

Angioleiomioma oral mimetizando um granuloma piogênico: relato de caso raro

Oral Angioleiomyoma mimetizing a pyogenic granuloma: A rare case report

Ivana de Sousa Brandão¹

Carlos Eduardo Nogueira Nunes²

Rayssa de Fátima Lopes Arruda Carneiro³

Filipe Nobre Chaves⁴

Marcelo Bonifácio da Silva Sampieri⁵

Denise Hêlen Imaculada Pereira de Oliveira⁶

Resumo

Angioleiomioma (AL) é um tumor benigno de origem perivascular que raramente é observado na cavidade oral, principalmente em localizações como a gengiva. Devido sua apresentação clínica inespecífica, os ALs podem mimetizar outras lesões orais, como tumores benignos de glândulas salivares e lesões reacionais, como o granuloma piogênico. O presente artigo objetiva relatar um caso raro de AL localizado em gengiva, em uma paciente de 19 anos. Clinicamente, a lesão apresentava-se como um tumor assintomático, oval, pedunculado, bem definido, com superfície lisa, consistência fibrosa e cor eritematosa, semelhante a um granuloma piogênico. Uma biópsia excisional foi realizada e o fragmento foi encaminhado para análise histopatológica, que revelou uma proliferação vascular de diversos calibres, contendo paredes musculares espessas e proliferação muscular adjacente, além de infiltrado inflamatório, predominantemente crônico, hemácias extravasadas e área de ulceração, consistente com o diagnóstico de AL inflamado. A histopatologia desempenha um papel importante no diagnóstico final de lesões raras e com características clínicas inespecíficas. A excisão cirúrgica da lesão é o tratamento de escolha mais eficaz para os ALs orais.

Palavras-chave: Angioleiomioma; Gengiva; Granuloma piogênico; Tumor de músculo liso.

<http://dx.doi.org/10.5335/rfo.v28i1.14417>

¹ Graduação, Faculdade de Odontologia, Universidade Federal do Ceará- Campus Sobral, Ceará-Brasil

^{2,3} Mestre, Faculdade de Odontologia, Programa de Pós-Graduação em Ciências da Saúde, Universidade Federal do Ceará Campus Sobral, Ceará-Brasil

^{4,5,6} Doutor, Programa de Pós-Graduação em Ciências da Saúde, Universidade Federal do Ceará Campus Sobral, Ceará-Brasil

Introdução

O angioleiomioma (AL) é uma neoplasia benigna que, de acordo com a Organização Mundial de Saúde (OMS) (2013), possui origem perivascular¹. A sua etiologia ainda é incerta, mas já foi sugerido que o AL se origina do músculo liso presente na parede dos vasos sanguíneos², ou ainda pode surgir a partir de estímulo de aquecimento ou trauma mecânico, estase venosa e alterações hormonais³.

Na cavidade oral, a presença de AL é considerada rara, representado apenas 0,06% dos casos⁴. Os sítios de acometimento mais comuns na cavidade oral são os lábios, a mucosa jugal, o palato e a língua^{5,6}. Clinicamente, eles costumam se apresentar como lesões nodulares indolores que aumentam lentamente e podem ter coloração vermelha, azul, roxa ou semelhante à mucosa normal⁷, com maior prevalência em homens de meia idade⁸.

Devido a suas características inespecíficas, que comumente mimetizam outras lesões, lançar mão de exames complementares histopatológicos e histoquímicos, por exemplo, são fundamentais para o correto diagnóstico. Histopatologicamente, os tumores são bem circunscritos e às vezes circundados por uma cápsula completa ou parcial. A característica proeminente é a proliferação de células maduras do músculo liso e numerosos vasos sanguíneos com paredes musculares espessas^{4,7}.

O diagnóstico diferencial de AL na cavidade oral inclui outras condições benignas das glândulas salivares como mucocele e adenoma pleomórfico, tumores mesenquimais, linfangioma e granuloma piogênico⁹. A excisão cirúrgica é o tratamento de escolha para AL, e as recorrências são muito raras³.

Assim, o objetivo desse manuscrito é relatar um caso clínico raro de AL oral localizado em gengiva, com aspectos clínicos similares ao de um granuloma piogênico em uma paciente do sexo feminino de 19 anos.

Relato de caso

Paciente do sexo feminino, de 19 anos, compareceu a uma clínica de estomatologia, apresentando um crescimento assintomático na região anterior de mandíbula, com tempo de evolução de 5 meses e aumento gradual para um tamanho de aproximadamente 3 cm de diâmetro. No exame físico, a paciente não apresentou anormalidades extraorais. No exame intraoral, observou-se um tumor, lobulado, pedunculado, com superfície lisa, consistência fibrosa e cor eritematosa, localizado em gengiva interdental vestibular, estendendo-se para a região lingual, entre os dentes 31 e 41 (Figura 1A).

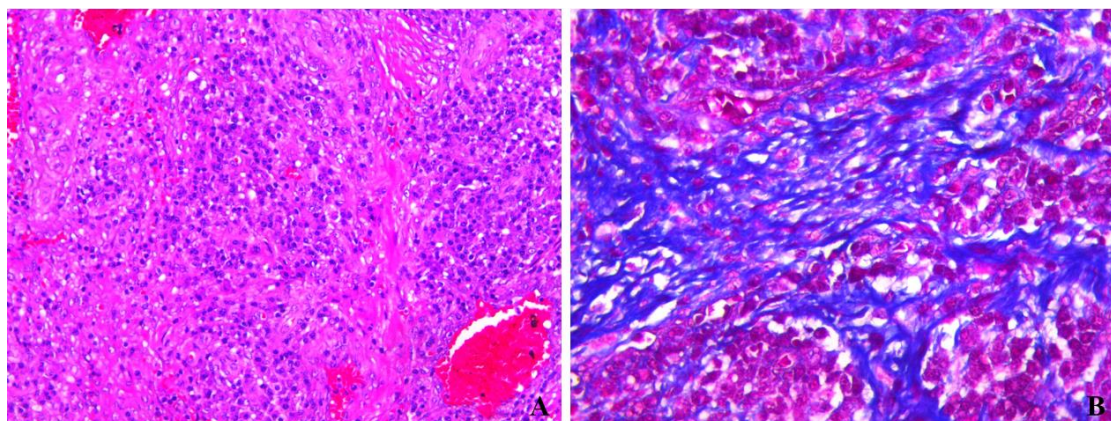
Figura 1: Aspecto clínico da lesão



Tumor pedunculado, bem definido, com superfície lisa, consistência fibrosa e cor ora eritematosa, ora rosada, localizado em gengiva interdental vestibular e lingual.

A consistência firme era associada com a presença de sangramento ao toque, além da presença consistente de tártaro em toda região. Ao realizar a sondagem, foi evidenciada a presença de bolsa periodontal de 7 mm com mobilidade grau 2 nos dentes associados à lesão. Com base na avaliação clínica, foram elencados como hipótese diagnóstica principal o granuloma piogênico e diagnóstico diferencial o fibroma ossificante periférico. A biópsia excisional foi realizada sob anestesia local associada à raspagem supra e subgengival dos dentes associados. O espécime foi enviado para análise histopatológica que evidenciou lesão tumoral caracterizada por proliferação vascular de diversos calibres, contendo paredes musculares espessas e proliferação muscular adjacente. Infiltrado inflamatório, predominantemente crônico, hemácias extravasadas e área de ulceração completaram o quadro histopatológico (Figura 2A). A reação histoquímica de Tricômico de Masson revelou deposição de colágeno adjacente e áreas de aspecto mioide (Figura 2B).

Figura 2: Corte histológico corado em HE



(A) Proliferação vascular de diversos calibres, contendo paredes musculares espessas e proliferação muscular adjacente, além de infiltrado inflamatório, predominantemente crônico, hemácias extravasadas e área de ulceração. (B) A reação histoquímica de Tricômico de Masson revelou deposição de colágeno adjacente e áreas de aspecto mioide

Com base nessas características, o diagnóstico final de AL inflamado foi estabelecido. Não houve recorrência em 12 meses de acompanhamento da lesão e a paciente apresentou cicatrização satisfatória do tecido ao redor dos dentes 31 e 41. O presente caso foi aprovado no Comitê de Ética e Pesquisa da Universidade Estadual Vale do Acaraú (Protocolo nº. 6.483.091).

Discussão

Leiomiomas são tumores benignos de origem muscular lisa e são encontrados com mais frequência em áreas com abundância desse tecido, como o trato gastrointestinal, útero e pele¹⁰. De acordo com as suas características histopatológicas, são classificados em sólido, epitelióide e AL¹¹.

O AL, tumor benigno dérmico ou subcutâneo composto de células musculares lisas bem diferenciadas, teve seu primeiro caso relatado por Blanc em 1884 e, desde então, vários outros casos foram relatados na literatura^{6,7,12}.

A etiologia exata de AL ainda permanece desconhecida. No entanto, infecção local, traumas, malformações arteriovenosas e influências hormonais são sugeridas como possíveis fatores relacionados¹³.

Acredita-se que os ALs originam-se da túnica média dos vasos sanguíneos, especialmente das veias ¹⁴ e os ALs orais originam-se do músculo liso vascular, ducto excretor das glândulas salivares e das papilas circunvaladas^{11,15}. A incidência de AL na cavidade oral é rara e foi estimada em cerca de 0,065%¹⁶.

Histopatologicamente, o AL é caracterizado por espaços vasculares dilatados com uma única camada de revestimento epitelial e por músculo liso arranjado concentricamente ao redor dos vasos sanguíneos. As células musculares são bem definidas e a lesão pode ser ou não encapsulada. Uma

grande quantidade de fibras colágenas podem ser encontradas intercalando os espaços vasculares¹⁷.

Clinicamente, ALs orais apresentam-se como um crescimento sésil com tamanho variando de 5mm a 2cm, de consistência firme e coloração vermelha, rosa ou arroxeada. O crescimento é lento e normalmente assintomático⁴. O presente caso relata um AL de 3 cm e condizente com as demais características apresentadas anteriormente.

Jafarian et al. (2021)⁶, revisaram a literatura de 2000 a 2020 e encontraram que os locais mais comuns de ALs orais foram o lábio, mucosa jugal, palato, língua e área submandibular. A gengiva é um local raro e poucos casos foram relatados na literatura desde 1964 até a presente data¹⁸. A tabela 1 reúne todos os casos de ALs gengivais relatados nas últimas 5 décadas.

Tabela 1 – Casos clínicos de ALs gengivais relatados na literatura dos últimos 50 anos

Autor (ano)	Sítio gengival	Gênero	Idade	Sintomas	Diagnóstico clínico (antes da biópsia)	Histoquímica
						Tricômico de Masson
Brooks et al ⁷ (2002)	-	F	68	-	Hiperkeratose	+
Mahima et al ¹⁷ (2011)	Inferior	M	57	Assintomático	-	+
Menditti et al ¹⁹ (2012)	Superior	M	14	Assintomático	-	-
Barboza et al ²⁰ (2013)	Superior	M	43	Assintomático	Lesão periférica de células gigantes	-
Liu et al (2014) ²¹	-	M	20	Sintomático	-	+
Ranjan & Singh ⁴ (2014)	Inferior	F	45	Assintomático	Granuloma piogênico	-
Arpağ et al ²² (2016)	Inferior	M	25	Assintomático	-	-
Arpağ et al ²² (2016)	Superior	F	55	Assintomático	Abcesso periodontal	-
Bajpai et al ²³ (2016)	Inferior	M	39	Assintomático	Granuloma piogênico	-
Souto et al ¹⁸ (2019)	Superior	M	11	Sintomático	Granuloma piogênico	+
Thakker et al ²⁴ (2019)	Inferior	M	17	Assintomático	Lesão periférica de células gigantes	-
Caso presente	Inferior	F	19	Assintomático	Granuloma piogênico	+

Fonte: autoria própria.

Com relação à idade, AL raramente é encontrado durante a infância e a adolescência, com apenas cerca de 9,52% dos casos relatados diagnosticados em pacientes com menos de 20 anos de idade⁵, sendo mais prevalente em homens, entre a 4ª e 5ª década de vida. A média de idade relatada em ALs gengivais é de 34 anos, com preferência para o sexo masculino (2:1) (tabela 1). Dessa forma, o atual caso relatado em uma jovem adolescente de 19 anos pode ser considerado um episódio raro de AL em gengiva.

As características clínicas inespecíficas do AL tornam difícil a sua distinção de outras lesões tumorais da cavidade oral, já que elas podem mimetizar lesões vasculares como granuloma piogênico, granuloma periférico de células gigantes e hemangiomas de infância^{5,7}. No atual relato, a lesão apresentava-se com aspectos clínicos similares ao de um granuloma piogênico, desde a sua apresentação clínica a sua localização.

A gengiva é propensa a muitas lesões reativas, bem como a lesões tumorais benignas. As mais comumente encontradas são especialmente vistas em pacientes jovens do sexo feminino e incluem granuloma piogênico, granuloma periférico de células gigantes, fibroma ossificante periférico e fibroma traumático¹⁸, que são os principais diagnósticos diferenciais elencados diante de um AL gengival.

O diagnóstico final do AL só é possível por meio de exames complementares. Microscopicamente, a proliferação das células fusiformes é similar a outros tipos de tumores, especialmente miofibromas e mioepitomas¹².

A análise histoquímica como a coloração especial de Tricômico de Masson é muito útil para realizar o correto diagnóstico diferencial²¹, pois irá confirmar as fibras colagenosas permeando as células de proliferação muscular. O citoplasma das células musculares é corado de vermelho e os fibroblastos e as fibras colágenas são coradas de azul¹¹. No entanto, na literatura reportada nos últimos 50 anos, apenas 4 casos encontrados em gengiva usaram esse exame complementar (tabela 1).

Outras técnicas de coloração especial, como a Van-Gieson e a Coloração de Mallory têm sido usadas para confirmar a entidade da lesão. Também é sugerido que em situações de controvérsias histopatológicas, pode-se lançar mão do exame imunohistoquímico. Marcadores para actina, vimetina e desmina podem ser utilizadas^{16,20}. No presente caso, a coloração especial de Tricômico de Masson foi utilizada e mostrou coloração positiva nas células musculares.

Conclusão

Assim, no presente caso, em que relatamos um AL em gengiva, com aparência clínica de um granuloma piogênico, os aspectos clínicos da lesão não nos permitiram fazer um diagnóstico presuntivo correto. A análise histopatológica, aliada à histoquímica, foi essencial para identificar corretamente a entidade patológica da lesão.

O tratamento de escolha para o AL oral é a excisão cirúrgica conservadora. Raras recidivas foram descritas. Não existem relatos de transformação maligna e o prognóstico dos pacientes é

considerado excelente. O presente paciente encontra-se em acompanhamento e sem evidências de recidiva até o presente momento.

Agradecimentos

Os autores agradecem ao Governo do Estado do Ceará, à Fundação Cearense de Apoio ao Desenvolvimento Científico e Tecnológico (FUNCAP) pela promoção do projeto BP4-0172-00129.01.00/20.

Abstract

Angioleiomyoma (AL) is a benign tumor of smooth muscle of perivascular origin that is rarely seen in the oral cavity, mainly in locations like the gingiva. Due to their nonspecific clinical presentation, ALs can mimic other oral lesions, such as benign salivary gland tumors and reactional lesions, as a pyogenic granuloma. We reported a case of an AL located in the gingiva in a 19-year-old female patient. In clinical terms, the lesion was presented as an asymptomatic, oval, pedunculated, well-defined nodule with a smooth surface, fibrous consistency and erythematous color, similar to a pyogenic granuloma. An excisional biopsy was performed and the fragment was sent for histopathological analysis that revealed a vascular proliferation of different calibers, containing thick muscle walls and adjacent muscle proliferation, in addition to an inflammatory infiltrate, predominantly chronic, extravasated red blood cells and an area of ulceration, consistent with the diagnosis of inflamed AL. The histopathology plays an important role in the final diagnosis of rare lesions and with nonspecific clinical characteristics. The surgical excision of the lesion is the most effective treatment of choice for oral ALs.

Keywords: Angioleiomyoma; Gingiva; Pyogenic granuloma; Benign tumor of smooth muscle

Referências

1. Fletcher C. The evolving classification of soft tissue tumours - an update based on the new 2013 WHO classification. *Histopathology* 2014; 6: 2–11.
2. Wang CP, Chang YL, Sheen TS. Vascular leiomyoma of the head head and neck. *Laryngoscope* 2004; 114: 661-665.
3. Osano H, Ioka Y, Okamoto R, Nakai Y, Hayashi H, Tsuchiya Y, Yamada S. Angioleiomyoma of the cheek: A case report. *Journal of Oral Science* 2015; 57: 63–66.
4. Ranjan S, Singh K. Gingival angioleiomyoma-infrequent lesion of oral cavity at a rare site. *Journal of Oral and Maxillofacial Pathology* 2014; 18: 107–110.
5. Giudice A, Bennardo F, Buffone C, Brancaccio Y, Plutino F, Fortunato L. Clinical and Immunohistochemical Features of Oral Angioleiomyoma: A Comprehensive Review of the Literature and Report of a Case in a Young Patient. *Case Reports in Dentistry*, 2019.
6. Jafarian M, Abbas F, Ahsaie M, Saebnoori H. Clinical, Imaging and Histopathology of Angioleiomyoma of the Buccal Cheek. *Case Reports in Dentistry* 2021: 1–11.
7. Brooks JK, Nikitakis NG, Goodman NJ, Levy BA. Clinicopathologic characterization of oral angioleiomyomas. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontics* 2002; 94: 221–227.
8. Da Silva L, De Medeiros A, De Oliveira P, Da Silveira É, Miguel M. Angioleiomioma oral: Relato de um caso e revisão dos achados atuais. *Jornal Vascular Brasileiro* 2017; 16: 68–72.
9. Rawal SY, Rawal YB. Angioleiomyoma (Vascular Leiomyoma) of the Oral Cavity. *Head and Neck Pathology* 2018; 12: 123–126.

10. Liang H, Frederiksen NL, Binnie WH, Cheng YS. Intraosseous oral leiomyomas: A systematic review and report of a case. *Dentomaxillofac Radiol* 2007; 32: 285-90.
11. Sanchez MA, Bonnin MC, Ayetes LB, Esconda CG. Leiomyoma of the hard palate: A case report. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2007; 12: 221-4.
12. Hamid R, Altaf C, Saima T, Sheikh B, Suhail W. Central angioleiomyoma of the mandible: a rare entity. *Journal of Cancer Research and Therapeutics* 2020; 16: 647–652.
13. Hung KF, Yan AH, Kao SY, Chang CS. Angioleiomyoma in the right lingual gingiva- a case report. *Chin J Oral Maxillofac Surg* 2005; 16: 179-87.
14. Al-amad SH, Angel C, O'Grady JF, McCullough. Angioleiomyoma on the Hard palate. *Oral Oncol* 2006; 42: 244-6.
15. Cepeda LA, Rivera DQ, Rocha FT, Huerta ER, Sanchez ER. Vascular leiomyoma of the oral cavity. Clinical, histopathological and immunohistochemical characteristics. Presentation of five cases and review of the literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2008; 13: 483-8.
16. Ishikawa S, Fuyama S, Kobayashi T, Taira Y, Sugano A, Inno M. Angioleiomyoma of the tongue: a case report and review of the literature. *Odontology* 2016; 104: 119–122.
17. Mahima VG, Patil K, Srikanth HS. Recurrent oral angioleiomyoma. *Contemp Clin Dent* 2011; 2: 102-5.
18. Souto GR, Oliveira LJD, Mesquita RA, Souza PEAD. Gingival angioleiomyoma in children: a case report and review of the literature. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery, Medicine, and Pathology* 2019; 31: 361–364.
19. Menditti D, Laino L, Nastri L, Caruso U, Fiore P, Baldi A. Oral angioleiomyoma: A rare pathological entity. *In Vivo* 2016; 26: 161–163.
20. Barboza CAG, Ginani F, Leite-Segundo AV, Da Silva UH. Oral angioleiomyoma: A case report and considerations on differential diagnosis. *Jornal Brasileiro de Patologia e Medicina Laboratorial* 2013. 49: 429–432.
21. Liu Y, Li B, Li L, Liu Y, Wang C, Zha L. Angioleiomyomas in the head and neck: A retrospective clinical and immunohistochemical analysis. *Oncology Letters* 2014; 8: 241–247.
22. Arpag OF, Damlar I, Kiliç S, Altan A, Tas ZA, Özgür T. Angioleiomyoma of the gingiva: a report of two cases. *Journal of the Korean Association of Oral and Maxillofacial Surgeons* 2016; 42: 115.
23. Bajpai M, Pardhe N, Kumar M. Angioleiomyoma of gingiva masquerading as pyogenic granuloma. *Journal of the College of Physicians and Surgeons Pakistan* 2016; 26: 631–632.
24. Thakker T, Anehosur V, Anand J, Kumar N. Gingival angioleiomyoma - A rare case report. *Oral and Maxillofacial Surgery Cases* 2019. 5: 100-114.

Endereço para correspondência:

Nome completo :Denise Hélien Imaculada Pereira de Oliveira
 Rua Coronel Estanilau Frota, S/N,
 CEP 62010-560 Sobral, CE, Brasil
 Phone/Fax: +55 88 3695-4601
 denise.oliveira@sobral.ufc.br

Recebido em: 14/03/2023. Aceito: 18/12/2023.

Nº do parecer do CEP: 6.483.091