



RELATO DE CASO

Middle turbinate angiofibroma: an unusual location for juvenile angiofibroma[☆]



Angiofibroma de concha média: uma localização rara de angiofibroma juvenil

Yuksel Toplu^{a,*}, Sermin Can^a, Mukadder Sanlı^b, Nurhan Sahin^c e Ahmet Kizilay^a

^a Inonu University Medical Faculty, Department of Otorhinolaryngology, Malatya, Turquia

^b Inonu University Medical Faculty, Department of Anesthesia and Reanimation, Malatya, Turquia

^c Inonu University Medical Faculty, Department of Pathology, Malatya, Turquia

Recebido em 20 de agosto de 2015; aceito em 14 de outubro de 2015

Disponível na Internet em 7 de abril de 2017

Introdução

Os angiofibromas são os tumores vasculares histologicamente benignos mais frequentemente encontrados, com potencial destrutivo local, geralmente originários da parede lateral posterior da nasofaringe. Essas neoplasias são mais comumente observadas em adolescentes do sexo masculino e raramente são encontradas depois dos 25 anos.¹ Raramente os angiofibromas se situam em locais extranasofaríngeos, há relatos esporádicos na literatura. Neste artigo, apresentamos um caso muito raro, o quarto na literatura,

de um angiofibroma que se originou na concha média em um paciente do sexo masculino de 13 anos, que se apresentou com epistaxe recorrente e obstrução nasal.²⁻⁴ A apresentação clínica, o exame endoscópico, os achados radiológicos, a avaliação histopatológica e o tratamento dessa doença são discutidos.

Relato de caso

Paciente não fumante, do sexo masculino, 13 anos, veio à nossa clínica com epistaxe recorrente e queixas de obstrução nasal, sintomas que começaram a surgir cerca de três meses antes. Não apresentava trauma nasal evidente, operação, alergia, infecção ou doença sistêmica. Já havia sido tratado várias vezes com diferentes medicações locais ou sistêmicas, sem resultado. No exame endoscópico (fig. 1), uma massa polipoide que se originava na parte anteroinferior da concha média esquerda foi detectada. A tomografia computadorizada (TC) de seios paranasais de rotina, sem contraste (fig. 2A-C), mostrou uma lesão com densidade de tecido mole que preenchia a parte anterior da cavidade nasal esquerda. Não havia qualquer invasão

DOI se refere ao artigo:

<http://dx.doi.org/10.1016/j.bjorl.2015.10.019>

[☆] Como citar este artigo: Toplu Y, Can S, Sanlı M, Sahin N, Kizilay A. Middle turbinate angiofibroma: an unusual location for juvenile angiofibroma. Braz J Otorhinolaryngol. 2018;84:122–5.

* Autor para correspondência.

E-mail: yukseltoplu@hotmail.com (Y. Toplu).

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

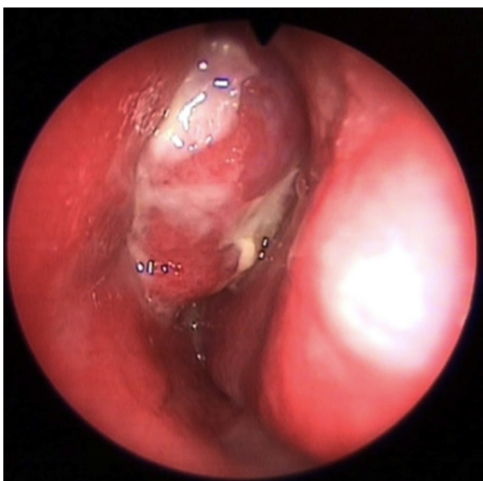


Figura 1 Massa polipoide vermelho-acinzentada na passagem nasal esquerda.

do seio nasal ou destruição óssea. Nosso parecer foi que a localização e a extensão do tumor permitiam a sua remoção total por meio de endoscopia, para fazer a avaliação histopatológica e obter o diagnóstico definitivo, sem a necessidade de outra investigação pré-operatória como uma ressonância magnética (RM), angiografia e embolização.

A massa polipoide foi removida completamente por uma turbinectomia endoscópica média subtotal, sob anestesia geral. A massa tumoral era lobular, vermelho-acinzentada, com 30mm de comprimento e diâmetro de até 10mm (fig. 3). Após a remoção, o material foi enviado para avaliação histopatológica. Não houve sangramento grave intraoperatório ou pós-operatório. Após 24 horas, o paciente recebeu alta sem qualquer complicação. A terapia com antibiótico foi usada durante sete dias.

O tecido foi fixado em 10% de formaldeído, rotineiramente processado e fixado em cera de parafina para exame microscópico. Cortes consecutivos de 4 μ m de espessura foram corados com hematoxilina e eosina. O exame revelou presença de epitélio escamoso metaplásico com restos do epitélio respiratório na superfície do tumor. Sob o epitélio, foram encontradas estruturas vasculares irregulares, variavam de capilares e sinusoides até grandes áreas de sangramento, dispersas em ondulações com uma camada de células endoteliais planas sobre um estroma fibroso de células fusi-



Figura 3 Massa excisada, lobular, vermelho-acinzentada, com 30mm de comprimento e 10mm de diâmetro.

formes. O tumor consistia em numerosos vasos sanguíneos de vários tamanhos e formas, circundados por um estroma fibroso. Após a aplicação de métodos imuno-histoquímicos com anticorpos monoclonais CD34, as estruturas vasculares foram mais claramente evidenciadas (fig. 4A-C). Com base nessas características, a análise histopatológica confirmou o diagnóstico de angiofibroma. O exame endoscópico de controle, feito um mês após a cirurgia, mostrou a cavidade nasal esquerda totalmente recuperada, sem sinais de recidiva.

Discussão

Muitas teorias, inclusive fatores de desenvolvimento, hormonais e genéticos, foram descritas para esclarecer a etiopatogenia dos angiofibromas, mas nenhuma delas tem sido aceita de forma universal. De acordo com Tillaux, esses tumores podem ser originários do tecido da parte anterior do atlas na face inferior do osso esfenóide.⁵ Brunner chamou esse tecido de *fascia basalis*, devido ao fato de não ter encontrado cartilagem nele.⁶ Por conseguinte, um angiofibroma da concha média é extremamente incomum, ressalta-se que o caso aqui apresentado é o quarto des-



Figura 2 Lesão de massa homogênea com aumento de contraste e origem na concha média esquerda em imagens de tomografia computadorizada coronal (A), axial (B) e sagital (C).

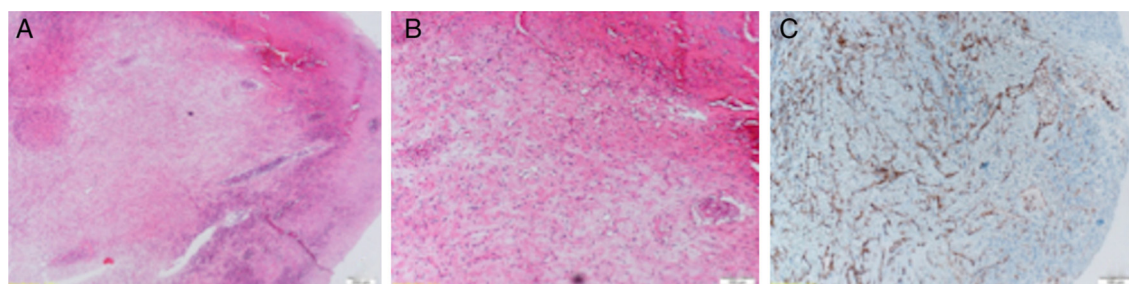


Figura 4 (A-C) – Os achados microscópicos da amostra revelaram que muitas estruturas vasculares irregulares variam de capilares e sinusóides cercados por um estroma fibroso.

crita na literatura, como demonstrado a partir de busca no PubMed e no Google Search.²⁻⁴

Casos de angiofibroma extranasofaríngeo primário são raramente relatados. Ao contrário do angiofibroma juvenil clássico, os angiofibromas extranasofaríngeos são mais frequentemente observados em uma faixa etária mais velha e são mais comuns em mulheres. O nosso caso, um paciente do sexo masculino de 13 anos, é incomum, de acordo com a literatura. Os angiofibromas extranasofaríngeos primários se originam mais comumente a partir do septo nasal, seguido das conchas inferior e média. Os sintomas mais comuns de angiofibroma de nasofaringe são obstrução nasal unilateral, epistaxe e dor facial. Já os do angiofibroma extranasofaríngeo dependem de sua localização.³ O paciente chegou à clínica com histórico de epistaxe recorrente e sintomas de obstrução nasal.

O manejo dos angiofibromas inclui exame endoscópico nasal, exame radiológico pré-operatório e avaliação histopatológica.⁷ A TC, a RM e a arteriografia são métodos diagnósticos valiosos na avaliação de angiofibromas. As indicações comuns para TC sem contraste são edema de tecidos moles de extremidades, pólipos nasais, infecção ou trauma, embora o contraste seja necessário caso haja suspeita de envolvimento de lesão vascular.⁸ A TC mostra bem a estrutura óssea para a cirurgia; no entanto, a RM ajuda a distinguir o tumor de infecções crônicas e mostra a extensão intracraniana, pode ser um método para o acompanhamento dos pacientes. Além disso, a angiografia por RM fornece informações valiosas sobre o fornecimento vascular, dispensa uma angiografia diagnóstica. A arteriografia seletiva determina o padrão vascular e o fluxo sanguíneo e, se necessário, permite a embolização pré-operatória seletiva.^{8,9} No presente caso, a doença estava localizada na parte anteroinferior da concha média, conforme identificado por exame endoscópico e TC pré-operatória sem contraste de seios paranasais. Houve suspeita de pólipo de concha média e decidiu-se pela ressecção total para o exame histopatológico. Em muitos pacientes com tumores localizados na concha média, o local e a extensão tumoral permitem ao cirurgião removê-los totalmente por meio de cirurgia endoscópica nasal. O diagnóstico de angiofibroma de concha média foi um resultado inesperado da análise histopatológica.

Muitas opções terapêuticas diferentes têm sido usadas para o tratamento, inclusive cirurgia, terapia hormonal, radiação e quimioterapia. No entanto, a cirurgia continua a ser a principal opção de tratamento.³ Em alguns casos, a angioembolização pré-operatória pode ser feita

para reduzir a perda de sangue intraoperatória. No nosso caso, houve excisão total do tumor por meio de turbinectomia subtotal média, sem hemorragia grave. Não foi feita angioembolização devido aos riscos do procedimento e à localização de fácil ressecção do tumor.

A taxa de recorrência total para angiofibromas de nasofaringe é de 25% para a primeira cirurgia e 40% para a segunda.¹⁰ A taxa de recorrência para angiofibroma de concha média parece ser boa, mas apenas alguns poucos casos foram relatados. Isso provavelmente está associado à possibilidade de uma boa exposição cirúrgica e de ressecção total do corpo do tumor. Em nosso caso, o exame endoscópico nasal foi completamente normal no seguimento pós-operatório de 18 meses.

O diagnóstico diferencial de angiofibroma de concha média inclui pólipo nasoetmoidal ou antrocoanal fibroso e outros tumores fibrovasculares, como nasoangiofibroma juvenil, hemangioma capilar, hemangiopericitoma e tumor fibroso solitário.³

Conclusão

Angiofibromas de concha média são tumores extremamente raros. A causa exata é desconhecida, mas, possivelmente, tem origem a partir de um tecido ectópico. O exame endoscópico, a avaliação radiológica e a análise histopatológica são necessários para o diagnóstico correto. A ressecção cirúrgica total do tumor é a principal opção de tratamento.

Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

Referências

1. Antonelli AR, Cappiello J, Di Lorenzo D, Donajo CA, Nicolai P, Orlandini A. Diagnosis, staging and treatment of juvenile nasopharyngeal angiofibromas. *Laryngoscope*. 1987;97:1319–25.
2. Huang RY, Damrose EJ, Blackwell KE, Cohen AN, Calcaterra TC. Extranasopharyngeal angiofibroma. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2000;56:59–64.
3. Peric A, Sotirovic J, Cerovic S, Zivic L. Immunohistochemistry in diagnosis of extranasopharyngeal angiofibroma originating from nasal cavity: case presentation and review of the literature. *Acta Medica (Hradec Kralove)*. 2013;56:133–41.

4. Peric A, Baletic N, Cerovic S, Vukomanovic-Durdevic B. Middle turbinate angiofibroma in an elderly woman. *Vojnosanit Pregl*. 2009;66:583–6.
5. Tillaux P. *Traite d'anatomie topographique avec applications a la chirurgie*. 2^{eme} ed. Paris: P. Asselin; 1978. p. 348–9.
6. Sarpa JR, Novelty JN. Extranasopharyngeal angiofibroma. *Head Neck Surg*. 1989;101:693–7.
7. Taggarshe D, Quraishi MS, Dugar JM. Inferior turbinate angiofibroma: an atypical preservation. *Rhinology*. 2004;42:45–7.
8. American College of Radiology. ACR appropriateness criteria. <http://www.acr.org/Quality-Safety/Appropriateness-Criteria/Diagnostic> [cited 12.09.12].
9. Lloyd G, Howard D, Lund VJ, Savy L. Imaging for juvenile angiofibroma. *J Laryngol Otol*. 2000;114:727–30.
10. Mann WJ, Jecker P, Amedee RG. Juvenile angiofibromas: changing surgical concept over the last 20 years. *Laryngoscope*. 2004;114:291–3.