

Laringocele misto: Caso clínico e revisão da literatura

Mixed laryngocele: Clinical case and literature review

Rafaela Veloso-Teles • Ana Castro-Sousa • Sérgio Caselhos • Roberto Estevão • Vânia Henriques • Francisco Moreira da Silva • Fausto Fernandes

RESUMO

Os Laringocelos são uma entidade patológica rara, causada por uma dilatação anómala do sáculo do ventrículo laríngeo. Os Laringocelos classificam-se em internos, externos ou mistos, consoante haja: extensão endolaríngea para a via aérea, expansão através da membrana tireoideia, ou ambas as situações em simultâneo. São geralmente assintomáticos, mas o seu crescimento pode condicionar obstrução das vias aéreas superiores. Apresentamos o caso clínico de um doente de 37 anos, sexo masculino, que foi referenciado à consulta externa de ORL por disфонia e tumefacção cervical direita com cerca de 6 meses de evolução, associadas a disfagia e dispneia de esforço no último mês. O diagnóstico de Laringocele Misto foi estabelecido clínica e imagiologicamente. O Laringocele foi removido utilizando uma abordagem transcervical lateral e o doente apresenta-se assintomático, sem sinais de recidiva ao fim de um ano de follow-up. O caso é apresentado pela sua raridade, nomeadamente em jovens adultos, sendo acompanhado de uma revisão da literatura.

Palavras chave: Laringocele; Quisto Laríngeo, Tumefacção Cervical; Disфонia

ABSTRACT

Laryngocele is a rare clinical entity, characterized by an abnormal dilatation of the laryngeal sacculus. It can be classified as internal, external or mixed, according to its extension: into the endolarynx, through the thyrohyoid membrane, or if both situations occur simultaneously.

These lesions are usually asymptomatic but can sometimes cause relevant airway obstruction. We report a case of 37 years-old man who presented at the ENT outpatient clinic with hoarseness and right neck swelling for 6 months, associated with dysphagia and dyspnea on effort in the previous month.

The diagnosis of Mixed Laryngocele was established clinically and imagiologically. It was excised using a transcervical lateral approach and the patient remains asymptomatic and without signs of recurrence one year after surgery.

This case has been reported for its rarity, especially at this young age. A review of the literature is also presented.

Keywords: Laryngocele; Saccular Cyst; Cervical Swelling; Hoarseness

INTRODUÇÃO

A primeira descrição de um Laringocele data de 1829, e foi realizada por Dominique Larrey, cirurgião do exército de Napoleão. Este médico terá observado estas tumefacções cervicais no Egipto em indivíduos cegos que eram empregados pelas autoridades do templo para tocar trompete durante longos períodos de tempo¹.

Os Laringocelos são entidades patológicas raras, que ocorrem por dilatações anormais do sáculo do ventrículo de Morgani da laringe, também designado de apêndice do ventrículo, que se expande verticalmente entre a prega ventricular, a base da epiglote e a superfície interna da cartilagem tiroideia². O seu conteúdo pode ser preenchido por ar ou muco e estão em contacto com a via aérea através da sua abertura no ventrículo laríngeo³.

A incidência anual estimada do Laringocele é de cerca de 1 caso por 2,5 milhões de habitantes, o seu pico de incidência ocorre na 6ª década de vida, sendo que 85% dos casos são unilaterais e afectam maioritariamente o sexo masculino, num ratio de 5:1^{2,3,4}.

Os Laringocelos podem ser de 3 subtipos: externos se a herniação do sáculo se estende medial e superiormente ao longo da cartilagem tiroideia e através da membrana

Rafaela Veloso-Teles

Interna(o) de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA), Hospital Srª da Oliveira

Ana Castro-Sousa

Interna(o) de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA), Hospital Srª da Oliveira

Sérgio Caselhos

Interna(o) de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA), Hospital Srª da Oliveira

Roberto Estevão

Interna(o) de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA), Hospital Srª da Oliveira

Vânia Henriques

Interna(o) de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA), Hospital Srª da Oliveira

Francisco Moreira da Silva

Assistente Hospitalar de Otorrinolaringologia do CHAA, Hospital Srª da Oliveira

Fausto Fernandes

Director de Serviço de Otorrinolaringologia do CHAA, Hospital Srª da Oliveira

Correspondência:

Rafaela Veloso Teles
Serviço de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave
Rua dos Cutileiros, Creixomil
4835-044 Guimarães
Telefone: 253 540 330, Fax: 253 513 592
rafaelateles84@gmail.com

tirohioideia no local de entrada do nervo laríngeo superior e seus vasos acompanhantes; internos se não atravessam a membrana tirohioideia e permanecem na endolaringe com protusão para a via aérea; combinados ou mistos se estiverem ambos os componentes presentes¹.

Apresentamos o caso de um Laringocelo misto num doente de 37 anos, no que diz respeito ao seu diagnóstico, tratamento cirúrgico e *follow-up*, bem como discussão e comparação com os dados publicados na literatura.

CASO CLÍNICO

Doente do sexo masculino de 37 anos de idade, desempregado (trabalhador da construção civil), referenciado à consulta externa de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar do Alto Ave (CHAA) por tumefacção cervical direita intermitente, acompanhada de disфонia e fadiga vocal com cerca de 6 meses de evolução, com início insidioso e agravamento progressivo. O doente

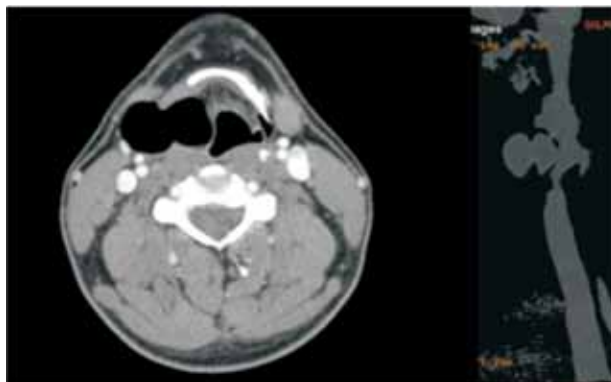
FIGURA 1

Tumefacção cervical após Valsava; Imagem de nasofibrolaringoscopia flexível pré-operatória



FIGURA 2

TC cervical a demonstrar lesão quística, sugestiva de Laringocelo Misto; Reconstrução 3D da laringe



referia também disfagia para sólidos, sensação de corpo estranho faríngeo e, no último mês, dispneia para esforços moderados. No que diz respeito a hábitos e estilos de vida tratava-se de um doente sedentário, fumador (10 UMA), com consumo diário de cerca de 2-3 cigarros de marijuana e hábitos etílicos ocasionais. Durante a sua infância e adolescência foi trompetista na corporação de bombeiros. O doente era seguido em consulta de Cardiologia por Cardiomiopatia Dilatada com função ventricular conservada, associada a bigeminismo. A sua medicação habitual consistia em bisoprolol 5 mg/dia. Sem história familiar de relevo. Ao exame objectivo da cabeça e pescoço, salientava-se uma tumefacção cervical não dolorosa na região submandibular direita, inferiormente ao ramo da mandíbula e anteriormente ao músculo esternocleidomastóideu, com aumento de volume durante a manobra de Valsava (Figura 1). A nasofibrolaringoscopia demonstrou uma neoformação supraglótica direita, coberta por mucosa de características normais, com protusão sobre a fenda glótica. Esta apresentava redução da sua amplitude, sendo evidente o empurramento e diminuição da mobilidade da hemilaringe esquerda (Figura 1). Foi requisitada uma Tomografia Computorizada (TC) que demonstrou uma lesão quística preenchida por ar, com expansão intra e extra-laríngea, sugerindo o diagnóstico de Laringocelo Misto (Figura 2). Não havia imagem de adenomegalias cervicais.

FIGURA 3

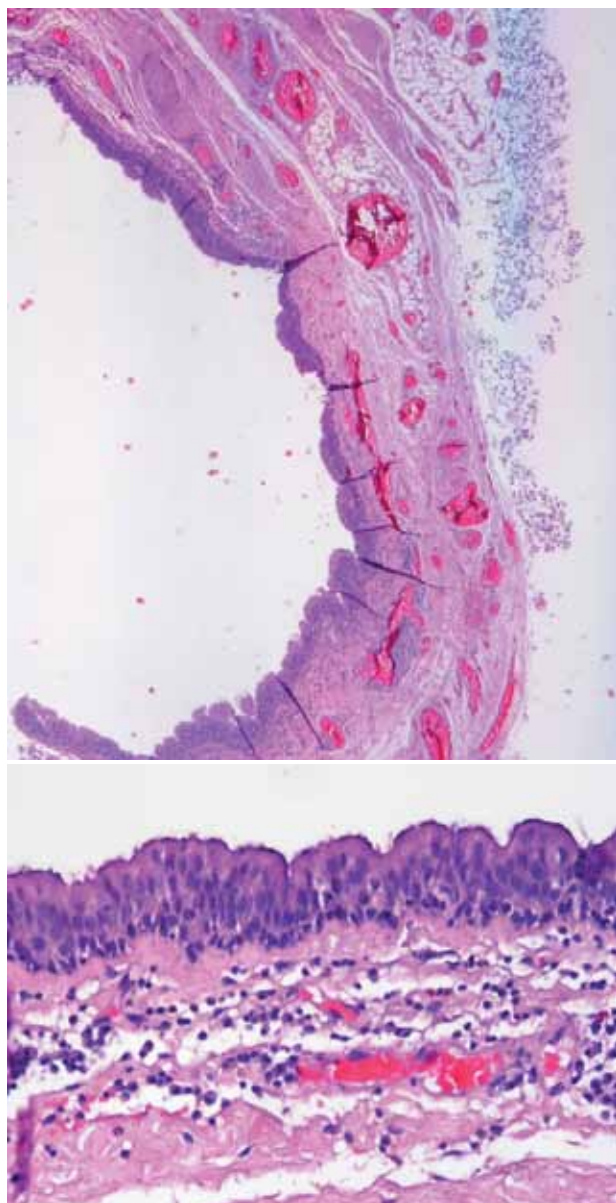
Peça cirúrgica



O paciente foi submetido a ressecção cirúrgica do Laringocelo através de uma abordagem cervical externa lateral. Foi realizada uma incisão horizontal de cerca de 6 cm do bordo anterior do músculo esternocleidomastóideu direito até ao nível do bordo superior da cartilagem tiroideia. Os retalhos cutâneos foram elevados no plano subplatismal tendo-se identificado a tumefacção quística que empurrava a glândula submandibular superior e lateralmente, os músculos infrahióideus anteriormente e a bainha carotídea posteriormente. Prosseguiu-se com a dissecação e individualização da cápsula da tumefacção com identificação do músculo digástrico, ansa do hipoglosso, cartilagem tiroideia, osso hióide e membrana tirohioideia. Os vasos laringeos superiores

FIGURA 4

Imagem histológica do Laringocelo (Coloração Hematoxilina-Eosina)



foram laqueados após identificação do ramo externo do nervo laríngeo superior. Realizou-se a ressecção de um retângulo cartilágneo de cerca de 1 cm na margem superior da cartilagem tiroideia de forma a facilitar a dissecação do plano entre a lesão e o tecido paraglótico envolvente. De seguida, realizou-se a excisão completa do Laringocelo, laqueando-se o seu limite profundo e medial, selando-o depois com cola de fibrina (Figura 3). Introduziu-se um dreno, procedeu-se ao encerramento por planos da ferida cirúrgica e colocou-se um penso compressivo. Realizou-se uma laringoscopia em suspensão visualizando-se a epiglote, pregas ventriculares, cordas vocais simétricas, pregas

FIGURA 5

Avaliação com nasofibrolaringoscopia flexível pós-operatória; Imagem de TC cervical pós-operatória



ariepiglóticas e seios piriformes, não havendo já qualquer abaulamento ou neoformação endolaríngea. Foi colocada uma sonda nasogástrica para alimentação do doente

Durante o período intra e pós-operatório não houve quaisquer intercorrências. Houve resolução da disфония logo após a cirurgia, tendo o doente permanecido com sonda nasogástrica durante 48 horas. Após a sua remoção o doente iniciou dieta cremosa não havendo já qualquer queixa de disfagia. O doente foi medicado com antibioterapia profiláctica e corticoterapia sistémica, tendo tido alta ao 4º dia pós-operatório.

A análise histológica confirmou o diagnóstico de Laringocelo, demonstrando uma dilatação quística revestida por epitélio respiratório, pseudoestratificado ciliado com focos ocasionais de epitélio escamoso e glândulas submucosas serosas e mucosas (Figura 4).

A fibroscopia pós-operatória, ao fim de um ano de *follow-up*, demonstrou cordas vocais móveis e simétricas, sem neoformações laríngeas ou abaulamentos e fenda glótica preservada (Figura 5). A cicatriz cirúrgica apresentava-se com bom resultado estético, sem hipertrofia e a respeitar as pregas cutâneas da pele.

O doente realizou uma TC cervical de seguimento, em que não se observavam alterações laríngeas (Figura 5).

DISCUSSÃO

O Laringocelo tem uma etiologia desconhecida, mas podem estar envolvidos factores congénitos e adquiridos, que condicionem obstrução funcional ou mecânica do ventrículo laríngeo. Em recém-nascidos foram descritos casos de estridor provocados por Laringocelos congénitos. Nas crianças têm sido também apresentados casos de Laringocelos adquiridos associados a papilomatose laríngea, por provável obstrução mecânica do ventrículo¹. Da mesma forma, tem sido estabelecida a associação entre Laringocelos e carcinomas da laringe, pelo que é sempre necessário excluir a presença de neoformações laríngeas, tendo para tal sido realizada neste caso uma Laringoscopia em Suspensão no final do procedimento cirúrgico³.

As lesões adquiridas podem ocorrer quando há obstrução funcional do ventrículo laríngeo, o que ocorre em casos de aumento da pressão intra-glótica, como por exemplo em situações de tosse crónica, em músicos que tocam instrumentos de sopro, sopradores de vidro ou uso de fonação ventricular^{5,6}.

No caso apresentado, o facto de o doente ter sido trompetista durante a infância e adolescência, foi provavelmente o maior factor de risco. A associação entre Laringocelo e Cardiomiopatia Dilatada não está descrita na literatura, no entanto ambas podem ser explicadas por alterações da função neuromuscular em resposta ao aumento da pressão intra-glótica e intra-torácica de um músico de sopro profissional.

Os Laringocelos são geralmente assintomáticos e descobertos de forma acidental em estudos

imagiológicos. Nos doentes sintomáticos as queixas mais frequentes são a disфония, disfagia, dispneia progressiva e tumefacção cervical^{2,5}. Todos esses sintomas estavam presentes no momento da observação do doente. A gravidade dos sintomas depende do tamanho e se ocorre infecção do Laringocelo, sendo que aqueles que contêm muco estão mais predisposto a formarem um Laringopiocelelo^{2,3}.

As complicações dependem da infecção, da aspiração patogénica e subsequentemente traqueobronquite ou pneumonia, obstrução das vias aéreas superiores e infecção cervical profunda após ruptura².

Os diagnósticos diferenciais incluem os Quistos Saculares, Quistos Branquiais, Divertículo de Zenker, Quisto Dermóide, Higroma Cístico, Linfadenopatias, Abscessos cervicais, Sialoadenite ou Neoplasia da glândula submandibular^{4,7}.

O diagnóstico baseia-se nos achados clínicos, endoscópicos e imagiológicos⁴.

No que respeita ao tratamento, este depende sobretudo do tamanho da lesão, sendo que os Laringocelos Externos, Internos de grandes dimensões ou Mistos, como o que apresentamos, beneficiam de uma abordagem externa que permite uma exposição privilegiada entre o seu limite profundo e o espaço paraglótico, permitindo a sua exérese completa e menor risco de recidiva⁸. A abordagem externa das lesões submucosas da laringe foram descritas em 1959 por Schall, sendo que este recomendava que fosse realizada sempre traqueotomia e o seu método envolvia a separação do pericôndrio da superfície interna da cartilagem tiroideia e remoção de parte desta cartilagem de forma a aumentar a exposição da lesão. Em 1966, Yarrington e Frazer apresentaram uma abordagem técnica mais conservadora, sem secção das cartilagens laríngeas e sem necessidade de traqueotomia⁹. Thome et al apresentou um trabalho com bons resultados ao utilizar uma abordagem transcervical com tirotomia lateral triangular, que incluía remoção em "V" da porção supero-lateral da cartilagem tiroideia, obtendo-se menor taxas de recorrência, morbidade mínima, preservação da mucosa laríngea e raras complicações¹⁰. Na literatura têm sido mencionadas algumas desvantagens da abordagem externa, nomeadamente o facto de criar uma cicatriz cervical, de ter um tempo de cirurgia e de internamento prolongado e custo elevado. No entanto, as últimas desvantagens foram ultrapassadas com o uso de abordagens mais conservadoras, sem necessidade de traqueotomia e com preservação da estrutura laríngea.

No caso dos Laringocelos Internos de pequenas dimensões o tratamento pode ser expectante ou cirúrgico, podendo-se utilizar o Laser CO₂, que permite uma recuperação precoce do doente, cirurgias mais rápidas, lesão mínima da endolarínge e sem necessidade de traqueotomia. No entanto, providencia uma exposição cirúrgica limitada, condiciona fibrose

endolaringea, tem maior risco de recidiva caso seja realizada apenas marsupialização e necessita de cirurgias experientes com o uso do Laser CO₂^{8,11}.

No caso apresentado de um Laringocele Misto de grandes dimensões optamos pela abordagem externa transcervical com tirotomia lateral e remoção da porção supero-lateral da cartilagem tiroideia, tendo-se obtido uma exposição cirúrgica adequada à remoção completa da lesão, sem necessidade de traqueotomia.

CONCLUSÃO

O Laringocele é uma patologia do ventrículo laríngeo rara, que apesar de benigna é uma causa potencial de obstrução da via aérea que pode comprometer a vida do doente. O estudo imagiológico é essencial no diagnóstico e planeamento cirúrgico. No caso apresentado, a abordagem cirúrgica cervical externa, sem necessidade de traqueotomia, permitiu o tratamento da lesão, não havendo evidência clínica, endoscópica ou imagiológica de recidiva após um ano de *follow-up*.

Referências bibliográficas:

- 1-Reddy M, Ramakrishma C, Gupta M et al. Laryngocele- a case report and review of literature. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg 2008; 60:281-283.
- 2-Pennings R, Hoogen F, Marres H. Giant Laryngoceles: a cause of upper airway obstruction. Eur Arch Otorhinolaryngol, 2001;258: 137-140.
- 3-Swift A. Acute infections of larynx. Scott's Brown Otorhinolaryngology, Head and Neck Surgery, 7th ed. Edward Arnold Publishers Ltd; 2008
- 4-Gupta S, Goel A, Singh P. External Laryngocele. Indian Journal of Otolaryngology and Head and Neck Surgery, 1998; 50 (3): 298-391.
- 5-Lancella A, Abbate G, Dosdegani R. Mixed Laryngocele: a case report and review of the literature. Acta Otorhinolaryngologica Italica, 2007;27: 255-257.
- 6-Felix J, Felix F, Mello L. Laryngocele: a cause of upper airway obstruction. Rev Bras Otorrinolaringol, 2008;74(1): 143-6.
- 7-Pinho M, Viana P, Omokawa M et al. External Laryngocele: sonographic appearance- a case report. Radiol Bras, 2007;40(4): 279-282.
- 8-Dursun G, Ozgursoy O, Beton S et al. Current diagnosis and treatment of laryngocele in adults. Otolaryngol Head and Neck Surg, 2007;136: 211-215.
- 9-Myssiorek D, Madhani D, Delacure M. The external approach for submucosal lesions of the larynx. Otolaryngol Head Neck Surg, 2001;125: 370-373.
- 10-Thome R, Thome DC, De La Cortina RC. Lateral thyrotomy approach on the paraglottic space for laryngocele resection. Laryngoscope, 2000;110:447-50.