



Asociación Mexicana de
Cirugía Bucal y Maxilofacial,
Colegio Mexicano de Cirugía
Bucal y Maxilofacial, A.C.

Vol. 12, Núm. 1 • Enero-Abril 2016 • pp. 28-32

¿Flebolitos o sialolitos en la región maxilofacial?

Rubí López Fernández,* Jorge Téllez Rodríguez*

RESUMEN

Las anomalías vasculares incluyen generalmente dos entidades clínicas e histopatológicas separadas: hemangioma y malformaciones vasculares. El hemangioma representa el tumor de tejidos blandos más común de la infancia, ocurre entre 4 y 10% de los niños. Las malformaciones vasculares se clasifican en función de su anatomía y características hemodinámicas, tales como lesiones arteriales de alto flujo, malformaciones arteriovenosas, lesiones de flujo lento, incluyendo malformaciones capilares linfáticas y venosas. Aproximadamente 40% de las malformaciones venosas se sitúan en la región de la cabeza y el cuello y en ocasiones se asocian a la formación de flebolitos. Se presenta el caso de un paciente de nueve años de edad que acudió el Servicio de Cirugía Maxilofacial de Instituto Nacional de Pediatría de la Ciudad de México referido por facultativo con diagnóstico de múltiples sialolitos en región parotidea derecha, al cual se le ofreció como tratamiento realizar parotidectomía superficial, por lo cual acude al servicio y al realizarle diversos estudios se le diagnostica una lesión vascular de bajo flujo en el músculo masetero derecho con presencia de flebolitos en su interior.

Palabras clave: Flebolitos, sialolitos, malformaciones vasculares, región maxilofacial.

SUMMARY

Vascular abnormalities usually include two separate clinical and histopathologic entities: hemangioma and vascular malformations. The hemangioma represents the most common soft tissue tumor of childhood, it occurs between 4 and 10% of children. Vascular malformations are classified according to their anatomy and hemodynamics, such as high flow arterial lesions, arteriovenous malformations, injuries of slow flow, including lymphatic and venous capillary malformations. Approximately 40% of venous malformations are in the region of the head and neck and are sometimes associated with the formation of phleboliths. We present the case of a nine-year-old who attended the Maxillofacial Surgery National Institute of Pediatrics in Mexico City referred by physician diagnosed with multiple sialolites in right parotid region, which was offered as a treatment to make superficial parotidectomy, so he came to our service and when performing various studies, he is diagnosed with a low-flow vascular lesion in the right masseter muscle with presence of phleboliths inside.

Key words: phleboliths, sialolites, vascular malformations, maxillofacial region.

Correspondencia:

Dr. Jorge Téllez Rodríguez/Dra. Rubí López Fernández
Instituto Nacional de Pediatría.
Insurgentes Sur Núm. 3700-C, Colonia Insurgentes Cuicuilco,
Delegación Coyoacán, 04530, México, D.F.
Tel: 10840900, ext. 1219
E-mail: jorgetellezmaxilo@hotmail.com
dra_rubylopez@yahoo.com.mx

INTRODUCCIÓN

Las malformaciones vasculares en la región orofacial representan un reto para el cirujano maxilofacial, quien desde el inicio debe precisar su diagnóstico, ya que las malformaciones vasculares pueden confundirse con otras lesiones y después del manejo a largo plazo de estas lesiones (que nunca involucionan y tienen un crecimiento progresivo a lo largo de la vida del niño) presentan grandes limitaciones terapéuticas que deben ser tratadas por un equipo multidisciplinario. El tratamiento conservador debe ser la primera elección.

Las anomalías vasculares incluyen generalmente dos entidades clínicas e histopatológicas separadas: hemangioma y malformaciones vasculares.¹⁻³ El hemangioma representa el tumor de tejidos blandos más común de la infancia, ocurre entre 4 y 10% de los niños y surge como vasos recién formados a partir de células endoteliales hiperplásicas a través del proceso de la angiogénesis. Las malformaciones vasculares son anomalías congénitas derivadas de errores durante el desarrollo de vasos y morfogénesis. Las malformaciones vasculares se clasifican en función de su anatomía y características hemodinámicas, tales como lesiones arteriales de alto flujo, malformaciones arteriovenosas, lesiones de flujo lento, que incluyen malformaciones capilares linfáticas y venosas. Aproximadamente 40% de las malformaciones venosas se sitúan en la región de la cabeza y el cuello y en ocasiones se les asocia a la formación de flebolitos.³

El estancamiento del flujo sanguíneo y la trombosis en las malformaciones se han relacionado con la causa de la formación de flebolitos, pese a que la detección de flebolitos se le considera patognomónica de las malformaciones vasculares.⁴⁻⁶

La cirugía convencional, escleroterapia o la terapia con láser pueden enfrentar limitaciones, dependiendo de la ubicación, el alcance y los síntomas relacionados con la malformación venosa. No obstante, a veces puede ser apropiada para aliviar los síntomas, aun cuando sea de manera temporal, y para eliminar los flebolitos.⁷

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente masculino de 9 años de edad el cual acudió al Servicio de Cirugía Maxilofacial del Instituto Nacional de Pediatría, referido de su unidad médica en el estado de Veracruz con sospecha de múltiple sialolitiasis parotídea derecha. La madre refiere que inicia su padecimiento en junio de

2014 con aumento de volumen en mejilla derecha, de predominio matutino, con disminución del mismo durante el día y con recurrencia diaria. Clínicamente se observa discreta asimetría facial por aumento de volumen en región que corresponde a glándula parótida derecha, que es de consistencia suave a la palpación, indolora y sin adenopatías cervicales. Se realiza ultrasonido parotídeo, el cual reporta que ambas glándulas muestran características normales, sin presencia de ninguna otra anomalía. En una radiografía simple posteroanterior de cráneo se observan zonas radiopacas que no pueden cuantificarse, sugerentes de calcificaciones a nivel de rama mandibular derecha (*Figura 1*). Se realiza tomografía computarizada con cortes axiales (*Figura 2*) y reconstrucción tridimensional en la que se aprecian siete calcificaciones de aspecto ovalado de diámetro variable (*Figura 3 y 4*) aparentemente en el músculo masetero derecho, lo cual nos hace sospechar de una lesión vascular y se procede con resonancia magnética (*Figura 5*) con contraste para corroborar diagnóstico que reporta lesión vascular venosa de bajo flujo con presencia de flebolitos en su interior, por lo que se interconsulta con el Servicio de Hemodinamia, quienes realizan lesionografía y escleroterapia (*Figuras 6*) de la malformación venosa de bajo flujo en músculo masetero derecho con 2 mL de polidocanol al 3% en espuma.

Actualmente el paciente se encuentra en control y presenta una evolución satisfactoria.

DISCUSIÓN

Los flebolitos asociados a anomalías vasculares fueron detectados inicialmente en la vena esplénica por Constatte en 1843⁸ y en la región maxilofacial por Kirmisson en 1905.⁹ Aunque las calcificaciones intravasculares son frecuentes en las venas de la pelvis, los flebolitos rara vez se encuentran en las lesiones vasculares del área maxilofacial.^{9,10} Por otra parte, los flebolitos pueden hallarse en los hemangiomas, pero son más característicos de las malformaciones vasculares de bajo flujo y pueden ser el único signo residual de una lesión vascular de la infancia descubierta en la etapa adulta.¹⁻³

La patogénesis de flebolitos, que evolucionó a partir de la teoría de la Ribbert, contribuyó significativamente a la comprensión de la fisiopatología. Ribbert demostró que los flebolitos inicialmente surgen de trombos que están asociados a las paredes vasculares y se mineralizan sucesivamente, se organizan y alcanzan un mayor desarrollo bajo

la influencia de los fibroblastos. La calcificación progresiva desde el interior hacia las capas exteriores formando un patrón laminar múltiple de la corteza a la periferia a medida que aumenta de tamaño.

El fosfato de calcio y carbonato de calcio son depositados en el centro del trombo, con una extensión de la mineralización del centro a la periferia.¹¹



Figura 1. Radiografía posterioanterior en la que se observan zonas radiopacas en región maseterina derecha.

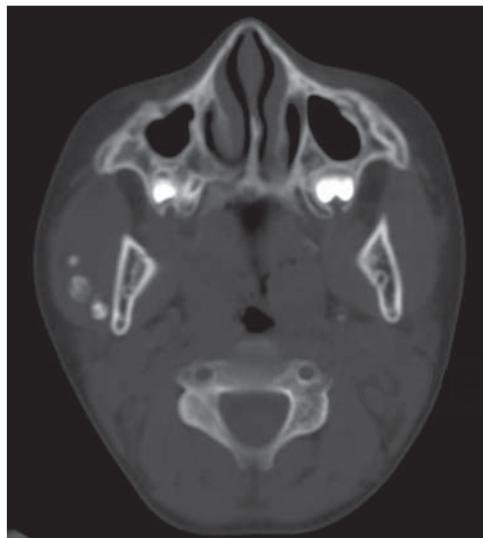
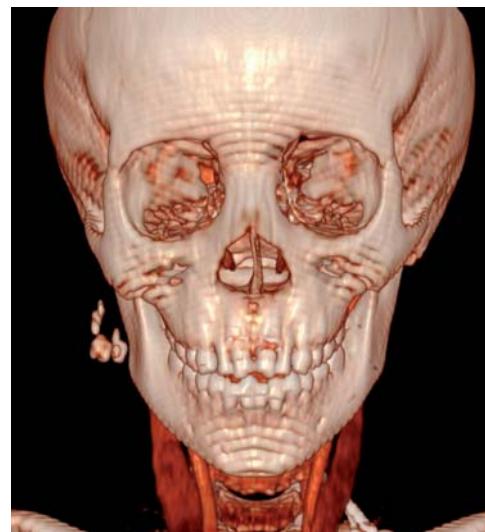


Figura 2. TAC cortes axiales en los que se observa a nivel del corte tres esferas hiperintensas en comparación con músculo masetero, el cual se encuentra ligeramente aumentado.

Las malformaciones venosas superficiales suelen presentarse como una masa blanda, depresible y azulada. Sin embargo, estas características pueden no ser evidentes en las lesiones intramusculares o en las situadas profundamente. Es importante tener en cuenta que el hallazgo radiológico de flebolitos en los tejidos blandos de la región de la cabeza y el cuello constituye una prueba de la presencia de una malformación vascular.¹²

Otras calcificaciones distróficas de la región maxilofacial incluyen las que se producen en los ganglios linfáticos, éstas conforman el tipo más común de las calcificaciones en los tejidos blandos de la cabeza



Figuras 3 y 4. Tomografía con reconstrucción tridimensional vista PA y lateral en la que se observa presencia de aproximadamente 7 de calcificaciones intramusculares de tamaño variable.

y el cuello y los minerales presentes en los quistes, vasos sanguíneos y por parásitos.¹²

Microscópicamente los flebolitos consisten en cálculos con características de laminación concéntrica.^{11,13} Sin embargo, la fibrosis en un patrón laminar se desarrolla progresivamente en la superficie de este trombo mineralizado y también se somete a la calcificación secundaria y por lo tanto se forma un flebólito. El fosfato de calcio y carbonato de calcio se depositan en el centro del trombo, con mineralización sucesiva hacia la periferia.



Figura 5. Resonancia magnética corte coronal en T1 contrastada, en la que se observa lesión focal bien delimitada con realce homogéneo y presencia de flebolitos.

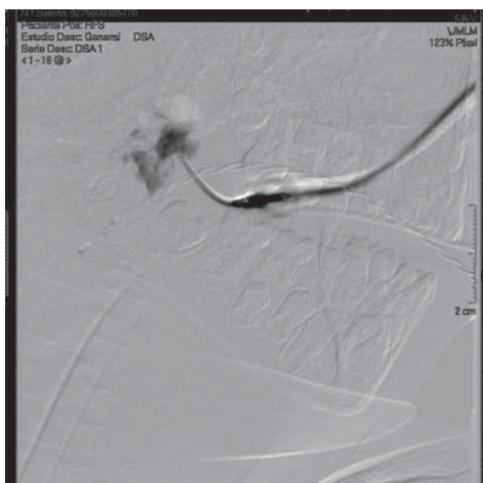


Figura 6. Lesionografía en la que se observa infiltración de polidocanol al 3% intralesional.

La bibliografía menciona que se han encontrado flebolitos en la región de la cabeza y el cuello en niños y adultos.^{10,13,14} El lugar más común donde se localizan los flebolitos es la mejilla,^{10,13,14} lo cual corresponde con el caso que presentamos.

Los flebolitos en las malformaciones de la cabeza y el cuello pueden causar o empeorar los síntomas existentes, tales como dolor, hinchazón, sensibilidad y sensación de cuerpo extraño.

La presencia de dímeros-D elevados con o sin disminución de los niveles de fibrinógeno en pacientes con malformaciones venosas avanzadas está bien descrita y da lugar a la condición conocida como coagulopatía intravascular localizada (LIC).¹⁵⁻¹⁸ Nuestro paciente mostró cifras dentro de los parámetros normales de fibrinógeno y dímero-D.

Los flebolitos han sido como un rasgo característico de las malformaciones venosas, especialmente en el llamado hemangioma intramuscular. Sin embargo, la verdadera incidencia de flebolitos en la cabeza y el cuello no es bien conocida, debido a que rara vez causan síntomas. A veces pueden provocar dolor, pero más a menudo se descubren accidentalmente en estudios radiográficos de rutina.^{13,14} Por lo general, la mayoría de estos flebolitos se aprecian en las radiografías simples.³ La distinción entre flebolitos y sialolitos en particular puede representar un desafío.^{13,19,20}

Las opciones de tratamiento incluyen la observación, la extirpación quirúrgica o la citorreducción o escleroterapia.⁴ En el caso que presentamos decidimos que el tratamiento fuera mediante escleroterapia con polidocanol al 3% por la ubicación de las malformaciones venosas dentro del músculo masetero, la extirpación quirúrgica total tiene el potencial de causar morbilidad significativa. La escleroterapia²¹ ofrece la ventaja de no dejar cicatriz quirúrgica y en comparación con la extirpación quirúrgica, disminuye la probabilidad de comprometer la función de las estructuras adyacentes.

La extirpación quirúrgica de flebolitos podría indicarse en pacientes con VM de la cabeza y el cuello para aliviar los síntomas. La decisión del no tratamiento quirúrgico no provoca alteraciones a largo plazo o secundarias.

CONCLUSIONES

La presencia de calcificaciones dentro de una malformación vascular venosa en la región parotídea puede confundir al cirujano en el diagnóstico de imagen con problemas obstructivos parotídeos y en consecuencia en el tratamiento de estas lesiones,

por lo que hay que correlacionar los datos clínicos de una patología obstructiva como son la falta de secreción o la disminución del flujo salival, incremento de sintomatología dolorosa a la ingesta de alimentos y la tumefacción, que en comparación con las lesiones vasculares de bajo flujo, puede ser el único signo que comparten, aunque existen variaciones en la presentación de esta última. Por tanto, es importante el conocimiento de la fisiopatología de estas lesiones para evitar accidentes y complicaciones que conlleven a intervenir la región parotídea.

BIBLIOGRAFÍA

1. Mulliken JB, Glowacki J. Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endotelial characteristics. *Plast Reconstr Surg.* 1982; 69: 412-420.
2. Jackson IT, Carreño R, Potparic Z, Hussain K. Hemangiomas, vascular malformations, and lymphovenous malformations: classification and method of treatment. *Plast Reconstr Surg.* 1993; 91: 1216-1230.
3. Mulliken JB, Fishman SJ, Burrows PE. Vascular anomalies. *Curr Probl Surg.* 2000; 37: 517-584.
4. Hein KD, Mulliken JB, Kozakewich HP, Upton J, Burrow P. Venous malformations of skeletal muscle. *Plast Reconstr Surg.* 2002; 110: 1625-1635.
5. Ahuja AT, Richards P, Wong KT, Yuen EH, King AD. Accuracy of high-resolution sonography compared with magnetic resonance imaging in the diagnosis of head and neck venous vascular malformations. *Clin Radiol.* 2003; 58: 869-875.
6. Eivazi B, Fasunla AJ, Hundt W, Wiegand S, Teymoortash A. Low flow vascular malformations of the head and neck: a study on brightness mode, color coded duplex and spectral Doppler sonography. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2011; 268: 1505-1511.
7. Eivazi B, Wiegand S, Pfützner W, Neff A, Kureck I, Roessler M et al. Differential diagnosis of vascular malformations of the upper aerodigestive tract. *Laryngorhinootologie.* 2009; 88: 700-708.
8. O'Riordan B. Phleboliths and salivary calculi. *Br J Oral Surg.* 1974; 12: 119-131.
9. Ikegami N, Nishijima K. Hemangioma of the buccal pad with phlebolithiasis: report of a case. *Acta Med Okayama.* 1984; 1: 79-97.
10. Sano K, Ogawa A, Inokuchi T, Takahashi H, Hisatsune K. Buccal hemangioma with phleboliths. Report of two cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1988; 65: 151-156.
11. Ribbert H. Die phlebolithen. *Virchows Arch.* 1917; 223: 339-350.
12. Scolozzi P, Laurent F, Lombardi T, Richter M. Intraoral venous malformation presenting with multiple phleboliths. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2003; 96: 197-200.
13. Raymond AK, Batsakis JG. Angiolithiasis and sialolithiasis in the head and neck. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1992; 101: 455-457.
14. Morris SJ, Adams H. Case report: paediatric intramuscular haemangioma-don't overlook the phlebolith. *Br J Radiol.* 1995; 68: 208-211.
15. Dompmartin A, Acher A, Thibon P, Tourbach S, Hermans C, Deneys V et al. Association of localized intravascular coagulopathy with venous malformations. *Arch Dermatol.* 2008; 144: 873-877.
16. Wiegand S, Eivazi B, Karger R, Al Kadah B, Sesterhenn AM, Werner JA. Surgery in patients with vascular malformations of the head and neck: value of coagulation disorders. *Phlebology.* 2009; 24: 38-42.
17. Dompmartin A, Ballieux F, Thibon P, Lequerrec A, Hermans C, Clapuyt P et al. Elevated D-dimer level in the differential diagnosis of venous malformations. *Arch Dermatol.* 2009; 145: 1239-1244.
18. Dompmartin A, Viikkula M, Boon LM. Venous malformation: update on aetiopathogenesis, diagnosis and management. *Phlebology.* 2010; 25: 224-235.
19. Groppo ER, Glastonbury CM, Orloff LA, Kraus PE, Eisele DW. Vascular malformation masquerading as sialolithiasis and parotid obstruction: a case report and review of the literature. *Laryngoscope.* 2010; 120 (Suppl 4): S130.
20. Su YX, Liao GQ, Wang L, Liang YJ, Chu M, Zheng GS. Sialoliths or phleboliths? *Laryngoscope.* 2009; 119: 1344-1347.
21. Smith WP, Prince S, Phelan S. The role of imaging and surgery in the management of vascular tumors of the masseter muscle. *J Oral Maxillofac Surg.* 2005; 63: 1746-1752.