

Angina bolhosa hemorrágica: um caso incomum

Angina bullosa haemorrhagica: an unusual case

Resumo

Os autores apresentam um caso incomum de angina bolhosa hemorrágica (ABH), no qual há a presença de quatro lesões simultâneas, dispostas duas a duas na mucosa jugal de um paciente do sexo masculino, com 59 anos de idade, bilateralmente. São discutidos também aspectos como nomenclatura, diagnóstico e tratamento.

Palavras-chave: angina bolhosa hemorrágica, mucosa jugal

Introdução

A angina bolhosa hemorrágica pode ser definida como uma bolha subepitelial, com conteúdo sanguíneo, que, em sua patogênese, não se relaciona com causas sistêmicas nem com qualquer tipo de doença vesiculobolhosa (Badham, 1967). É mais comumente encontrada no palato mole e pode se manifestar por episódios recorrentes (Daly, 1988).

A primeira alusão a semelhante patologia foi feita por Haring no ano de 1890. Em 1933, Baliña descreveu a presença de bolhas de sangue na cavidade bucal relacionadas com o trauma mastigatório, às quais denominou de "hemoflictenose oral traumática" (TOH). Em 1967, Badham descreveu uma série de nove casos com presença de lesões em sítios como a mucosa do palato mole e orofaringe, entre outros, e deu-lhe a denominação de "angina bolhosa hemorrágica" (ABH). Em 1971, Berdichesky, Grinspan e Abulafia empregaram o termo "hemoflictenose oral recorrente" (ROH).

Rubem Beraldo dos Santos¹
Maria Antonia Zancanaro de Figueiredo²
Patrícia Teixeira de Oliveira³
Liliane Soares Yurgel⁴

Relato de caso

Paciente do sexo masculino, com 59 anos de idade, leucoderma, consultou no Serviço de Estomatologia e Prevenção do Câncer Bucamaxilofacial do Hospital São Lucas, da Pontifícia Universidade Católica do Rio Grande do Sul, queixando-se da presença de "bolhas de sangue na bochecha". Por meio da anamnese, foi possível saber que as lesões apresentavam poucas horas de evolução e que seu aparecimento se dera após a ingestão de um determinado biscoito, episódio semelhante ao que lhe havia ocorrido cerca de um ano antes. O paciente não relatou história de doença vascular, hemorrágica ou auto-imune, nem o uso de qualquer medicação.

Ao exame físico, constatou-se a existência de quatro lesões vesiculobolhosas, de inserção mucosa, consistência depressível, coloração vermelho-escura, localizadas no terço médio da mucosa jugal, dispostas duas a duas nos lados direito e esquerdo. Os diâmetros das lesões

¹ Aluno do curso de doutorado em Estomatologia Clínica da PUCRS.

² Doutora em Estomatologia Clínica e professora do curso de doutorado em Estomatologia Clínica da PUCRS.

³ Mestre em Patologia Oral UFRN e doutora em Estomatologia Clínica PUCRS.

⁴ Doutora em Estomatologia Clínica e coordenadora do curso de doutorado em Estomatologia Clínica da PUCRS.

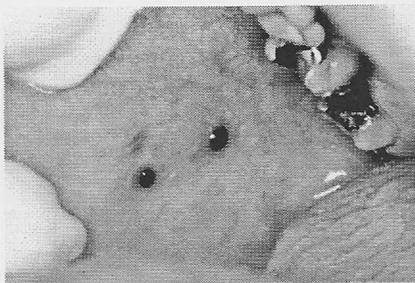


Figura 1a – Aspecto clínico inicial, mucosa jugal lado direito.

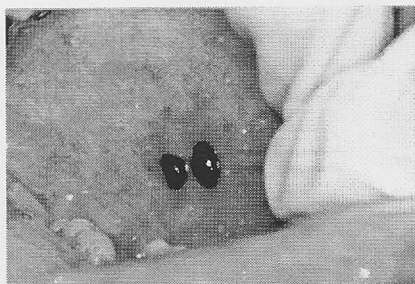


Figura 1b – Aspecto clínico inicial, mucosa jugal lado esquerdo.

eram, respectivamente, de 0,4 , 0,3, 0,8 e 0,6 cm (Fig. 1 a e b) . Os linfonodos regionais encontravam-se impalpáveis.

Foram solicitados exames hematológicos, incluindo provas de coagulação (hemograma completo, contagem de plaquetas, glicemia em jejum, VSG, TS, TP, TTPA). Os exames apresentaram valores normais, excluindo prováveis alterações sistêmicas que pudessem estar envolvidas na origem da lesão.

Considerando as informações obtidas no exame do paciente, estabeleceu-se o diagnóstico clínico de ABH, comprovado posteriormente pelos dados dos exames complementares e pela evolução clínica. Em função de seu diâmetro e localização, as bolhas não promoveram sintomatologia de sufocação, nem prejudicaram o ato mastigatório do paciente, dispensando-se, portanto, seu rompimento cirúrgico. Procurou-se tranquilizar o paciente quanto à benignidade da lesão .

Algumas horas após o exame inicial, as bolhas se romperam espontaneamente e o paciente referiu a presença de conteúdo sangüinolento na sua boca. Em exame físico posterior, foi constatada a presença de extensas áreas ulceradas no local das lesões rompidas. Instituiu-se antibioticoterapia para preve-

nir a infecção secundária, favorecendo, assim, o processo de cicatrização das mesmas. Em duas semanas, a cicatrização estava completa nas áreas anteriormente comprometidas (Fig. 2a e b).

O paciente foi orientado a evitar alimentação que pudesse precipitar novas lesões.

Discussão

Stephenson et al. (1987a) realizaram um estudo, reunindo uma casuística referente a trinta pacientes com ABH, no qual a média de idade registrada foi de 54 anos, sendo a prevalência similar nos gêneros masculino e feminino. O diâmetro médio das lesões variou entre 2 e 3 cm. O rompimento das bolhas ocorreu minutos ou horas após seu estabelecimento, resultando em uma área ulcerada . Em grande parte, estavam situadas no palato mole (93,3%), porém outras porções não ceratinizadas da mucosa bucal, como o ventre e bordo da língua, também foram atingidas .

Nove pacientes apresentaram, concomitantemente, lesões cutâneas ou em outras superfícies mucosas. A frequência dos episódios foi bastante variável, desde um único até recorrências mensais, durante um período de vinte anos; na maioria dos casos, o caráter recidivante esteve presente. Foi enfatizada a necessidade de se realizar o diagnóstico diferencial com outras patologias, entre as quais o penfigoide, em que se pode ter como orientador clínico, além da lesão bucal, a presença de comprometimento cutâneo e de outras mucosas, em especial a orbital. A dermatite herpetiforme, o pénfigo, a epidermólise bolhosa, a epidermólise bolhosa não distrófica adquirida e a amiloidose são também citadas como enfermidades que necessitam ser descartadas.

No mesmo estudo, os autores realizaram biópsia em 17 dos trinta pacientes examinados, com a coleta de material na área ulcerada e na mucosa íntegra. Os espécimes foram seccionados ao meio, sendo uma porção congelada para exame de imunofluorescência direta, o qual foi negativo para todas as

lesões consideradas no diagnóstico diferencial. A segunda porção foi fixada em formol a 10%, processada e corada pela técnica de rotina (HE), revelando ao microscópio óptico uma úlcera inespecífica. Na mucosa normal adjacente, foi observado epitélio com acantose e, completando o quadro, presença de infiltrado inflamatório crônico na lâmina própria. Esses achados anatomopatológicos foram semelhantes aos descritos por Garlick e Calderon (1988) e Daly (1988).

Stephenson et al. (1987b) realizaram outro estudo com um grupo de quatorze pacientes, dos quais solicitaram exames hematológicos, dentre esses o hemograma completo, contagem de plaquetas, TP, TTPA, TS, VSG e pesquisa de proteína do fator VIII; como resultado, todos apresentaram valores dentro dos padrões de normalidade. A imunofluorescência direta para pesquisa de IgA, IgG, IgM, C₃ e fibrina foi negativa. Reforçando essa conduta, Rinagio et al. (1999) defendem que, havendo dúvidas quanto ao diagnóstico definitivo, diante de lesões ulceradas crônicas, justifica-

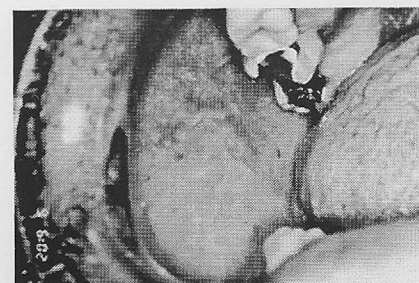


Figura 2a – Aspecto clínico duas semanas após instituída a terapêutica , mostrando completa cicatrização das áreas comprometidas anteriormente na mucosa jugal lado direito .

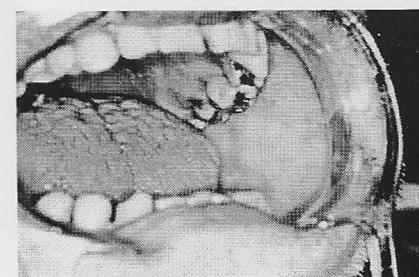


Figura 2b – Aspecto clínico duas semanas após instituída a terapêutica, mostrando completa cicatrização das áreas comprometidas anteriormente na mucosa jugal lado esquerdo.

se a indicação da imunofluorescência direta.

Ainda quanto ao diagnóstico diferencial da ABH, Daly (1988) entende que a amiloidose, a epidermólise bolhosa e o penfigóide podem estar associados a essa condição. Assim, o acompanhamento clínico é fundamental para exclusão dessas enfermidades. O autor acrescenta que a ausência de lesões concomitantes na pele ou na mucosa orbital não exclui, por si só, a hipótese de penfigóide e recomenda a biópsia incisional e a imunofluorescência direta sempre que permanecerem dúvidas quanto ao diagnóstico definitivo.

Os argumentos apresentados por Daly (1988) dão suporte à conduta adotada para o caso apresentado, pois a história de um episódio anterior, informações da anamnese, dados clínicos e exames hematológicos dentro de padrões normais não justificavam, de pronto, uma biópsia das lesões. O acompanhamento do caso mostrou uma evolução satisfatória o que auxiliou na confirmação do diagnóstico clínico.

Garlick e Calderon (1988) relataram que traumatismos ocorridos durante as consultas odontológicas de rotina podem atuar como fatores precipitantes do surgimento da ABH. Daly (1988) constatou que o simples contato do espelho utilizado para a realização de uma documentação fotográfica provocou o surgimento, quase que instantâneo, de bolha de sangue no palato mole de um paciente com história de ABH. Há, ainda, o relato de um caso em que o paciente se submeteu aos procedimentos de moldagem para confecção de coroa, cujos dentes anteriores superiores foram incluídos no planejamento. Neste caso, foi possível ao operador surpreender, por ocasião do procedimento de moldagem, o surgimento de uma bolha de sangue na mucosa do lábio superior no lado direito e, logo após, uma segunda no lado esquerdo, as quais representaram o primeiro episódio de ABH referido pelo paciente (Corson e Sloan, 1996).

Há na literatura registro de desenvolvimento de ABH associado ao

uso prolongado de inalantes à base de esteróides para o controle de crises de asma (High e Main, 1988; Higgins e Du Vivier, 1991); também associado ao trauma mastigatório e a outros fatores precipitantes, como o café, o leite e álcool (De Blauwe e Van Der Waal, 1994).

Grispan, Abulafia e Lanfranchi (1999) acreditam que o diabetes pode representar um fator de risco para o desenvolvimento da ABH.

Edwards, Wilkinson e Wojnarowska (1990) relataram que, na sua prática clínica, não foi possível identificar o fator precipitante da ABH na maioria das ocorrências. Descreveram três casos dessa condição, num dos quais o resultado do exame anatomopatológico revelou a presença de uma bolha intradérmica, achado este que parece não ter sido referido anteriormente na literatura.

Ingram (1995) relatou lesão na pele do dedo anular da mão direita em mulher com 69 anos de idade, compatível com o quadro de ABH, surgido dez dias após identificação desta patologia na mucosa do palato mole da paciente.

De acordo com Gibson (1997), a ABH apresenta igual prevalência entre homens e mulheres. Dependendo do volume apresentado, a lesão poderá produzir no paciente a sensação de estar sufocado, o que motiva o uso do termo *angina*. O autor indica como tratamento o uso tópico de colutórios à base de anti-inflamatórios e clorexedine a 0,2%, visando controlar a sintomatologia, prevenir infecção secundária e favorecer o processo cicatricial da lesão. Embora os medicamentos prescritos para o paciente no presente estudo não tenham sido os mesmos, os objetivos da terapêutica instituída foram iguais, ou seja, prevenir a infecção secundária e favorecer a cicatrização. Com base na literatura, verifica-se que é possível o estabelecimento de um diagnóstico essencialmente clínico, atendendo para critérios, como faixa etária do paciente, aspecto clínico das lesões, ausência de doenças sistêmicas e lesões vesiculobolhosas na pele e outras mucosas, verificadas tanto na anamnese quanto no exame físico e complementadas pela

normalidade dos exames hematológicos. No caso apresentado, a ingestão do mesmo tipo de alimento foi referida pelo paciente como o agente precipitante nos dois episódios que experimentou. Estabeleceu-se o diagnóstico clínico e foi instituída terapêutica compatível.

De todas as características relatadas, a única não contemplada na literatura foi a presença de quatro lesões simultâneas na mucosa jugal, dispostas duas do lado direito e duas do lado esquerdo, aspecto esse que constituiu o maior interesse clínico no presente caso.

Conclusão

A causa da ABH é ainda desconhecida. No entanto, é imprescindível valorizar os dados obtidos na anamnese detalhada e em exame físico criterioso, buscando a identificação de fatores precipitantes e de risco. Além disso, exames hematológicos, anatomopatológicos e imunológicos podem se fazer necessários para o estabelecimento do diagnóstico diferencial com outras patologias. A biópsia e a imunofluorescência deverão ser executadas sempre que o diagnóstico conclusivo não puder ser estabelecido apenas com o exame clínico e hematológico.

Abstract

The authors present an unusual case of angina bullosa haemorrhagica (ABH), in which there is the presence of four simultaneous lesions, disposed two in two in the buccal mucosa of a 59-year-old male patient, bilaterally. Aspects as nomenclature, diagnosis and treatment are also discussed.

Key words: angina bullosa haemorrhagica, buccal mucosa.

Referências bibliográficas

- BADHAM, N. J. Blood blisters and oesophageal cast. *J. Laryngol Otol.*, v. 81, p. 791-803, 1967.
- BALIÑA, P. L. Hemoflictenosis bucal traumática. *Rev. Arg. Dermatol.*, v. 17, n.5, p. 194-196, 1933.
- BERDICHEVSKY, R.; GRINSPAN, D.; ABULAFIA, J. Hemoflictenosis bucal recidivante o estomatopatia diabética. In: VII CONGRESSO IBEROAMERICANO DE DERMATOLOGIA. Caracas: Dosome. p. 1502-1505, 1971.
- CORSON, M. A.; SLOAN, P. Angina bullosa haemorrhagica: an unusual complication following crown preparation. *Br. Dent. J.*, v. 180, n.1, p. 24-5, Jan. 1996.
- DALY, C. G. Blood blisters on the soft palate in angina bullosa haemorrhagica. Case reports. *Aust. Dent. J.*, v. 33, n. 5, p. 400-3, Oct. 1988.
- DE BLAUWE, B. M.; VAN DER WAAL, I. Blood blisters of the oral mucosa (angina bullosa haemorrhagica). *J. Am. Acad. Dermatol.*, v.31, n. 2, p. 341-4, Aug. 1994.
- EDWARDS, S.; WILKINSON, J. D.; WOJNAROWSKA, F. Angina bullosa haemorrhagica—a report of three cases and review of the literature. *Clin. Exp. Dermatol.*, v. 15, n. 6, p. 422-4, Nov. 1990.
- GARLICK, J. A.; CALDERON, S. Oral blood blisters in angina bullosa haemorrhagica secondary to trauma of eating and dental injection. *Br. Dent. J.*, v. 165, n. 8, p. 279, Oct. 1988.
- GIBSON, J. Oropharyngeal blood blisters are known as angina bullosa haemorrhagica. *BMJ.*, v. 314, n. 7094, p.1625, May 1997.
- GRINSPAN, D.; ABULAFIA, J.; LANFRANCHI, H. Angina bullosa hemorrhagica. *Int. J. Dermatol.*, v. 38, n. 7, p. 525-8, July 1999.
- HIGGINS, E. M.; DU VIVIER, A. W. Angina bullosa haemorrhagica—a possible relation to steroid inhalers. *Clin. Exp. Dermatol.*, v. 16, n. 4, p. 244-6, July 1991.
- HIGH, A. S.; MAIN, D. M. Angina bullosa haemorrhagica: a complication of long-term steroid inhaler use. *Br. Dent. J.*, v. 165, n. 5, p. 176-9, Sep. 1988.
- INGRAM, C. S. Oral blood blisters: angina bullosa haemorrhagica (ABH). *J. N. Z. Soc. Periodontol.*, v. 79, p.16-20, 1995.
- RINAGGIO, J.; NEIDERS, M. E.; AGUIRRE, A. et al. Using immunofluorescence in the diagnosis of chronic ulcerative lesions of the oral mucosa. *Compend Contin Educ. Dent.*, v. 20, n. 10, p. 943-4, Oct. 1999.
- STEPHENSON, P.; LAMEY, P. J.; SCULLY, C.; et al. Angina bullosa haemorrhagica: clinical and laboratory features in 30 patients. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, v. 63, n. 5, p. 560-5, May 1987.
- STEPHENSON, P.; SCULLY, C.; PRIME, S. S. et al. Angina bullosa haemorrhagica: lesional immunostaining and haematological. *Br. J. Oral Maxillofac Surg.*, v. 25, n. 6, p. 488-91, Dec. 1987b.

Endereço para correspondência

Prof. Rubem Beraldo dos Santos
Rua Dona Firmina nº 100 Apto. 202, Bairro
Partenon, Porto Alegre, RS
CEP 91520-210
Fone (51) 384 4056
E-mail: ruberaldo@bol.com.br