



CIRUGÍA y CIRUJANOS

Órgano de difusión científica de la Academia Mexicana de Cirugía
Fundada en 1933

www.amc.org.mx www.elsevier.es/circir



CASO CLÍNICO

Linfangioma de cuello en el adulto. Reporte de 2 casos



CrossMark

Erich Otto Paul Basurto-Kuba^{a,*}, Luis Mauricio Hurtado-Lopez^a,
Carlos Campos-Castillo^a, Rafael Buitrón García-Figueroa^b,
Daniel Figueroa-Tentori^a y Abraham Pulido-Cejudo^a

^a Servicio de Cirugía General, Hospital General de México Dr. Eduardo Liceaga, México D.F., México

^b Servicio de Ginecología y Obstetricia, Hospital General de México Dr. Eduardo Liceaga, México D.F., México

Recibido el 11 de septiembre de 2014; aceptado el 10 de febrero de 2015

Disponible en Internet el 7 de agosto de 2015

PALABRAS CLAVE

Linfangioma;
Resección tumor
quistica cervical;
Adulto

Resumen

Antecedentes: Los linfangiomas de cuello son malformaciones congénitas benignas, poco frecuentes, que se presentan generalmente durante la infancia y son muy raros en los adultos. Su resección completa continúa siendo el tratamiento de elección.

Objetivo: Reportar 2 casos de linfangioma cervical en el adulto, presentar el protocolo de estudio y el abordaje quirúrgico realizado.

Casos clínicos: *Caso 1.* Paciente masculino de 23 años de edad, que acude por tumor en triángulo posterior izquierdo de cuello, con aumento progresivo de tamaño en los últimos 9 meses, sin sintomatología asociada ni traumas previos en dicha región. Se realizó tomografía computada de región cervical, que reportó imágenes sugestivas de linfangioma. Se realizó exploración cervical con resección completa del tumor sin incidentes transoperatorios, con evolución satisfactoria. *Caso 2.* Mujer de 28 años de edad, con tumor quístico submandibular a quien 2 años antes se le practicó una resección incompleta en otra institución. Se le realizó una resección quirúrgica completa del tumor, sin incidentes, y su evolución postoperatoria fue satisfactoria.

Conclusiones: El linfangioma en cuello en el adulto es una enfermedad poco frecuente, benigna. La resección quirúrgica es el tratamiento de elección; se puede utilizar la escleroterapia como tratamiento alternativo.

© 2015 Academia Mexicana de Cirugía A.C. Publicado por Masson Doyma México S.A. Este es un artículo Open Access bajo la CC BY-NC-ND licencia (<http://creativecommons.org/licencias/by-nc-nd/4.0/>).

KEYWORDS

Lymphangioma;
Cervical cystic
tumour resection;
Adult

Cervical lymphangioma in the adult. A report of 2 cases

Abstract

Background: Cervical lymphangiomas are uncommon benign congenital malformations usually present in children, and are rare in adults. Currently, complete resection is still the standard care.

* Autor para correspondencia. Hospital General de México, Pabellón 307, Cirugía General. Calle Dr. Balmis 148, Col.: Doctores. Cuauhtémoc. C.P. 06726 México D.F., México. Tel.: +52733810.

Correo electrónico: ebasurto.kuba@hotmail.com (E.O.P. Basurto-Kuba).

Two cases are presented of a cervical lymphangioma in an adult. The diagnosis and surgical approach is also discussed.

Clinical case: Case 1. The first case is a 23 year old male with chief complaint of a tumour in the posterior triangle of the neck, which showed a substantial increase in size in the last 9 months. No associated signs or symptoms, or any trauma history was reported. CT scan of the neck showed images suggestive of a posterior cervical lymphangioma. Exploratory cervical surgery was performed, with complete resection of a cystic tumour located in the posterior triangle of the neck. Surgery was performed without complications and postoperative care was unremarkable. **Case 2.** The second case is a 28 woman with a cystic tumour in submandibular space. She had history of a previous incomplete operation in another institution 2 years ago, with recurrence of the tumour. A second surgery was performed with complete resection without complications, and with a good outcome.

Conclusions: Cervical lymphangioma is a very rare benign disease, surgical treatment is preferred, but sclerotherapy can be used as alternative treatment.

© 2015 Academia Mexicana de Cirugía A.C. Published by Masson Doyma México S.A. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Antecedentes

El linfangioma cervical es una malformación congénita del sistema linfático, que desencadena el desarrollo de un tumor quístico benigno, que se presenta con mayor frecuencia en el triángulo posterior cervical^{1,2}.

Existen varias teorías que pretenden explicar su origen embriológico. La más aceptada describe que se origina por deficiente unión de los espacios linfáticos primarios con el sistema linfático central. Otra teoría describe un deficiente desarrollo del sistema venoso y, finalmente, se asocia con infecciones respiratorias o eventos de trauma trivial³.

Estos tumores están compuestos de linfáticos cubiertos por células endoteliales, que desarrollan quistes de varias dimensiones, que pueden presentar hemorragia o infecciones circunscritas a la lesión.

Predominan en la infancia entre los 3 y los 5 años de edad¹⁻⁴ y es rara su presentación en el adulto⁵. Generalmente son asintomáticas, pueden alcanzar grandes dimensiones y puede que el paciente no acuda para su atención hasta la edad adulta⁶, como en nuestros casos. Cuando da sintomatología clínica, dependerá de su localización, por ejemplo: las de cuello pueden asociarse con disfagia o dificultad respiratoria, que incluso puede ser una indicación de urgencia quirúrgica³.

El tratamiento de elección es la resección quirúrgica completa, aunque existen reportes de otras alternativas terapéuticas; una de ellas es la escleroterapia⁷.

Reportamos los casos de 2 pacientes adultos con linfangioma de cuello, de grandes dimensiones; uno en el triángulo posterior izquierdo y otro en el espacio submandibular derecho, los cuales fueron resecados quirúrgicamente con éxito.

Casos clínicos

Caso 1

Paciente masculino de 23 años de edad que acude a consulta por tumoración en triángulo posterior izquierdo de cuello, con aumento progresivo de tamaño de 9 meses de evolución.

El paciente niega disfonía, disnea, disfagia u otra sintomatología asociada. A la exploración se apreció: tumor en triángulo posterior cervical izquierdo de aproximadamente 15 × 10 cm, de superficie lisa, bordes definidos, móvil, no doloroso, sin cambios de coloración, no pulsátil (fig. 1).

Se realizó tomografía axial computada de región cervical que reportó un tumor multiloculado de apariencia quística, que no presentaba realce de sus paredes, con algunos trayectos vasculares en su periferia, que obliteraba en forma total el espacio cervical posterior izquierdo y desplazaba en sentido medial los músculos paraespinales, anterior a la glándula submandibular y antero lateral al esternocleidomastoideo, que comprimía levemente el espacio carotideo en sentido medial, con ganglios homogéneos y los menores eran de 15 mm, en ambas regiones yugulodigástricas. La conclusión tomográfica era imágenes sugestivas de linfangioma del espacio cervical posterior (fig. 2).

Se realizó exploración quirúrgica cervical, encontrando tumor quístico en el triángulo posterior cervical izquierdo, de aproximadamente 20 cm de diámetro, en contacto con vena yugular externa, interna y nervio espinal, los cuales fueron preservados. Se realizó disección completa con bisturí armónico (pinza Focus^{MR}), se ligaron los linfáticos cercanos al conducto torácico; el tumor fue resecado completo. Se colocó drenaje cerrado tipo drenovac^{MR} y se cerró la herida en 2 planos. El estudio histopatológico confirmó el diagnóstico de linfangioma quístico.

El paciente cursó con evolución satisfactoria postoperatoria (fig. 3). Un año después, la evolución postoperatoria ha sido satisfactoria y solamente en las primeras 4 semanas del postoperatorio refirió parestesia en el área del trapecio del lado operado, debido a la disección del nervio espinal, sin afectar la movilidad del hombro que es adecuada, no se han presentado hasta el momento otras complicaciones ni recurrencia.

Caso 2

Paciente femenina de 28 años de edad, que presenta un tumor en la región submandibular derecha, sin síntomas y



Figura 1 Caso 1. Linfangioma en cuello en triángulo posterior cervical izquierdo de aproximadamente 15 × 10 cm, sin cambios de coloración.

con historia de haber sido sometida 2 años antes a resección quirúrgica en otra institución. A los 3 meses de operada presentó recurrencia del tumor y crecimiento paulatino indoloro, hasta llegar a su tamaño al momento del ingreso a nuestra institución; niega datos como dolor, fiebre, cambios cutáneos. Se desconoce el tipo de cirugía realizada (fue intervenida en otra institución y no presentó resumen clínico). A la exploración física, encontramos a una mujer con un tumor quístico en región submandibular derecha, de 12 × 10 cm, no doloroso, con cicatriz de cirugía (fig. 4). Se le realizó ultrasonido y se corroboró el tumor quístico submandibular. Fue intervenida quirúrgicamente: se le resecó la cicatriz previa y se extirpó el tumor completo sin incidentes (fig. 5), se colocó drenaje cerrado y se cerró la herida. La evolución postoperatoria ha sido satisfactoria (fig. 6). El reporte histopatológico confirmó el diagnóstico de linfangioma quístico.

Se retiró el drenaje, al cuarto día del postoperatorio, sin complicaciones.

La paciente evoluciona satisfactoriamente tras 5 años de seguimiento y solamente ha referido discreta parestesia submandibular, sin afectar la salivación ni el gusto; la movilidad del cuello es adecuada y no hay afección de la rama marginal del facial.

No ha presentado recurrencia.



Figura 2 Caso 1. Tomografía axial computada de cuello izquierdo, en que se aprecia tumor multiloculado de apariencia quística, que no presenta realce de sus paredes, con algunos trayectos vasculares en su periferia, que oblitera en forma total el espacio cervical posterior izquierdo y desplaza en sentido medial los músculos paraespinales, anterior a la glándula submandibular y anterolateral al esternocleidomastoideo, que comprime levemente el espacio carotídeo en sentido medial, con ganglios homogéneos y los menores son de 15 mm, en ambas regiones yugulo-digástricas.

Discusión

Los linfangiomas de cuello son malformaciones congénitas benignas, poco frecuentes, que predominan en la infancia^{1,2,4}. El 90% de los linfangiomas se presentan en menores de 2 años, con incidencia de 1.2 a 2.8 por cada 100,000 recién nacidos^{2,3}. Es rara su presentación en el adulto^{5,6}.

La localización más frecuente es en triángulo posterior del cuello (75% de los casos), como el primer caso presentado; 20% en el triángulo submandibular, como en el segundo caso, y 5% puede presentarse en abdomen, retroperitoneo, mediastino, e incluso en múltiples localizaciones⁸⁻¹¹.

Se clasifican de acuerdo con el tamaño de los vasos involucrados en: *capilares*, localizados generalmente en el tejido subcutáneo; *cavernosos*, localizados en lengua y boca; *quisticos*, también llamados higromas quísticos, que se presentan con mayor frecuencia en el cuello¹².

La presentación clínica depende de su ubicación. Los de cuello generalmente son renitentes, sin acompañarse de otros signos o síntomas; ocasionalmente pueden dar síntomas por compresión de órganos, que pueden manifestarse por disfagia cuando comprime esófago, y por disnea al comprimir la tráquea.

El estudio de diagnóstico de elección es la tomografía computada, que permite su evaluación y que además permite seleccionar el abordaje quirúrgico.



Figura 3 Caso 1. Dos semanas de postoperatorio.

Los hallazgos quirúrgicos habituales son: un tumor hipodenso, que puede ser multiloculado, con una fina cápsula sin refuerzo en sus paredes con el medio de contraste, que puede desplazar las estructuras adyacentes¹², como se aprecia en la [figura 2](#).

El ultrasonido puede mostrar: un tumor hipoeoico, con trabéculas que puede mostrar su relación con las estructuras adyacentes.



Figura 4 Caso 2. Linfangioma submandibular derecha, de 12 x 10 cm no doloroso, con cicatriz de cirugía previa.



Figura 5 Caso 2. Linfangioma submandibular en el transoperatorio.

Su resección completa continúa siendo el tratamiento de elección principalmente en tumoraciones localizadas^{2,13,14}, en los casos presentados, a pesar de que uno mostró un tumor grande y multiloculado, este pudo resecarse por completo sin punción previa, en la que se conservaron las estructuras cercanas al tumor, y sin lesiones neurovasculares, por la valiosa información obtenida de la tomografía axial computada de cuello, que se realizó en el preoperatorio, y que nos permitió planear el abordaje correcto respecto al plano de disección y la identificación de las estructuras que están en contacto con el tumor.

La incisión de abordaje siempre debe realizarse en pliegues que aseguren un adecuado resultado cosmético final. También es importante que durante el procedimiento se disecten y conserven los nervios y vasos sanguíneos. Las incisiones de abordaje utilizadas en los pacientes presentados conservaron el nervio espinal, la vena yugular externa e interna, el plexo braquial, entre otros elementos que estaban en íntimo contacto con el tumor. La planeación preoperatoria nos permitió utilizar para la disección el bisturí armónico (pinza Focus^{MR}) para menor pérdida sanguínea.



Figura 6 Caso 2. Linfangioma submandibular, en el segundo día del postoperatorio.

y ahorro de tiempo quirúrgico. Es muy importante siempre identificar el o los vasos linfáticos cercanos al conducto torácico, los cuales se deben ligar y seccionar, para evitar los seromas y, más aún, las recidivas.

El caso 2 corresponde a un linfangioma submandibular, que fue operado en otra institución, con recidiva al poco tiempo de postoperatorio, por lo que se infiere que no se resecó en su totalidad ya que requirió de una segunda cirugía, la cual se dificultó por el manejo quirúrgico previo, aunque se pudo resecar completamente, ligando también los linfáticos principales que nutrían el tumor.

En ambos casos la evolución postoperatoria fue adecuada, la canalización se retiró cuando el drenaje fue menor de 25 ml en 24 h y no se había presentado recidiva, hasta el momento actual.

Otra alternativa de tratamiento es la resección quirúrgica videoasistida, mediante abordaje de mínima invasión, reportándose adecuada exposición para la disección, que es segura y factible, con un buen efecto cosmético¹⁵.

Otra modalidad de tratamiento es la escleroterapia, para la que se han propuesto diferentes sustancias, por ejemplo: se utilizó la inyección de bleomicina intralesional para el tratamiento de tumores que además tienen gran invasión a los órganos vecinos, y el objetivo es reducir el tamaño del tumor y con ello, el daño a los órganos vecinos. En un estudio donde se utilizó la inyección de bleomicina intralesional, se reportó la reducción completa en el 47% de los casos, con reducción parcial en más del 50%, con morbilidad del 42.9%^{7,16}.

Las complicaciones más frecuentes reportadas son: infección, hemorragia, hematoma, seroma y lesión a nervios de la región¹. En los casos reportados, no hubo ninguna de estas complicaciones. Habitualmente en tumores de gran tamaño en cuello es de nuestra preferencia dejar drenajes cerrados, para evitar la colección de linfa y el desarrollo de seromas.

En ninguno de nuestros casos se utilizaron antibióticos en el postoperatorio, porque consideramos las cirugías como limpias. Si estuviera indicado, se puede utilizar la administración profiláctica de una dosis de antibiótico 30 min antes del inicio de la operación.

Conclusiones

El linfangioma en adulto en región cervical es una malformación poco frecuente de índole benigna, que puede diagnosticarse fácilmente^{2,3}. La tomografía axial computada o bien la resonancia magnética de cuello son los estudios de primera elección, ya que permiten la adecuada planeación del abordaje quirúrgico. Actualmente la resección quirúrgica del linfangioma es el tratamiento de elección, por la baja morbilidad y el menor índice de recurrencia^{2,14,15,17}.

Deberá intentarse siempre la incisión que permita la adecuada exposición del linfangioma y de las estructuras

adyacentes y que, además, ofrezca un adecuado resultado estético. Puede intentarse la escleroterapia como tratamiento alternativo^{7,16}.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Kandakure VT, Thakur GV, Thote AR, Kausar AJ. Cervical lymphangioma in adult. Case report. *Otorhinolaryngology Clin Inter J*. 2012;4(3):147–50.
2. Guruprasad Y, Chauhan DS. Cervical cystic hygroma. *J Maxillofac Oral Surg*. 2012;11(3):333–6.
3. Gow L, Gulati R, Khan A, Mihaimeed F. Adult-onset cystic hygroma: A case report and review of management. *Gran Rounds*. 2011;11:5–11.
4. Curran AJ, Malik N, McShane D, Timon CVI. Surgical management of lymphangiomas in adults. *J Laryngology Otolaryngology*. 1996;110(6):586–9.
5. Oakes MJ, Sherman BE. Cystic hygroma in a tactical aviator: A case report. *Mil Med*. 2004;169(12):985–7.
6. Karkos PD, Spencer MG, Lee M, Hamid BN. Cervical cystic hygroma/lymphangioma: An acquired idiopathic late presentation. *J Laryngol Otol*. 2005;119(7):561–3.
7. Niramis R, Watanatittan S, Rattanasuwan N. Treatment of cystic hygroma by intralesional bleomycin injection: Experience in 70 patients. *Eur J Pediatr Surg*. 2010;20(3):178–82.
8. Rodríguez PM, Navarro JR. Higroma quístico. *An Orl Mex*. 2009;54(1):28–31.
9. Robledo-Ogazón F, Vargas-Rivas AE, Alvarado-Aparicio A. Linfangioma de glándula suprarrenal. Reporte de un caso. *Cir Ciruj*. 2004;72(3):213–6.
10. Barreto ZR, García LJ, Tanimoto MA. Linfangioma yeyunal. *Rev Gastroenterol Mex*. 2006;71(1):74.
11. Ortega-Salgado JA, Ramírez-Reséndiz A, Carrasco-Daza D, Rodríguez-Jurado R. Linfangiomatosis generalizada tratamiento médico – quirúrgico. *Rev Mex Cir Pediatr*. 2006;13(3):138–42.
12. Mosca RC, Pereira GA, Mantesso A. Cystic hygroma: Characterization by computerized tomography. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2008;105(5):e65–9.
13. Zanine R, El Aoud C, Sellami M, Beltaief N, Sahtout S, Besbes G. Cystic hygroma: Report of 25 cases. *Tunis Med*. 2012;90(1):19–24.
14. Kennedy TL, Whitaker M, Pellitteri P, Wood WE. Cystic hygroma/lymphangioma: A rational approach to management. *Laryngoscope*. 2001;111 Pt 1:1929–37.
15. Zhou Q, Zheng JW, Mai HM, Luo QF, Fan XD, Su LX, et al. Treatment guidelines of lymphatic malformations of the head and neck. *Oral Oncol*. 2011;47(12):1105–9.
16. Vaid L, Gupta M, Gupta N, Singh PP. Bleomycin sclerotherapy in a rare case of adult-onset cervical lymphangioma. *Ear Nose Throat J*. 2010;89(1):E23–6. PMID:20155685.
17. Naidu SI, McCalla MR. Lymphatic malformations of the head and neck in adults: A case report and review of the literature. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2004;113 Pt 1:218–22.