



**UNIVERSIDAD NACIONAL AUTÓNOMA DE  
MÉXICO**

---

---



**FACULTAD DE ODONTOLOGÍA  
DIVISIÓN DE ESTUDIOS DE POSGRADO E  
INVESTIGACIÓN**

**Rehabilitación bucal en un paciente con  
Linfangiomacervicofacial bilateral gigante**

**CASO CLÍNICO**

QUE PARA OBTENER EL GRADO DE  
ESPECIALISTA EN ODONTOPEDIATRÍA

P R E S E N T A:

**C. D. LAURA IVETTE MONTELONGO ONTIVEROS**

**TUTOR: C.D.E.E. GUADALUPE VIOLETA MAGAÑA BARRIOS**

**CIUDAD DE MÉXICO, CDMX.**

**2017**

# Rehabilitación bucal en un paciente con Linfangiomacervicofacial bilateral gigante

Laura Ivette Montelongo Ontiveros \*, Guadalupe Violeta Magaña Barrios  
§, Vicente Cuairan Ruidiaz\*\*, Roberto Mendoza Trejo\*\*\*

---

## RESUMEN

Los linfangiomas son malformaciones del desarrollo caracterizadas por la proliferación de vasos linfáticos presentes al nacimiento e infancia cuya localización más frecuente es cabeza y cuello. Dentro de cavidad bucal se puede localizar con mayor frecuencia en lengua, seguido de labios, mucosa bucal y piso de boca. Pueden presentarse con crecimiento difuso y causar macroglosia, macroquelia, dificultad del habla y/o en la masticación y llegar a afectar vías respiratorias. Se presentó paciente femenino de catorce años de edad con diagnóstico de linfangioma cervicofacial bilateral gigante, acudió al Servicio de Odontopediatría del Hospital Infantil de México Federico Gómez, a la exploración intraoral se observó mucosas hidratadas, hiperémicas especialmente en región anterior inferior, aumento de volumen en piso de boca, mucosa bucal yugal y alveolar, macroglosia, macroquelia, mordida abierta anterior, limitación de la apertura y lesiones cariosas activas; se realizó rehabilitación bucal.

**Palabras clave:** Rehabilitación, Linfangioma.

## Abstract

Lymphangiomas are developmental deformities characterized by the proliferation of lymphatic vessels present during the birth and childhood, they're frequently located in the head and neck. Inside de oral cavity, they can be usually found in the tongue, lips, oral mucosa and the floor of the mouth. They also might appear with diffuse growth and cause macroglossia, macroquelia, speech and chewing alterations, and eventually affect to the respiratory tract. There was a fourteen-year-old female patient diagnosed with bilateral gigantic cervicofacial lymphangioma. She attended the pediatric dentistry service of the Mexico's Children Hospital Federico Gómez. During the inner oral exploration the following aspects could be observed: hydrated hyperemic mucous membranes (specially in the anterior lower area), increase of volume in the floor of the mouth, varicosities, and alveolar oral mucosa, macroglossia, macroquelia, open frontal bite, limitations when opening her mouth and active carious injuries. An oral rehabilitation was realized.

**Keywords:** Rehabilitation, Lymphangioma.

\*Alumna de la especialidad en Estomatología Pediátrica del Hospital Infantil de México Federico Gómez,

§ Adscrita del Servicio de Odontopediatría del Hospital Infantil de México Federico Gómez,

\*\* Jefe del Departamento de Estomatología del Hospital Infantil de México Federico Gómez.

\*\*\* Revisor externo UNAM

## INTRODUCCIÓN

Las malformaciones vasculares se encuentran dentro de las malformaciones congénitas más comunes. La mayoría tienen aspecto similar entre sí aunque tienen distinta etiología, tratamiento y pronóstico.<sup>1,2</sup>

En 1982, se propuso el primer sistema de clasificación que representaba el estándar internacional para la clasificación de anomalías vasculares en niños basándose en las características clínicas e histopatológicas de las anomalías vasculares. La Sociedad Internacional para el Estudio de las Anomalías Vasculares (ISSVA) aceptó el nuevo esquema de clasificación de anomalías vasculares.<sup>2</sup> (Tabla 1).<sup>2</sup>

<b>Tabla 1. Malformaciones vasculares de cabeza y cuello</b>	
<b>Hemangioma</b>	<b>Malformaciones vasculares</b>
<ul style="list-style-type: none"><li>◆ Hemangioma de la infancia</li><li>◆ Hemangioma congénito<ul style="list-style-type: none"><li>○ No invasivo</li><li>○ Rápida invasión</li></ul></li></ul>	<ul style="list-style-type: none"><li>◆ Malformaciones capilares</li><li>◆ Malformaciones arteriales</li><li>◆ Malformaciones venosas</li><li>◆ Malformaciones arteriovenosas</li><li>◆ <u>Malformaciones linfáticas</u></li><li>◆ Malformaciones vasculares mixtas</li></ul>

*En 1996, la Sociedad Internacional para el Estudio de las Anomalías Vasculares (ISSVA) aceptó el moderno esquema de clasificación de anomalías vasculares. (Tabla 1).<sup>2</sup>*

### Malformaciones Linfáticas

Las malformaciones linfáticas (LM) también llamados “linfangiomas”, son malformaciones del desarrollo, caracterizadas por una proliferación benigna de los vasos linfáticos presentándose al nacimiento y la niñez. Identificados en su mayoría entre los 2 primeros años de vida desconociendo su patogénesis. Su localización más frecuente es cabeza, cuello y en cavidad bucal es la lengua.<sup>2,3</sup>

Morfológicamente se clasifican en tres tipos: linfangioma capilar formado por pequeños vasos linfáticos de paredes delgadas, linfangioma cavernoso constituido por vasos linfáticos de tamaño pequeño con capas conectivas de grosor irregular, y linfangiomas o higroma quístico cuando están compuestos por grandes espacios linfáticos macroscópicos que poseen revestimiento de colágeno y músculo liso.<sup>4</sup>

Las malformaciones linfáticas se manifiestan de diversas formas, desde una lesión localizada hasta una afección difusa de una región anatómica o de múltiples órganos.<sup>5,6</sup> El Linfangioma cervicofacial pueden ser unilateral o bilaterales y pueden asociarse con grados variables de compromiso esquelético. Es una causa común de macroglosia y/o macroquelia.<sup>7,8</sup>

Los linfangiomas localizados en piso de la boca y lengua pueden desarrollar lesiones vesiculares e inflamación de la zona de manera intermitente así como sangrados espontáneos por la gran vascularidad. Generalmente provocan mordida abierta, el

habla y la deglución pueden verse afectados y la posibilidad de obstrucción orofaríngea es de gran preocupación por lo que la traqueostomía puede ser necesaria en los primeros años de vida. El mediastino suele estar involucrado en el LM cervical y pueden poner en riesgo la vida del paciente como resultado de su tamaño o infecciones secundarias.<sup>6,9</sup>

Para el diagnóstico de estas lesiones, la base es la exploración clínica confirmándose con métodos de imagen como la ecografía ya que puede detectar la naturaleza quística y el componente fluido de un linfangioma, y la angiografía descartará una lesión vascular. Dado que muchos linfangiomas realmente tienen componente vascular en sus canales linfáticos, son más a menudo confundidos con hemangiomas.<sup>5,6</sup>

El tratamiento óptimo dependerá del caso según su localización, tamaño y/o compromiso vascular, este puede incluir extirpación quirúrgica, farmacoterapia y escleroterapia. La meta de tratamiento quirúrgico es la resección completa, en la mayoría de los casos de linfangiomas no puede ser posible, ya que estas lesiones involucran estructuras que deben ser preservadas. En estos casos el tratamiento suele estar dirigido a corregir y/o mejorar las secuelas, tales como sangrado e infección recurrente para mejorar la función.<sup>5,11,12</sup>

Otra de las terapéuticas en este tipo de lesiones es la escleroterapia; este procedimiento se basa en la infiltración de soluciones esclerosantes como el OK 432 (Picibanil) una mezcla liofilizada del grupo A *Streptococcus pyogenes* de origen humano inyectada dentro de la lesión; actúa induciendo una reacción inflamatoria aguda en la lesión con liberación de citoquinas y posterior daño endotelial y aumentando la permeabilidad y la apoptosis. Todos estos factores contribuyen a la reducción de tamaño de la lesión.<sup>2,5,7</sup>

## REPORTE DE CASO

Paciente femenino de 14 años de edad con diagnósticos médicos; Linfangioma cervicofacial gigante bilateral, post-operada de Traqueostomía, post-operada Gastrostomía y Caries dental actualmente sin tratamiento farmacológico. Ingresa a Servicio de Urgencias por presentar cuadro infeccioso de vías aéreas superiores y sintomatología dental por lo que es valorada por el servicio de Odontopediatría y posteriormente inicia rehabilitación bucal. (Fig.1 y 2)

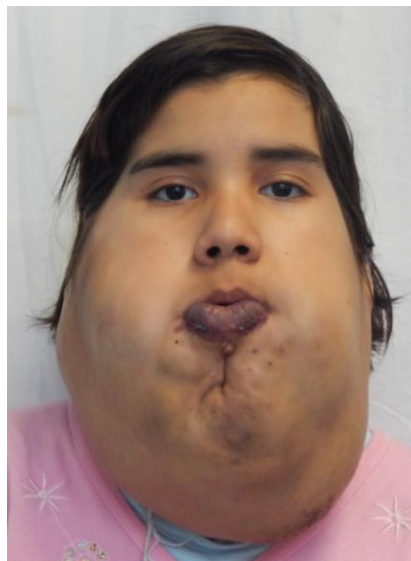


Fig.1 Fotografía extraoral  
Fuente directa

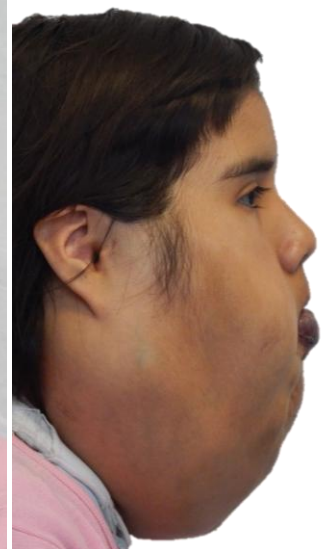


Fig. 2 Fotografía lateral  
Fuente directa



Fig. 3 Fotografía oclusal superior inicial (fuente directa)



Fig. 4 Fotografía oclusal inferior inicial (fuente directa)

Dentro de los antecedentes heredofamiliares; madre de 53 años de edad con diagnóstico de Hipertiroidismo e hipertensión arterial sistémica actualmente controladas, padre de 68 años de edad quien se encuentra fuera del núcleo familiar con diagnóstico de hipertensión arterial sistémica y alcoholismo positivo y hermana de 13 años de edad con asma y depresión. Antecedentes personales no patológicos: originaria del estado de Querétaro, cuenta con esquema de vacunación completa y nivel socioeconómico bajo.

A la exploración intraoral se observan mucosas hidratadas, hiperémicas especialmente en región anterior inferior, aumento de volumen en piso de boca, macroglosia, así como mucosa bucal yugal y alveolar de color rojo violáceo, debido a la infiltración de la lesión en labio inferior presenta macroquelia. Asimetría esquelética dentofacial severa debido a la extensión de la lesión ya que está provoca una distorsión significativa de los huesos; arcada superior en forma cuadrangular, paladar profundo y arcada inferior forma triangular, mordida abierta anterior de

aproximadamente (25mm) y limitación a la apertura bucal. Dentición permanente y resto radicular del 52<sup>13</sup>, diversas mal posiciones y giroversiones dentales, presencia de cálculo dental en anteriores inferiores, caries de diversos grados y restos hemáticos en caras oclusales de premolares y molares tanto en superior como inferior debido al constante sangrado e higiene oral deficiente, las clases molares y caninas no son valorables. (Fig.3, 4 y 5)

Previo a la rehabilitación bucal se solicitó Biometría hemática completa debido a que la paciente presenta una lesión con componente vascular el cual ocasiona sangrados recurrentes, encontrándose con valores normales: leucocitos  $6.3 \cdot 10^3/\mu\text{L}$ , neutrófilos  $5.8 \cdot 10^3/\mu\text{L}$ , eritrocitos  $4.87 \cdot 10^6/\mu\text{L}$ , hemoglobina 10.9 g/dl y plaquetas 337,000 por lo que no requirió consideraciones especiales.

El manejo estomatológico que se llevó a cabo, consistió en la modificación de la posición decúbito dorsal en la paciente ya que al momento de sentarse en el sillón dental, se observó ligera desaturación (91-93%) y obstrucción de la vía aérea provocando incomodidad y sensación de falta de oxígeno por lo que fué necesario colocarla en posición semi fowler (semi sentada)



Fig.5 Apertura bucal Fuente directa

disminuyendo la obstrucción de la vía aérea y dando mayor comodidad así como también la suplementación de oxígeno al 100%. Esto se realizó mediante un adaptador el cual se ajustó a la traqueostomía, se llevó a cabo el diseño y realización de este en conjunto con el Servicio de Inhaloterapia y se monitorizó saturación con el oxímetro durante todas las citas operatorias. La posición del operador también se modificó, se optó trabajar de pie, lo cual permitió una mayor visibilidad al campo operatorio y brindando mayor comodidad a la paciente.<sup>14</sup>

Dentro de las consideraciones anestésicas que se llevaron a cabo fueron: la modificación en la técnica infiltrativa con la utilización de aguja larga (27G) debido a la localización, tamaño y extensión del linfangioma, de esta manera nos acercamos al sitio anatómico deseado, así como también la utilización de técnica suplementaria como infiltración interligamentaria, cálculo de la dosis máxima recomendada según Malamed<sup>15</sup> y aspiración previa a la infiltración con la finalidad de evitar punción a un vasos sanguíneos y disminuir la posibilidad concentraciones sanguíneas y plasmáticas elevadas debido la rápida absorción y efectos de los anestésicos locales ya que estas lesiones pueden llegar a tener componente vascular.<sup>15</sup>



*Fig.6 Fotografía oclusal superior final (fuente directa)*

El tratamiento restaurativo de acuerdo a la evaluación de riesgo a caries según las guías (ICCMS) se realizó restauraciones a base de selladores foseas y fisura en los dientes 34, 35, oclusal del 37, 44, 45 y 46, amalgama en dientes 46, 36 y vestibular del 37 y extracción de 52 bajo consentimiento informado por parte de la madre.<sup>16</sup> (Fig.6, 7 y 8)



*Fig.7 y 8 Fotografías de arcada inferior finales (fuente directa)*

El manejo preventivo consistió en profilaxis dental con cepillo baja velocidad y pasta abrasiva, así como técnica de cepillado tipo Stillman en presencia de la madre con indicación a realizar después de cada alimento y antes de ir a dormir con pasta fluorada a 1450ppm. Se indicó citas de control cada 3 y 6 meses para realizar valoración clínica y radiográfica.

## **DISCUSIÓN**

Marler y Mulliken<sup>5</sup> refieren que los linfangiomas cervicofaciales están localizados o difusos, pueden asociarse con crecimiento excesivo del esqueleto y en el tercio inferior de la cara es la etiología más común para macroquelia y macroglosia.

En el caso reportado; la paciente con diagnóstico de linfangioma cervicofacial bilateral gigante presenta deformación esquelética severa a nivel de maxilares y cervical así como también macroglosia y macroquelia. Otras alteraciones como mordida abierta

anterior con importante limitación a la apertura bucal y ligera desaturación, por lo que fue necesario la realización de modificaciones en el manejo estomatológico.

Aguilera y cols.<sup>17</sup> mencionan en su artículo que pacientes que presentan malformaciones vasculares deben ser tratados por un equipo interdisciplinario, con experiencia en el conocimiento y manejo de estas anomalías. La rehabilitación bucal bajo anestesia general evita complicaciones y permite el control del paciente y la enfermedad. Se debe tener conocimiento de las malformaciones vasculares con la finalidad individualizar la terapéutica necesaria ya que el tipo, tamaño y localización de las diferentes lesiones así como la cooperación del paciente determinará la elección del tratamiento y el manejo estomatológico ya que no todos los pacientes que presentan malformaciones vasculares son candidatos a anestesia general.

Se encontraron pocos artículos en los cuales se habla acerca del manejo estomatológico de pacientes con malformaciones linfáticas; es por esto que nosotros describimos en este reporte de caso el manejo estomatológico y diferentes modificaciones en el tratamiento operatorio como la posición del paciente y/o operador, consideraciones anestésicas y utilización de técnicas infiltrativas suplementarias, y la utilización de oxígeno suplementario durante la rehabilitación bucodental.

## **CONCLUSIONES**

En este caso se realizaron modificaciones y consideraciones como: 1.-La técnica anestésica como la utilización de aguja larga (27G), técnicas suplementarias, cálculo de dosis máxima recomendada debido a la lesión que presenta la paciente con componente vascular la absorción y el tiempo del efecto del anestésico es muy corto. 2.-Modificación de la postura semi fowler de la paciente y el operador se optó por trabajar de pie. 3.- También fué necesario la utilización de oxígeno suplementario y monitorización durante el procedimiento, para evitar obstrucción de la vía aérea y fatiga por parte de la paciente. Es importante individualizar el manejo estomatológico de acuerdo a el grado, tamaño y profundidad de las lesiones vasculares como en el caso de la paciente con Linfangioma cervicofacial bilateral gigante.

## **REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS**

1. De Diego E, Fernández I, Trugeda M, Sandoval F. Hemangiomas y malformaciones vasculares. Bol Soc Pediatr Asturias. 2001; 41: 137-43.
2. Baer A, Parmar H, Di Pietro M, Kasten S, Mukherji S. Hemangiomas and Vascular Malformations of the Head and Neck. Neuroimag Clin Am 2011; (21): 658–641.
3. Goswami M, Singh S, Gokkulakrishnan S, Singh A. Lymphangioma of the tongue. Natl J Maxillofac Surg 2011; 2(1): 88-86.

4. Gimeno M, Colomar P, González I, Ollero J. Aspectos clínicos y morfológicos de los linfangiomas infantiles: Revisión de 145 casos. *An Esp Pediatr* .1996; 45(1): 28-25.
5. Marler J, Mulliken J. Current management of hemangiomas and vascular malformations. *Clin Plastic Surg*. 2012 (22): 116-96.
6. Neville B, Damm D, Allen C, Bouquot J. *Oral and Maxillofacial Pathology*. Elsevier 3ed. EUA; 2009.
7. Regezi J, Sciubba J, Jordan R. *Oral pathology; clinical pathologic correlations*. Elsevier.6 ed. EUA; 2012.
8. Marler J, Fishman S, Upton J. Prenatal diagnosis of vascular anomalies. *J Pediatr Surg* 2002; 37: 318– 26.
9. Mulliken J, Young A. *Vascular birthmarks: hemangiomas and malformations*. Philadelphia 7ed. WB Saunders; 1988.
10. Greinwald J, Burke D, Sato Y. Treatment of lymphangiomas in children: an update of Picibanil (OK-432) sclerotherapy. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1999; 121: 387–381.
11. Alonso J, Barbier L, Alvarez J, Romo L, Martín J, Santamaría J. Eficacia del OK432 (picibanil) en un linfangioma cervical quístico del adulto. Caso clínico y revisión bibliográfica. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2005; 10; 366-362.
12. Padwa B, Hayward P, Ferraro N. Cervicofacial lymphatic malformation: clinical course, surgical intervention, and pathogenesis of skeletal hypertrophy. *Plast Reconstr Surg* 1995; 95: 960- 951.
13. Van Waes H, Stöckli P. *Odontología Pediátrica*.2 ed. Masson. Bcelona; 2003.
14. Malamed S. *Sedation: a clinical guide to patient management*. Elsevier. 5 ed. EUA; 2009.
15. Malamed S. *Handbook of Local Anesthesia*. Elsevier.6 ed. EUA; 2013.
16. Pitts N, Ismail A, Martignon S, Ekstrand K, Douglas G, Longbottom C. Guía ICCMS™ para clínicos y educadores. ICCMS™ Caries Management International Caries Classification and Management System [documento en internet] December 2014[consultado 27 Febrero 2016] disponible en:[https://www.icdas.org/uploads/ICCMSguide\\_Full\\_Guide\\_With\\_Appendices\\_UK.pdf](https://www.icdas.org/uploads/ICCMSguide_Full_Guide_With_Appendices_UK.pdf)
17. Aguilera A, Shalkow J, de la Teja E, Durán A. Criterios estomatológicos para el tratamiento del paciente con anomalías vasculares. Informe de cuatro casos. *Acta Pediatr Mex* 2009; 30 (5):253-547.