



## RELATO DE CASO

# Maxillary sinus hemangioma: usefulness of embolization according to classification<sup>☆</sup>



## Hemangioma de seio maxilar: utilidade da embolização de acordo com a classificação

Hisashi Hasegawa<sup>a</sup>, Hiroumi Matsuzaki<sup>a,\*</sup>, Tohru Furusaka<sup>a</sup>, Takeshi Oshima<sup>a</sup>, Shinobu Masuda<sup>b</sup>, Toshiyuki Unno<sup>c</sup> e Osamu Abe<sup>c</sup>

<sup>a</sup> Nihon University School of Medicine, Department of Otorhinolaryngology, Head and Neck Surgery, Tóquio, Japão

<sup>b</sup> Nihon University School of Medicine, Department of Pathology, Tóquio, Japão

<sup>c</sup> Nihon University School of Medicine, Department of Radiology, Tóquio, Japão

Recebido em 19 de junho de 2015; aceito em 12 de setembro de 2015

Disponível na Internet em 31 de março de 2017

### Introdução

Os hemangiomas da cavidade do nariz e dos seios paranasais são raros,<sup>1</sup> especialmente os de seio maxilar.<sup>2</sup> A diferenciação entre hemangiomas e tumores malignos é importante, porque ambos podem estar acompanhados por destruição óssea. Quanto ao hemangioma gigante, ele tem um rico suprimento sanguíneo e seu tratamento cirúrgico requer atenção especial devido ao alto risco de hemorragia maciça e obstrução da visão do campo cirúrgico. Embora os hemangiomas de seio maxilar sejam esporadicamente relatados, poucos descreveram casos desse tipo, diagnosticados de acordo com a classificação de 1996 da Sociedade Internacional para o Estudo de Anomalias Vasculares (ISSVA) e tratados com embolização.

Relatamos aqui três casos de hemangioma maciço de seios nasais ressecados após a embolização arterial.

### Relato de caso

Uma visão geral dos três casos é apresentada na [tabela 1](#).

#### Caso 1

Paciente do sexo masculino, 43 anos, apresentou-se com hemorragia pela narina direita e obstrução nasal recorrentes por seis meses. Edema da mucosa foi observado desde o seio maxilar ao septo nasal, nos meatos nasais inferior e médio direitos. A tomografia computadorizada (TC) dos seios revelou uma imagem de densidade de tecido mole, realçado por contraste em um padrão disperso e que aumentava gradualmente ([fig. 1](#)). Não foi observada calcificação. O exame de ressonância magnética (RM) com contraste à base de gadolínio revelou que o interior da imagem estava acentuadamente realçado pelo contraste, sugerindo um tumor vascular. Arteriografia da esfenopalatina mostrou a coloração do tumor com uma coleção de artérias finas e sinuosas que se estendem a partir da artéria alveolar superior posterior e artéria palatina descendente. O tumor, que foi realçado por contraste durante a fase arterial, era uma lesão vascular de fluxo lento da qual o meio de contraste

DOI se refere ao artigo:

<http://dx.doi.org/10.1016/j.bjorl.2015.09.002>

<sup>☆</sup> Como citar este artigo: Hasegawa H, Matsuzaki H, Furusaka T, Oshima T, Masuda S, Unno T, et al. Maxillary sinus hemangioma: usefulness of embolization according to classification. Braz J Otorhinolaryngol. 2017;83:490–3.

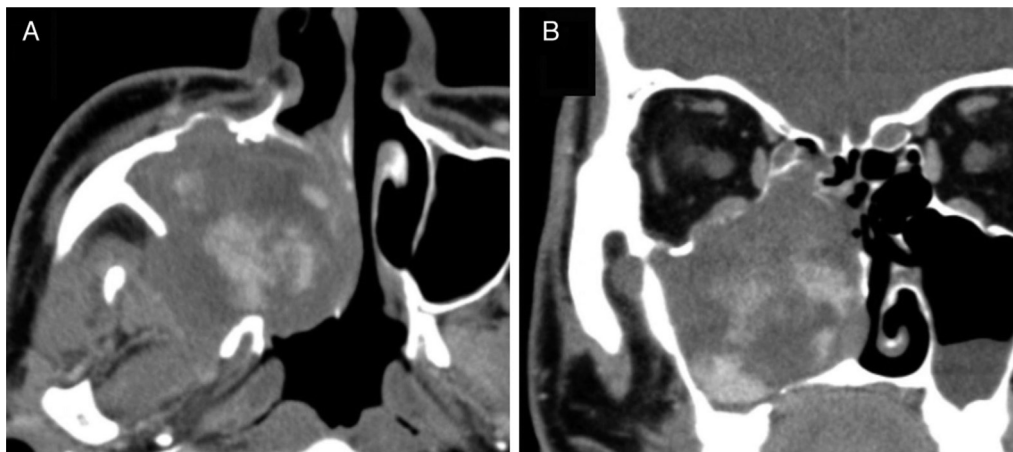
\* Autor para correspondência.

E-mail: [matuzaki.hiroumi@nihon-u.ac.jp](mailto:matuzaki.hiroumi@nihon-u.ac.jp) (H. Matsuzaki).

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

**Tabela 1** Uma visão geral dos três casos

Caso	1	2	3
Idade gênero	41 homens	43 mulheres	74 homens
Biópsia pré-operatória	Hematoma	Polipoide necrótica	Mucosa nasal
Origem	Parede lateral	Parede superior	Desconhecido
Artéria	Alveolar superior posterior Palatina descendente	Infraorbital dorsal nasal	Esfenopalatina Temporal profunda
Agentes de embolização		Micromolas e esponja de gelatina	
Técnica		Endoscopia e operação de Watsuji-Denker	
Classificação ISSVA		Malformação venosa de fluxo lento	
Sangramento (g)	60	30	100
Diagnóstico	Hemangioma sinusoidal	Hemangioma cavernoso	Hemangioma cavernoso



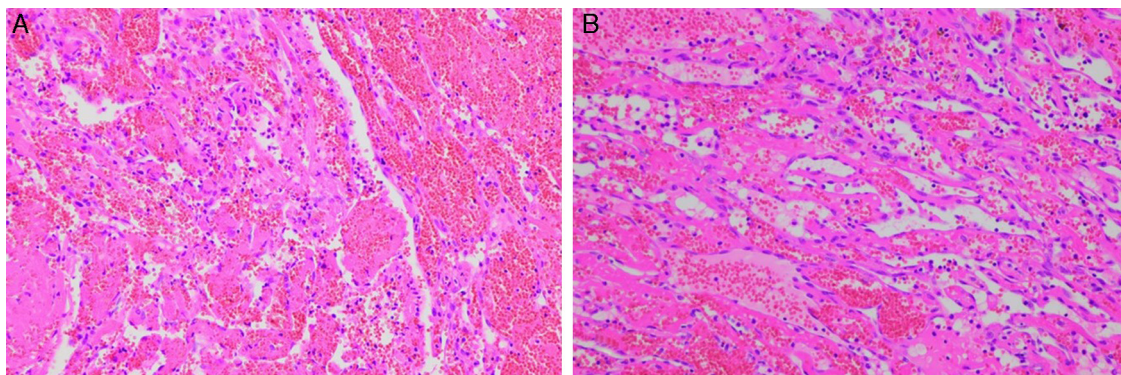
**Figura 1** TC com contraste do Caso 1. Imagem axial (A) e coronal (B). Uma forte propagação e o efeito do contraste que gradualmente aumenta são observados durante a fase arterial.

foi parcialmente extraído na fase tardia e foi diagnosticado como malformação venosa, de acordo com a classificação da ISSVA. Ambas as artérias foram embolizadas. Três dias depois, o paciente foi submetido a cirurgia combinada com procedimento endoscópico e operação de Watsuji-Denker. A perda de sangue no intraoperatório foi de 30 mL. O exame histopatológico revelou tratar-se de um hemangioma sinusoidal, uma variante do hemangioma cavernoso (fig. 2A). Em

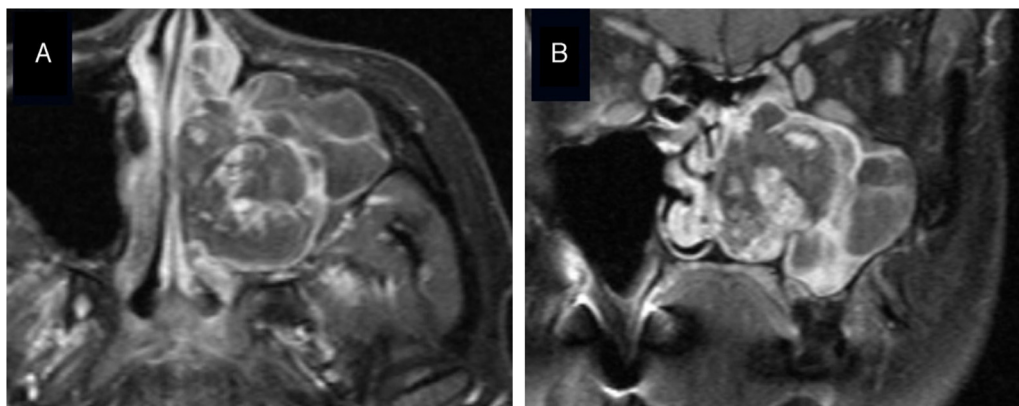
24 meses de acompanhamento, feito a cada três meses, no entanto, ainda não detectamos recorrência.

### Caso 2

Paciente do sexo feminino, 41 anos, apresentou-se com hemorragia nasal esquerda e obstrução nasal recorrentes por um mês. A mucosa do meato nasal comum esquerdo



**Figura 2** Achados patológicos do Caso 1 (A) e Caso 3 (B). A, o material enviado consistiu em coagulação abundante com cápsula fibrosa que interpenetrou e agregação de estruturas de vasos. Os vasos são finos e delicados, com uma estrutura anastomosante. B, os materiais enviados continham cápsula fibrosa espessa e estruturas de vasos. As características morfológicas da estrutura do vaso são consistentes com hemangioma cavernoso.



**Figura 3** RM com contraste à base de gadolínio do Caso 2. Imagem axial (A) e coronal (B). Suspeitou-se de um tumor vascular heterogeneamente realçado.

da paciente encontrava-se toda edemaciada. TC dos seios revelou uma massa de densidade no tecido mole que ocupava o seio maxilar esquerdo, seio etmoidal, seio frontal e cavidade nasal, com um defeito ósseo na parede medial do seio maxilar esquerdo. Além disso, a TC mostrou imagem com densidade em tecido mole, inclusive retenção de sangue que enchia o seio maxilar esquerdo. A parede medial do seio maxilar encontrava-se parcialmente destruída e cada vez mais realçada pelo contraste. Suspeitamos tratar-se de um tumor vascular heterogêneo de 30 mm, baseados no realce com gadolínio na RM (fig. 3). A arteriografia facial mostrou imagem tumoral a partir da artéria infraorbital na parede superior do seio maxilar esquerdo e a artéria foi embolizada. Além disso, a artéria nasal dorsal também foi embolizada. O tumor era uma lesão vascular de fluxo lento e foi diagnosticado como malformação venosa, de acordo com a classificação da ISSVA. Quatro dias depois, a paciente foi submetida à cirurgia combinada com procedimento endoscópico e operação de Watsuji-Denker e a lesão foi completamente ressecada. A perda de sangue no intraoperatório foi de 30 mL. O diagnóstico histopatológico no pós-operatório foi o de hemangioma cavernoso. Em 18 meses de acompanhamento, feito a cada três meses, no entanto, ainda não detectamos recorrência.

### Caso 3

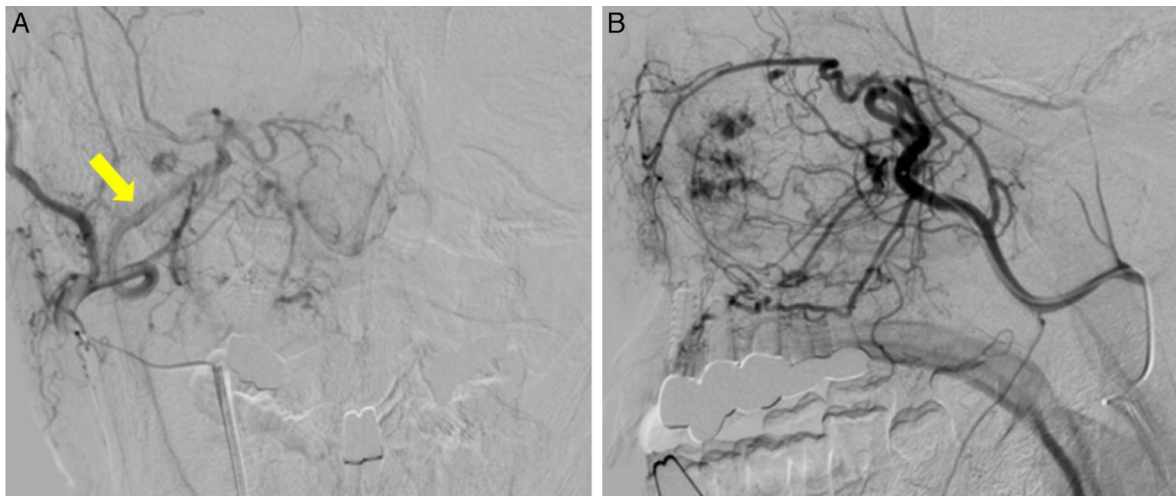
Paciente do sexo masculino, 74 anos, apresentou-se com hemorragia nasal direita e obstrução nasal. Dois anos antes, tinha apresentado sangramento nasal direito, que durou algumas horas. Síndrome mielodisplásica foi diagnosticada. Um pólipos edematoso que ocupava o meato nasal comum direito foi observado. TC dos seios mostrou uma imagem com densidade de tecido mole que ocupava o seio maxilar direito, seio etmoidal e seio frontal à cavidade nasal esquerda, com destruição óssea da parede medial do seio maxilar direito. TC com contraste mostrou uma lesão tumoral lobulada, gradualmente realçada pelo contraste desde o seio maxilar até o meato nasal comum, bem como desenvolvimento microvascular no tumor. RM com contraste de gadolínio mostrou uma lesão heterogênea realçada, levantou a suspeita de um tumor vascular. A biópsia do tecido mostrou apenas mucosa nasal. Arteriografia da carótida

externa mostrou imagem tumoral em toda a região do seio maxilar direito. Arteriografia esfenopalatina mostrou que a artéria infraorbital, a artéria palatina descendente e uma série de pequenos ramos nasais posteriores mediais/laterais estavam envolvidos como nutrientes. O tronco principal da artéria esfenopalatina e os ramos da artéria temporal profunda foram embolizados (fig. 4). O tumor era uma lesão vascular de fluxo lento e foi diagnosticado como malformação venosa, de acordo com a classificação da ISSVA. Quatro dias depois, o paciente foi submetido a cirurgia combinada com procedimento endoscópico e operação de Watsuji-Denker e a lesão foi completamente ressecada. A perda de sangue no intraoperatório foi de 100 mL. O diagnóstico histopatológico no pós-operatório foi de hemangioma cavernoso (fig. 2B). Em 18 meses de acompanhamento, feito a cada três meses, no entanto, ainda não detectamos recorrência.

### Discussão

Em um relato de 281 casos de hemangioma, 55% ocorreram na face e na cabeça (extracraniano) e 5% no pescoço;<sup>3</sup> essas lesões raramente ocorrem no nariz ou nos seios paranasais.<sup>1</sup> Dos que ocorrem no nariz e nos seios da face, cerca de 80% ocorrem no septo nasal, na área de Kiesselbach em particular, e 15% na parede lateral da cavidade do nariz. O hemangioma que ocorre no interior da cavidade sinusal é ainda mais raro. O hemangioma cavernoso ocorre com muito menos frequência do que o hemangioma capilar, geralmente se desenvolve no osso conchal e raramente no tecido ósseo da parede do seio maxilar.<sup>4</sup>

O hemangioma sinusoidal,<sup>5,6</sup> diagnosticado por exame histopatológico no Caso 1, é um tipo histológico muito raro (fig. 4) e relativamente desconhecido entre os patologistas. Como apenas alguns casos de hemangioma sinusoidal foram relatados desde a descrição inicial por Calonje e Fletcher em 1991, um reconhecimento claro das características clínico-patológicas desse tipo de hemangioma poderá evitar confusões diagnósticas. O acompanhamento do paciente não revelou qualquer tendência de recorrência local ou de metástase.<sup>5</sup> No entanto, Ciurea et al. relataram três cirurgias por recorrência.<sup>7</sup> Em nossos casos, a TC no pré-operatório mostrou destruição óssea. Devido à raridade do



**Figura 4** Arteriografia da carótida externa do Caso 3. Vista frontal (A) e perfil (B) mostra a coloração do tumor na área correspondente a todo o seio maxilar direito. Artéria esfenopalatina (seta).

hemangioma sinusoidal e à possibilidade de outras lesões neoplásicas vasculares também podem estar presentes, um alto risco de recorrência e lesões metastáticas locais nesses casos com achados semelhantes na TC e RM, como hemangiopericitoma e hemangiossarcoma, não pode ser afastado.

O hemangioma é comumente diagnosticado radiologicamente, de acordo com a classificação adotada na reunião da ISSVA de 1996. São divididos em tumores vasculares e malformações vasculares.<sup>8</sup> As malformações vasculares, convencionalmente classificadas como hemangiomas cavernosos, não regridem espontaneamente e por vezes requerem tratamento quando aumentam gradualmente de tamanho. Essas malformações podem ainda ser subdivididas em lesões de fluxo lento e rápido; as lesões de fluxo rápido podem ser tratadas com embolização semipermanente e confiável, como com uso de micromolas. Saber a velocidade do fluxo ajuda a determinar o método de embolização e é uma referência útil para o tratamento intravascular.

Consideramos que o nosso método cirúrgico foi eficaz com base em dois critérios: a taxa de hemorragia baixa no período perioperatório e o sucesso do manejo no período pós-operatório. Conseguimos limitar o sangramento no intraoperatório a 60 mL, 30 mL e 100 mL para os casos 1, 2 e 3, respectivamente. Além disso, o sangramento no pós-operatório foi suficientemente controlado pela colocação de tampões de gaze. Em um relato anterior, um paciente que não foi submetido a embolização arterial precisou de dois atendimentos de emergência no quarto em decorrência de sangramento no pós-operatório.<sup>9</sup> Outro estudo relatou que um hemangioma maciço de seio paranasal pode ser ressecado endoscopicamente, embora com esforço, inclusive embolização arterial no pré-operatório e um alargamento do acesso cirúrgico ao tumor, através de um orifício de controle na fossa canina.<sup>10</sup> Para os nossos três pacientes, ao contrário, escolhemos a combinação de um procedimento endoscópico e a operação de Watsuji-Denker com embolização arterial no pré-operatório, o que facilitou a nossa investigação e os cuidados da lesão no pós-operatório.

## Conclusão

Esses três casos foram diagnosticados como malformação venosa de fluxo lento, de acordo com a classificação da ISSVA. Angiografia e embolização arterial auxiliaram no diagnóstico preciso do local primário e no controle do sangramento. Esses casos muito raros são passíveis de tratamento relativamente rotineiro, após uma avaliação cuidadosa e adoção de uma abordagem planejada.

## Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

## Referências

1. Fu YS, Perzin KH. Non-epithelial tumors of the nasal cavity, paranasal sinuses, and nasopharynx: a clinicopathologic study. 3. Cartilaginous tumors (chondroma, chondrosarcoma). *Cancer*. 1974;34:453-63.
2. Batsakis JG, Rice DH. The pathology of head and neck tumors: vasoformative tumors, part 9A. *Head Neck Surg*. 1981;3:231-9.
3. Macomber W, Wang M. The hemangioma. *GP*. 1953;8:41-9.
4. Hellquist HB. Pathology of the nose and paranasal sinuses. Butterworths Editions; 1990.
5. Calonje E, Fletcher CD. Sinusoidal hemangioma. A distinctive benign vascular neoplasm within the group of cavernous hemangiomas. *Am J Surg Pathol*. 1991;15:1130-5.
6. Jammal H, Barakat F, Hadi U. Maxillary sinus cavernous hemangioma: a rare entity. *Acta Otolaryngol*. 2004;124:331-3.
7. Ciurea M, Ciurea R, Popa D, Parvanescu H, Marinescu D, Vrabete M. Sinusoidal hemangioma of the arm: case report and review of literature. *Rom J Morphol Embryol*. 2011;52:915-8.
8. Enjolras O, Wassef M, Chapot R. Color atlas of vascular tumors and vascular malformations. Cambridge University Press; 2007.
9. Vargas MC, Castillo M. Sinonasal cavernous haemangioma: a case report. *Dentomaxillofac Radiol*. 2012;41:340-1.
10. Song CE, Cho JH, Kim SY, Kim SW, Kim BG, Kang JM. Endoscopic resection of haemangiomas in the sinonasal cavity. *J Laryngol Otol*. 2009;123:868-72.