

REJANE CHRISTINA LOPES DE PAIVA

XANTOGRANULOMA EM CAVIDADE ORAL: *RELATO DE CASO*

Faculdade de Odontologia
Universidade Federal de Minas Gerais
Belo Horizonte
2022

Rejane Christina Lopes de Paiva

XANTOGRANULOMA EM CAVIDADE ORAL: *RELATO DE CASO*

Monografia apresentada ao Colegiado de Pós Graduação da Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Minas Gerais como requisito parcial para a conclusão do Curso de Especialização em Cirurgia e Traumatologia Buco Maxilo Facial.

Orientador: Prof. Dr. Marcelo Drummond Naves

Belo Horizonte
2022

Ficha Catalográfica

P149x Paiva, Rejane Christina Lopes de.
2022 Xantogranuloma em cavidade oral: relato de caso / Rejane
MP Christina Lopes de Paiva. -- 2022.

44 f. : il.

Orientador: Marcelo Drummond Naves.

Monografia (Especialização) -- Universidade Federal de
Minas Gerais, Faculdade de Odontologia.

1 . Xantogranuloma juvenil. 2. Adulto. 3. Boca. I. Naves,
Marcelo Drummond. II. Universidade Federal de Minas Gerais.
Faculdade de Odontologia. III. Título.

BLACK - D72



UNIVERSIDADE FEDERAL DE MINAS GERAIS
FACULDADE DE ODONTOLOGIA
COLEGIADO DO PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM ODONTOLOGIA

ATA COMISSÃO EXAMINADORA PARA JULGAMENTO DE TRABALHO DE CONCLUSÃO DE CURSO DE ESPECIALIZAÇÃO

ATA COMISSÃO EXAMINADORA PARA JULGAMENTO DE TRABALHO DE CONCLUSÃO DE CURSO ESPECIALIZAÇÃO

Ata da Comissão Examinadora para julgamento de Monografia da aluna **REJANE CHRISTINA LOPES DE PAIVA**, do Curso de Especialização em Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial, realizado no período de 25/02/2019 a 25/03/2022.

Aos 21 dias do mês de março de 2022, às 09:00 horas, por meio da Plataforma virtual Microsoft Teams®, reuniu-se a Comissão Examinadora, composta pelos professores PROF. DR. MARCELO DRUMMOND NAVES (orientador), PROF. DR. CARLOS JOSÉ DE PAULA e PROF. DR. FELIPE PAIVA FONSECA. Em sessão pública foram iniciados os trabalhos relativos à Apresentação da Monografia intitulada "XANTOGRANULOMA, RELATO DE CASO CLÍNICO". Terminadas as arguições, passou-se à apuração final. A nota obtida pelo(a) aluno(a) foi 100,0 (Cem) pontos, e a Comissão Examinadora decidiu pela sua **aprovação**. Para constar, eu, PROF. DR. MARCELO DRUMMOND NAVES, Presidente da Comissão, lavrei a presente ata que assino, juntamente com os outros membros da Comissão Examinadora.

Belo Horizonte, 21 de março de 2022.

Prof. Dr. MARCELO DRUMMOND NAVES
Orientador

Prof. Dr. CARLOS JOSÉ DE PAULA SILVA

Prof. Dr. FELIPE PAIVA FONSECA



Documento assinado eletronicamente por Marcelo Drummond Naves, Professor do Magistério Superior, em 26/04/2022, às 15:26, conforme horário oficial de Brasília, com fundamento no art. 5º do [Decreto nº 10.543, de 13 de novembro de 2020](#).



Documento assinado eletronicamente por Carlos Jose de Paula Silva, Professor do Magistério Superior, em 26/04/2022, às 18:58, conforme horário oficial de Brasília, com fundamento no art. 5º do [Decreto nº 10.543, de 13 de novembro de 2020](#).



Documento assinado eletronicamente por Felipe Paiva Fonseca, Coordenador(a), em 26/04/2022, às 19:11, conforme horário oficial de Brasília, com fundamento no art. 5º do [Decreto nº 10.543, de 13 de novembro de 2020](#).



A autenticidade deste documento pode ser conferida no site https://sei.ufmg.br/sei/controlador_externo.php?acao=documento_conferir&id_orgao_acesso_externo=0, informando o código verificador 1409726 e o código CRC 53EE6566.

Dedico esse trabalho ao meu avô Jota Pereira Leite (*in memorian*), com todo o meu amor e gratidão”.

AGRADECIMENTOS

Agradeço e dedico esse trabalho de especialização a Deus, pelo amor e pela misericórdia derramada sobre a minha vida, bem como iluminar as minhas decisões, dando-me força e coragem para seguir.

Ao Marcélio, meu companheiro de vida, por todo o apoio até aqui, por vibrar por cada vitória alcançada durante o curso e por trazer lucidez quando em momentos difíceis! Você foi parte essencial para que eu chegasse até aqui.

Aos meus pais Edmundo e Rosimere, pela educação recebida e por sempre incentivarem meu crescimento profissional! Aos meus irmãos e toda minha família em especial meu afilhado Rafael e minha avó Júlia, a todos peço perdão pela ausência!

Ao meu orientador o Prof. Dr. Marcelo Drummond Naves, por toda a atenção e ensinamentos, a quem considero como a surpresa mais agradável do curso. Desde a graduação tenho admiração por seu profissionalismo. Porém, ao longo do curso, conheci um mestre humano e que sempre me dizia: “Rejane, você não pode ver somente a doença e sim, a história do paciente atrás dela.” Obrigada por tudo!

Ao Prof. Dr. Cláudio Rômulo Comuniam, a quem foi meu professor na minha primeira exodontia de dentes impactados durante a graduação. Durante a pós graduação, ele sempre trouxe leveza e praticidade a cada conhecimento dividido, por “serenar” nos meus momentos de ansiedade no bloco cirúrgico, além de um grande companheiro de *cappuccino* enquanto aguardávamos a liberação dos blocos cirúrgicos.

Ao Prof. Dr. Carlos José de Paula pelos ensinamentos, suporte, generosidade, a quem tive como R2 e que sempre demonstrou muita argúcia frente a diversas situações que surgiam, que sempre repetia: “Rejane, antecipe os problemas!”. Obrigada por tudo!

Ao Prof. Dr. Evandro Guimarães Aguiar por ser muito presente durante todo o curso. Obrigada pelos ensinamentos e pela confiança, desde os projetos de extensão na graduação, aperfeiçoamento e nesta especialização. Meu sincero agradecimento por tornar possível a realização do sonho de me tornar uma colega de especialidade.

Aos meus amigos e aos amigos que conheci ao longo do curso, em especial Javier, a quem sempre foi muito disponível para me auxiliar nas tarefas difíceis que executei, companhia frequente às minhas idas à coordenação médica, por me auxiliar nas odontossínteses fora dos plantões e por estar presente tanto nos momentos difíceis, quanto nos de recreação.

À toda equipe do Serviço de Cirurgia e Traumatologia Buco Maxilo Facial e do Pronto Socorro Odontológico do HMOB, em especial, ao Dr. Fernando Sartori e à Dra. Tercília Zuccheratte, a quem me acolheu nos plantões e me tratou como filha. Aos demais servidores do HMOB, gostaria de registrar meu reconhecimento pelo esforço diário de todos envolvidos na recuperação dos pacientes, comprometimento e coragem, principalmente durante a pandemia! Em especial, agradecer àqueles que sempre foram presentes nos meus plantões: Dra. Danielle Maia da Clínica médica, Dra. Selmita Gomes Ferreira da CCIH, Dr. Lourival de Souza Lopes da coordenação médica e André Luiz Rodrigues do Departamento de Informática do HMOB.

“Aprender é a única coisa de que a mente nunca se cansa,
nunca tem medo e nunca se arrepende.”
Leonardo da Vinci

RESUMO

O Xantogranuloma é a histiocitose de células não Langhans mais comum e com maior incidência na primeira infância. Geralmente é auto resolutive, sem necessidade de intervenção cirúrgica ou medicamentosa. Manifestações em adultos são raras e possuem as mesmas características das manifestações em crianças, e dessa forma, classificado como Xantogranuloma Juvenil do Adulto ou Xantogranuloma.

Os sítios mais acometidos são localizados em parte superior do corpo, principalmente cabeça e pescoço, sendo as manifestações orais extremamente raras.

O objetivo do estudo é descrever um caso clínico de paciente do sexo masculino portador de Xantogranuloma em espaço bucal, descrever os achados clínicos, imaginológicos, anatomopatológicos, bem como relatar os tempos cirúrgicos da abordagem e apresentar evolução pós operatória do caso. O paciente referiu assimetria facial, aumento de volume em face à direita, com crescimento indolor e lento. O tratamento eleito foi a realização de procedimento cirúrgico com acesso intraoral, seguido de exérese completa da lesão orientada por US. O exame anatomopatológico revelou Xantogranuloma com caráter infiltrativo e dessa forma, mesmo após a exérese total, o paciente deve ter o acompanhamento estendido para identificar possível recidiva da lesão.

Palavras-chave: Xantogranuloma. Adulto. Oral.

ABSTRACT

Xanthogranuloma in oral cavity: Case report

The Xanthogranuloma is the most common non-Langhans cell histiocytosis with a higher incidence in early childhood. It is usually self-resolving, without the need for surgical or drugs. Manifestations in adults are rare and have the same characteristics as manifestations in children, and therefore classified as Adult Juvenile Xanthogranuloma or Xanthogranuloma.

The most affected sites are located in the upper part of the body, mainly the head and neck, and oral manifestations are extremely rare.

The objective of the study is to describe a clinical case of a male patient with Xanthogranuloma in the oral space, to describe the clinical, imaging, and anatomopathological findings, as well as to report the surgical times of the approach and to present the postoperative evolution of the case. The patient reported facial asymmetry, swelling on the right face, with painless and slow growth. The treatment chosen was a surgical procedure with intraoral access, followed by complete excision of the lesion guided by US. The anatomopathological examination revealed Xanthogranuloma with an infiltrative character and thus, even after total excision, the patient should have extended follow-up to identify possible recurrence of the lesion.

Keywords: Xantogranuloma. Adult. Oral

LISTA DE FIGURAS

Figura 1: Primeiro atendimento realizado no dia 01/10/2019.....	18
Figura 2: Realização da biópsia incisional orientada por US 16/10/2019.	19
Figura 3: Imagens de microscopia HE 4x1, HE 10x2 e HE 10x1, da biópsia incisional realizada no dia 16/10/2019.....	20
Figura 4: Biópsia excisional realizada no dia 18/12/2019.....	20
Figura 5: Imagens de microscopia HE 4x1, HE 10x2 e HE 10x1, da biópsia excisional realizada em 18/12/2019.....	21
Figura 6: Imagem prévia à biópsia excisional 08/12/2021.....	22
Figura 7: Imagem US pré operatória	23
Figura 8: Imagem transoperatória, procedimento orientado por US.	24
Figura 9: Imagem do transoperatório orientado por US.....	25
Figura 10: Imagens US realizadas durante o transoperatório e US final.	26
Figura 11: Imagem de fragmentos da lesão após a exérese total.....	27
Figura 12: Imagens de microscopia HE 4x1, HE 10x2 e HE 10x1 da biópsia excisional realizada no dia 08/12/2021.....	28
Figura 13: Imagem pós operatório de 07 à 14 dias	28
Figura 14: Imagem pós operatório 30 dias	29
Figura 15: Imagem pós operatório 60 dias	30
Figura 16: Imagem pós operatório 90 dias	30
Figura 17 imagem pós operatório 120 dias	31

LISTA DE ABREVIATURAS E SIGLAS

CTBMF Cirurgia e Traumatologia Buco Maxilo Facial

FAO-UFG Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Minas Gerais

HMOB Hospital Metropolitano Odilon Behrens

XG Xantogranuloma

JXG Xantogranuloma Juvenil

SUMÁRIO

1 INTRODUÇÃO	12
1.1. OBJETIVOS	13
1.1.1 Objetivo geral	13
1.1.2 Objetivos específicos	13
 2 REVISÃO DE LITERATURA	14
2.1 Xantogranuloma.....	14
 3. METODOLOGIA	18
3.1 Relato de caso	18
 4. DISCUSSÃO	32
5. CONSIDERAÇÕES FINAIS	36
REFERÊNCIAS	37
ANEXOS.....	41
ANEXO A	41
ANEXO B	42
ANEXO C	43
ANEXO D	44

1 INTRODUÇÃO

O Xantogranuloma é um tipo de histiocitose de células não Langherans. Consolaro *et al.*, (2009) relata que é um distúrbio benigno, auto resolutivo que geralmente afeta a primeira infância, e que manifestações orais em pacientes adultos são raras.

Segundo Cohen *et al.*, (1981) e Kwan *et al.*, (1996) apud Gioco *et al.*, (2022), a etiologia do Xantogranuloma é desconhecida, porém a mais provável causa é uma possível reação granulomatosa que envolve histiócitos presentes a um estímulo desconhecido, possivelmente por estímulo físico ou infeccioso.

As histiocitoses de células não-LCHs, de acordo com Voegeli *et al.*, (1998) apud Miranda *et al.*, (2007), constituem um grupo de patologias caracterizadas pela proliferação benigna de histiócitos que não apresentam o fenótipo para a classificação de LCH (S-100 e CD1a positivos, além dos grânulos de Birbeck).

De acordo com Gioco *et al.*, (2022), a biópsia é indispensável para obter um diagnóstico preciso e o exame anatomopatológico deve revelar as características típicas de XG (células espumosas e células gigantes de Touton). Porém, em alguns casos, o quadro histológico pode não apresentar as características peculiares de XG, como por exemplo, o variante mononuclear ou excluir outras entidades. Romero *et al.*, (2018) relata que é imprescindível o uso de técnicas auxiliares de imunohistoquímica para análise da biópsia. Especificamente, o perfil imunohistoquímico deve ser positivo para CD68 e negativo para Cd1a.

Os diagnósticos diferenciais incluíram hiperplasia fibrosa, tumor de glândula salivar menor, fibroma odontogênico periférico e lipoma quando consideradas as características clínicas.

De acordo com Consolaro *et al.*, (2009), o termo “Xantogranuloma Juvenil” ainda é usado para classificação da manifestação da patologia em pacientes adultos, provavelmente devido à semelhança do padrão histológico e ao perfil imunohistoquímico que parecem ser indistinguíveis entre as manifestações em pacientes pediátricos, jovens ou adultos.

1.1. OBJETIVOS

1.1.1 Objetivo geral

O objetivo geral do presente estudo é descrever um caso clínico de paciente portador de Xantogranuloma em cavidade oral.

1.1.2 Objetivos específicos

- Descrever os achados clínicos, imaginológicos e anatomopatológicas;
- Descrever a importância do procedimento cirúrgico orientado por ultrassom;
- Apresentar a evolução pós operatória do caso.

2 REVISÃO DE LITERATURA

2.1 Xantogranuloma

Adamson (1905) fez o primeiro registro do Xantogranuloma em 1905, porém usou o termo Xantoma Múltiplo Congênito. Após diversas revisões de nomenclatura, tais como nevoxantoendotelioma, exantoma juvenil e xantoma tuberoso congênito, o termo "Xantogranuloma juvenil" foi introduzido em 1936 (SENEAR e CARO 1936 apud VILLA *et al.*, 2011). Porém, somente em 1954, o termo XG foi popularizado por HELWIG e HACKNEY, (CONSOLARO *et al.*, 2009; HELWIG e HACKNEY 1954).

O XG é uma doença principalmente pediátrica, até um terço das lesões podem ser congênitas, 64% por cento das lesões de pele se desenvolvem antes dos 7 meses e 85% antes do primeiro ano de vida, sendo apenas 10% em pacientes durante na idade adulta (CICHEWICZ *et al.*, 2019; LUDER *et al.*, 2018).

As histiocitoses são doenças raras, com manifestações clínicas variadas e resultantes de alterações na linhagem monocítica histiocítica (MIRANDA *et al.*, 2007).

Segundo Caputo *et al.*, (2005), o termo "histiócitos" inclui monócitos, macrófagos, células Langhans, não Langhans, bem como células produzidas na medula óssea tais como as identificadoras e as processadoras de antígenos derivadas de células CD34+.

O ser humano sadio contém na derme células dendríticas mielóides imuno estimuladoras CD45+ HLA-DR+ que são identificadas por CD11c e CD1c, da mesma forma, uma população adicional de macrófagos pouco excitáveis e que são positivos para CD163, FXIIIa e CD14 e negativos para CD1a (ZABA *et al.*, 2007). A razão para o processo progressivo de lipidização dos histiócitos, na ausência de hiperlipidemia, não é clara (HAROCHE *et al.*, 2015). Contudo, Bergman *et al.*, (1993) relatou que em XG em pacientes adultos, há o aumento da síntese de colesterol por macrófagos e captação de lipoproteínas de baixa densidade.

Segundo Organização Mundial da Saúde (OMS), 4ª edição, publicada em 2008, a classificação para os tumores do tecido hematopoiético e linfóide de 2008, classifica o XG como neoplasia de células histiocíticas e dendrítica.

A Histiocyte Society classifica as manifestações histiocíticas em três grupos:

- Classe I - histiocitoses de células de Langhans (LCH);
- Classe II - histiocitoses de células de não-LCHs;
- Classe III - histiocitoses malignas.

O XG é a patologia mais frequente de histiocitose de células não-LCH (CHEUNG *et al.*, 2001 e HAROCHE *et al.*, 2015). Apesar da etiologia exata ainda seja desconhecida, Patel *et al.*, (1993) relata que sua natureza é benigna e auto limitada, definida por um distúrbio reativo ao em vez de neoplásico, envolvendo a proliferação exacerbada de monócitos em resposta a estímulos inespecíficos locais ou sistêmicos.

De acordo com Weitzman e Whitlock (2005), nas histiocitoses de células não-LCHs, os distúrbios surjam de uma linhagem celular de CD ou de macrófagos e podem ser divididos clinicamente em 3 grandes grupos:

- Predominantemente cutâneas;
- Cutâneas, porém com um componente sistêmico importante;
- Predominantemente sistêmicos, embora o envolvimento da pele também possa fazer parte da manifestação da patologia.

Segundo Kraus *et al.*, (2001) em resumo os critérios para o diagnóstico do XG incluíram principalmente localização de células mononucleares com uma quantidade variável de linfócitos misturados na amostra, ausência de um arranjo fascicular predominante de fibroblastos, células de xantoma e células gigantes de Touton. Embora a presença de células gigantes de Touton não tenha sido um requisito absoluto para o diagnóstico de Xantogranuloma, elas estavam presentes em cada caso analisado.

Porém, Haroche *et al.*, (2015) descreve células gigantes de Touton como características histológicas típicas de XG, as quais são células gigantes multinucleadas que se organizam como um anel.

O diagnóstico definitivo de XG é realizado através do estudo histopatológico que, em caso de lesões iniciais, demonstra um infiltrado monomórfico de histiócitos que não contêm lipídios e que podem ocupar toda a derme, ou pelo menos, a sua metade superior. Porém, quando as lesões são maduras, contêm células xantomatosas e células gigantes do tipo Touton, as quais estão localizadas principalmente na derme superfície, podendo apresentar fibrose em torno da lesão. Às vezes, podem ser observados linfócitos, neutrófilos e eosinófilos. Os histiócitos do infiltrado ao exame imuno histoquímico apresentam positividade a CD68, CD163, fator

XIIIa e CD4 e negativo para proteína S-100. (KRAUS et al., 2001, SANDELL et al., 2015 apud MARTÍNEZ-MORÁN et al., 2017, p. 684).

O exame ultrassonográfico é uma excelente ferramenta para diagnóstico do XG por imagem e ainda, por não ser invasivo. A imagem do exame ultrassonográfico de XG difere dos demais cistos epidérmicos, haja vista que estas lesões geralmente são anecóicas ou hipoecóicas com bandas anecóicas. Os achados geralmente descrevem o XG como uma lesão hipoecóica, com extremidades bem delimitadas, localizada entre o limite dermo-epidérmico ou derme, ausência de realce posterior ou sombra lateral e, em alguns casos, quando usado um Doppler colorido, é possível observar vascularização dentro da lesão com vasos arteriais e venosos finos (NIKLITSCHKEK *et al.*, 2016).

Gioco *et al.*, (2022) relatou que considerando as manifestações clínicas de XG, é possível descrever três variantes em relação ao tamanho da lesão: (1) lesões papulares (lesões com diâmetro de 2 a 5 mm); (2) lesões nodulares (diâmetro de 5 a 10 mm) e (3) variação gigante ou macronodular (diâmetros maiores de 20 mm).

Costa *et al.*, (2008) relata também que o XG pode ser dividido em 3 tipos com base no diâmetro das lesões, porém difere quando as medidas do tipo nodular. O tipo papular refere-se a lesões menores que 2 a 5 mm; o tipo nodular refere a lesões entre 10 a 20 mm; e o tipo macronodular ou gigante refere-se a lesões maiores que 20 mm de diâmetro.

O local de maior prevalência do XG é a pele e as lesões frequentemente ocorrem no seguimento superior do corpo, tais como: pescoço, couro cabeludo e tronco, principalmente a face (CHU 2004).

As manifestações orais do XG são extremamente raras. Adamson (1905) e Crocker (1951) as descreveram como lesões localizadas na cavidade oral e lábios, porém, sem registro histológico. O primeiro caso registrado histologicamente foi relatado por Kjaerheim e Stokke em 1974, descrevendo uma lesão gengival de uma paciente de 12 anos. Contudo, somente em 1986, Takeda et al., (1986) relataram o primeiro caso de uma lesão de Xantogranuloma oral em um paciente adulto de 38 anos (GIOCO *et al.*, 2022).

De acordo com Dissanayaka *et al.*, (2010), XG oral possui maior predileção por pacientes do sexo masculino. Consoloraro *et al.*, (2009) apud Dissanayaka *et al.*, (2010) relataram que as manifestações orais do XG revelaram que a língua era o sítio mais frequentemente envolvido (oito casos relatados), seguidos de palato (sete casos)

e gengiva (seis casos). Os outros sítios intra orais identificados foram a mucosa bucal, lábio inferior, lábio superior, alvéolo mandibular, fundo de vestibulo e seio maxilar.

Gioco *et al.*, (2022) relata que muitas vezes o XG oral ocorre em uma única forma: a pápula (ou nódulo), a qual afeta principalmente a gengiva ou a língua, enquanto o XG Disseminado (forma cutânea) é caracterizada por múltiplas lesões, principalmente na região da cabeça e do tronco. Além disso, todos os pacientes acometidos pelo XG oral não apresentavam comorbidades sincrônicas. Por outro lado, o XG Disseminado foi associado a alguns distúrbios sistêmicos tais como: neurofibromatose tipo 1, leucemia mielóide crônica juvenil, leucemia linfocítica aguda, doença de Neumann-Pick e diabetes melito.

3. METODOLOGIA

A metodologia deste trabalho será apresentada através do relato de um caso de paciente portador de Xantogranuloma em espaço mastigatório de face à direita.

3.1 Relato de caso

Um paciente do sexo masculino de 55 anos, leucoderma, não tabagista, não etilista, HAS (Hipertensão Arterial Sistêmica) controlado, em uso contínuo de Losartana 50mg (02 comprimidos ao dia), foi encaminhado ao serviço de Estomatologia do Hospital Metropolitano Odilon Behrens por um dentista de consultório particular, queixando-se de aumento de volume em face à direita (Figura 1-A). Inicialmente, o cirurgião dentista suspeitou de um abscesso de origem odontogênica, sendo realizada exodontia de um resto radicular. Porém, o aumento de volume em face à direita se manteve, estando presente por aproximadamente 02 meses. A lesão era indolor e inicialmente não incomodava o paciente, exceto esteticamente.

Ao exame clínico, a lesão era de consistência amolecida, fixada à mucosa bucal e ao músculo bucinador, medindo cerca de 3 cm de diâmetro (Figura 1-B). A mucosa sobrejacente encontrava-se hígida e o paciente negou histórico de trauma ou infecção. Todos os resultados laboratoriais de rotina estavam dentro de limites normais. Nenhuma outra lesão, cutânea ou visceral, estava presente. Os linfonodos regionais não estavam enfiados ou fixos. Foi realizada uma biópsia incisional orientada por ultrassom, sob anestesia local e em ambiente ambulatorial (Figura 2-A, Figura 2-B, Figura 2-C e Figura 2-D).

Figura 1: Primeiro atendimento realizado no dia 01/10/2019.

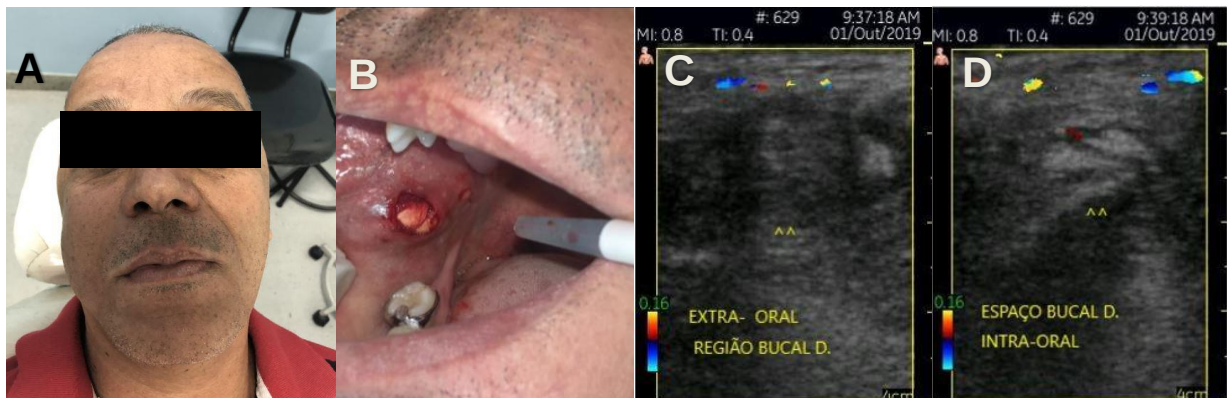


Legenda:

- a) Imagem extra oral do primeiro atendimento. Nota-se assimetria em face à direita.
- b) Imagem intra oral. Observa-se o tumor em mucosa jugal à direita.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

Figura 4: Realização da biópsia incisional orientada por US (16/10/2019).



Legenda:

- a) Imagem extra oral prévia a biópsia incisional.
- b) Imagem intra oral do transoperatório da biópsia incisional, demonstrando a relação da lesão (seta preta) e a bola de bichat (seta de cor amarela).
- c) Imagem US extra oral do espaço bucal direito.
- d) Imagem US intra oral em espaço bucal. Nota-se presença de vasos arteriais e venosos com relação íntima à lesão.

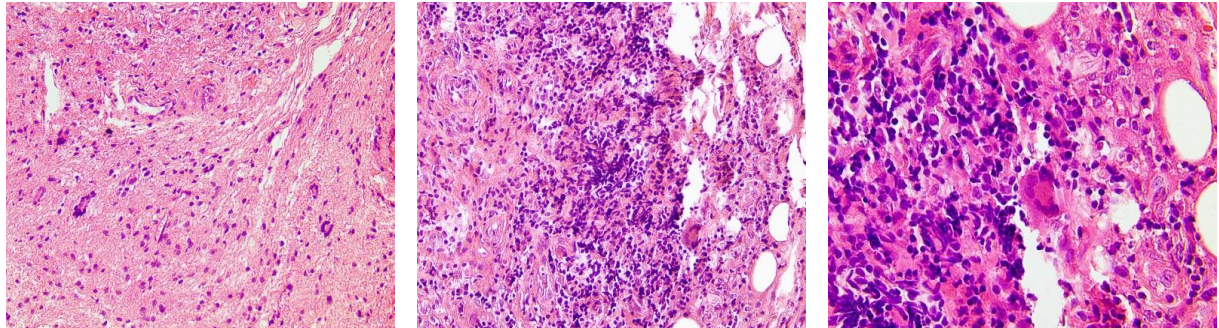
Fontes: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens (Imagens A e B) e US cedidas por Dra. Micena Roberta Miranda Alves e Silva e Dra. Tânia de Carvalho (Imagens C e D).

A lesão não aparentava ser encapsulada e não causou qualquer alteração na musculatura adjacente.

A amostra colhida foi enviada para o exame anatomopatológico. A macroscopia indicava 02 fragmentos de tecido mole, com formato e superfície irregular, coloração amarelada, consistência fibrosa, medindo aproximadamente 15x08x03mm. O tecido foi encaminhado para inclusão e os achados histológicos demonstraram lóbulos de adipócitos maduros parcialmente substituídos por

agregados linfoides e exibindo grande infiltração de histiócitos xantomatosos e formação de células gigantes de Touton (Figura 3).

Figura 6: Imagens de microscopia HE 4x1, HE 10x2 e HE 10x1, da biópsia incisional realizada no dia 16/10/2019.

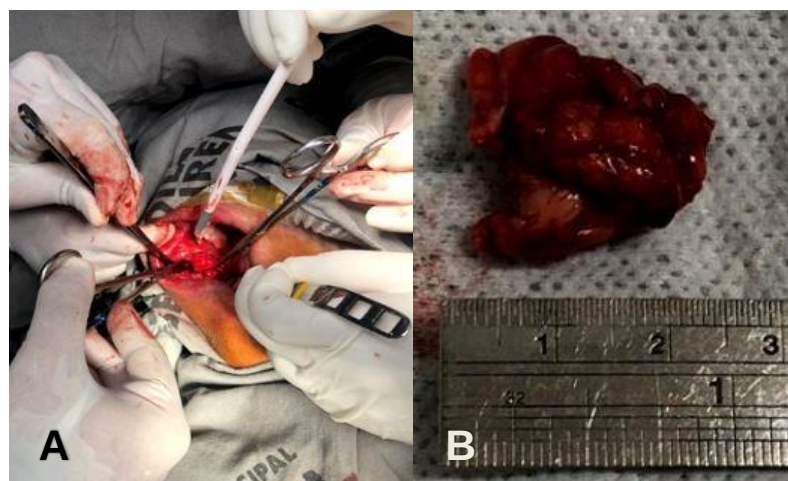


Fonte: Arquivo do Serviço de Patologia da Faculdade de Odontologia da UFMG.

O exame anatomopatológico diagnosticou Xantogranuloma (ANEXO A) e dessa forma, o tratamento preconizado para XG de lesão única foi a exérese completa. Devido ao tamanho da lesão, solicitou-se exames pré operatórios (Hemograma, Rotina Urina, Glicemia, TTP, ATP, Beta HCG, PCR, Ureia, Creatinina e Radiografia de tórax), eletrocardiograma e risco cirúrgico, para posteriormente, realizar a biópsia excisional em bloco cirúrgico, sob anestesia geral.

Com exames concluídos e o paciente apto ao procedimento, este foi submetido à biópsia excisional no dia 18/12/2019 em bloco cirúrgico e sob anestesia geral, sendo o tecido retirado da lesão encaminhado a análise histopatológica (Figura 4-A e Figura 4-B).

Figura 8: Biópsia excisional realizada no dia 18/12/2019.



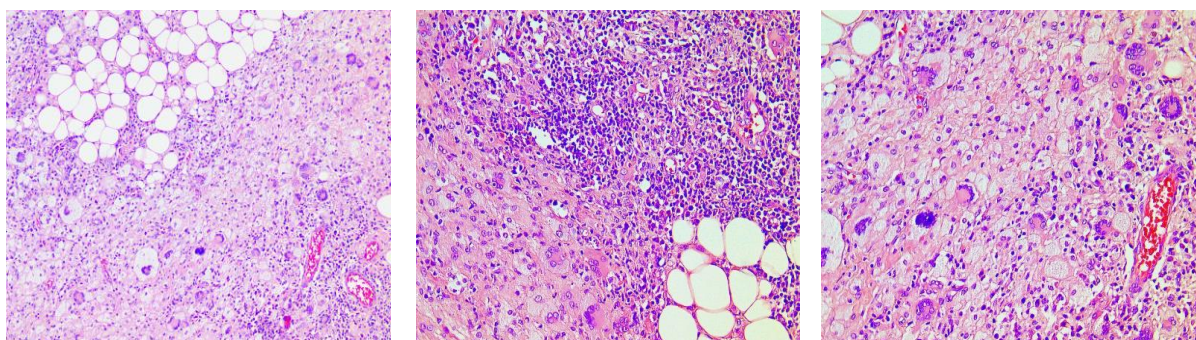
Legenda:

- a) Acesso intra oral e dissecação da lesão, ato cirúrgico orientado por US.
- b) Biópsia excisional, lesão enviada para análise anatomopatológica.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

Sobre o material enviado para análise, a macroscopia constava um fragmento de tecido mole, com formato e superfície irregular, de coloração parda consistência fibrosa, medindo aproximadamente 25x20x10mm. O tecido foi encaminhado para inclusão e os achados histológicos demonstraram lóbulos de adipócitos maduros parcialmente substituídos por agregados linfoides, exibindo grande infiltração de histiócitos xantomatosos e formação de células gigantes de Touton (ANEXO B). A imunohistoquímica indicou positivo para CD68 e negativo para S100 e CD34 (Figura 5), confirmando o resultado de Xantogranuloma. Porém, após a exérese, houve recidiva do edema em face em 03 semanas.

Figura 9: Imagens de microscopia HE 4x1, HE 10x2 e HE 10x1, da biópsia excisional realizada em 18/12/2019.



Fonte: Arquivo do Serviço de Patologia da Faculdade de Odontologia da UFMG.

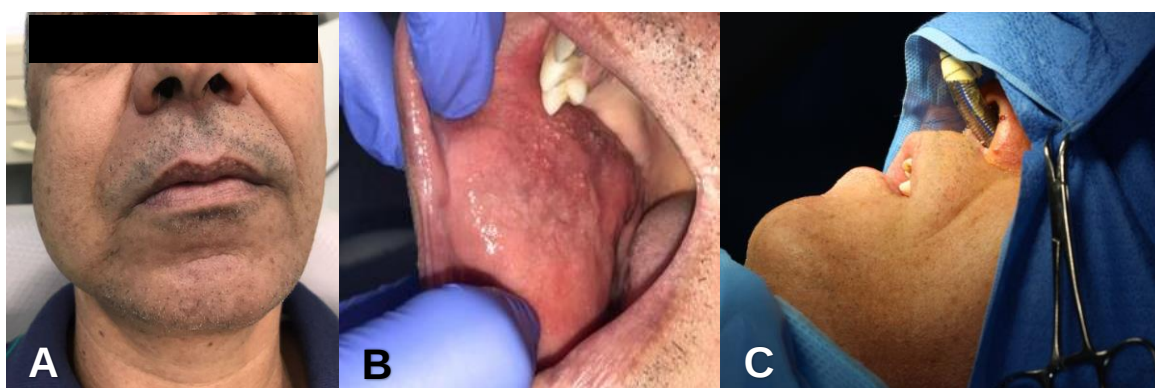
Novamente, exames pré operatórios foram solicitados para uma nova reabordagem cirúrgica. Contudo, devido à pandemia de COVID-19, as cirurgias eletivas realizadas em bloco cirúrgico sob anestesia geral foram suspensas. Apesar desse lapso temporal, o crescimento da lesão manteve-se lento e se expandiu somente até ao tamanho inicial.

Com o retorno das cirurgias eletivas em bloco cirúrgico sob anestesia geral, foram solicitados novos exames pré operatórios laboratoriais (Hemograma, Rotina

Urina, Glicemia, TTP, ATP, Beta HCG, PCR, Ureia e Creatinina), radiografia de tórax, eletrocardiograma e risco cirúrgico, os quais não constatarem alterações aos exames iniciais, mantendo-se o paciente apto para submeter ao procedimento cirúrgico em bloco cirúrgico sob anestesia geral.

O paciente foi informado e orientado sobre o procedimento cirúrgico e aos cuidados pré e pós operatórios, tendo assinado o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (ANEXO A), atendendo assim, às recomendações da Resolução nº 510/2016 da Comissão Nacional de Saúde.

Figura 12: Imagem prévia à biópsia excisional (08/12/2021).



Legenda:

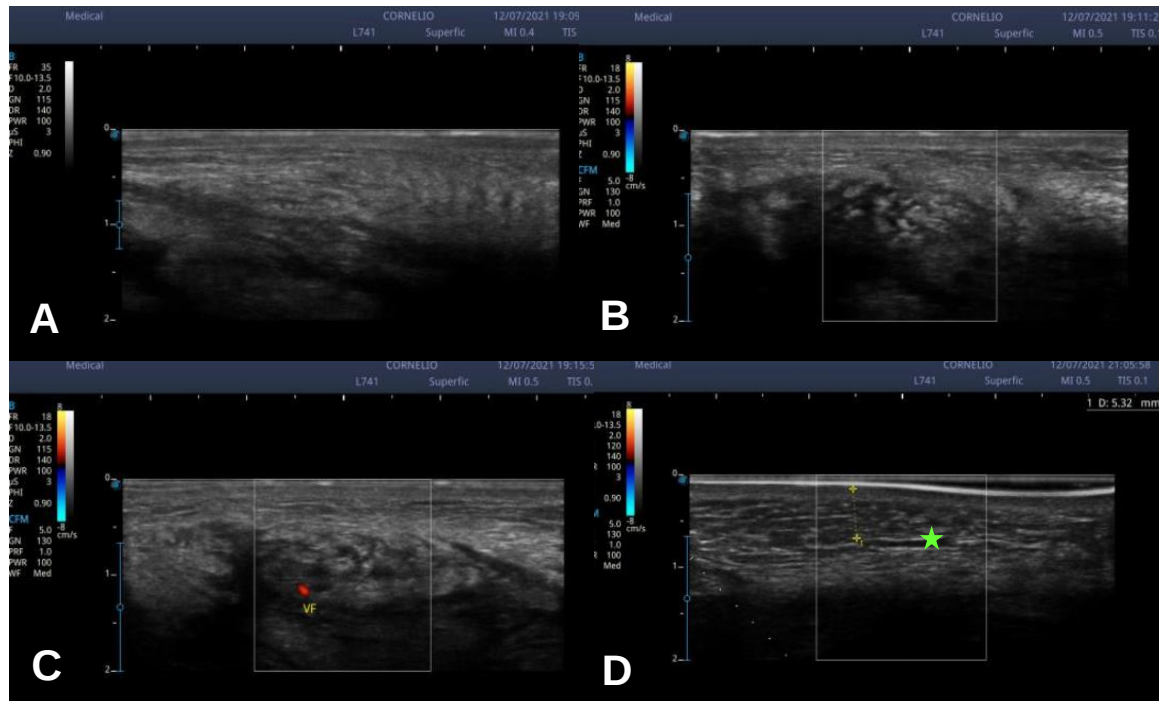
- a) Imagem pré operatória, prévia à condução do paciente ao bloco cirúrgico no dia 08/12/2021.
- b) Exame clínico e avaliação do tumor, indicando a proximidade à carúncula da glândula parótida.
- c) Imagem do paciente submetido a intubação nasotraqueal.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

Após 24 meses do primeiro procedimento cirúrgico sob anestesia geral, o paciente, em jejum de 08 horas, foi conduzido ao bloco cirúrgico 02 do Hospital Metropolitano Odilon Behrens (Figura 6-A e Figura 6-B), sendo induzido a anestesia geral balanceada, em decúbito dorsal horizontal, intubação nasotraqueal, antisepsia intra e extra oral com degermante não alcoólico, colocação de campos estéreis (Figura 6-C), seguida de infiltração anestésica de lidocaína a 2% para hemostasia em mucosa jugal a direita, divulsão, dissecação e exérese completa da lesão. Todo o procedimento cirúrgico foi orientado por US, desde a incisão ao último fragmento da

lesão removido (Figura 7-A, Figura 7-B, Figura 7-C, Figura 7-D, Figura 10-A, Figura 10-B e Figura 10-C).

Figura 15: Imagem US pré operatória.



Legenda:

- a) Imagem US pré operatória, extra oral do espaço bucal direito.
- b) Imagem US pré operatória, extra oral do espaço bucal direito dentro da marcação à região da biopsia excisional realizada anteriormente.
- c) Imagem US extra oral pré operatória, VF demonstrando a veia facial e a relação com a lesão.
- d) Imagem US pré operatória, lesão medindo 4,9 cm de espessura, em verde sinalizando a relação da lesão com o ducto da glândula parótida.

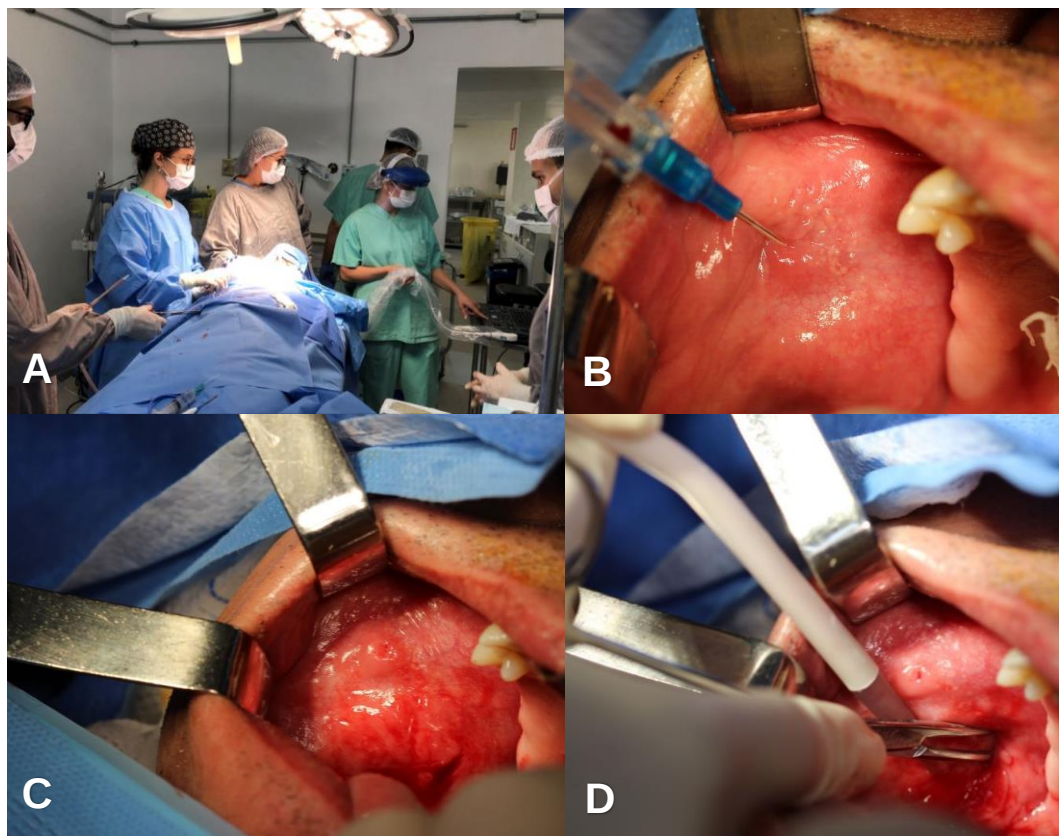
Fonte: Imagens cedidas por Dra. Micena Roberta Miranda Alves e Silva e Dra. Tânia de Carvalho.

Constatou-se que a lesão na região de mucosa jugal apresentava espessura máxima de 4,9 cm (Figura 7-C) e comprimento maior do que aparentava clinicamente, estando localizada na mucosa jugal, músculo bucinador, m. pterigoide lateral, m. pterigoide medial e posteriormente em m. masseter até a inserção do m. temporal em face à direita.

Prévio a infiltração anestésica, foi realizado a introdução de um cateter na carúncula da parótida direita para avaliar a relação da lesão e o ducto da parótida (Figura 8-A e Figura 8-B).

O acesso cirúrgico realizado na lesão foi intra bucal, com incisão transversa retilínea realizada com uso de lâmina 15 montada em cabo de bisturi nº 3, pósterio inferior à carúncula da parótida (Figura 8-C).

Figura 18: Imagem transoperatória, utilizando procedimento orientado por US.



Legenda:

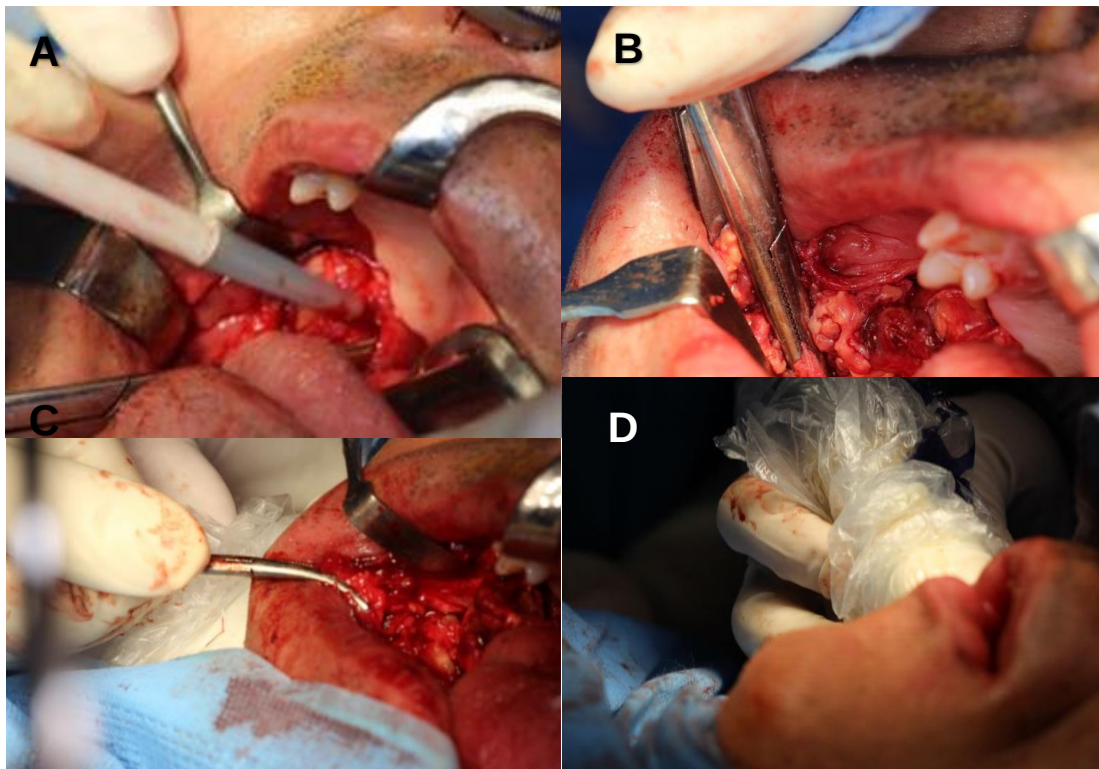
- a) Imagem demonstrando a introdução de cateter durante a US para avaliar a relação do XG e o ducto da glândula parótida.
- b) Imagem intra oral da introdução de cateter em carúncula da glândula parótida para avaliar a relação do XG e o ducto da glândula parótida.
- c) Incisão transversa retilínea realizada pósterio inferior à carúncula da parótida.
- d) Divulsão delicada com pinça hemostática.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

A divulsão foi realizada com pinça Dietrich, tesoura metzembaum e pinças hemostáticas curvas, orientada por imagens de ultrassonografia durante o transoperatório (Figura 8-D e Figura 9-A, Figura 9-B), seguindo de afastamento delicado e firme, preservando as estruturas nobres relacionadas a lesão e conferindo a remoção completa da lesão (Figura 9-C e Figura 9-D).

Porém, durante a dissecação, a lesão apresentou maior aderência na região onde foi realizada a biópsia excisional anterior, principalmente na região anterior e inferior ao ducto da glândula parótida (Figura 9-B).

Figura 20: Imagem do transoperatório orientado por US.



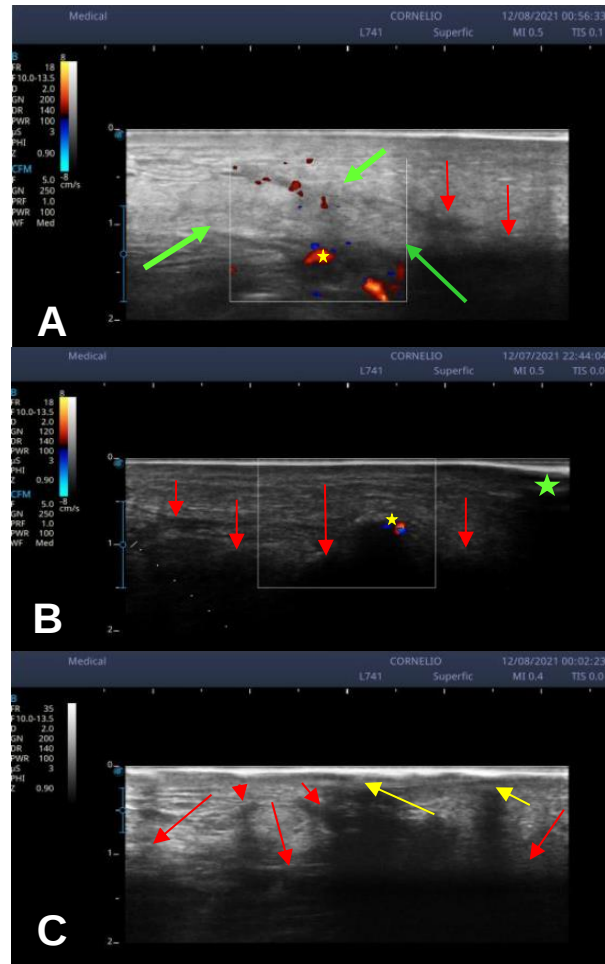
Legenda:

- a) Dissecção da lesão com tesoura de Metzembaum orientada por US.
- b) Parte da lesão estava com aspecto infiltrativo fortemente aderido ao m. bucinador.
- c) Dissecção do Xantogranuloma orientada por US.
- d) Exame US final extra oral após a exérese total da lesão.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

Observou-se ao exame US e durante a dissecação da lesão, que a lesão se aproximou da epiderme cerca de 4 mm, em região do músculo bucinador (Figura 10-C).

Figura 22: Imagens US realizadas durante o transoperatório e US final..



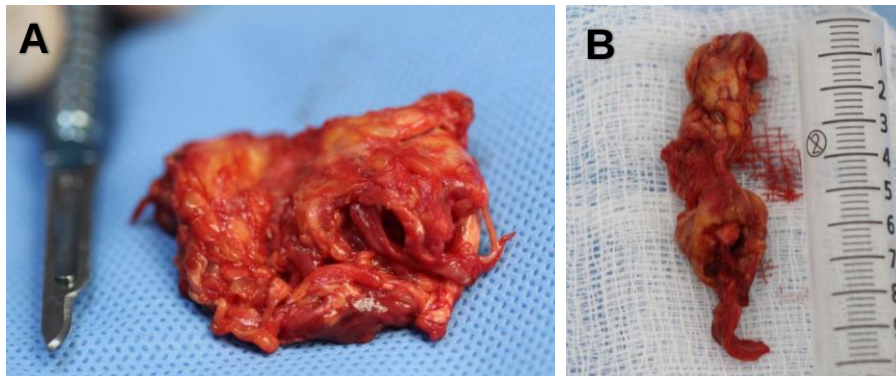
Legenda:

- Imagem US extra oral transoperatória, setas em verde mostrando a relação da lesão com a veia facial sinalizada com estrela amarela, dissecação da veia facial orientada por US, setas em vermelho demonstrando a área da lesão removida durante a cirurgia.
- Imagem US extra oral pós operatória imediata, veia facial sinalizada com estrela amarela, ducto da glândula parótida sinalizada com estrela verde e setas em vermelho evidenciando a remoção completa da lesão.
- Imagem US pós operatória, seta em amarelo demonstrando a proximidade a lesão com a epiderme e setas em vermelho demonstrando a remoção completa da lesão medindo aproximadamente 4mm.

Fonte: Imagens cedidas por Dra. Micena Roberta Miranda Alves e Silva e Dra. Tânia de Carvalho.

Após a exérese de toda a lesão (Figura 11-A e Figura 11-B), realizou-se o toalhete da loja cirúrgica com uso de soro fisiológico. Em seguida, procedeu-se à sutura com pontos simples em dois planos com fios absorvíveis (5.0) poliglactina 910, com devida proteção ducto da glândula parótida. Finalmente, fora aguardado a recuperação anestésica do paciente.

Figura 24: Imagem de fragmentos da lesão após a exérese total.



Legenda:

- a) Amostra da biópsia excisional, parte da lesão aderida à musculatura do músculo bucinador, margem de segurança realizada orientada por Ultrassom.
- b) Fragmento da lesão demonstrando infiltração em musculatura adjacente.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

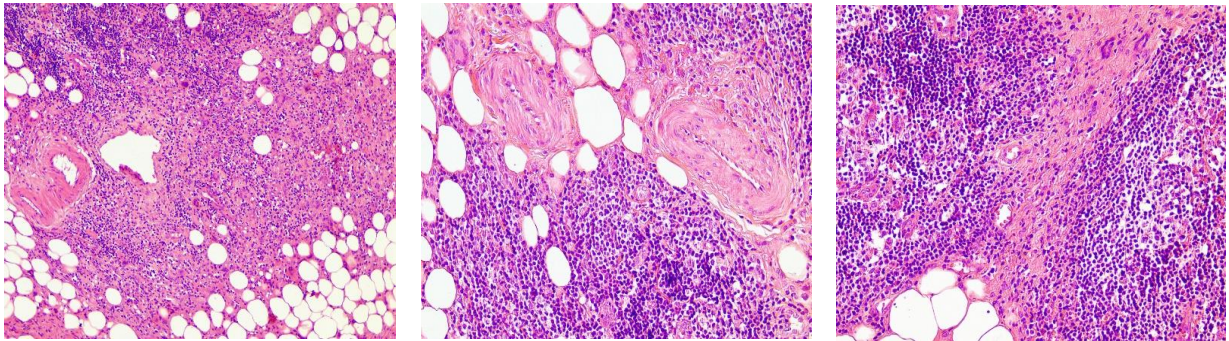
A prescrição pós operatória constou Dipirona 500 mg E.V. 6/6 horas, Clindamicina 600mg E.V. 6/6 horas, Hidrocortisona 100 mg E.V. 8/8 horas. O paciente foi orientado a realizar a crioterapia local nas primeiras 48 horas. O paciente evoluiu bem durante o pós operatório, recebendo alta hospitalar três dias após o procedimento cirúrgico.

Não foram observadas mudanças em padrão de produção de saliva ou outras sequelas na mucosa jugal à direita. Porém, constatou-se discreta paralisia do ramo bucal do nervo facial.

Ao exame anatomopatológico, os cortes histológicos demonstraram adipócitos maduros permeados por agregados linfoides, coleções de células xantomatosas, com formação de células gigantes do tipo Touton, apresentando um padrão bastante infiltrativo (Figura 12). O diagnóstico anatomopatológico foi de Xantogranuloma (ANEXO D), com a seguinte ressalva: “embora a morfologia do tumor

seja característica de Xantogranuloma, o caráter infiltrativo observado no presente caso não é ocasionalmente encontrado nesse tipo de tumor. Portanto, sugeriu-se acompanhamento rigoroso e abordagem terapêutica mais agressiva em caso de recorrência”.

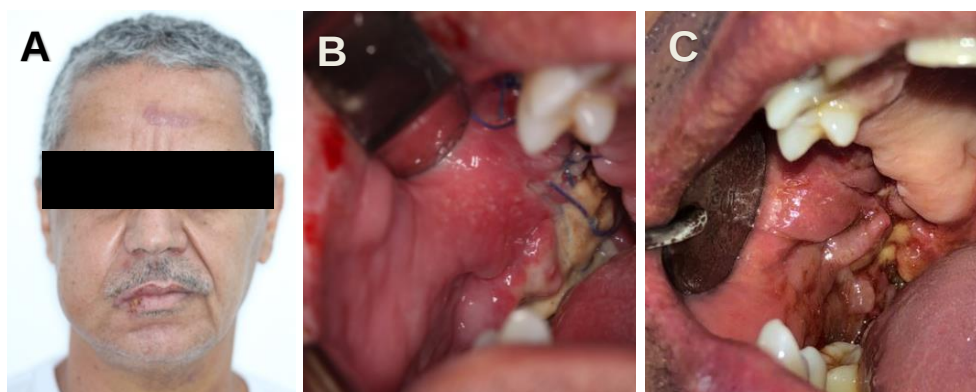
Figura 26: Imagens de microscopia HE 4x1, HE 10x2 e HE 10x1 da biópsia excisional realizada no dia 08/12/2021



Fonte: Arquivo do Serviço de Patologia da Faculdade de Odontologia da UFMG.

Foi realizado acompanhamento pós operatório periódico, com aplicações de ozônioterapia para melhor cicatrização, laserterapia para tratamento da discreta paralisia do ramo bucal do nervo facial. O paciente apresentou boa evolução em cicatrização, ausência de sinais flogísticos, ausência de recorrência da lesão (Figura 13-A, Figura 13-B, Figura 13-C, Figura 14-A, Figura 14-B, Figura 14-C, Figura 14-D, Figura 15-A, Figura 15-B, Figura 15-C, Figura 15-D, Figura 16-A, Figura 16-B, Figura 16-C e Figura 16-D).

Figura 29: Imagem pós-operatório de 07 a 14 dias.

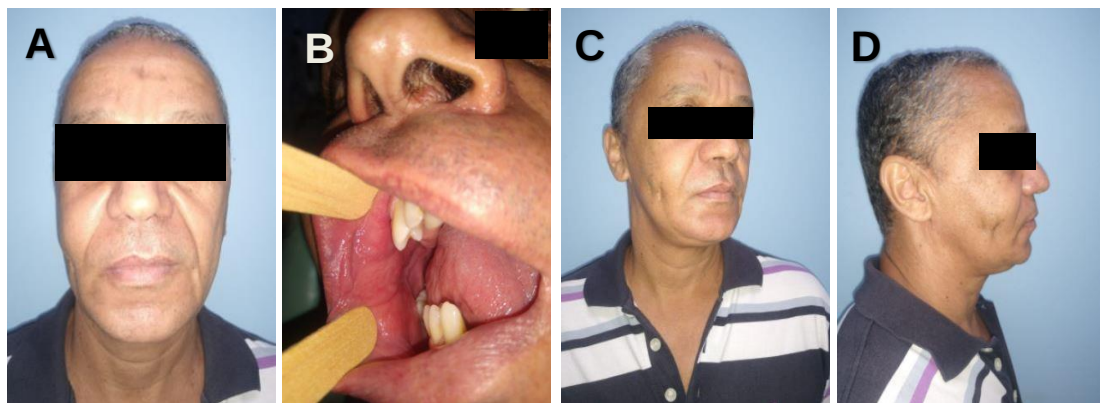


Legenda:

- a) Imagem extra oral, pós operatório de 07 dias. Paciente apresentou discreta paralisia facial (ramo bucal).
- b) Imagem intra oral do pós operatório de 07 dias, ausência de sinais flogísticos em cavidade oral, cicatrização compatível a normalidade, ausência de alteração de drenagem salivar em carúncula da parótida.
- c) Imagem pós operatória 14 dias intra oral, ausência de suturas em cavidade oral, cicatrização compatível com a normalidade, ausência de alteração de drenagem salivar em carúncula da parótida.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

Figura 30: Imagem pós-operatório 30 dias.

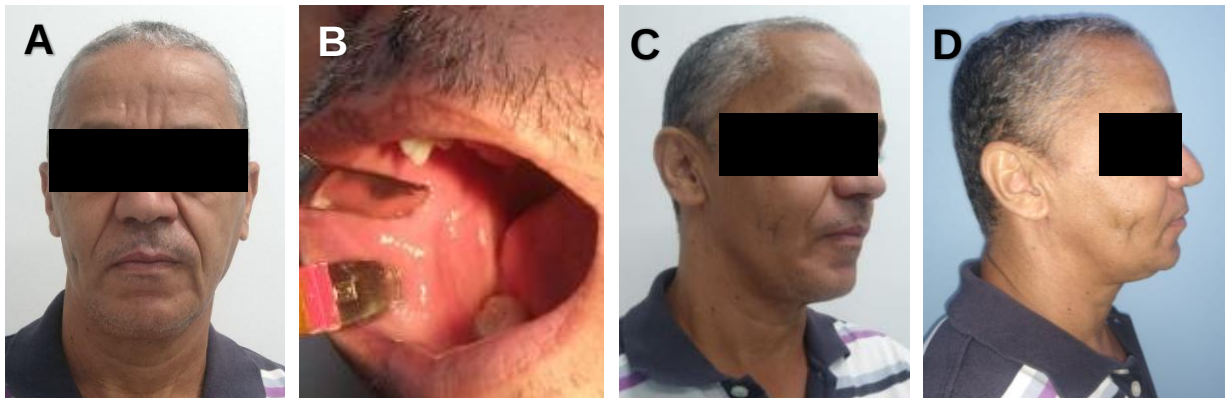


Legenda:

- a) Imagem pós operatória de 30 dias extra oral. Paciente não apresentou sinais de recidiva da lesão.
- b) Imagem pós operatória de 30 dias intra ora. Paciente não apresentou sinais de recidiva da lesão.
- c) Paciente apresentou melhora da paralisia do ramo bucal do facial.
- d) Paciente apresentou cicatriz contrátil em dois pontos da face em região onde a lesão aproximou-se da epiderme.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

Figura 32: Imagem pós-operatório 60 dias.

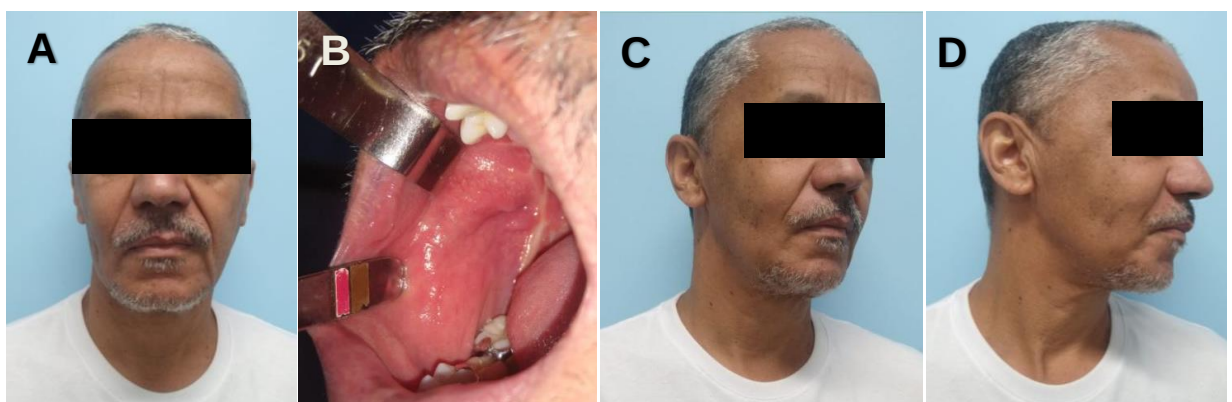


Legenda:

- a) Imagem pós operatória de 60 dias. Paciente não apresentou sinais de recidiva da lesão.
- b) Imagem pós operatória 60 dias. Paciente não apresentou nenhum sinal de recidiva intra oral.
- c) Imagem pós operatória 60 dias. Paciente não apresentou nenhum sinal de recidiva extra oral, apresentou melhora na paralisia facial e melhora da cicatriz contrátil.
- d) Imagem pós operatória 60 dias. Paciente não apresentou nenhum sinal de recidiva extra oral, apresentando melhorias na paralisia facial e na cicatriz contrátil na região onde a lesão aproximou-se da epiderme.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

Figura 34: Imagem pós-operatório 90 dias.



Legenda:

- a) Imagem pós operatória de 90 dias. Paciente não apresentou sinais de recidiva da lesão.
- b) Imagem pós operatória 90 dias intra oral, apresentando ausência de sinais de recidiva em cavidade oral.
- c) Imagem pós operatória de 90 dias. Paciente não apresentou sinal de recidiva extra oral e apresentou melhoras na paralisia facial e na cicatriz contrátil.

- d) Imagem pós operatória 90 dias. Paciente não apresentou sinal de recidiva da lesão, apresentando melhorias na paralisia facial e na cicatriz contrátil onde a lesão aproximou-se da epiderme.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

Figura 36 imagem pós-operatório 120 dias.



Legenda:

- Imagem pós operatória de 120 dias. Paciente não apresentou sinais de recidiva da lesão.
- Imagem pós operatória 120 dias intra oral, ausência de sinais de recidiva em cavidade oral.
- Imagem pós operatória de 120 dias. Paciente não apresentou sinal de recidiva extra oral, apresentando melhorias na paralisia facial e na cicatriz contrátil.
- Imagem pós operatória 120 dias. Paciente não apresentou sinal de recidiva da lesão e apresentou melhoras na paralisia facial e na cicatriz contrátil onde a lesão aproximou-se da epiderme.

Fonte: Arquivo e prontuário Hospital Metropolitano Odilon Behrens.

Após acompanhamento inicial, o paciente foi encaminhado ao Centro de Especialidades Médicas pela equipe CTBMF, via SISREG (Sistema de Regulação), para avaliação e acompanhamento com dermatologista e cirurgião de cabeça e pescoço.

Dessa forma, o paciente compareceu ao dermatologista no dia 29/03/2022, não sendo constatado algum sinal de recidiva da lesão. Assim, o dermatologista optou por manter o acompanhamento periódico de 4 em 4 meses enquanto o paciente mantiver acompanhamento pela equipe CTBMF. Contudo, o paciente ainda aguarda o agendamento, via SISREG, para avaliação com Cirurgião de cabeça e pescoço.

4. DISCUSSÃO

O Xantogranuloma juvenil ou Xantogranuloma é a mais comum das histiocitoses de células não-LCHs, sendo uma histiocitose pediátrica benigna que geralmente se resolve espontaneamente (WEITZMAN e JAFFE, 2005). Apesar da patologia ser considerada pediátrica, 10% dos casos se manifestam na fase adulta (SHAPIRO *et al.*, 1999 citado por COSTA *et al.*, 2008).

Em 1976, Rodrigues e Ackerman relataram não perceber alterações histológicas da variação do Xantogranuloma entre pacientes adultos e pediátricos descritos por Helwig e Hackney em 1954. (RODRIGUES e ACKERMAN, 1976).

Para alguns autores, o Xantogranuloma em pacientes adultos apresenta apenas manifestações clínicas menores que os diferenciam do tipo juvenil. Os pacientes adultos normalmente apresentam lesões únicas, geralmente pápula ou nódulo, com tonalidade levemente amarelada, assintomáticas, ausência de locais de predileção definidos e com rara resolução espontânea (CONSOLARO 2009, p. 250).

A maioria dos pacientes com XG apresenta lesão cutânea única, seguida de massa solitária subcutânea ou de partes moles profundas. Quando a lesão está presente em tecidos moles, geralmente apresenta uma massa firme subcutânea (DEHNER, 2003).

Em revisão sistemática realizada por Gioco *et al.*, (2022), na qual foram excluídos casos que não fossem em cavidade oral ou que não fossem devidamente documentados, foram relatados 34 casos de XG em cavidade oral, sendo determinadas algumas diferenças entre as manifestações do XG oral e cutâneo. Em respeito à idade de início do XG, a idade média de início da manifestação oral é maior do que a manifestação cutânea (forma oral: 15,5 anos; forma cutânea: primeira infância). Especificamente, o XG oral afeta principalmente 3 faixas etárias diferentes: crianças nos primeiros 3 anos de vida (9 casos), indivíduos de 3 a 16 anos (18 casos) e em adultos de 35 a 64 anos (7 casos). Sobre a etnia dos pacientes, o XG oral possui predileção por pacientes caucasianos, em detrimento de asiáticos ou negros; enquanto a forma cutânea, não apresenta predileção por raça.

Jassen *et al.*, (2005) relatou a predominância XG por pacientes do sexo masculino. Essa predominância também foi observada por Gioco *et al.*, (2022) que, dos 34 casos analisados, 22 eram referentes a pacientes do sexo masculino.

Sobre a localização das manifestações orais do XG, Gioco *et al.*, (2022) relata que “a gengiva (11 casos) foi o local mais comum, seguido pela língua (9 casos), palato (7 casos), mucosa alveolar (5 casos) e mucosa labial (3 casos) e nenhum caso foi relatado na mucosa bucal”.

Ainda sobre a localização das manifestações do XG, Costa *et al.*, (2008) relatou 11 casos de JXG com localização intramuscular. Enquanto a maioria das lesões cutâneas ocorrem na região de cabeça e pescoço, as manifestações do JXG intramusculares localizam-se no tronco, frequentemente na musculatura espinhal, sendo 2 casos relatados de JXG intramuscular localizados na região de cabeça e pescoço. Em seu artigo, Costa também descreveu um relato de caso de um paciente adulto portador de Xantogranuloma intramuscular em músculos da cabeça e pescoço (masseter).

No caso em discussão, o perfil do paciente demonstrou relação com os achados epidemiológicos encontrados em XG em pacientes adultos, apresentando lesão única, sexo masculino e leucoderma. Porém, apresentou localização da lesão em cavidade oral em mucosa jugal de caráter infiltrativo, estendendo-se do músculo bucinador, m. pterigoideo lateral, m. pterigoideo medial, m. masseter ao feixe anterior do m. temporal, causando assimetria facial ao paciente.

Diversos profissionais da área de saúde, tais como médicos clínicos gerais, dermatologistas e cirurgiões dentistas, podem ser os primeiros profissionais de saúde a atender pacientes com sinais e sintomas da manifestação oral do XG. Dessa forma, os pacientes devem ser encaminhados a um estomatologista e/ou cirurgião bucomaxilofacial para diagnóstico e tratamento (VILLA *et al.*, 2011).

O desafio do diagnóstico é mais uma característica das histiocitoses não-Langhans, o que pode ser explicado pela hipótese de que essas histiocitoses representariam na verdade, um espectro de doenças que frequentemente se sobrepõem (ODELL e DOGETT, 1993, WESTON *et al.*, 2000 apud MIRANDA *et al.*, 2007).

Chen *et al.*, (2012) afirmam que “O diagnóstico clínico de XG oral é difícil devido a sua rara ocorrência. Além disso, as lesões orais podem apresentar uma ampla gama de características clínicas, levando a vários diagnósticos errôneos”.

O diagnóstico definitivo do XG oral somente pode ser realizado através da biópsia e do exame anatomopatológico. O exame histológico caracteriza-se por um

infiltrado dérmico celular misto com histiócitos, linfócitos, eosinófilos e ocasionais neutrófilos e plasmócitos (CHU, 2004).

Segundo Consolaro *et al.*, (2009), o achado predominante são células gigantes do tipo Touton, histiócitos espumosos reativos a CD68 e não reativos para proteína S-100 e CD1a. O resultado do exame histopatológico da última biópsia excisional confirmou os resultados anteriores, histologicamente apresentou coleções de células Xantomatosas, com formação de células gigantes do tipo Touton apresentando um padrão bastante infiltrativo. O diagnóstico confirmou Xantogranuloma, porém com a ressalva de que, embora a morfologia do tumor seja característica de Xantogranuloma, o caráter infiltrativo observado no presente caso não é ocasionalmente encontrado nesse tipo de tumor. Dessa forma, faz-se necessário acompanhamento multidisciplinar rigoroso e abordagem com margem de segurança em caso de recidiva.

Em 4 casos relatados, observou-se recorrência local das lesões em aproximadamente 4 meses após a excisão cirúrgica. Em todas as recidivas, houve remoção incompleta da lesão. Assim, faz-se necessária a exérese completa da lesão para erradicar a doença (COHEN *et al.*, 1981, KAWASHIRI *et al.*, 1997 e FLAITZ *et al.*, 2002 apud GIOCO *et al.*, 2022).

O paciente do caso clínico relatado neste trabalho foi submetido a dois procedimentos cirúrgicos para exérese da lesão, ambos orientados por US. Após a realização do primeiro procedimento para remoção da lesão, houve recidiva da lesão em 30 dias. Dessa forma, foi traçado um plano de tratamento para reabordagem da lesão recidivada.

Kao *et al.*, (2013) apresentou um relato de caso de XG cutâneo em um paciente adulto, geralmente considerado como um tumor benigno que apresentou recorrência em 03 semanas após a exérese cirúrgica e formação de múltiplos nódulos satélites. O tumor relatado estava localizado na pele sem envolvimento sistêmico e, portanto, diferiu dos casos fatais encontrados na literatura. O paciente foi encaminhado a outro serviço e submetido a outro procedimento cirúrgico, excisão ampla da lesão com margem de segurança e até o momento, não se observou a recidiva lesão. Portanto, Kao *et al.*, (2013) propuseram que, além da exérese completa da lesão, faz-se necessário um acompanhamento a longo prazo.

Segundo a OMS, o XG é considerado um tumor histiocítico cutâneo benigno. Contudo, a rapidez da recorrência encontrada nesse caso relatado, levantou

dúvidas tais como o comportamento da lesão e se a lesão havia sido removida completamente.

Portanto, durante o transoperatório deste caso clínico relatado, foram realizadas imagens de ultrassonografia para identificar com maior precisão a relação entre as estruturas anatômicas adjacentes ao Xantogranuloma, desde a incisão, divulsão dos tecidos, até exérese completa da lesão. Validando essa premissa do uso da ultrassonografia, Niklitschek *et al.*, (2016) relatou que “o conhecimento dos dados anatômicos podem proporcionar maior precisão à cirurgia e permitir uma melhora nos resultados estéticos”.

De acordo com Wortsman (2012, p.14), o exame ultrassonográfico orienta os procedimentos cirúrgicos cutâneos comuns, haja vista que de outra forma, estes seriam cegos e suscetíveis a complicações ou recorrências. Este exame também pode demonstrar informações críticas que seriam invisíveis ao exame clínico, incluindo, por exemplo, a profundidade e atividade das lesões.

Segundo Satow *et al.*, (1995), não há regressão espontânea relatada em manifestações orais do Xantogranuloma. Em contrapartida, Villa *et al.*, (2011), relata regressão da lesão em região posterior de língua em paciente adulto após a biópsia incisional e sugere acompanhar de perto até a regressão espontânea da lesão.

Stover *et al.*, (2008) afirma que o tratamento do XG consiste na excisão cirúrgica da lesão, com ou sem radioterapia ou quimioterapia adjuvantes. O prognóstico geralmente é bom, porém dependendo do órgão ou localização o Xantogranuloma pode ser fatal.

Em relação ao caso clínico relatado neste trabalho, até o momento, não houve recidiva da lesão. Assim, o paciente será acompanhado de forma multidisciplinar por estomatologista, bucomaxilo, cirurgião de cabeça e pescoço e dermatologista.

5. CONSIDERAÇÕES FINAIS

Em conclusão, os Xantogranulomas orais em pacientes adultos são lesões extremamente raras que podem apresentar aspectos clínicos e microscópicos variáveis, levando a uma diversidade de diagnósticos clínicos equivocados. O diagnóstico preciso dessas lesões requer uma avaliação precisa das características clínicas, microscópicas e imunohistoquímicas. Estudos ultra estruturais também podem ser necessários para definir a natureza histiocítica e dendrítica do XG para diferenciá-lo de outras lesões patológicas em cavidade oral.

A realização de ultrassonografia durante o transoperatório aumenta a precisão do cirurgião, tanto quanto à preservação de estruturas nobres, quanto à remoção completa da lesão, e portanto, diminuindo a possibilidade de recidiva e sequelas ao paciente.

Os XGs em pacientes adultos são lesões de difícil resolução espontânea. Dessa forma, o tratamento definitivo é a exérese completa da lesão. Há registros na literatura de recorrências do XG semelhantes ao caso clínico relatado neste trabalho. Nesses casos, a exérese total deve ser conduzida com margem de segurança. Portanto, deve-se manter um acompanhamento multidisciplinar a longo prazo para evitar complicações e crescimento da lesão novamente.

REFERÊNCIAS

BERGMAN R. *et al.*, **Enhanced low-density lipoprotein degradation and cholesterol synthesis in monocyte-derived macrophages of patients with adult xanthogranulomatosis**. Jerusalem, Israel, J Invest Dermatol. 1993;101:880---2.

Caputo R. *et al.*, **Unusual variants of non-Langhans cell histiocytoses**. J Am Acad Dermatol. 2007 Dec;57 (6):1031-45. doi: 10.1016/j.jaad.2007.03.014. Epub 2007 May 7. PMID: 17485142.
<<https://doi.org/10.1016/j.jaad.2007.03.014>>

CHEN C-Y, *et al.*, **An adult juvenile xanthogranuloma in the buccal mucosa**, Journal of Dental Sciences (2013) Taiwan Journal of Dental Sciences (2013) xx, 1e4
<<http://dx.doi.org/10.1016/j.jds.2013.02.028>> ACESSADO EM: 03/03/2022

CHU A.C. Histiocytoses. In: Burns TH, Breathnach S, Cox N, Griffiths C, editors: **Textbook of Dermatology**, 7th edition. Oxford: Blackwell Science, 2004:52.15–17

CICHEWICZ, A. *et al.*, “Xantogranuloma juvenil múltiplo congênito”. **Postepy dermatologii i alergologii** vol. 36, 3th edition, 2019: 365-368.
<<https://doi.org/10.5114/ada.2019.85643>>

COHEN DM, *et al.*, **Juvenile xanthogranuloma of the oral mucosa**. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1981 Nov;52(5):513-23. PMID: 6795560.
<[https://doi.org/10.1016/0030-4220\(81\)90364-9](https://doi.org/10.1016/0030-4220(81)90364-9)>

CONSOLARO A. *et al.*, **Gingival juvenile xanthogranuloma in an adult patient: case report with immunohistochemical analysis and literature review**. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 2009; Bauru – Brazil, 107:246–252

COSTA F. *et al.*, **Unilateral swelling of the cheek**. J Oral Maxillofac Surg 2008; Italy 66:342-348.

CROCKER A.C. **Skin xanthomas in childhood**. Pediatrics 1951; 8:573-97. PMID: 14882914.

DEHNER LP. **Juvenile Xanthogranulomas in the First Two Decades of Life**
A Clinicopathologic Study of 174 Cases With Cutaneous and Extracutaneous Manifestations. The American Journal of Surgical Pathology 27(5): 579–593, 2003

DISSANAYAKA, W. L. *et al.*, **Oral juvenile xanthogranuloma**: report of two cases and literature review. (2010). *Oral Surgery*. 3. (2010) Sri Lanka 22–25. SSN 1752-2471
<<https://doi:10.1111/j.1752-248x.2010.01062.x>>

FLAITSZ C. *et al.*, **Juvenile xanthogranuloma of the oral cavity in children: a clinicopathologic study**. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2002 Sep;94(3):345-52.
<<https://doi:10.1067/moe.2002.122340>. PMID: 12324792.>

GIOCO G. *et al.*, **Oral juvenile xanthogranuloma**: An unusual presentation in an adult patient and a systematic analysis of published cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2022 Jan;133 (1):42-49.
<<https://doi:10.1016/j.oooo.2021.09.015>>

HAROCHE J, ABLA O. **Uncommon histiocytic disorders**: Rosai-Dorfman, juvenile xanthogranuloma, and Erdheim-Chester disease. *Hematology Am Soc Hematol Educ Program*. Toronto, Canada 2015; 2015: 571-8.
<<https://doi:10.1182/asheducation-2015.1.571>>

HELWIG EB, HACKNEY VC. **Juvenile xanthogranuloma** (nevooxantho-ndothelioma). *Am J Pathol* 1954;30: 625-6

KAO, P. *et al.*, **Tumor histiocítico cutâneo semelhante ao xantogranuloma de rápida recorrência**. *The American Journal of Dermatopathology*, (2013). 35 (4), e60-e62.
<<https://doi:10.1097/DAD.0b013e31827b763f>>

KAWASHIRI S, *et al.*, **Juvenile xanthogranuloma of the oral cavity in children: A clinicopathologic study**. *J Oral Pathol Med*. 1997 Nov;26(10):484-7.
<<https://doi:10.1111/j.1600-0714.1997.tb00021.x>. PMID: 9416582.>

KJAERKEIM A, STOKKE T. **Juvenile xanthogranuloma of the oral cavity**. An electron microscopic study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. Sep 1974; 38:414-425.

KRAUS M. *et al.*, **Xanthogranuloma “juvenile”**. *The American Journal of Dermatopathology*, Philadelphia, 23 (2), 104–111.
<<https://doi:10.1097/00000372-200104000-00004>>

LUDER C.M., **Histiocytosis** - cutaneous manifestations of hematopoietic neoplasm and non-neoplastic histiocytic proliferations. J Eur Acad Dermatol Venereol. 2018 Jun;32(6):926-934.
<[https://doi: 10.1111/jdv.14794](https://doi.org/10.1111/jdv.14794). Epub 2018 Jan 31. PMID: 29341328.

NIKLITSCHKEK, S *et al.*, **Color Doppler Sonography of Cutaneous Juvenile Xanthogranuloma With Clinical and Histologic Correlations.** (2016) Journal of Ultrasound in Medicine, 35(1), 212–213.
<[https://doi:10.7863/ultra.15.04007](https://doi.org/10.7863/ultra.15.04007).>

PATEL A.V, MEECHAN J.G, SOAMES J.V. **Juvenile xanthogranuloma of the oral cavity:** a case report. Int J Paediatr Dent. Mar 1993; 3: 43-45

RODRIGUEZ J, ACKERMAN A.B. **Xanthogranuloma in adults.** Arch Dermatol. 1976 Jan;112(1):43-4. PMID: 1247291.

SANGUEZA, O.P *et al.*, **Xantogranuloma juvenil:** um estudo clínico, histopatológico e imuno-histoquímico. Journal of Cutaneous Pathology, (1995). Oregon, USA 22(4), 327–335.
<[https://doi:10.1111/j.1600-0560.1995.tb01415.x](https://doi.org/10.1111/j.1600-0560.1995.tb01415.x)>

SATOW S.J. *et al.*, **Juvenile xanthogranuloma of the tongue.** J Am Acad Dermatol 1995, Ago; 33 (2 Pt 2):376-9.
<[https://doi: 10.1016/0190-9622\(95\)91438-2](https://doi.org/10.1016/0190-9622(95)91438-2).>

SENEAR E.E., CARO M.R. **Nevoxantho-endothelioma or juvenile xanthoma.** Arch Dermatol Syphilol 1936; 34:195-206. (ler de novo e incluir)

STOVER D.G. *et al.*, **Treatment of juvenile xanthogranuloma.** Pediatr Blood Cancer. 2008 Jul;51(1):130-3. doi: 10.1002/pbc.21523. PMID: 18338395.

TAKEDA Y, *et al.*, **Xanthogranuloma of the oral cavity in adult.** A case report and review of the literature. Acta Pathol Jpn. 1986;36:1565-1570. (ler de novo e incluir)

VILLA, A., MARIANI, U. & VILLA, F. **Lingual juvenile xanthogranuloma in a woman:** a case report J Med Case Reports 5, 30 (2011). Acessado em 03/03/2022
<<https://doi.org/10.1186/1752-1947-5-30>>

WEITZMAN S., JAFFE R. **Uncommon histiocytic disorders:** the non-Langhans cell histiocytoses. Pediatr Blood Cancer. 2005 Sep; 45 (3):256-64.
<[https://doi: 10.1002/pbc.20246](https://doi.org/10.1002/pbc.20246). PMID: 15547923.>

WRITING GROUP OF THE HISTIOCYTE SOCIETY. **Histiocytosis syndromes in children.** Lancet. 1987 Jan 24;1(8526):208-9. PMID: 2880029.

WORTSMAN X. **Common Applications of Dermatologic Sonography** J Ultrassom Med. 1th edition, Vol. 31, Jan;31 ;2012, 97-111.

ZABA L.C., *et al.*, **Normal human dermis contains distinct populations of CD11c+BDCA-1+ dendritic cells and CD163+FXIIIA+ macrophages.** J Clin Invest. 2007 Sep;117(9):2517-25. doi: 10.1172/JCI32282. PMID: 17786242; PMCID: PMC1957542.

ZERBINI M.C.N. *et al.*, **Classification of haematopoietic and lymphoid tumors. WHO, standardization of nomenclature in Portuguese**, 4th edition J Bras Patol Med Lab • v. 47 • n. 6 • p. 643-648 • dezembro 2011
Acessado em 03/03/2022
<<https://www.scielo.br/j/jbpml/a/9jSNcmkmGpctG4bm7dWCnMc/?format=pdf&lang=pt>>

ANEXOS

ANEXO A

TERMO DE CONSENTIMENTO PARA USO DE MATERIAL FOTOGRÁFICO, VÍDEOS E IMAGENS

Eu, Cornélio Lúcio Caetano Filho, autorizo voluntariamente a publicação de material fotográfico, bem como a de exames de imagens realizadas em minha face e/ou região cervical (radiografias, tomografias, ultrassonografias) que permitiram a identificação adequada da lesão e auxílio na conduta clínica a ser executada pelo profissional. Além disso, autorizo, voluntariamente, o encaminhamento de qualquer órgão ou tecido removido cirurgicamente para a realização de exames complementares, desde que necessário para o esclarecimento de do diagnóstico e definição de exame complementar.

Saliento de que fui claramente informado(a) de que o uso de minhas imagens será exclusivamente para divulgação científica, de modo a agregar informações relevantes que contribuam com os profissionais que atuam na área. É importante mencionar que o exame por ultrassom foi de grande valia na identificação precisa da extensão da lesão e avaliação do aspecto vascular. Além disso, o resultado histopatológico será fundamental para o diagnóstico. Contudo, o meu tratamento nunca esteve vinculado ao fato de eu permitir ou não o uso de minhas imagens para a divulgação científica.

Ressalto, ainda, que fui devidamente esclarecido(a) e assegurado(a) de que minha identidade será preservada em todos os momentos, mesmo após a conclusão do tratamento, atendendo aos preceitos de ética em pesquisa e que não receberei qualquer tipo de remuneração para isso. Dessa forma, autorizo voluntariamente o uso do material fotográfico e das imagens (ultrassonográficas ou histopatológicas) referentes à minha pessoa.

Assinatura da paciente: Luiz C. F. Filho

RG: MG 3640939

Cidade: Belo Horizonte Estado: Minas Gerais

Data: 19/12/2023

ANEXO B



UNIVERSIDADE FEDERAL DE MINAS GERAIS
FACULDADE DE ODONTOLOGIA
LABORATÓRIO DE PATOLOGIA BUCOMAXILOFACIAL
Av. Antônio Carlos, 6627. Sala 3202 - Pampulha
Belo Horizonte-MG 31270-901
Fone: (31) 3409-2479 E-mail: odonto-patobucal@ufmg.br

RELATÓRIO ANATOMOPATOLÓGICO

CÓDIGO: 39214

Paciente: Cornélio Lúcio Caetano Filho

Data de nascimento 04/02/1965

Idade: 54 anos

Endereço: Av. Saramenha, 62 - Guarani - Belo Hte - MG - CEP: 31840-220

Fone:

Profissional: SUS-BH/Ambulatório Odontológico/Hospital Municipal Odilon Behrens: Sílvia Ferreira

Tipo de Material:

Tipo de Lesão: Lesão extra-óssea

Localização: Mucosa jugal direita

Diagnóstico Clínico: Lipoma

MACROSCOPIA:

O material recebido para exame consta de 02 fragmentos de tecido mole, formato e superfície irregular, coloração amarelada, consistência fibrosa, medindo 15x08x03 mm. Foram enviados 02 fragmentos para inclusão.

MICROSCOPIA:

Os cortes histológicos mostram lóbulos de adipócitos maduros parcialmente substituídos por agregados linfóides e exibindo grande infiltração por histiócitos xantomatosos e formação de células gigantes do tipo Touton.

DIAGNÓSTICO: Xantogranuloma. Nota: O exame da peça cirúrgica é necessário para confirmação do diagnóstico.

Belo Horizonte, 16 de outubro de 2019

Dra. Maria Cássia Ferreira de Aguiar
CRO-MG 13.052

[Assinatura]
Dr. Ricardo Santiago Gomez
CRO-MG 15.331

Dra. Tarcília Aparecida da Silva
CRO-MG 20.690

Dr. Ricardo Alves de Mesquita
CRO-MG 21.189

Dra. Patrícia Carlos Caldeira
CRO-MG 35.414

Dra. Sílvia Ferreira de Sousa
CRO-MG 36.519

Dr. Felipe Paiva Fonseca
CRO-MG 48.333

ANEXO C



UNIVERSIDADE FEDERAL DE MINAS GERAIS
FACULDADE DE ODONTOLOGIA
LABORATÓRIO DE PATOLOGIA BUCOMAXILOFACIAL
Av. Antônio Carlos, 6627, Sala 3202 - Pampulha
Belo Horizonte-MG 31270-901
Fone: (31) 3409-2479 E-mail: odonto-patobucal@ufmg.br

RELATÓRIO ANATOMOPATOLÓGICO

CÓDIGO: 39587

Paciente: Cornélio Lúcio Caetano Filho

Data de nascimento 04/02/1965

Idade: 54 anos

Endereço: Avenida Saramenha, 562, Guarani - Belo Horizonte, Cep: 31840-220

Fone: (31)98540-7334

Profissional: SUS-BH/Ambulatório Odontológico/Hospital Municipal Odilon Behrens: Ângelo Lemos

Tipo de Material:

Tipo de Lesão: Cística

Localização: espaço bucal D

Diagnóstico Clínico: xantogranuloma

MACROSCOPIA:

O material recebido para exame consta de 01 fragmento de tecido mole, formato e superfície irregulares, coloração parda, consistência fibrosa, medindo 25x20x10mm. 03 fragmentos foram enviados para inclusão.

MICROSCOPIA:

Os cortes histológicos mostram lóbulos de adipócitos maduros parcialmente substituídos por agregados linfóides, exibindo infiltração por histiócitos xantomatosos e formação de células gigantes tipo Touton. A imunohistoquímica mostrou positividade para CD68 e negativo para S-100 e CD34.

DIAGNÓSTICO: Xantogranuloma

Belo Horizonte, 13 de janeiro de 2020

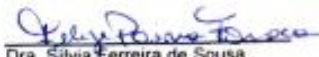
Dra. Maria Cássia Ferreira de Aguiar
CRO-MG 13.052

Dr. Ricardo Santiago Gomez
CRO-MG 15.331

Dra. Tarcila Aparecida da Silva
CRO-MG 20.690

Dr. Ricardo Alves de Mesquita
CRO-MG 21.189

Dra. Patrícia Carlos Caldeira
CRO-MG 35.414


Dra. Silvia Ferreira de Sousa
CRO-MG 36.519

Dr. Felipe Paiva Fonseca
CRO-MG 48.333

ANEXO D



UNIVERSIDADE FEDERAL DE MINAS GERAIS
FACULDADE DE ODONTOLOGIA
LABORATÓRIO DE PATOLOGIA BUCOMAXILOFACIAL
Av. Antônio Carlos, 6627, Sala 3202 - Pampulha
Belo Horizonte-MG 31270-901
Fone: (31) 3409-2479 E-mail: odonto-patobucal@ufmg.br

RELATÓRIO ANATOMOPATOLÓGICO

CÓDIGO: 40887

Paciente: Cornélio Lúcio Caetano Filho

Data de nascimento 04/02/1965

Idade 56 anos

Endereço: Av. Saramenha, 562, Guarani - Belo Horizonte, CEP: 31840-220

Fone: (31)98858-2632

Profissional: SUS-BH/Ambulatório Odontológico/Hospital Municipal Odilon Behrens: Wandirlene Trindade

Tipo de Material:

Tipo de Lesão: Tumor

Localização: mucoça jugal direita

Diagnóstico Clínico: xantogranuloma, tumor à esclarecer

MACROSCOPIA:

O material recebido para exame consta de múltiplos fragmentos de tecido mole, formato e superfície irregulares, coloração parda, consistência fibrosa, medindo 53x45x17 mm. Múltiplos fragmentos foram enviados para inclusão.

MICROSCOPIA:

Os cortes histológicos mostram adipócitos maduros permeados por agregados linfóides. Coleções de células xantomatosas, com formação de células gigantes do tipo Touton, são encontradas exibindo padrão bastante infiltrativo.

DIAGNÓSTICO: Xantogranuloma. Nota: embora a morfologia do tumor seja característica de xantogranuloma, o caráter infiltrativo observado no presente caso não é usualmente encontrado nesse tumor. Portanto, sugerimos acompanhamento rigoroso e abordagem terapêutica mais agressiva em caso de recorrência.

Belo Horizonte, 11 de fevereiro de 2022

Dra. Maria Cássia Ferreira de Aguiar
CRO-MG 13.052

Dr. Ricardo Santiago Gomez
CRO-MG 15.331

Dra. Tarcília Aparecida da Silva
CRO-MG 20.690

Dr. Ricardo Alves de Mesquita
CRO-MG 21.189

Dra. Patrícia Carlos Caldeira
CRO-MG 35.414

Dra. Silvana Ferreira de Sousa
CRO-MG 35.519