anormalidades cariotípicas ou a síndromes de malformação (síndrome de Down, Turner



FIGURA 2: Perfil da lesão mostrando massa expansiva que se estendia até região submandibular



Figura 4: Evolução após seis meses. Involução significativa após infecção local

e Noonam) e, possivelmente, a agentes teratogênicos. O diagnóstico pode ser feito facilmente pela clínica: massa cística de consistência mole, sob a pele de aspecto normal, geralmente assintomática, porém pode sofrer hemorragia tornando-se edematosa, dolorosa e violácea. Sua história natural é caracterizada pelo crescimento lento e progressivo com compressão e infiltração de estruturas adjacentes, produzindo um quadro clínico relacionado à sua localização. O diagnóstico pode ser confirmado pelos métodos de imagem e também por punção com análise citológica do fluido. A regressão espontânea pode ocorrer em 6% dos casos, geralmente após infecção como na paciente relatada.

O tratamento do linfangioma depende da apresentação clínica e dos seus riscos de complicações. A terapia mais aceita é a cirúrgica e suas complicações incluem: dano as estruturas adjacentes, formação de fístulas, infecção e deiscência de sutura, sendo a mortalidade de 2 a 6%. A recorrência da lesão é descrita em até 27% dos casos. Outra opção terapêutica é a aplicação de agentes esclerosantes como a bleomicina e soluções salinas hipotônicas que provocam inflamação do endotélio vascular, levando à regressão total ou parcial do linfangioma. A difusão dessas substâncias através da parede dos cistos para os tecidos adjacentes pode provocar reação inflamatória e retração cicatricial com resultado estético insatisfatório e maior dificuldade para realização de cirurgias posteriores. Um novo agente, o OK-432, produzido a partir do Streptococcus pyogenes do grupo A tem sido usado com bons resultados e baixa recorrência. 4,5 Neste caso optamos pelo acompanhamento clínico já que apresentava sinais de involução do quadro.

#### **REFERENCES**

- Enjolras O. Vascular Malformations. In: Bolognia JL, Jorizzo JL, Rapini RP, editors. Spain: Mosby Elsevier. 2008. p. 1581-95.
- Oak SN, Redkar RG, Kapur VK. Posterior midline cervical fetal cystic hygroma. J Postgrad Med. 1992;38:93-6.
- Sampaio SAP, Rivitti EA. Dermatologia. 3 ed. S\u00e3o Paulo: Artes M\u00e9dicas; 2007. p.1197-1225.
- Ruiz Jr. E, Valera ET, Verissimo F, Tone LG. Uso de OK-432 em crianças com linfangioma. J Pediatr. 2004;80:154-8.
- Rautio R, Keski-Nisula L, Laranne J, Laasonen E. Treatment of Lymphangiomas with OK-432 (Picibanil). Cardiovasc Intervent Radiol. 2003;26:31-6.

ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA / MAILING ADDRESS: Bárbara Nader Vasconcelos Rua Marques de Abrantes, 178. Apt<sup>o</sup> 1805 Flamengo 22.230-060 Rio de Janeiro - RJ, Brasil E-mail: bnvasconcelos@gmail.com

How to cite this article/*Como citar este artigo*: Vasconcelos BN, Benez MDV, Bressan AL, Oliveira EF. Higroma cístico de face com involução após infecção local. An Bras Dermatol. 2011;86(1):135-7.