

PÓLIPO PILOSO ORAL EM UM ADOLESCENTE: RELATO DE CASO E REVISÃO DE LITERATURA

Oral hairy polyp in a teenager: case report and literature review

Vinícius Gonçalves de Souza^a , Damilys Joelly Souza Santos^a ,
Thalía Rissa Silva^a , Mathias Rezende Macedo^a , Tatiana Santos Araújo^b ,
Aparecida de Lourdes Carvalho^a , Ludimila Paula Vaz Cardoso^a ,
Carla Silva Siqueira Miranda^{a,*}

RESUMO

Objetivo: Relatar um caso incomum de pólipos pilosos (PP) oral e revisar a literatura para trazer informações epidemiológicas, clínicas e histopatológicas acerca da doença.

Descrição do caso: Paciente do sexo masculino, 12 anos de idade, encaminhado ao Departamento de Estomatologia com nódulo na região posterior de linha média da língua. O paciente não soube relatar quando surgiu a lesão e se ela havia crescido desde então. O exame clínico revelou massa pedunculada, volumosa e móvel no dorso da língua, medindo aproximadamente 1,0 cm de diâmetro. A mãe do paciente relatou que ele nunca havia tido nenhum problema de saúde anterior. Foi realizada biópsia excisional e o material foi enviado para análise anatomopatológica, sendo os achados compatíveis com o diagnóstico de PP.

Comentários: O pólipo piloso é uma lesão rara, especialmente na região oral. A pesquisa bibliográfica revelou apenas dez relatos de casos de PP oral, publicados entre janeiro de 1999 e janeiro de 2019, sendo observada predominância da doença em recém-nascidos do sexo feminino. Dois fatos incomuns ocorreram neste caso: tratava-se de um paciente do sexo masculino e o diagnóstico se deu aos 12 anos de idade.

Palavras-chave: Cisto dermoide; Medicina bucal; Patologia bucal; Pediatria.

ABSTRACT

Objective: To report an unusual case of oral hairy polyp (HP) and review the literature, providing epidemiological, clinical and histopathological information on this disease.

Case description: A 12-year-old male patient was referred to a Stomatology department with a nodule in the posterior midline of the tongue. The patient did not know exactly when it arose or whether it had grown since then. Clinical exam revealed a bulky and mobile pedunculated mass lesion on the dorsum of the tongue, with a diameter of approximately 1 cm. The patient's mother reported no previous health problem. An excisional biopsy was performed, the surgical specimen was sent for anatomopathological analysis, and the findings were compatible with the diagnosis of HP.

Comments: Hairy polyp is a rare lesion, especially in the oral region. The literature search revealed only 10 case reports of oral HP published between January 1999 and January 2019, and they revealed a predominance of the disease in female newborns. Two uncommon facts were presented in this case: the patient was male and diagnosis was made at 12 years old.

Keywords: Dermoid cyst; Oral medicine; Pathology, oral; Pediatrics.

*Autor correspondente. E-mail: carlassiqueira@gmail.com (C.S.S. Miranda).

^aUniversidade Federal de Jataí, Jataí, GO, Brasil.

^bSecretaria Municipal de Saúde de Jataí, Jataí, GO, Brasil.

Recebido em 13 de maio de 2020; aprovado em 02 de julho de 2020; disponível on-line em 17 de dezembro de 2020.

INTRODUÇÃO

Tumores congênitos da cavidade oral são manifestações raras, frequentemente diagnosticadas nos primeiros anos de vida. Um deles é o pólipo piloso (PP), uma lesão benigna composta por massas pedunculadas de origem mesodérmica e ectodérmica, geralmente da nasofaringe ou orofaringe, e coberta por pele com glândulas sebáceas e pelos.¹

As manifestações clínicas do PP dependem de sua localização e tamanho, mas comumente causam sintomas respiratórios e dificuldades de alimentação.² PPs podem ser diagnosticados por meio de exames clínicos, análise histopatológica da massa e exames de imagem, incluindo tomografia computadorizada e ressonância magnética.^{3,4} São tratados com excisão completa da massa, sem necessidade de tratamentos complementares.¹

O presente trabalho é o relato de um caso clínico de um paciente de 12 anos, sexo masculino, com PP em cavidade oral, cujo diagnóstico foi confirmado pela análise anatomopatológica da peça cirúrgica. Também apresentamos uma revisão da literatura sobre as características comuns desta lesão.

DESCRIÇÃO DO CASO

O paciente foi levado para o Serviço de Estomatologia, onde foi realizado exame clínico e biópsia. O material cirúrgico foi encaminhado ao serviço de patologia, onde foi total e rotineiramente processado para inclusão em parafina e coloração com

hematoxilina e eosina (H&E). Este relato de caso foi aprovado pelo conselho de revisão institucional.

O paciente do sexo masculino, 12 anos, foi encaminhado ao Serviço de Estomatologia por ter notado um nódulo na linha média posterior da língua durante autoexame, embora não soubesse exatamente quando tinha surgido ou se havia crescido desde então. O exame clínico revelou massa volumosa e móvel pedunculada no dorso da língua, com diâmetro de aproximadamente 1 cm, deslocada para a parte posterior da cavidade oral, em íntimo contato com a região orofaríngea, de cor e textura semelhantes à mucosa adjacente. A mãe do paciente relatou que ele nunca tinha tido problemas de saúde anteriormente.

A lesão foi excisada sob anestesia local sem complicações. A peça cirúrgica foi enviada para análise anatomopatológica supervisionada por patologista oral. A análise microscópica revelou lesão polipoide recoberta por epitélio escamoso estratificado queratinizado, contendo recortes em toda a sua extensão que sugeriam a formação de anexos cutâneos e a presença de diversos tecidos, incluindo glândulas salivares seromucinosas, tecido cartilaginoso, hiperplasia linfóide, tecido muscular e adiposo. Todos os tecidos estavam maduros e sem grau de atipia (Figura 1). Os achados histopatológicos foram compatíveis com o diagnóstico de PP. O pós-operatório transcorreu sem complicações e o paciente foi acompanhado por 18 meses, não apresentando sinais clínicos de recidiva tumoral. O relato deste caso foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa sob

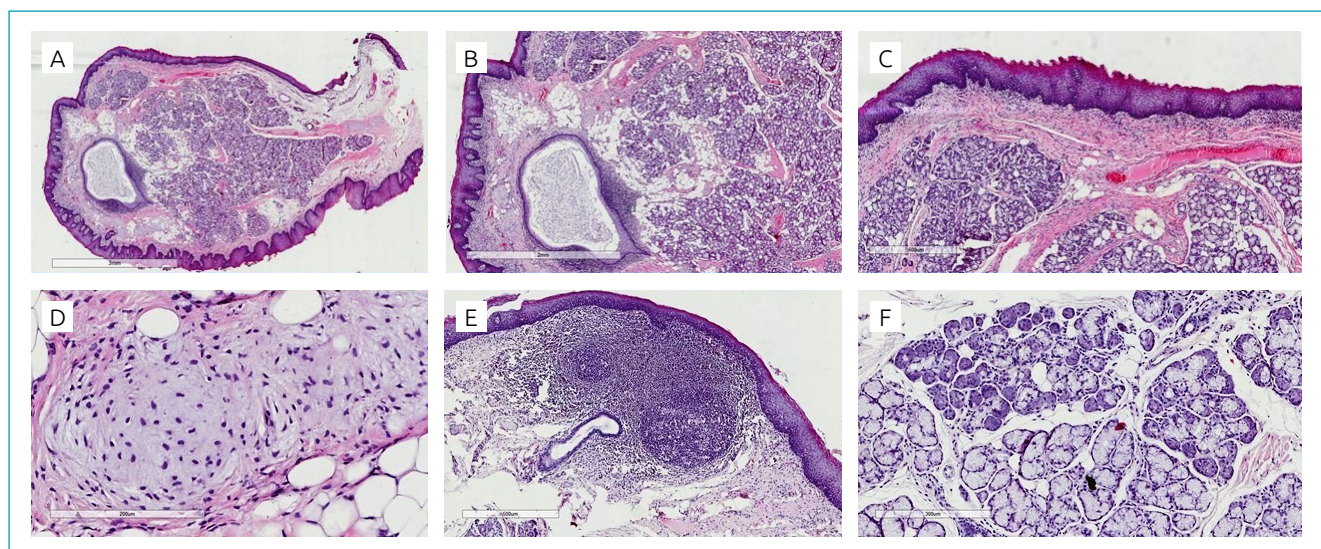


Figura 1 (A) Lesão polipoide com cisto ortoqueratinizado (4× aumentado). (B) Epitélio escamoso estratificado queratinizado com indentações que sugerem a formação de anexos cutâneos e proliferação de diversos tecidos (10× aumentado). (C) Proliferação de tecido conjuntivo que permeia áreas de glândulas e lipídios (20× aumentado). (D) Matriz hialina e condroblastos compatíveis com tecido cartilaginoso e adipócitos permeáveis (40× aumentado). (E) Tecido linfóide ativo. (F) Glândulas salivares serosas e mucosas de aspecto normal (20× aumentado).

protocolo 2.283.697 em 19 de setembro de 2017 (Universidade Federal de Goiás).

DISCUSSÃO

Uma revisão da literatura foi realizada a fim de levantar relatos de casos publicados entre janeiro de 1999 e janeiro de 2019 que se concentraram apenas na região oral. Dessa forma, não foram considerados artigos que apresentassem relatos de casos de PPs nas regiões da nasofaringe e orofaringe. Foram incluídos apenas os casos de lesões bigerminais (de origem ectodérmica e mesodérmica) semelhantes à descrição clássica de PP/cisto dermoide apresentada na classificação de Arnold⁵ (Tabela 1).

A busca foi realizada nas bases de dados PubMed, Centro Latino-Americano e do Caribe de Informação em Ciências da Saúde (BIREME) e Scientific Electronic Library Online (SciELO) por meio do pareamento dos descritores “hairy polyp” e “dermoid cyst” com “mouth” e “oral”, usando o conector “AND”.

Do total de 1.661 artigos encontrados na busca inicial, dois autores diferentes selecionaram independentemente as publicações originais em inglês que apresentavam relatos de casos de PP humano na cavidade oral, excluindo duplicatas. Além disso, as referências bibliográficas foram verificadas para que fossem adicionados os relatos não encontrados na busca inicial, mas que se enquadrassem nos critérios de inclusão. As discordâncias entre os avaliadores foram resolvidas por um terceiro investigador durante o processo de seleção.

Nove artigos foram incluídos nesta revisão. O processo de seleção e os resultados da busca estão descritos no fluxograma da Figura 2. Para as séries de casos, foram incluídos apenas os casos que atenderam aos critérios de inclusão. Após a leitura dos artigos na íntegra e identificação dos casos apresentados,

Tabela 1 Taxonomia de lesões germinativas de Arnold*.

Classificação	Descrição
Dermoides (incluindo pólipos pilosos)	Derivado das camadas germinativas epidérmicas e mesodérmicas. Tecido adiposo é predominante na matriz.
Teratoides	Tecido pouco diferenciado derivado das três camadas germinativas.
Teratomas	Tecido mais diferenciado com origem trigeminal. As estruturas organóides podem ser identificadas histologicamente.
Epignático	Feto parasita com camada trigeminal e geralmente incompatível com a vida

*Adaptado de Ibrahim et al.⁵

dez casos de PP na região oral foram escolhidos para análise no presente estudo.

Dois autores extraíram e avaliaram independentemente as seguintes informações: sobrenome do primeiro autor, sexo e idade do paciente, localização da lesão, sintomas, achados histopatológicos e outros, e complicações associadas. Quando informações incompatíveis foram extraídas pelos dois autores, um terceiro autor realizou a análise para garantir a integridade dos dados.

Os casos de PP são raros, e as lesões geralmente se localizam na nasofaringe ou palato mole e são identificadas nos primeiros

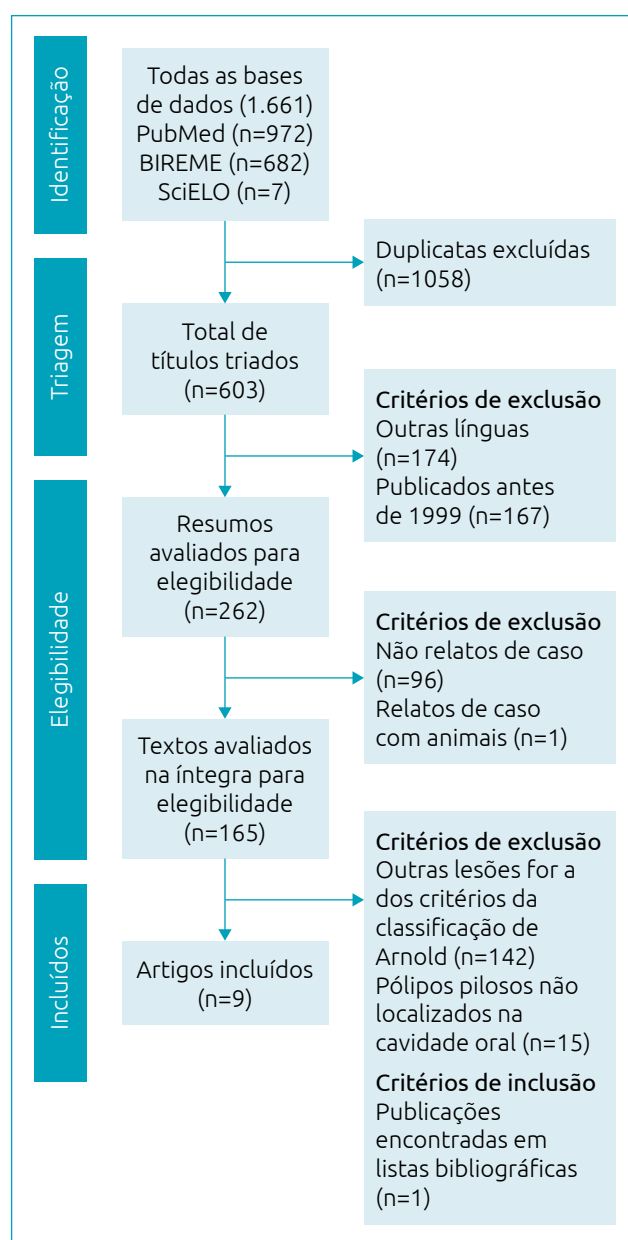


Figura 2 Fluxograma de pesquisa na literatura.

anos de vida.⁴⁻⁷ A incidência de PP é seis vezes maior em mulheres.^{3,8,9} Quatro em dez casos de PP oral relatado na presente revisão ocorreram em homens (Tabela 2).¹⁰⁻¹² Embora as lesões sejam frequentemente diagnosticadas precocemente, alguns casos são diagnosticados tardiamente devido à ausência de sintomas,¹² como o aqui relatado.

Este estudo relata um caso incomum de PP oral em paciente do sexo masculino, 12 anos, localizado na região posterior do dorso da língua, um dos locais mais raros de ocorrência desse tipo de lesão.⁴ Os sintomas do PP dependem de sua localização e tamanho, mas como é uma malformação congênita associada à obstrução das vias aéreas superiores, pode causar dificuldade respiratória, episódios de engasgo, cianose e dificuldades de alimentação.^{6,7} PPs também podem ser assintomáticos e, na maioria das vezes, são completamente resolvidos após a cirurgia.^{12,13} A presente revisão descreve três casos de PP em língua,^{4,10,14} dois casos assintomáticos^{2,11} e três casos sem relato da presença ou ausência de sintomas.^{10,12,14}

Vale ressaltar que a maioria das lesões são únicas e unilaterais,^{3,9} e ocorrem 6,5 vezes mais no lado esquerdo.^{1,6,7} A lesão aqui descrita era única, pedunculada e localizada na linha média da língua,¹⁵ o que simplificou a sua excisão sem a necessidade de exames de imagem pré-operatórios.^{1,3} Existem alguns casos relatados de lesões múltiplas em recém-nascidos e adultos, mas são consideradas raras.⁹ A presente revisão relata apenas um caso de PP bilateral.¹¹

Embora os PPs sejam considerados lesões raras, principalmente na cavidade oral, são os tumores benignos congênitos

mais comuns da região naso-orofaríngea.^{6,7,12} A lesão não pode ser detectada em estágios iniciais devido ao seu tamanho, localização e ausência de sintomas, sugerindo que possa ser subdiagnosticada ou diagnosticada ao acaso durante exames de rotina.¹⁶ A lesão aqui relatada foi isolada, não associada a alteração congênita ou predisposição genética, como na maioria dos casos relatados na literatura.^{3,6,12} Porém, estudos têm associado o PP a outras anomalias congênitas, como bifurcação de língua, fenda palatina, agenesia de orelha externa, anquiloglossia, entre outras.^{1,12,16}

Nenhuma teoria explica a origem exata do PP, mas alguns autores sugerem que está relacionado a malformações do primeiro e segundo arcos branquiais, tuba auditiva e/ou orelha média.^{7,17} Durante o desenvolvimento embrionário, a endoderme do primeiro arco branquial se expande para o ouvido médio com células mesenquimais da crista neural. Em seguida, o tubo do ouvido estimula as células mesenquimais a se transformarem no epitélio que reveste a metade superior do ouvido médio, enquanto o mesoderma se expande para o ouvido médio para revestir sua metade inferior. Essas células podem se transformar em um PP se sua diferenciação for interrompida e, assim, elas se estabelecem no ouvido médio, na tuba auditiva ou ao longo de qualquer parte dos arcos branquiais⁷.

A classificação dos PPs varia devido às dificuldades de definição das lesões. O diagnóstico diferencial de PP inclui teratoma benigno, cisto dermoide e coristoma.^{6,17} São compostos exclusivamente por elementos dos folhetos embrionários ectodérmicos e mesodérmicos^{6,7,18} e diferem do teratoma por este

Tabela 2 Epidemiologia e achados clínicos dos pólipos pilosos da cavidade oral relatados nos últimos 20 anos (janeiro de 1999 a agosto de 2019).

Citação	Gênero/idade	Localização e origem	Sintoma
Tariq et al. ¹²	Masc./12 anos	Palato mole e duro	Não reportado
Tariq et al. ¹²	Masc./1 mês	Lábio inferior	Não reportado
Desai et al. ²	Fem./6 meses	Linha média do palato duro, prevalente no lado esquerdo	Assintomático
Puricelli et al. ⁴	Fem./3 meses	Linha média anterior do dorso da língua, a uma distância quase igual entre o ápice da língua e o forame ceco	Dificuldade para engolir e respirar, associada a tosse e vômito
Yilmaz et al. ¹	Fem./2 meses	Lado direito do palato mole	Dificuldade para respirar
Herlin et al. ¹¹	Masc./47 anos	Superfície profunda do lábio superior, bilateral	Assintomático
Gokul et al. ¹³	Fem./8 meses	Palato duro, prevalente no lado esquerdo	Regurgitação nasal, dificuldade para se alimentar
Erdogan et al. ¹⁴	Fem./40 dias	Língua, lateral	Não reportado
Kiroglu et al. ¹⁵	Fem./1 dia	Linha média do palato duro	Dificuldade para se alimentar
Mahmood et al. ¹⁰	Masc./35 anos	Linha média do dorso da língua	Descarga de material amarelo-acinzentado

Tabela 3 Achados histopatológicos dos pólipos pilosos da cavidade oral relatados nos últimos 20 anos (de janeiro de 1999 a agosto de 2019).

Citação	Achados histopatológicos
Tariq et al. ¹²	Coberto por epitélio escamoso pseudoestratificado queratinizado; anexos da pele e glândulas seromucinosas
Tariq et al. ¹²	Coberto por epitélio escamoso pseudoestratificado queratinizado; anexos da pele, tecido adiposo, cartilagem e osso maduro
Desai et al. ²	Folículos capilares imaturos; glândulas sebáceas e sudoríparas no tecido conjuntivo fibroso
Puricelli et al. ⁴	Epitélio escamoso queratinizado contendo tecido conjuntivo e adiposo, músculo liso e estriado e glândulas salivares
Yilmaz et al. ¹	Tecido fibroso e adiposo, glândulas seromucinosas, folículos pilosos, glândulas sebáceas e sudoríparas écrinas, epitélio escamoso estratificado queratinizado
Herlin et al. ¹¹	Aspecto compatível com cisto dermoide (tecidos dérmicos e epidérmicos)
Gokul et al. ¹³	Epitélio escamoso paraqueratinizado, folículos pilosos, glândulas sebáceas e sudoríparas em estroma fibroso; tecido adiposo
Erdogan et al. ¹⁴	Epitélio escamoso estratificado, tecido adiposo, músculo, anexos da pele, glândulas salivares menores e cartilagem
Kiroglu et al. ¹⁵	Epitélio escamoso queratinizado, glândulas pilosebáceas, tecido adiposo e conjuntivo
Mahmood et al. ¹⁰	Epitélio escamoso estratificado, glândulas sebáceas, glândulas apócrinas e cartilagem

último apresentar lesões trigeminais (ectoderma, mesoderma e endoderme) com graus variados de diferenciação.¹⁸ Tanto os PPs quanto os cistos dermoides apresentam camadas germinativas ectodérmicas e mesodérmicas, com presença de cistos e epitélio queratinizado; entretanto, os cistos dermoides apresentam predominantemente a camada mesoderme.¹⁹ Esse é o critério de classificação mais próximo com base na sua morfologia e origem. Um coristoma é geralmente composto por um tecido normal e maduro localizado em uma região anatomicamente diferente.^{1,18}

A análise histopatológica revelou estruturas histológicas mesodérmicas e ectodérmicas geralmente encontradas em lesões de PP, corroborando relatos da literatura:^{6,7,18} hiperplasia linfóide e uma variedade de tecidos maduros como cartilagem, tecido muscular e adiposo, cisto ortoqueratinizado, glândulas salivares seromucinosas, e as indentações sugeriram a formação de anexos cutâneos (Tabela 3).

Os PPs não têm potencial maligno e são tratados por excisão total da lesão.^{1,17,20} Há baixa probabilidade de recorrência

do tumor após sua remoção cirúrgica,^{6,20} exceto em alguns casos relatados em que a localização do tumor dificultou sua excisão completa.²⁰ Nesse sentido, o acompanhamento pós-operatório é fundamental para verificar o processo de cicatrização e detectar precocemente uma possível recidiva, bem como examinar a resposta funcional da língua em alguns pacientes que se encontram no período de desenvolvimento.⁴ Nosso paciente não apresentou sinais clínicos de recidiva tumoral após um ano e meio de seguimento.

O conhecimento sobre os PPs é relevante pelo fato de serem lesões raras, principalmente na região oral. É vital excluir outras hipóteses diagnósticas, bem como prevenir dificuldades respiratórias e outras complicações.

Financiamento

O estudo não recebeu financiamento.

Conflito de interesses

Os autores declaram não haver conflito de interesses.

REFERÊNCIAS

1. Yilmaz M, Ibrahimov M, Ozcan O, Karaman E, Aslan M. Congenital hairy polyp of the soft palate. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2012;76:5-8. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2011.10.008>
2. Desai A, Kumar N, Wajpayee M, Jatania H. Cleft palate associated with hairy polyp: a case report. *Cleft Palate Craniofac J*. 2013;50:610-3. <https://doi.org/10.1597/11-231>

3. Edwards RM, Chapman T, Horn DL, Paladin AM, Iyer RS. Imaging of pediatric floor of mouth lesions. *Pediatr Radiol*. 2013;43:523-35. <https://doi.org/10.1007/s00247-013-2620-6>
4. Puricelli E, Barra MB, Hochhegger B, Ponzoni D, Azambuja HV, Morganti MA, et al. Hairy polyp on the dorsum of the tongue-detection and comprehension of its possible dynamics. *Head Face Med*. 2012;8:19. <https://doi.org/10.1186/1746-160X-8-19>
5. Ibrahim N, Wooles NR, Elloy M, Forno PD. A hairy situation. *BMJ Case Rep*. 2015;2015:bcr2015209825. <https://doi.org/10.1136/bcr-2015-209825>
6. Richter A, Mysore K, Schady D, Chandy B. Congenital hairy polyp of the oropharynx presenting as an esophageal mass in a neonate, a case report and literature review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2016;80:26-9. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2015.11.015>
7. Simmonds J, Jabbour J, Vaughn JA, Paulson VA, Poe DS, Rahbar R. Hairy polyps: a new case presentation and a pathogenetic hypothesis. *Laryngoscope*. 2019;129:2398-402. <https://doi.org/10.1002/lary.27555>
8. Eti CM, Ismi O, Arpacı RB, Vayısoğlu Y. Oropharyngeal hairy polyp causing dysphagia. *Turk Arch Otorhinolaryngol*. 2015;53:188-91. <https://doi.org/10.5152/tao.2015.1098>
9. Yilmazer R, Kersin B, Soylu E, Altın G, Cakir A, Yilmaz F. Bilateral oropharyngeal hairy polyps: a rare cause of dyspnea in newborns. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2017;83:117-8. <https://doi.org/10.1016/j.bjorl.2015.06.001>
10. Mahmood S, Moody H. Dermoid, teratoma or choristoma? A rare lesion of the tongue in an adult. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2003;41:117-9. [https://doi.org/10.1016/s0266-4356\(02\)00300-5](https://doi.org/10.1016/s0266-4356(02)00300-5)
11. Herlin C, Béziat JL, Koope M, Nimeskern N, Gleizal A. Bilateral dermoid cysts of the upper lip. *J Craniofac Surg*. 2011;22:2414-5. <https://doi.org/10.1097/scs.0b013e318231fe11>
12. Tariq MU, Din NU, Bashir MR. Hairy polyp, a clinicopathologic study of four cases. *Head Neck Pathol*. 2013;7:232-5. <https://doi.org/10.1007/s12105-013-0433-4>
13. Gokul S, Hedge V, Hallikeri K. Congenital hairy polyp associated with cleft palate – a rare entity. *Int J Clin Pediatr Dent*. 2009;2:46-8. <https://doi.org/10.5005/jp-journals-10005-1042>
14. Erdogan S, Tunalı N, Canpolat T, Tuncer R. Hairy polyp of the tongue: a case report. *Pediatr Surg Int*. 2004;20:881-2. <https://doi.org/10.1007/s00383-004-1158-y>
15. Kiroglu AF, Kutluhan A, Bayram I, Tuncer O, Sakin F. Reconstruction of a congenital midpalatal hairy polyp. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2004;42:72-4. [https://doi.org/10.1016/S0266-4356\(03\)00194-3](https://doi.org/10.1016/S0266-4356(03)00194-3)
16. Lignitz S, Haug V, Siegmund B, Mann WJ, Coerdts W, Mildenerberger E. Intermittent dyspnea and cyanosis in a newborn caused by a hairy polyp. *Pediatr Neonatol*. 2014;55:231-2. <https://doi.org/10.1016/j.pedneo.2013.07.009>
17. Vaughan C, Prowse SJ, Knight LC. Hairy polyp of the oropharynx in association with a first branchial arch sinus. *J Laryngol Otol*. 2012;126:1302-4. <https://doi.org/10.1017/s0022215112001752>
18. Dutta M, Roy S, Ghatak S. Naso-oropharyngeal choristoma (hairy polyps): an overview and current update on presentation, management, origin and related controversies. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2015;272:1047-59. <https://doi.org/10.1007/s00405-014-3050-2>
19. Jarvis SJ, Bull PD. Hairy polyps of the nasopharynx. *J Laryngol Otol*. 2002;116:467-9. <https://doi.org/10.1258/0022215021911095>
20. Chang SS, Halushka M, Meer JV, Goins M, Francis HW. Nasopharyngeal hairy polyp with recurrence in the middle ear. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2008;72:261-4. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2007.10.003>