



Brazilian Journal of OTORHINOLARYNGOLOGY

www.bjorl.org



RELATO DE CASO

Arteriovenous malformation of the maxillary sinus: a rare clinical entity[☆]



Malformação arteriovenosa do seio maxilar: uma entidade clínica rara

Dongwon Kim^a, Kyung-Un Choi^b, Hak-Jin Kim^c e Kyu-Sup Cho^{Id a,*}

^a Pusan National University Hospital, Pusan National University School of Medicine, Department of Otorhinolaryngology and Biomedical Research Institute, Busan, República da Coreia

^b Pusan National University Hospital, Pusan National University School of Medicine, Department of Pathology, Busan, República da Coreia

^c Pusan National University Hospital, Pusan National University School of Medicine, Department of Radiology, Busan, República da Coreia

Recebido em 23 de maio de 2016; aceito em 9 de agosto de 2016

Disponível na Internet em 27 de maio de 2017

Introdução

Malformações arteriovenosas são uma anormalidade vascular estrutural causada pela ausência de leitos capilares normais, as quais levam ao desenvolvimento de canais sanguíneos anormais que ligam a circulação arterial à circulação venosa.¹ Embora os tumores vasculares na cabeça e no pescoço sejam relativamente comuns, particularmente na mandíbula, as malformações arteriovenosas da cavidade nasal e dos seios paranasais são extremamente raras.² Essas lesões geralmente são benignas, mas em alguns casos podem ser fatais devido ao seu potencial hemorrágico intratável.¹ Além disso, não há consenso sobre a técnica cirúrgica mais eficaz. Descrevemos um caso raro de malformação arteriovenosa do seio maxilar, que se apresentou como epistaxe recorrente após polipectomia nasal, a qual foi

completamente removida pela técnica de Caldwell-Luc sem embolização endovascular. O estudo foi aprovado pelo Comitê de Ética Institucional do Pusan National University Hospital (Hospital da Universidade Nacional de Pusan).

Relato de caso

Jovem de 17 anos foi encaminhado ao ambulatório devido à epistaxe recorrente após polipectomia nasal esquerda. Ele havia sido submetido a polipectomia nasal em uma clínica local havia dez dias, devido à congestão nasal. Não apresentava outros sintomas ou qualquer histórico médico. Não havia histórico de trauma e qualquer sinal de alergia. O exame endoscópico revelou abaulamento da parede lateral do nariz e sangramento devido à presença de uma lesão no seio maxilar esquerdo (fig. 1 A). A tomografia computadorizada (TC) dos seios paranasais mostrou uma lesão tumoral com realce heterogêneo no seio maxilar esquerdo, sem envolvimento ósseo adjacente (fig. 1 B e C). Na ressonância magnética (RM), a lesão se expandia até o seio maxilar esquerdo, com alta intensidade de sinal nas imagens ponderadas em T1 (T1WIs) e sinal heterogêneo de alta intensidade nas imagens ponderadas em T2 (T2WIs), com grande realce (fig. 1 D–F).

Considerando a localização do tumor, o acesso cirúrgico foi obtido pelo método de Caldwell-Luc, sob anestesia geral,

DOI se refere ao artigo:

<http://dx.doi.org/10.1016/j.bjorl.2016.08.003>

[☆] Como citar este artigo: Kim D, Choi K-U, Kim H-J, Cho K-S. Arteriovenous malformation of the maxillary sinus: a rare clinical entity. Braz J Otorhinolaryngol. 2020;86:820–3.

* Autor para correspondência.

E-mail: choks@pusan.ac.kr (K. Cho).

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

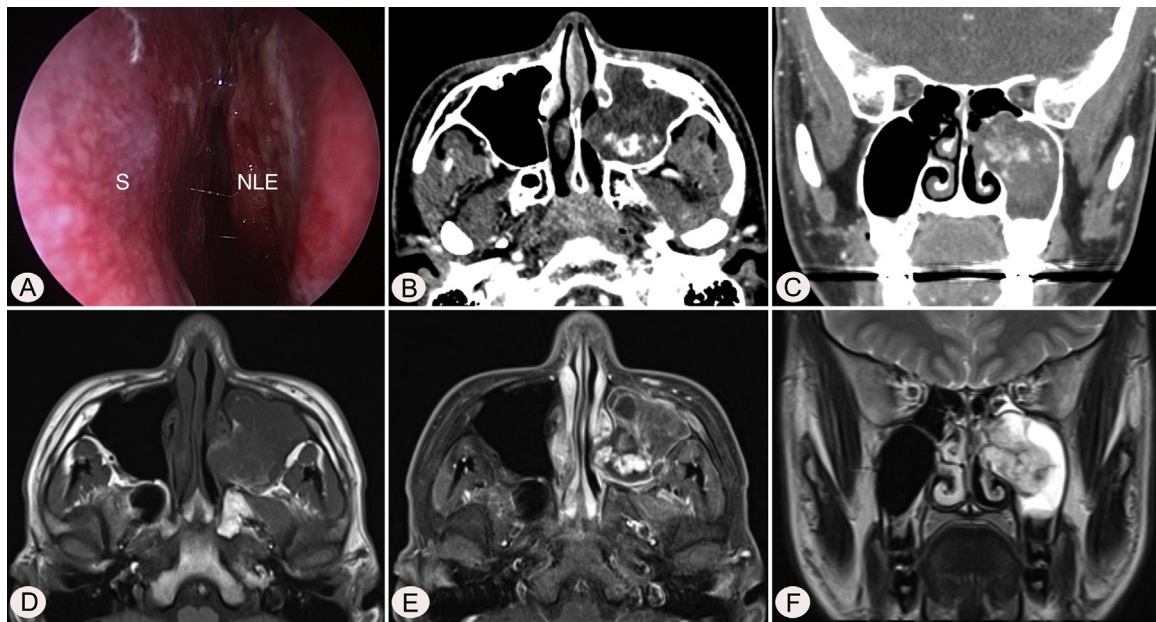


Figura 1 Achados endoscópicos e radiológicos pré-operatórios. A endoscopia nasal (A) mostra abaulamento da parede nasal lateral esquerda (NLE). Imagens de tomografia computadorizada axial (B) e coronal (C) mostram massa com realce heterogêneo no seio maxilar esquerdo, sem envolvimento ósseo adjacente. A massa mostra elevada intensidade de sinal misto em T1 axial (D), grande realce em pós-contraste T1 axial (E) e sinal de alta intensidade heterogêneo em T2 coronal (F) nas imagens de ressonância magnética. S, septo nasal.

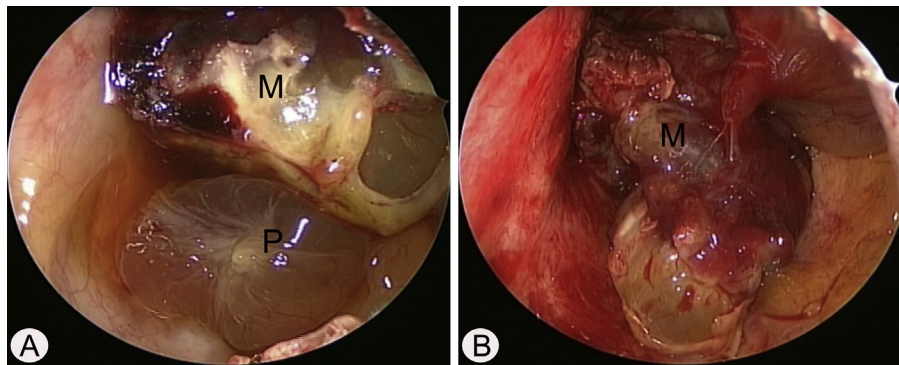


Figura 2 Achados endoscópicos intraoperatórios pela abordagem de Caldwell-Luc. (A) A mucosa polipoide (P) foi detectada na porção inferior do seio maxilar esquerdo. (B) Após a remoção da mucosa polipoide, a massa altamente vascular (M) se originava a partir da parede superior medial e parcial do seio maxilar esquerdo.

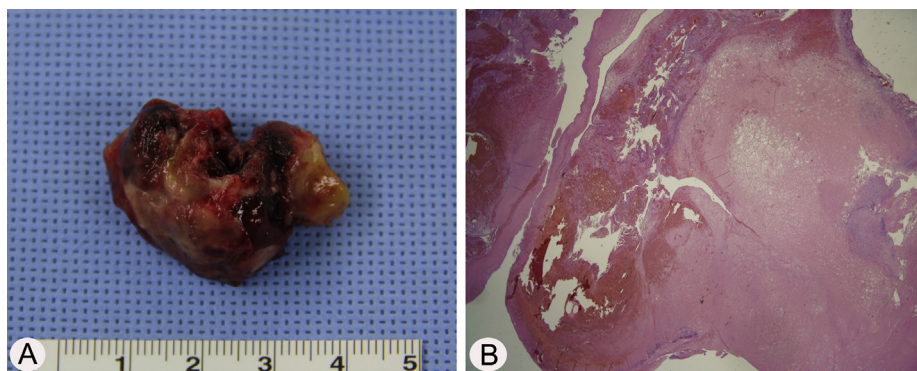


Figura 3 Achados histopatológicos de malformação arteriovenosa. (A) A massa foi removida pela abordagem de Caldwell-Luc, média $3,2 \times 2,5 \times 1,0$ cm. (B) O corte do espécime mostra espaços vasculares de formatos irregulares de tamanhos variáveis, com trombo (H&E, 200x).

porque a cirurgia endoscópica sinusal apresentava alto risco de sangramento. A lesão se originava da parede medial e parcialmente da parede superior do seio maxilar esquerdo (fig. 2 A e B). A base da lesão, inclusive a mucosa saudável em torno dela, foi removida com sucesso com bisturi harmônico e microdebridador, sob visualização direta por meio de um endoscópio nasal, e cauterizada com bisturi elétrico para prevenção de recorrência (fig. 3 A). O exame histopatológico mostrou espaços vasculares irregulares de tamanho variável e com trombo, consistente com malformação arteriovenosa (fig. 3 B). O curso pós-operatório transcorreu sem intercorrências e o paciente recebeu alta cinco dias após a cirurgia. Exames endoscópicos e TC feitos três meses após a cirurgia não mostraram evidência de recorrência.

Discussão

As malformações vasculares ocorrem como resultado da angiogênese anormal do vaso durante a embriogênese.³ A maioria das malformações vasculares da cabeça e pescoço ocorre no couro cabeludo e na pele.⁴ Já as arteriovenosas são as menos comuns entre as malformações vasculares e pertencem a uma categoria de lesões de alto fluxo.⁵ Embora sejam de natureza congênita, elas podem não ser identificadas ao nascimento e podem não se tornar evidentes até que o crescimento adicional ou ingurgitamento vascular seja visto como uma resposta a trombose, trauma, infecção ou flutuações endócrinas.³ Diferentemente dos hemangiomas, que sofrem regressão espontânea, as malformações arteriovenosas geralmente aumentam proporcionalmente ao crescimento da criança. A idade média de seu surgimento é 19 anos e ambos os sexos são igualmente afetados.⁶

A queixa mais comum à apresentação de malformações arteriovenosas da região maxilofacial é o sangramento crônico intermitente, embora alguns desses tumores não apresentem sinais ou sintomas.¹ Os pacientes podem apresentar dores de cabeça, dente e/ou ouvido, zumbido, pulsação, epistaxe, edema, assimetria facial, dor ocular, mobilidade e compressibilidade dos dentes em suas bases.^{1,3} O sintoma primário do nosso paciente era sangramento nasal recorrente após polipectomia nasal, sem apresentação de outros sintomas. Já que ele não tinha histórico de cirurgia ou trauma contuso, concluiu-se que a sua malformação arteriovenosa era congênita. É importante diferenciar a malformação arteriovenosa de hemangiomas. Histologicamente, a malformação arteriovenosa é composta por canais arteriovenosos anormais em comunicação uns com os outros. A abundância de componentes arteriais (de paredes espessas) com formas e tamanhos diferentes e canal venoso adjacente de parede fina pode nos ajudar no diagnóstico de malformação arteriovenosa.⁴

Embora muitas malformações arteriovenosas possam ser suspeitadas clinicamente, o diagnóstico por imagem é necessário para confirmação e planejamento do tratamento, especialmente porque o diagnóstico incorreto pode levar a um tratamento inadequado ou impróprio e resultar em hemorragia com risco à vida, bem como reincidência.⁷ A RM é a investigação de escolha, pois fornece informações precisas sobre a extensão da lesão, melhor contraste entre a lesão e os tecidos circundantes e tem capacidade de análise

multiplanar. Ela também pode ajudar a distinguir entre os diferentes tipos de anomalias vasculares.^{2,8} A TC com contraste tem um papel na avaliação de lesões intraósseas e das margens ósseas das lesões extensas consideradas para ressecção.² A angiografia, particularmente a angiografia por subtração digital, tem uma função específica, mas limitada, no diagnóstico de lesões vasculares, mas não deve ser usada como primeira linha de investigação. No entanto, é útil para mapear o suprimento de sangue da lesão e na avaliação das características de fluxo das malformações arteriovenosas.² A angiografia é geralmente reservada para intervenções endovasculares terapêuticas.

A ressecção cirúrgica completa, com ou sem embolização intra-arterial pré-operatória, é necessária para evitar a recorrência. A embolização é indicada para oclusão de lesões irressecáveis, a oclusão é feita em estágios, como preparação para a ressecção, ou como um controle hemostático pré-operatório emergente. A embolização pré-operatória pode ajudar a delinear a extensão da lesão, reduzir o sangramento intraoperatório e diminuir o risco de recorrência. Devido ao fato de o suprimento de sangue colateral estabelecer-se rapidamente, a operação deve acontecer de 24 a 48 horas após a embolização. Além disso, nenhum paciente com malformação arteriovenosa foi curado por uma simples embolização.⁵ O objetivo da cirurgia é a remoção completa do nicho, que é a anormalidade fundamental, pois até mesmo o menor dos nichos residuais poderá expandir-se e causar a recorrência.² A escolha da abordagem endoscópica ou externa depende do tipo de malformação (conteúdo vascular), idade do paciente no tratamento, localização, profundidade e extensão da lesão.² Embora já tenha sido descrito tratamento cirúrgico eficaz de lesões de alto fluxo, sem embolização pré-operatória,⁹ a ressecção após a embolização tornou-se o tratamento mais aceito. O tratamento cirúrgico sem embolização prévia é mais eficaz em lesões focais bem localizadas e menores, porque são susceptíveis de apresentar vasos de alimentação menores e margens bem definidas.¹⁰ Elas também têm melhor chance de cura e há menor probabilidade de hemorragia intraoperatória.¹¹ Os achados da TC e RM da lesão, nesse caso, sugeriram uma abordagem cirúrgica, escolhida com base na área envolvida. O tumor foi removido com êxito pela abordagem de Caldwell-Luc, sem embolização pré-operatória, porque as lesões não eram grandes e não havia comprometimento ósseo.

Malformações arteriovenosas difusas atravessam e destroem os limites teciduais e têm alta taxa de recorrência após terapia por cirurgia ou embolismo.¹² A taxa de recorrência após a ressecção cirúrgica é de 81 e 98% após a embolização.¹³ Os mecanismos sugeridos para recorrência incluem um ambiente pró-angiogênico que envolve hipóxia, trauma e inflamação e a recanalização da vasculatura do nicho. Se houver qualquer nicho remanescente, esses fatores levarão a uma recorrência, muitas vezes com arquitetura complexa e extenso envolvimento vascular.¹³ No presente caso, o nicho de malformação arteriovenosa no seio maxilar foi completamente removido por meio da abordagem de Caldwell-Luc, sem sangramento significativo.

Conclusão

Embora a malformação arteriovenosa no seio maxilar represente uma doença rara, é importante considerá-la no diagnóstico diferencial de pacientes com epistaxe recorrente causada por lesão altamente vascularizada do seio maxilar. A remoção cirúrgica completa por meio da abordagem de Caldwell-Luc pode ser considerada para esse tipo de lesão, se possível com preservação da cosmética e da função, quando a intervenção cirúrgica for indicada.

Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

Referências

1. Cansiz H, Yener M, Kalekoclu N, Dalkilic O. Arteriovenous malformation of the maxillary sinus and mandible: a case report. *Ear Nose Throat J*. 2003;82:608–10.
2. Ethunandan M, Mellor TK. Haemangiomas and vascular malformations of the maxillofacial region-a review. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2006;44:263–72.
3. Kademani D, Costello BJ, Ditty D, Quinn P. An alternative approach to maxillofacial arteriovenous malformations with transosseous direct puncture embolization. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2004;97:701–6.
4. Coskun BU, Sozen E, Basak T, Alkan S, Dadas B. Arteriovenous malformation of the nasopharynx: a case report. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2005;69:1287–90.
5. Chen W, Wang J, Li J, Xu L. Comprehensive treatment of arteriovenous malformations in the oral and maxillofacial region. *J Oral Maxillofac Surg*. 2005;63:1484–8.
6. Kohout MP, Hansen M, Pribaz JJ, Mulliken JB. Arteriovenous malformations of the head and neck: natural history and management. *Plast Reconstr Surg*. 1998;102:643–54.
7. Bittles MA, Sidhu MK, Sze RW, Finn LS, Ghioni V, Perkins JA. Multidetector CT angiography of pediatric vascular malformations and hemangiomas: utility of 3-D reformatting in differential diagnosis. *Pediatr Radiol*. 2005;35:1100–6.
8. Konez O, Burrows PE. Magnetic resonance of vascular anomalies. *Magn Reson Imaging Clin N Am*. 2002;10:363–88.
9. Nair SC, Spencer NJ, Nayak KP, Balasubramaniam K. Surgical management of vascular lesions of the head and neck: a review of 115 cases. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2011;40:577–83.
10. Goldenberg DC, Hiraki PY, Caldas JG, Puglia P, Marques TM, Gemperli R. Surgical treatment of extracranial arteriovenous malformations after multiple embolizations: outcomes in a series of 31 patients. *Plast Reconstr Surg*. 2015;135:543–52.
11. Uller W, Alomari AI, Richter GT. Arteriovenous malformations. *Semin Paediatr Surg*. 2014;23:203–7.
12. Hoff SR, Rastatter JC, Richter GT. Head and neck vascular lesions. *Otolaryngol Clin North Am*. 2015;48:29–45.
13. Liu AS, Mulliken JB, Zurakowski D, Fishman SJ, Greene AK. Extracranial arteriovenous malformations: natural progression and recurrence after treatment. *Plast Reconstr Surg*. 2010;125:1185–94.