

HOSPITAL GENERAL PROVINCIAL DOCENTE
"DR. ANTONIO LUACES IRAOLA"
CIEGO DE ÁVILA

Linfangioma lingual en el niño

Lingual lymphangioma in the child

Hilda Bárbara Álvarez Felipe^I, Rolando Herrera Paradelo^{II}, Dunia Sotolongo Díaz^{III}.

RESUMEN

Introducción: los linfangiomas son malformaciones congénitas del sistema linfático cuya causa se desconoce. Aunque las localizaciones más frecuentes son las regiones cervicofacial y axilar, los linfangiomas microquísticos generalmente aparecen en la lengua.

Objetivo: presentar un caso de linfangioma lingual en un niño, de interés por ser una malformación poco frecuente y requerir de tratamiento oportuno para evitar intervenciones invasivas.

Presentación del caso: paciente masculino de cinco años de edad que presentó sangrado y aumento de volumen de la lengua, por lo que fue ingresado. En el examen físico se observó la lengua inflamada en sus dos tercios anteriores, tumefacta, con lesiones descamativas en el dorso y los bordes, dolorosa a la palpación y de coloración ligeramente negroazulada. En el examen microscópico se detectaron espacios linfáticos revestidos de epitelio, ausencia de células sanguíneas, escaso estroma y células endoteliales revistiendo los lagos linfáticos comunicantes entre sí. Se diagnosticó linfangioma lingual.

Discusión: los linfangiomas linguales son infrecuentes. No obstante se deben tener en cuenta como una de las causas de obstrucción de la vía aérea alta, por lo que se incluyen como diagnóstico diferencial junto al tiroideo lingual, los quistes tirogloso y dermoides, los linfangiomas, angiomas, adenomas, fibromas, papilomas y linfomas.

Conclusiones: las opciones de tratamiento del linfangioma lingual incluyen el empleo de fármacos esclerosantes asociados a la aplicación de vendaje compresivo, y en ocasiones la intervención quirúrgica. En este caso la temprana hospitalización y el tratamiento oportuno del paciente influyeron en su evolución favorable, sin necesidad de recurrir a la opción quirúrgica.

Palabras clave: LINFANGIOMA/LENGUA/diagnóstico, LINFANGIOMA/LENGUA/tratamiento farmacológico, LINFANGIOMA/LENGUA/terapia, INFORMES DE CASOS.

ABSTRACT

Introduction: lymphangiomas are congenital malformations of the lymphatic system whose cause is unknown. Although the most frequent locations are the cervicofacial and axillary regions, the microcystic lymphangiomas usually appear in the tongue.

Objective: to present a case of lingual lymphangioma in a child, of interest for being a rare malformation and requiring timely treatment to avoid invasive interventions.

Case presentation: male patient of five years of age who presented bleeding and increased tongue volume, so he was admitted. In the physical examination the swollen tongue was observed in its two thirds previous, with desquamative lesions on the dorsum and the edges, painful on palpation and slightly black-blue coloration. In the microscopic examination, lymphatic spaces lined with epithelium, absence of blood cells, scarce stroma and endothelial cells were detected, coating the lymphatic lakes communicating with each other. Lingual lymphangioma was diagnosed.

Discussion: lingual lymphangiomas are infrequent. However, they must be taken into account as one of the causes of obstruction of the upper airway, so they are included as differential diagnosis along with the lingual thyroid, thyroglossal and dermoid cysts, lymphangiomas, angiomas, adenomas, fibroids, papillomas and lymphomas.

Conclusions: lingual lymphangioma treatment options include the use of sclerosing agents associated with the application of compression bandaging, and occasionally surgical intervention. In this case, the early hospitalization and the timely treatment of the patient influenced its

favorable evolution, without needing to resort to the surgical option.

Keywords: LYMPHAMGIOMA/TONGUE/diagnosis, LYMPHAMGIOMA/TONGUE/drug therapy, LYMPHAMGIOMA/TONGUE/therapy, CASE REPORTS.

- I. Máster en Atención Integral al Niño. Especialista de Primer Grado en Pediatría. Profesor Asistente. Hospital General Provincial Docente "Dr. Antonio Luaces Iraola". Ciego de Ávila, Cuba.
- II. Especialista de Primer Grado en Cirugía Maxilofacial. Profesor Instructor. Hospital General Provincial Docente "Dr. Antonio Luaces Iraola". Ciego de Ávila, Cuba.
- III. Máster en Enfermedades Infecciosas. Especialista de Primer Grado en Dermatología. Profesor Auxiliar. Investigador Agregado. Hospital General Provincial Docente "Dr. Antonio Luaces Iraola". Ciego de Ávila, Cuba.

INTRODUCCIÓN

La amígdala lingual es una estructura normal formada por tejido linfoide, ubicada en la base de la lengua. Esta estructura, las amígdalas palatinas, las amígdalas faríngeas (adenoides) y el tejido linfático que rodea el orificio de la trompa de Eustaquio en las paredes laterales de la nasofaringe, constituyen el anillo de Waldeyer, estructura que cumple una función inmunológica en el organismo humano. La sintomatología respiratoria asociada a la amígdala lingual es poco frecuente.⁽¹⁻³⁾

Los linfangiomas son malformaciones congénitas del sistema linfático cuya causa exacta se desconoce.⁽⁴⁾ Se cree que son un proceso secundario a la atresia de los conductos linfáticos o a la insuficiencia de los canales eferentes.⁽⁵⁾ Generalmente son lesiones benignas caracterizadas por la existencia de espacios dilatados limitados por endotelio, cuyos aspecto y tamaño varían desde canales microscópicos hasta grandes quistes (únicos o múltiples) con líquido en su interior.⁽⁴⁾ De acuerdo a su estructura se clasifican en quísticos, cavernosos y mixtos, o macroquísticos (diámetro superior a 2 cm) y microquísticos (diámetro menor de 2 cm). En algunos casos (la mayoría son pacientes adultos) la fuga linfática es consecuencia de traumatismos.^(4,5)

La primera descripción de un linfangioma data de 1854 y fue hecha por Virchow.⁽⁶⁾ En 75 % de los casos las localizaciones más frecuentes son las regiones cervicofacial y axilar.^(4,6) Respecto al momento de aparición 50 % de las lesiones se identifican desde el nacimiento y 90 % se desarrollan en los dos primeros años de vida.^(6,7) Los linfangiomas microquísticos generalmente aparecen en la lengua.⁽⁴⁾ En estos casos su aspecto se asemeja a los angioqueratomas, por lo que se conocen con el apelativo de "lengua en caviar", y requieren atención especial debido a las alteraciones y complicaciones que provocan.⁽⁵⁾

Generalmente cuando aparece el linfangioma lingual es parte de la estructura del órgano. De ahí que para extirparlo podría ser necesaria la remoción casi completa de la lengua, con graves alteraciones funcionales en la deglución, la masticación y el habla. La resección incompleta de la lesión no resulta satisfactoria debido a que las lesiones o complicaciones residuales son molestas. Por ello en ocasiones es necesario reseca el tejido residual o extirpar parcialmente la lengua.⁽⁴⁾

Aunque los linfangiomas linguales son poco comunes, la mayoría de los casos se presentan en niños, y precisan tratamiento médico o quirúrgico (siendo necesaria la participación de otros especialistas como el maxilofacial).⁽⁴⁾ El objetivo de este artículo es presentar un caso de linfangioma lingual en un niño, de interés por ser una malformación poco frecuente y requerir de tratamiento oportuno para evitar intervenciones invasivas.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente masculino de cinco años de edad y color de piel blanco, nacido de parto eutócico postérmino (43 semanas) y peso adecuado (3 800 g) a su edad gestacional. Pertenece al consultorio médico de familia de Santana en el municipio Ciro Redondo y en su historia clínica no se refieren antecedentes patológicos personales.

Constan como antecedentes prenatales de la madre una historia obstétrica de 10 gestaciones, ocho abortos y dos partos, y varios ingresos durante el embarazo por amenaza de aborto. Los

antecedentes patológicos posnatales del niño recogidos son: broncoaspiración de meconio, cianosis, y cambios en la coloración de la lengua a partir de los seis meses de vida (la madre refirió que "se le puso morada"), razón por la que acudió a consulta y se le indicó tratamiento con nistatina por un período de seis meses, sin tener mejoría.

Posteriormente se le inflamó la lengua y apareció erupción de color rojizo. En la interconsulta con el especialista en cirugía maxilofacial se le recomendó una dieta sin irritantes, evitar consumir cítricos y comidas calientes. Días después la madre llevó al niño al cuerpo de guardia del Hospital General Provincial Docente "Dr. Antonio Luaces Iraola" por presentar sangrado y aumento de volumen de los dos tercios anteriores de la lengua.

Examen físico:

Se observó la lengua inflamada en sus dos tercios anteriores, tumefacta, con lesiones descamativas en el dorso y los bordes, dolorosa a la palpación y de coloración ligeramente negroazulada (figuras 1, 2 y 3).



Figuras 1 y 2. Obsérvense las lesiones en la lengua y la tumefacción característica.



Figura 3. Vista lateral. Se observa el aumento de volumen de los dos tercios anteriores de la lengua.

Exámenes complementarios:

Conteo global de leucocitos: 8×10^9 L con 60% de neutrófilos y 33% de linfocitos; hemoglobina 105 g/L; eritrosedimentación: 15 mm/h; tiempo de sangrado: un minuto; tiempo de coagulación: seis minutos; conteo de plaquetas: 279×10^9 L.

Se tomó una muestra de tejido del tercio anterior de la lengua para biopsia, descrita macroscópicamente como un fragmento elíptico de tejido lingual, de 1 cm. En el examen microscópico se detectaron espacios linfáticos revestidos de epitelio, ausencia de células

sanguíneas, escaso estroma y células endoteliales revistiendo los lagos linfáticos comunicantes entre sí. Diagnóstico histológico: linfangioma lingual.

Al paciente se le diagnosticó una malformación lingual. Se le administraron líquidos por vía endovenosa para lograr su estabilización hemodinámica. Posteriormente se efectuó el tratamiento esclerosante con epinefrina y vendaje compresivo. El sangrado se detuvo y el niño evolucionó satisfactoriamente, sin complicaciones.

DISCUSIÓN

En la literatura pediátrica son escasos los reportes de casos de linfangiomas linguales. La mayoría se refieren a pacientes que, sin antecedentes previos, presentan dificultades en la intubación, y la aparición de apneas obstructivas o su exacerbación en niños con otra enfermedad de base. No existen grandes series pediátricas que permitan encontrar asociaciones estadísticas con otras enfermedades, ni estudios controlados que comparen estos pacientes con la población sana. No obstante se debe tener en cuenta el linfangioma lingual como una de las causas de obstrucción de la vía aérea alta, por lo que se incluye como diagnóstico diferencial junto al tiroides lingual, los quistes tirogloso y dermoides, los linfangiomas, angiomas, adenomas, fibromas, papilomas y linfomas.^(2,4,7,8)

Los linfangiomas linguales son infrecuentes. En la literatura médica cubana no se han encontrado investigaciones sobre el tratamiento farmacológico o quirúrgico a elegir. La revisión de la literatura internacional menciona como conductas terapéuticas a seguir la resección quirúrgica (parcial o total) de la lesión o los tratamientos esclerosantes consistentes en la aplicación de bleomicina, fibrina o material dental hidrocoloide.^(4,7,8) Según Sánchez Nava y cols. el tratamiento esclerosante con Picibanil® (OK432) permite mejorar considerablemente la mordida y la deglución⁽⁴⁾.

No obstante, en aquellos casos que requieran resección de la fibrosis residual y de la macroglosia es importante intervenir en forma temprana. De lo contrario podrían aparecer complicaciones como macrostomía, luxación de mandíbula, alteraciones en la mordida o problemas para la alimentación. La resección en cuña de lengua no siempre es necesaria para eliminar la lesión residual.^(4,9)

El niño ingresó en el hospital presentando aumento de volumen de los dos tercios anteriores de lengua, con tumefacción, coloración ligeramente negroazulada y dolor a la palpación. El sangrado producto de las lesiones descamativas en el dorso y los bordes linguales era escaso. Los resultados de los complementarios estuvieron dentro de los límites normales, no obstante el paciente fue hospitalizado para reponer el volumen hemodinámico y efectuar el tratamiento esclerosante.

CONCLUSIONES

Las opciones de tratamiento del linfangioma lingual incluyen el empleo de fármacos esclerosantes asociados a la aplicación de vendaje compresivo, y en ocasiones la intervención quirúrgica. En este caso la temprana hospitalización y el tratamiento oportuno del paciente influyeron en su evolución favorable, sin necesidad de recurrir a la opción quirúrgica.

Conflictos de intereses

Los autores declaran que no existen conflictos de intereses.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Wetmore FR. Amígdalas y adenoides. En: Kliegman RM, Stanton BF, Schor FN, St Geme III JW, Behrman RE, editores. Nelson. Tratado de Pediatría. 19na ed. Barcelona: Elsevier España; 2012. p. 1500-7.
2. Monge M, Le Corre N, Caussade S, Navarro H, Sánchez I. Obstrucción respiratoria secundaria a hipertrofia de la amígdala lingual: Casos clínicos. Rev. chil. pediatr. [Internet]. Sep 2001 [citado 27 Jul 2017];72(5):443-8. Disponible en: https://scielo.conicyt.cl/scielo.php?pid=s0370-41062001000500008&script=sci_arttext

3. Ballona R, Torres R. Linfangioma de lengua: involución post infecciosa. Informe de un caso. Folia Dermatol Peru [Internet]. Abr 2001 [citado 21 Ene 2016];12(1):[aprox. 4 p.]. Disponible en:
http://sisbib.unmsm.edu.pe/BvRevistas/fofia/Vol12_N1_abril_2001/linfangioma%20de%20lengua.htm
 4. Sánchez Nava J, Mejía Sánchez MR, Sánchez Michaca VJ, Jiménez Urueta PS, Ramírez Hernández I, Lezama del Valle P. Linfangiomas de la lengua tratados con picibanil (OK432). Experiencia en niños mexicanos. Acta Pediatr Mex [Internet]. Dic 2009 [citado 27 Jul 2017];30(6):312-6. Disponible en: <http://www.medigraphic.com/pdfs/actpedmex/apm-2009/apm096e.pdf>
 5. Moreno Villacís S, Martínez Fiallos C, Castillo Rojas A. Linfangioma de la lengua en paciente adulto mayor: reporte de un caso. Rev Fac Cien Med (Quito) [Internet]. 2012 [citado 10 Abr 2018];37(1-2):83-4. Disponible en:
http://revistadigital.uce.edu.ec/index.php/CIENCIAS_MEDICAS/article/download/316/PDF
 6. De Andrade Hage C, Silva de Araújo JS, Flores Silva P, Neves Gonçalves FL, Rebelo Pontes HA. Linfangioma microcístico em língua: Relato de caso. Rev. cir. traumatol. buco-maxilo-fac. [Internet]. Dic 2016 [citado 10 Abr 2018];16(4):49-52. Disponible en:
<http://revodonto.bvsalud.org/pdf/rctbmf/v16n4/a10v16n4.pdf>
 7. González Hernández J, Bajares K, Sánchez CE, Toca MV, Tosta MA. Linfangioma. Reporte de un caso. Revisión de Literatura. Acta Odontol Venez [Internet]. Jun 2012 [citado 21 Ene 2016];50(2):[aprox. 5 p.]. Disponible:
<https://www.actaodontologica.com/ediciones/2012/2/art-15/> (está como 4)
 8. Chimenos Küstner E, Escobar López EA, López López J, Rodríguez de Rivera Campillo ME, Marques Soares MS, Viñals Iglesias H. Linfangioma capilar. Revisión de la literatura y reporte de un caso pediátrico. Acta Odontol Venez [Internet]. Dic 2009 [citado 21 Ene 2016];47(4):158-66. Disponible en:
<https://www.actaodontologica.com/ediciones/2009/4/art-25/>
 9. Pérez Salcedo L., Bascones Martínez A. Tumores benignos de la mucosa oral. Av Odontoestomatol [Internet]. Feb 2010 [citado 21 Ene 2017];26(1):11-8. Disponible en:
<http://scielo.isciii.es/pdf/odonto/v26n1/original1.pdf>
-

Recibido: 2 de mayo de 2017

Aprobado: 7 de febrero de 2018

Dra. Hilda Bárbara Álvarez Felipe
Hospital General Provincial Docente "Dr. Antonio Luaces Iraola"
Calle Máximo Gómez No.257, entre 4ta y Onelio Hernández. Ciego de Ávila, Cuba. CP.65200
Correo electrónico: hildab@ali.cav.sld.cu