

Laringocelo misto: Lesão benigna, mas potencialmente fatal da laringe

Mixed laryngocele: Benign but potentially fatal lesion of the larynx

Joana Maria Soares Ferreira • Leandro Ribeiro • Rita Gama • Fernanda Castro • António Faria de Almeida • Artur Condè

RESUMO

Apresentamos um caso de um laringocelo misto com o objetivo de alertar para o diagnóstico e tratamento desta condição laríngea que, embora benigna, pode associar-se a neoplasias malignas e, em casos raros, complicar-se com obstrução da via aérea e morte.

Descreve-se o caso de um doente do sexo masculino, de 56 anos, com antecedentes pessoais de abuso de tabaco, que recorreu ao serviço de urgência com queixas de tumefação cervical unilateral, disфонia, com três meses de evolução, e ortopneia. O exame físico revelou uma tumefação cervical esquerda alta com 6 cm de largura, cística e redutível, com impulso positivo para a tosse e aumento de tamanho após a manobra de Valsalva. A nasofibrolaringoscopia revelou uma tumefação submucosa na região ventricular esquerda e pregas ariepiglóticas. A RMN cervical confirmou a presença de um volumoso laringocelo misto. Esta lesão foi excisada com sucesso com uma abordagem cervical externa.

Palavras-chave: laringocelo; tumefação cervical; disфонia; dispneia, obstrução da via aérea

ABSTRACT

We present a case of a mixed laryngocele with the purpose of alerting to the diagnosis and treatment of this laryngeal condition which, although benign, can be associated with malignant neoplasms and, in rare cases, complicate with airway obstruction and death.

We describe the case of a 56-year-old male patient, with a personal history of tobacco abuse, who presented to the emergency department with complaints of unilateral cervical swelling, dysphonía, in the past three months of evolution, and orthopnea. The physical examination revealed a 6 cm wide, cystic and reducible left upper cervical swelling, with a positive cough impulse and an increase in size after Valsalva maneuver. Nasofibrolaryngoscopy revealed a submucosal swelling in the left ventricular region and aryepiglottic folds. Cervical MRI confirmed the presence of a large combined laryngocele. This lesion was successfully excised through an external approach to the neck.

Keywords: laryngocele; neck swelling; dysphonía; dyspnea; airway obstruction.

INTRODUÇÃO

O laringocelo, uma lesão rara e benigna da laringe, resulta de uma dilatação cística anormal do sáculo do ventrículo laríngeo de Morgagni¹. Em 1829, Larrey, cirurgião do exército de Napoleão, descreveu pela primeira vez um tumor cervical constituído por ar. Só em 1887 é que Virchow designou esta tumefação de laringocelo, descobrindo que resultava de uma dilatação anormal do sáculo laríngeo, também conhecido por apêndice do ventrículo laríngeo, bolsa laríngea ou saco de *Hilton*.^{1,2} O sáculo laríngeo é uma bolsa que existe na extremidade anterior do ventrículo laríngeo, que ascende no tecido conjuntivo laxo do espaço pré-epiglótico, entre a cartilagem tiroide e as pregas vestibulares e ariepiglóticas. Tem como função principal a lubrificação da corda vocal ipsilateral⁴. O laringocelo surge quando ocorre uma dilatação anormal deste sáculo, comunicando com o lúmen laríngeo, sendo, por isso, preenchido por ar^{3,4}. Classicamente é classificado em três formas, de acordo com a sua relação com a membrana tiro-hioideia: interno, externo e misto. O laringocelo interno está confinado ao interior da laringe, estendendo-se postero-superiormente à

Joana Maria Soares Ferreira

Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

Leandro Ribeiro

Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

Rita Gama

Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

Fernanda Castro

Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

António Faria de Almeida

Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

Artur Condè

Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

Correspondência:

Joana Maria Soares Ferreira

joana_msf@hotmail.com

Artigo recebido a 5 de Abril de 2020. Aceite para publicação a 14 de Maio de 2020.

prega vestibular e ariepiglótica. O laringocelo externo estende-se superiormente através da membrana tiro-hioideia, onde a atravessa através da abertura do nervo e vasos laringeos superiores, surgindo como uma hérnia na região cervical alta, a nível do osso hioide e anteriormente ao músculo esternocleidomastoideu. A existência simultânea de ambos é denominada de laringocelo misto^{3,4,5}.

O objetivo deste artigo é apresentar um caso de um laringocelo misto identificado clinicamente e tratado cirurgicamente, assim como realizar uma revisão da literatura relevante.

DESCRIÇÃO DO CASO

Doente do sexo masculino de 56 anos, caucasiano, construtor civil, com antecedentes pessoais de abuso de tabaco (30 UMA) recorreu ao serviço de urgência de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar de Vila Nova de Gaia e Espinho por um quadro de tumefação cervical esquerda e disфонia com 3 meses de evolução. Associadamente referia ortopneia de aparecimento recente. Negava febre, odinofagia, disfagia, sensação de *globus* faríngeo, perda recente de peso e outras queixas otorrinolaringológicas. Ao exame objetivo, apresentava uma tumefação cervical esquerda alta, com 6 cm de maior diâmetro, cística e redutível, com impulso positivo para a tosse e aumento de tamanho após a manobra de Valsalva. (Figura 1)

FIGURA 1

Tumefação cervical esquerda com aumento de tamanho após a manobra de Valsalva (seta preta).



Realizada uma nasofibrolaringoscopia flexível que revelou uma tumefação submucosa na região ventricular e prega ariepiglótica esquerdas, que aumentava com a manobra de Valsalva e causava obstrução parcial da região supraglótica. Não se visualizavam lesões suspeitas de neoplasia em toda a faringo-laringe. (Figura 2) Mediante estes achados, e perante a suspeita de um laringocelo misto, foi solicitada uma Ressonância Magnética Nuclear (RMN) cervical que confirmou a

FIGURA 2

Imagem obtida de nasofibrolaringoscopia flexível revelando uma tumefação submucosa na região ventricular esquerda e prega ariepiglótica ipsilateral (linha tracejada).

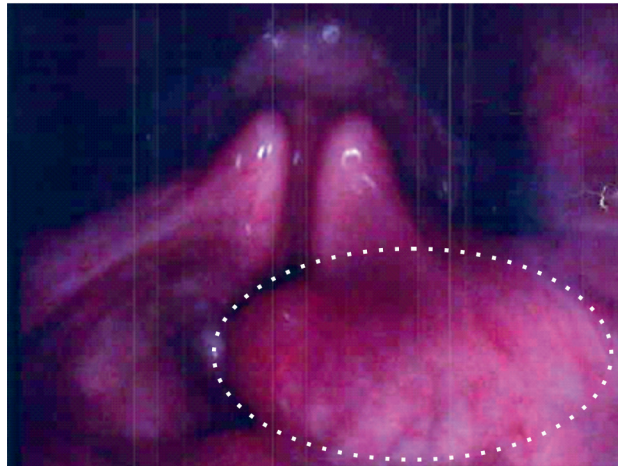


FIGURA 3

Imagem obtida de RMN cervical revelando um laringocelo de contornos arredondados e definidos no espaço para-glótico esquerdo com extensão extra-laríngea através da membrana tiro-hioideia (asterisco); A- Corte sagital; B- Corte axial.

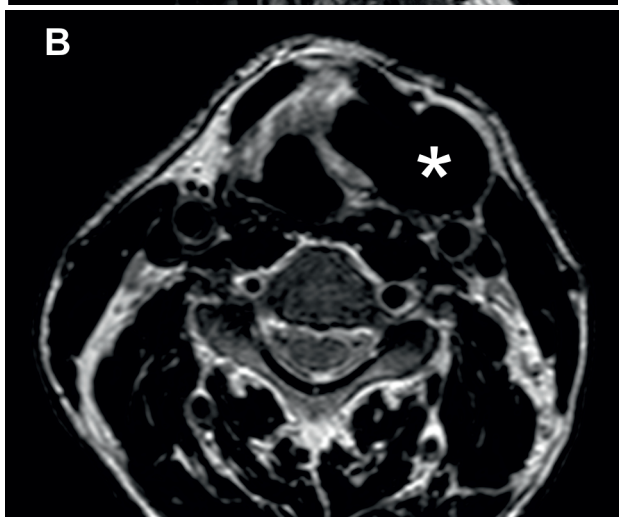
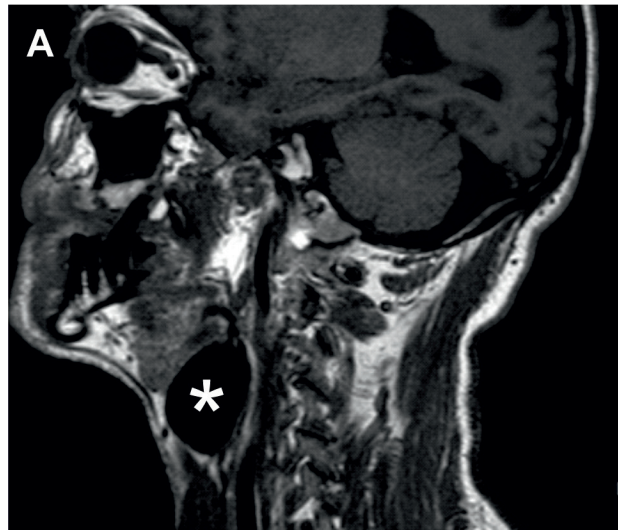


FIGURA 4

Excisão do laringocelo misto por abordagem cervical externa.

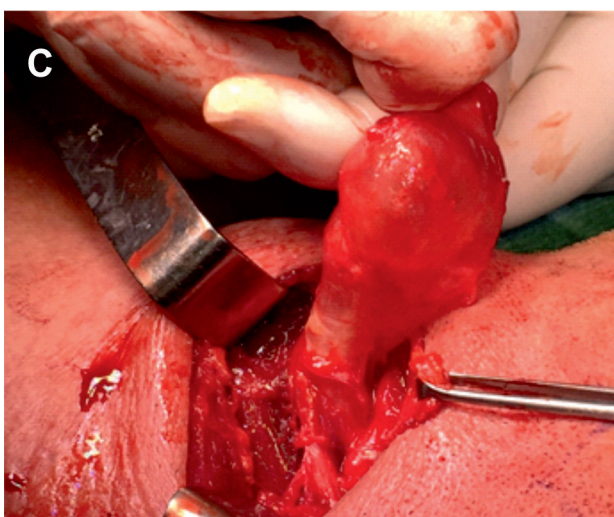
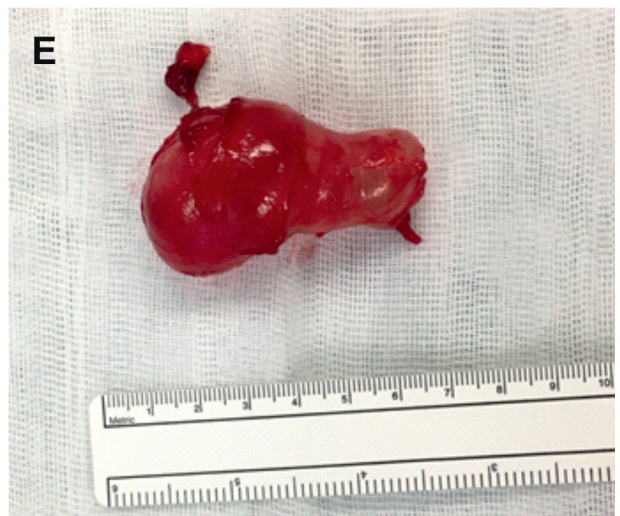
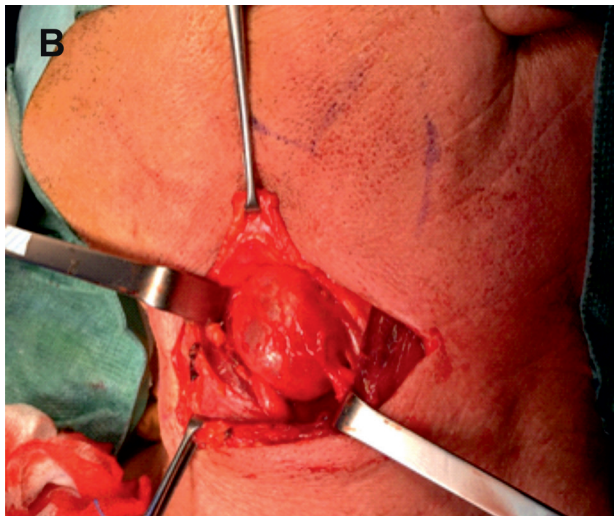
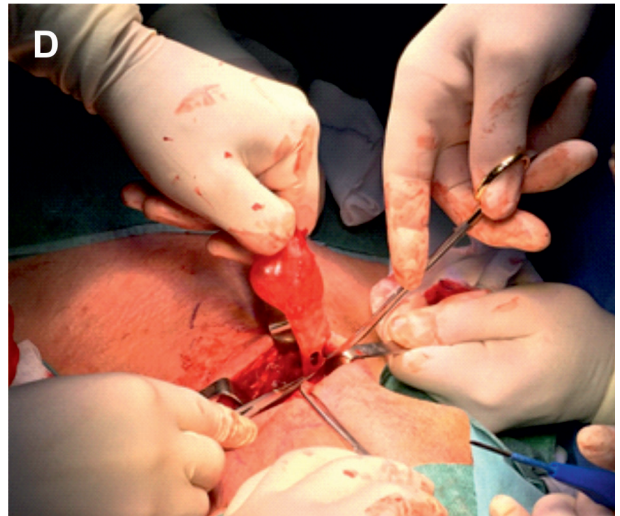
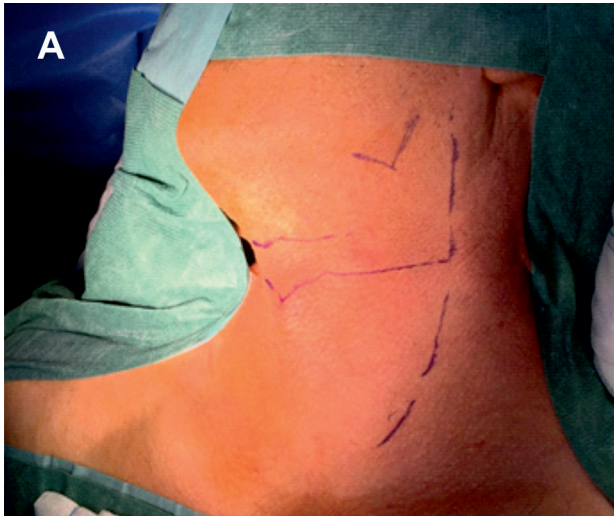
A- Marcação das referências anatômicas para incisão horizontal cerca de 2 cm inferior ao corpo da mandíbula;

B- Após elevação do retalho subplatismal, constatada a porção externa do laringocelo;

C- Exposição do laringocelo após dissecação dos tecidos adjacentes, poupando os nervos hipoglosso, laringeo superior e a artéria tiroideia superior.

D- Laqueação e separação do laringocelo, ao nível da membrana tiro-hioideia.

E- Laringocelo excisado.



presença de uma “volumosa formação de contornos arredondados e definidos no espaço para-glótico esquerdo, cuja intensidade de sinal era homogênea baixa em todas as ponderações (traduzindo ar) e que apresentava extensão extra-laríngea (através da membrana tiro-hioideia) – traduzindo um laringocelo misto”. (Figura 3) O doente foi proposto para excisão cirúrgica através de uma abordagem cervical externa. Nesta abordagem foi realizada uma incisão horizontal, 2 cm inferior ao corpo da mandíbula, elevado o retalho subplatismal e constatado a porção externa do laringocelo, que foi dissecado dos tecidos adjacentes, poupando os nervos hipoglosso, laringeo superior e a artéria tiroideia superior. Procedeu-se a laqueação e separação do laringocelo, ao nível da membrana tirohioideia. (Figura 4)

Posteriormente, foi realizada uma laringoscopia direta, tendo-se verificado completo desaparecimento da tumefação supraglótica e ausência de comunicação entre a via aérea e a região cervical.

O exame anatomopatológico da peça cirúrgica excluiu a presença de malignidade.

O doente permaneceu internado durante 2 dias, com resolução das queixas e sem evidência de complicações no pós-operatório.

Após um ano de *follow-up* encontra-se clinicamente bem, sem registo de recidiva, intercorrências ou complicações.

DISCUSSÃO

O laringocelo é uma entidade rara, com uma incidência de 1 por 2,5 milhões de habitantes por ano. É cinco a seis vezes mais comum no sexo masculino com predominância para a quinta e sexta décadas devida. De acordo com a literatura, o tipo mais comum é o laringocelo misto, ocorrendo predominantemente de forma unilateral^{2,3,5}.

A sua etiologia permanece desconhecida. Não obstante, vários autores têm postulado o envolvimento de fatores congénitos, como a existência de grandes sáculos congénitos ou fraqueza congénita dos tecidos laríngeos, e de fatores adquiridos, que condicionem aumento da pressão intraglótica e/ou obstrução funcional ou mecânica do ventrículo laríngeo^{2,3,6}. Dentro desses fatores, destaca-se a obstipação crónica, tosse crónica, tocadores de instrumentos de sopro, cantores, sopradores de vidros e algumas doenças laríngeas (papilomatose, amiloidose, condroma e esclerodermia). De salientar que está descrita a associação entre o laringocelo e o carcinoma laríngeo, presumivelmente justificado pela distorção do colo do sáculo laríngeo pelo carcinoma, o que pode criar uma válvula unidirecional com consequente aumento da pressão intraluminal, pelo que é de suma importância excluir sempre a sua presença^{2,3,6}.

A maioria dos casos permanecem assintomáticos, sendo descobertos de forma acidental em estudos imagiológicos^{6,7}. Quando sintomáticos, os sinais e sintomas variam de acordo com o seu tipo e tamanho^{6,8}. Os laringocelos internos manifestam-se habitualmente com disфония, dispneia, tosse ou *globus* faríngeo⁸. Já a forma externa apresenta-se comumente com uma tumefação indolor na região cervical alta, que acentua com a manobra de Valsalva e reduz com a compressão externa, provocando um ruído borbulhante causado pelo escape de ar na laringe (sinal de Bryce)¹. O laringocelo misto apresenta uma combinação de ambos, sendo a tumefação cervical e a disфония os dois principais sintomas relatados^{1,2}. A deterioração clínica súbita, particularmente a dispneia, após realização de compressão externa é um sinal patognomónico da forma mista⁸.

Embora seja considerado uma lesão benigna da laringe

estão descritas complicações tais como a retenção de muco (laringomucocelo) e eventual sobreinfecção (laringopiocelo), o que pode resultar em aspiração do seu conteúdo (podendo desencadear uma infeção da via aérea inferior), e obstrução mecânica da via aérea superior, apresentando-se com estridor, asfixia e, raramente, morte^{5,6,8,9}.

O diagnóstico do laringocelo é baseado nos achados clínicos, endoscópicos e imagiológicos⁶. A RMN tem um papel central e deve ser o método de escolha não só no seu diagnóstico, mas também na exclusão de malignidade³. Os diagnósticos diferenciais incluem os quistos saculares, quistos branquiais, divertículo de *Zencker*, quisto dermóide, higroma cístico, linfadenopatias, abscessos cervicais, sialoadenite ou neoplasia da glândula submandibular^{6,7}.

O tratamento de escolha dos laringocelos é a excisão cirúrgica, sendo que a abordagem depende do seu tipo e tamanho^{6,7}. No caso dos laringocelos internos, a abordagem preferida é a endolaríngea. Os laringocelos externos ou mistos beneficiam de uma abordagem cervical ou combinada (abordagem cervical complementada com microlaringoscopia), uma vez que permite melhor exposição da lesão, maior precisão cirúrgica e menor taxa de recorrência^{6,7,8}. Recentemente, têm sido apresentados alguns casos em que foi utilizada a cirurgia robótica transoral na abordagem de diferentes formas de laringocelos e, de acordo com os autores, associada a uma menor morbilidade^{10,11}.

O presente artigo teve como objetivos apresentar um caso de um laringocelo misto diagnosticado clinicamente e tratado com uma abordagem cirúrgica externa com excelente evolução, assim como fazer uma atualização sobre esta patologia alertando os otorrinolaringologistas para a necessidade do seu reconhecimento e da sua correta abordagem.

Conflito de Interesses

Os autores declaram que não têm qualquer conflito de interesse relativo a este artigo.

Confidencialidade dos dados

Os autores declaram que seguiram os protocolos do seu trabalho na publicação dos dados de pacientes.

Proteção de pessoas e animais

Os autores declaram que os procedimentos seguidos estão de acordo com os regulamentos estabelecidos pelos diretores da Comissão para Investigação Clínica e Ética e de acordo com a Declaração de Helsínquia da Associação Médica Mundial.

Política de privacidade, consentimento informado e Autorização do Comité de Ética

Os autores declaram que têm o consentimento por escrito para o uso de fotografias dos pacientes neste artigo.

Financiamento

Este trabalho não recebeu qualquer contribuição, financiamento ou bolsa de estudos.

Disponibilidade dos Dados científicos

Este trabalho foi apresentado publicamente como poster no 66º Congresso da Sociedade Portuguesa de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço e como poster no 5º congresso Europeu de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço.

Referências bibliográficas

1. Prasad KC, Vijayalakshmi S, Prasad SC. Laryngoceles – presentations and management. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2008 Dec;60(4):303-8. doi: 10.1007/s12070-008-0108-8.
2. Juneja R, Arora N, Meher R, Mittal P, et al. Laryngocele: A Rare Case Report and Review of Literature. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2019 Oct;71(Suppl 1):147-151. doi: 10.1007/s12070-017-1162-x *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.*
3. Keles E, Alpay HC, Orhan I, Yildirim H. Combined laryngocele: A cause of stridor and cervical swelling. *Auris Nasus Larynx.* 2010 Feb;37(1):117-20. doi: 10.1016/j.anl.2009.02.011.
4. Lam SY, Lau HY. A Rare Case of Laryngopyocele with Airway Obstruction. *J Clin Imaging Sci.* 2018 Nov 15;8:42. doi: 10.4103/jcis.JCIS_50_18. eCollection 2018.
5. Heyes R, Lott DG. Laryngeal Cysts in Adults: Simplifying Classification and Management. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2017 Dec;157(6):928-939. doi: 10.1177/0194599817715613.
6. Veloso-Teles R, Castro-Sousa A, Caselhos S, Estevão R et al. Laringocelo misto: Caso clínico e revisão da literatura. *Revista Portuguesa Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço.* 2014 Mar; 52(1): 51-55. doi: 10.34631/sporl.108.
7. Oukessou Y, Abada RL, Roubal M, Mahtar M. Laryngocele: An unusual presentation. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2015 Jun;132(3):177-8. doi: 10.1016/j.anorl.2015.03.002.
8. A Lancella, G Abbate, R Dosdegani. Mixed laryngocele: a case report and review of the literature. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2007 Oct;27(5):255-7.
9. Tőro K, Kardos M, Dunay G., Fatal asphyxia due to laryngomucocele. *Forensic Sci Int.* 2009 Sep 10;190(1-3):e1-4. doi: 10.1016/j.forsciint.2009.05.002.
10. Lisan Q, Hoffmann C, Jouffroy T, Hans S. Combined laser and robotic approach for the management of a mixed laryngomucocele. *J Robot Surg.* 2016 Mar;10(1):81-3. doi: 10.1007/s11701-015-0552-x.
11. Gal TJ, Hixon B, Zhang P. Transoral robotic resection of a combined laryngocele. *J Robot Surg.* 2017 Jun;11(2):263-266. doi: 10.1007/s11701-016-0666-9.