

Estratégia para tratamento de rânula mergulhante. Relato de caso

Strategy for the treatment of plunging ranula. Case report

Estrategia para el tratamiento de la rânula hundida. Reporte de un caso

Recebido: 25/11/2020 | Revisado: 01/12/2020 | Aceito: 05/12/2020 | Publicado: 08/12/2020

Laís Kawamata de Jesus

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-0459-5860>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: kawamata_lais@hotmail.com

Henrique Hadad

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-6446-3643>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: henriquehadad@gmail.com

Raquel Barroso Parra da Silva

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-2382-2432>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: raque_parra@hotmail.com

Ana Flávia Piquera Santos

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-7562-772X>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: anaflaviaps_06@hotmail.com

Luara Teixeira Colombo

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-6261-6044>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: luara_colombo@hotmail.com

Paulo Zupelari Gonçalves

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-2810-8841>

Centro Universitário das Faculdades Integradas de Ourinhos, Brasil

E-mail: pzupelari@gmail.com

Sabrina Ferreira

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-9674-6709>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: drasabrinaferreira@gmail.com

Mariza Akemi Matsumoto

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-5389-0105>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: mariza.am@gmail.com

André Luís da Silva Fabris

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-5173-4050>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: andre.fabris@hotmail.com

Ana Paula Farnezi Bassi

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-0031-4953>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: ana.bassi@unesp.br

Leonardo Perez Faverani

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-2249-3048>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: leonardo.faverani@unesp.br

Oswaldo Magro Filho

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-9821-2479>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: osvaldo.magro@unesp.br

Idelmo Rangel Garcia-Júnior

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-8892-781X>

Universidade Estadual Paulista, Brasil.

E-mail: irgcirurgia@gmail.com

Francisley Ávila Souza

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1427-071X>

Universidade Estadual Paulista, Brasil

E-mail: francisley.avila@unesp.br

Resumo

Rânula é definida como um pseudocisto originada do extravasamento de líquido mucinoide da glândula sublingual, frequentemente associado a trauma ou obstrução do ducto da glândula. Clinicamente, caracterizada por uma coloração azulada, translúcida localizada no assoalho

bucal e pode ser classificada como rânula intraoral ou mergulhante. O diagnóstico inclui exame clínico detalhado e exames de imagens combinados com achados histopatológicos. Abordagens terapêuticas podem ser aplicadas para tratamento esta lesão, como marsupialização, exérese da rânula associada ou não a glândula sublingual e exérese da rânula juntamente a glândula sublingual e submandibular. O objetivo deste artigo foi relatar um caso de rânula mergulhante, tratada por exérese seguida de marsupialização da lesão cística, após um ano de acompanhamento com recidiva. Concluimos que um tratamento menos invasivo pode não apresentar a melhor estratégia para o tratamento de rânula mergulhante, devido as maiores chances de recidiva.

Palavras-chave: Rânula; Conduas terapêuticas; Recidiva.

Abstract

Ranula is defined as a pseudocyst originated from the leakage of mucinoid fluid of the sublingual gland, often associated with trauma or obstruction of the gland duct. Clinically, characterized by bluish and translucent color on the floor of the mouth and can be classified as an intraoral or plunging ranula. Diagnosis includes detailed clinical and imaging exams combined with histopathological findings. Therapeutic approaches can be applied to treat this lesion, such as marsupialization, excision of the ranula with or without the sublingual gland and excision of the ranula together the sublingual and submandibular gland. The aim of this paper was to report a case of plunging ranula, treated by excision followed by marsupialization of the cystic lesion, after one year of follow-up with recurrence. We conclude that a less invasive treatment may not present the best strategy for the treatment of plunging ranula, due to the greater chances of recurrence.

Keywords: Ranula; Therapeutic approaches; Recurrence.

Resumen

Ránula se define como un pseudoquiste originado por la fuga de líquido mucinoide de la glándula sublingual, a menudo asociado con traumatismo u obstrucción del conducto de la glándula. Clínicamente, se caracteriza por un color azulado y translúcido en el piso de la boca y puede clasificarse como una rânula intraoral o hundida. El diagnóstico incluye exámenes clínicos y por imágenes detallados combinados con hallazgos histopatológicos. Se pueden aplicar enfoques terapéuticos para tratar esta lesión, como marsupialización, escisión de la rânula con o sin la glándula sublingual y escisión de la rânula junto con la glándula sublingual y submandibular. El objetivo de este trabajo fue reportar un caso de rânula hundida, tratada

mediante exéresis seguida de marsupialización de la lesión quística, luego de un año de seguimiento con recidiva. Concluimos que un tratamiento menos invasivo puede no presentar la mejor estrategia para el tratamiento de la rânula hundida, debido a las mayores posibilidades de recurrencia.

Palabras clave: Rânula; Conductas terapéuticas; Recurrencia.

1. Introdução

Rânula pode ser definida como um pseudocisto, cuja sua etiologia é originada do extravasamento de líquido mucinoide da glândula sublingual, frequentemente associado a trauma ou obstrução do ducto da glândula (Jia, et al., 2011; O'Connor & McGurk, 2013). Clinicamente, caracterizada por uma tumefação unilateral ao lado da linha mediana, de tamanho variável (Suresh & Vora, 2012). Comumente encontrado no assoalho bucal de coloração azulada e translúcida, semelhante ao ventre de um sapo (Quick & Lowell, 1977; Urso-Baiarda, et al., 2003; Jia, et al., 2011;).

A variante dessa lesão, rânula mergulhante (Kamalakaran, et al., 2018), é caracterizada por um edema na região cervical, devido ao extravasamento de mucina através do músculo milo-hióideo no espaço submandibular (Davison, et al., 1998), que pode se estender para espaços cervicais mais profundos (Harrison 2010; Lyly, et al., 2017). O diagnóstico é feito através de um exame clínico detalhado e exames complementares de imagem como ressonância magnética (RM), tomografia computadorizada (TC) ou ultrassonografia (USS) (Jain, et al., 2012), combinados com exames histopatológicos, bem como a punção aspirativa pode auxiliar também no diagnóstico dessa lesão (O'Connor & McGurk, 2013).

O tratamento mais apropriado é bem discutido na literatura (Patel, et al., 2009). Muitas modalidades terapêuticas podem ser aplicadas para tratar essa lesão, como marsupialização, exérese da rânula, exérese da rânula associada a glândula sublingual e exérese da rânula juntamente a glândula sublingual e submandibular (Zhao, et al., 2004; Patel, et al., 2009).

O objetivo deste artigo foi relatar um caso de rânula mergulhante, tratada por exérese seguida de marsupialização da lesão cística, após um ano de acompanhamento com recidiva.

2. Metodologia

Este estudo apresenta por meio descritivo e qualitativo um caso clínico de rânula mergulhante caracterizado por um edema na região do pescoço e assoalho bucal do lado

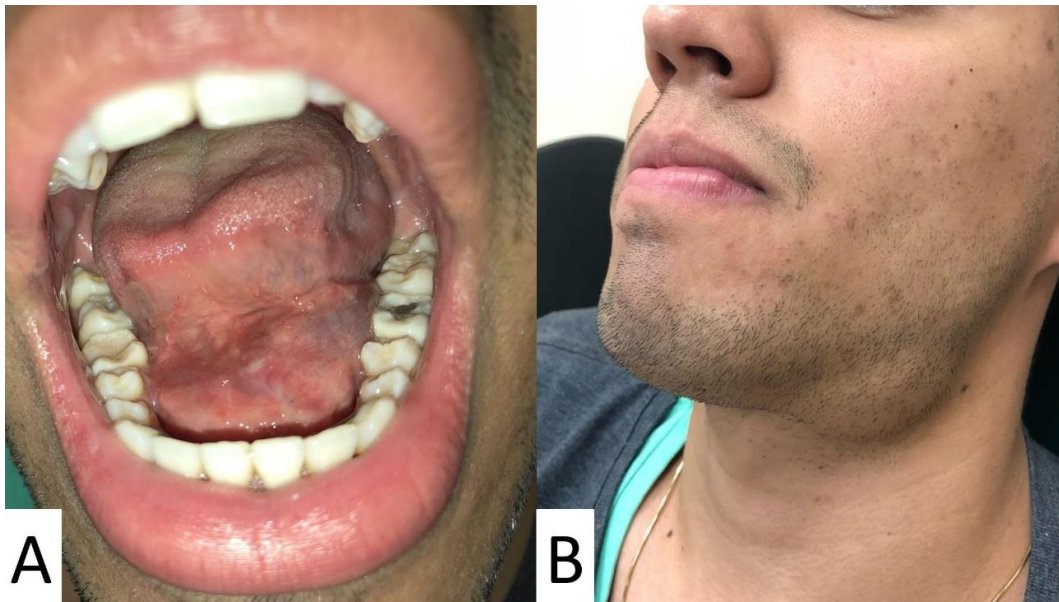
esquerdo, associado a disfagia, relatando a abordagem diagnóstica e cirúrgica, demonstrando juntamente com a literatura que técnicas menos invasivas apresentam maior taxa de recidiva para esse tipo de lesão.

3. Relato de Caso

Paciente do sexo masculino, 22 anos, atendido no Pronto-Socorro do Hospital da Unimed em Araçatuba relatou edema no assoalho bucal do lado esquerdo, associado a disfagia. Negando trauma prévio, dor, dificuldades de fala ou respiração, alergias ou doenças sistêmicas.

Ao exame clínico observou-se aumento volumétrico intraoral (Figura 1A) com envolvimento unilateral esquerdo limitado pela linha média, além de edema extraoral na região cervical unilateral (Figura 1B).

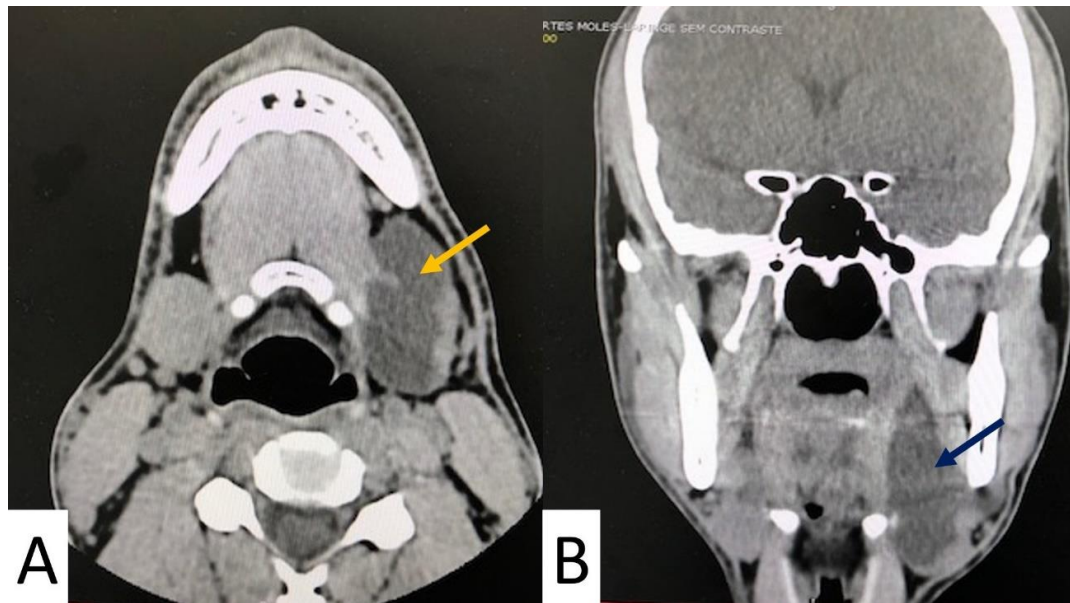
Figura 1. Apresentação clínica do paciente. A) Visão intraoral da lesão mostrando envolvimento unilateral esquerdo limitado pela linha média. B) Visão extraoral da lesão mostrando edema na região cervical unilateral.



Fonte: Autores.

Foi realizado o exame de imagem pré-operatório de tomografia computadorizada (TC) (Figura 2A e B), para melhor diagnóstico e tratamento a ser realizado. Portanto, a junção do exame clínico com de imagem proporcionou o diagnóstico de rânula mergulhante.

Figura 2. Tomografia computadorizada. A) Corte axial mostrando imagem hipodensa na região da glândula submandibular (seta amarela). B) Corte coronal mostrando lesão que se estende do assoalho oral até abaixo do hióide (seta azul).



Fonte: Autores.

O tratamento proposto pela equipe foi realizar a excisão seguida da marsupialização da lesão cística, sob anestesia geral com intubação nasotraqueal.

Inicialmente, foi realizada punção aspirativa (Figura 3A e B).

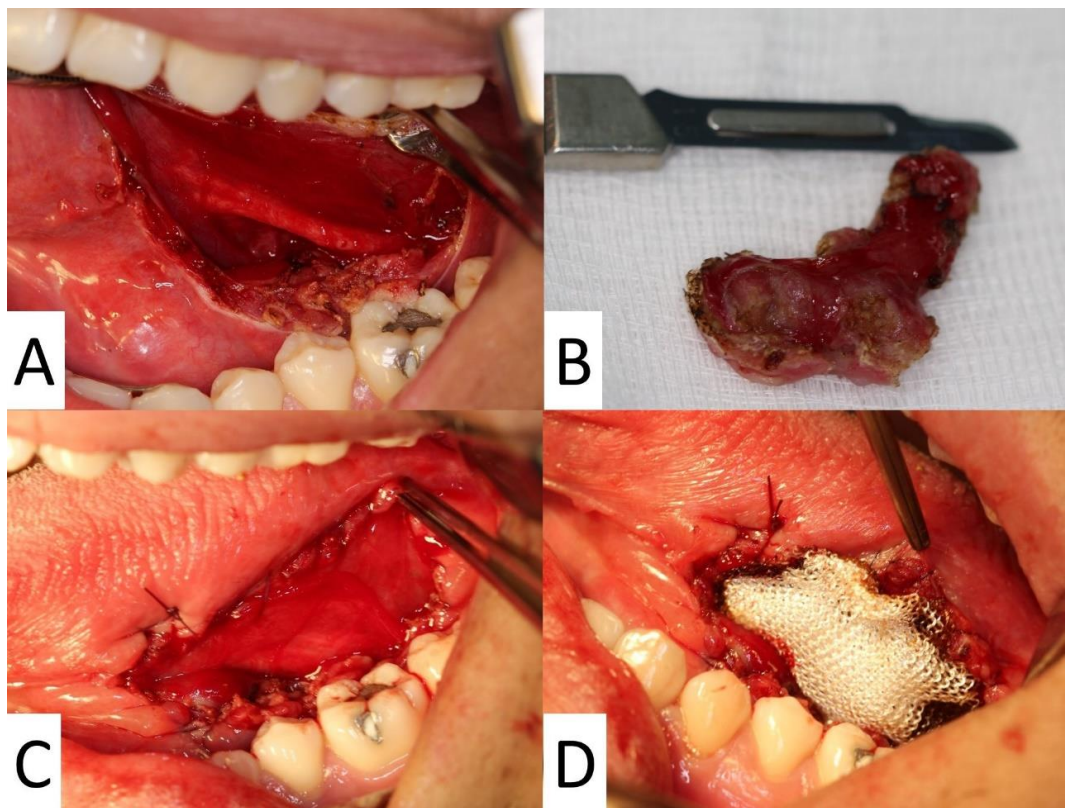
Figura 3. Apresentação clínica intraoral da lesão após intubação nasotraqueal e preparação cirúrgica. A) Presença de aumento volumétrico no assoalho da boca. B) Realização de punção aspirativa da lesão.



Fonte: Autores.

Posteriormente, foi feita uma incisão na lateral da língua (Figura 4A) para realizar a técnica de excisão (Figura 4B). Em seguida foi realizada a técnica de marsupialização com um fio trançado e absorvível com Poliglactin 910 (Vycril®, Ethicon, Florianópolis, SC/Brasil) (Figura 4C). E na sequência, optou-se por utilizar um agente hemostático absorvível para controle da hemostasia local com Celulose Regenerada Oxidada (Surgicel®, Ethicon, Florianópolis, SC/Brasil) (Figura 4D).

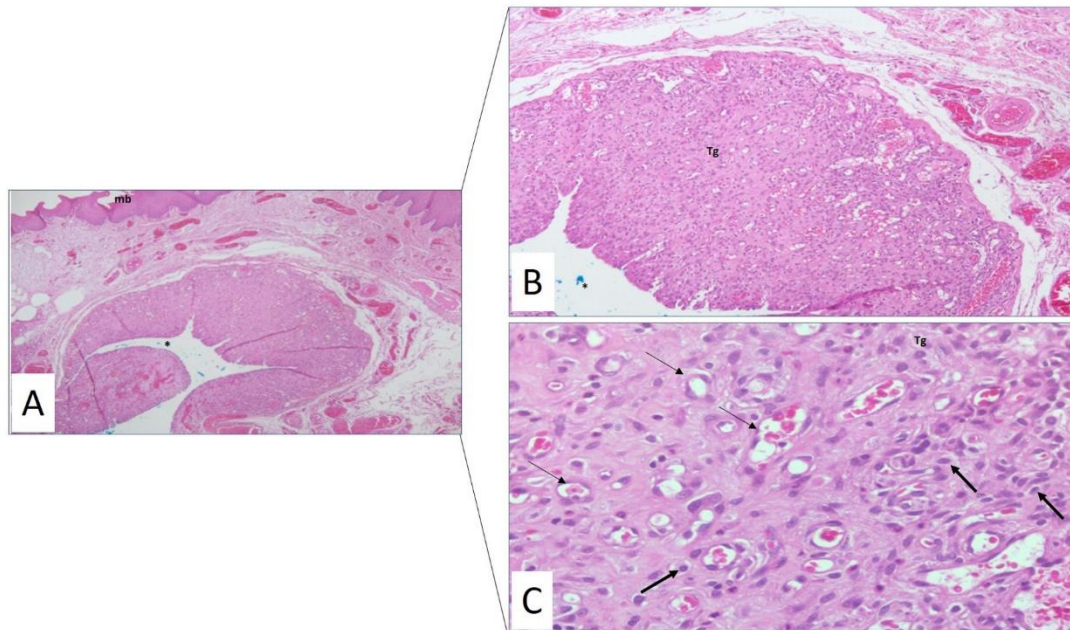
Figura 4. Sequência do procedimento cirúrgico. A) Visão intraoral após incisão da lesão no lado da língua e assoalho bucal. B) Aparência da lesão após excisão. C) Técnica de marsupialização. D) Uso de Surgicel® para controlar a hemostasia local.



Fonte: Autores.

A peça coletada foi enviada para análise histopatológica e o laudo referente a peça coletada revelou uma cavidade circundada por uma espessa camada de tecido de granulação rica em capilares sanguíneos e discreto infiltrado mononuclear (Figura 5A, B e C). Sobrejacente, encontra-se mucosa bucal coberta por epitélio estratificado pavimentoso suportado por uma lâmina própria ricamente vascularizada.

Figura 5. Cortes histológicos corados com hematoxilina e eosina (HE). A) Cisto por extravasamento mucoso (*) em região submucosa (mb) - aumento de 4x. B) Cavidade patológica (*) circundada por tecido de granulação (Tg) - aumento de 10x. C) Tecido de granulação (Tg) rico em vasos sanguíneos (setas finas) e discreto infiltrado inflamatório mononuclear (setas grossas) - ampliação de 40x.



Fonte: Autores.

Portanto, a associação do exame clínico com a tomografia computadorizada, juntamente com o laudo histopatológico, permitiu a confirmação do diagnóstico de rânula mergulhante.

O paciente não teve complicações e se recuperou bem após a cirurgia. No entanto, após 1 ano de acompanhamento, houve diagnóstico de recorrência da lesão (Figura 6).

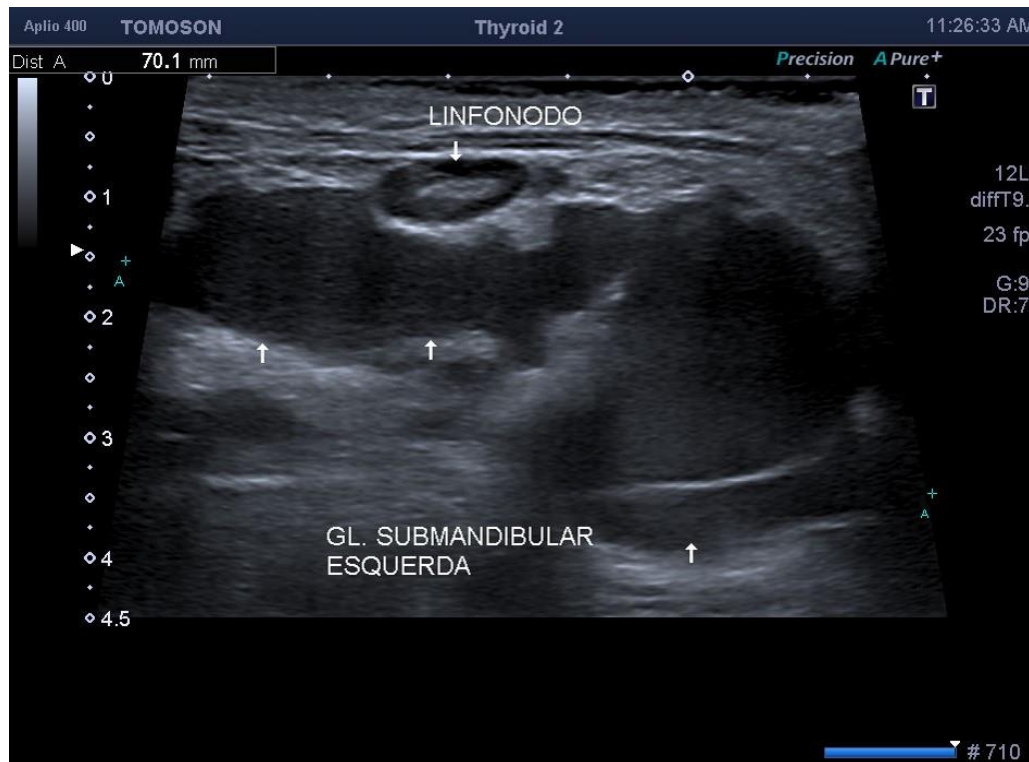
Figura 6. Apresentação clínica intraoral da lesão com recidiva após 1 ano de acompanhamento.



Fonte: Autores.

Foi solicitado um exame de ultrassonografia (USG) para confirmação do diagnóstico de recidiva (Figura 7).

Figura 7. Ultrassonografia (USG) da glândula submandibular esquerda totalmente constituída por material líquido com parênquima circundante escasso, sem imagem nodular ou calcificação associada.



Fonte: Autores.

4. Discussão

Rânulas mergulhantes são consideradas casos relativamente raros (Olojede, et al., 2017). A sua etiologia pode estar associada a traumas, anomalias congênitas e doenças da glândula sublingual (Parekh, et al., 1987; Davison, et al., 1998; Zhao, et al., 2004; Jia, et al., 2011), e a verdadeira incidência desse tipo de lesão ainda não foi cientificamente comprovada (Davison, et al., 1998). No entanto, alguns estudos indicam uma predileção por pacientes asiáticos (Chin, et al., 2016; Olojede, et al., 2017).

Para o diagnóstico dessas lesões, além do exame clínico bem detalhado, são necessários também a realização de exames complementares de imagem, que incluem a tomografia computadorizada (TC) caracterizada pela presença de uma lesão com cauda que se estende ao espaço sublingual (Charnoff & Carter, 1986); a ressonância magnética (RM), considerada a melhor técnica para determinar a origem e extensão dessas lesões (Coit, et al., 1987; Olojede, et al., 2017), e para avaliar os casos de recidivas (Chen, et al., 2018); e exames como sialografia e ultrassonografia fornecem poucas informações (Davison, et al., 1998).

No caso clínico em específico, além do exame clínico minucioso, foi solicitado o exame de tomografia computadorizada (TC) que permitiu observar a extensão completa da lesão e sua relação com as estruturas anatômicas.

A análise histopatológica mostrou particularidades semelhantes a um pseudocisto, bem como uma cavidade com conteúdo de mucina, circundando uma espessa camada de tecido de granulação rica em capilares sanguíneos e um infiltrado mononuclear discreto (Jia, et al., 2011; Gupta & Karjodkar, 2011; Olojede, et al., 2017) sem revestimento epitelial na parede do cisto, achado característico para essas lesões (Davison, et al., 1998).

Logo a união das informações coletadas na anamnese e do resultado da tomografia computadorizada combinados aos achados histopatológicos, permitiram a confirmação do diagnóstico, excluindo outras lesões que acometem a região de cabeça e pescoço com características clínicas semelhantes de rânula mergulhante (Parekh, et al., 1987; Olojede, et al., 2017).

Extensas discussões sobre abordagens cirúrgicas objetivando a melhor estratégia de tratamento para essas lesões podem ser encontradas na literatura, como exérese da glândula sublingual associada com a rânula, marsupialização ou exérese da rânula isolada.¹¹ O uso de lasers de CO₂ (Mintz, et al., 1994; Lai & Poon, 2009) e escleroterapia com OK-432 (Woo, et al., 2003; Rho, et al., 2006; Kinoshita, et al., 2012) pode ser incluído como opções de tratamento. No entanto escleroterapia é contestada por alguns autores, por ser um tratamento alternativo antes de considerar uma abordagem cirúrgica (Rho, et al., 2006; Olojede, et al., 2017).

Estudos publicados anteriormente compararam a eficácia dos métodos de abordagem cirúrgica para essas lesões, considerando complicações e recidivas, demonstrando que a exérese da rânula mergulhante associada ou não à marsupialização, sem excisão da glândula sublingual, apresenta uma taxa de recorrência superior a 50% (Parekh, et al., 1987; Yoshimura, et al., 1995; Kinoshita, et al., 2012).

Estudos mostraram que apenas a exérese da rânula mergulhante associada à glândula sublingual é suficiente para obter um melhor prognóstico e sucesso (Davison, et al., 1998; Patel, et al., 2009). Portanto, a remoção da glândula sublingual associada a rânula deve ser considerada, por ser uma técnica que apresenta menor taxa de recidivas e complicações, obtendo maior taxa de sucesso (Rho, et al., 2006; Patel, et al., 2009; Harrison 2010).

Os riscos de complicações para o tratamento de rânulas mergulhantes não são tão significativos, porém, nos casos de exérese da rânula juntamente com a glândula sublingual por via transcervical associada ou não à via transoral, os riscos de complicações cirúrgicas são

maiores devido à dificuldade e complexidade da técnica cirurgia sucesso (Davison, et al., 1998; Patel, et al., 2009; Olojede, et al., 2017; Chen, et al., 2018).

Embora diferentes abordagens cirúrgicas sejam descritas na literatura, o tratamento mais eficaz em casos dessas lesões é a remoção da rânula associada com a glândula sublingual por via transoral e em casos de lesões císticas maiores, é indicada uma abordagem cirúrgica por via transcervical, sendo um procedimento mais invasivo (Lesperance 2013; Olojede, et al., 2017).

Nesse caso clínico optou-se por uma abordagem cirúrgica menos invasiva e mais segura, priorizando menores complexidades operatórias e complicações pós-operatórias. No entanto, após um ano de acompanhamento a lesão recidivou. Deste modo a etapa subsequente para o tratamento dessa recidiva englobava exérese da lesão associada com a glândula submandibular do lado esquerdo.

5. Considerações Finais

Abordagens cirúrgicas menos invasivas visando reduzir as complexidades operatórias, complicações pós-operatórias e injúrias ao paciente, podem não apresentarem as melhores estratégias para o tratamento de rânula mergulhante, devido as maiores chances de recidiva.

Referências

Charnoff, S. K., & Carter, B. L. (1986). Plunging ranula: CT diagnosis. *Radiology*, 158(2), 467–468.

Chen, J. X., Zenga, J., Emerick, K., & Deschler, D. (2018). Sublingual gland excision for the surgical management of plunging ranula. *American journal of otolaryngology*, 39(5), 497–500.

Chin, S. J., Zeng, I. S., & Morton, R. P. (2016). The epidemiology of plunging ranula in South Auckland. *The Laryngoscope*, 126(12), 2739–2743.

Coit, W. E., Harnsberger, H. R., Osborn, A. G., Smoker, W. R., Stevens, M. H., & Lufkin, R. B. (1987). Ranulas and their mimics: CT evaluation. *Radiology*, 163(1), 211–216.

Davison, M. J., Morton, R. P., & McIvor, N. P. (1998). Plunging ranula: clinical observations. *Head & neck*, 20(1), 63–68.

Gupta, A., & Karjodkar, F. R. (2011). Plunging ranula: a case report. *ISRN dentistry*, 2011, 806928.

Harrison J. D. (2010). Modern management and pathophysiology of ranula: literature review. *Head & neck*, 32(10), 1310–1320.

Jain, R., Morton, R. P., & Ahmad, Z. (2012). Diagnostic difficulties of plunging ranula: case series. *The Journal of laryngology and otology*, 126(5), 506–510.

Jia, Y., Zhao, Y., & Chen, X. (2011). Clinical and histopathological review of 229 cases of ranula. *Journal of Huazhong University of Science and Technology. Medical sciences = Huazhong keji daxue xue bao. Yi xue Ying De wen ban = Huazhong keji daxue xuebao. Yixue Yingdewen ban*, 31(5), 717.

Kamalakaran, A., Jayaraman, B., Balasubramaniam, S., Thirunavukkarasu, R., & Ramakrishnan, B. (2018). Plunging Ranula in a 78- year- old Male - a Rare Case Report. *Journal of clinical and experimental dentistry*, 10(1), e92–e95.

Kinoshita, M., Kida, W., & Nakahara, H. (2012). Plunging ranula intruding into the parapharyngeal space treated with OK-432. *American journal of otolaryngology*, 33(3), 345–348.

Lai, J. B., & Poon, C. Y. (2009). Treatment of ranula using carbon dioxide laser--case series report. *International journal of oral and maxillofacial surgery*, 38(10), 1107–1111.

Lesperance M. M. (2013). When do ranulas require a cervical approach?. *The Laryngoscope*, 123(8), 1826–1827.

Lyly, A., Castrén, E., Aronniemi, J., & Klockars, T. (2017). Plunging ranula - patient characteristics, treatment, and comparison between different populations. *Acta otolaryngologica*, 137(12), 1271–1274.

Mintz, S., Barak, S., & Horowitz, I. (1994). Carbon dioxide laser excision and vaporization of nonplunging ranulas: a comparison of two treatment protocols. *Journal of oral and maxillofacial surgery: official journal of the American Association of Oral and Maxillofacial Surgeons*, 52(4), 370–372.

O'Connor, R., & McGurk, M. (2013). The plunging ranula: diagnostic difficulties and a less invasive approach to treatment. *International journal of oral and maxillofacial surgery*, 42(11), 1469–1474.

Olojede, A., Ogundana, O. M., Emeka, C. I., Adewole, R. A., Emmanuel, M. M., Gbotolorun, O. M., Ayodele, A. O., & Oluseye, S. B. (2017). Plunging ranula: surgical management of case series and the literature review. *Clinical case reports*, 6(1), 109–114.

Parekh, D., Stewart, M., Joseph, C., & Lawson, H. H. (1987). Plunging ranula: a report of three cases and review of the literature. *The British journal of surgery*, 74(4), 307–309.

Patel, M. R., Deal, A. M., & Shockley, W. W. (2009). Oral and plunging ranulas: What is the most effective treatment?. *The Laryngoscope*, 119(8), 1501–1509.

Quick, C. A., & Lowell, S. H. (1977). Ranula and the sublingual salivary glands. *Archives of otolaryngology (Chicago, Ill.: 1960)*, 103(7), 397–400.

Rho, M. H., Kim, D. W., Kwon, J. S., Lee, S. W., Sung, Y. S., Song, Y. K., Kim, M. G., & Kim, S. G. (2006). OK-432 sclerotherapy of plunging ranula in 21 patients: it can be a substitute for surgery. *AJNR. American journal of neuroradiology*, 27(5), 1090–1095.

Suresh, B. V., & Vora, S. K. (2012). Huge plunging ranula. *Journal of maxillofacial and oral surgery*, 11(4), 487–490.

Urso-Baiarda, F., Saravanappa, N., & Courteney-Harris, R. (2003). Radiology quiz case 1. Intraoral ranula. *Archives of otolaryngology--head & neck surgery*, 129(4), 490–492.

Woo, J. S., Hwang, S. J., & Lee, H. M. (2003). Recurrent plunging ranula treated with OK-432. *European archives of oto-rhino-laryngology: official journal of the European Federation of Oto-Rhino-Laryngological Societies (EUFOS) : affiliated with the German Society for Oto-Rhino-Laryngology - Head and Neck Surgery*, 260(4), 226–228

Yoshimura, Y., Obara, S., Kondoh, T., & Naitoh, S. (1995). A comparison of three methods used for treatment of ranula. *Journal of oral and maxillofacial surgery: official journal of the American Association of Oral and Maxillofacial Surgeons*, 53(3), 280–283.

Zhao, Y. F., Jia, Y., Chen, X. M., & Zhang, W. F. (2004). Clinical review of 580 ranulas. *Oral surgery, oral medicine, oral pathology, oral radiology, and endodontics*, 98(3), 281–287.

Porcentagem de contribuição de cada autor no manuscrito

Laís Kawamata de Jesus – 5%
Henrique Hadad – 5%
Raquel Barroso Parra da Silva – 5%
Ana Flávia Piquera Santos – 5%
Luara Teixeira Colombo – 5%
Paulo Zupelari Gonçalves – 5%
Sabrina Ferreira – 5%
Mariza Akemi Matsumoto – 5%
André Luís da Silva Fabris – 5%
Ana Paula Farnezi Bassi – 5%
Leonardo Perez Faverani – 5%
Osvaldo Magro Filho – 5%
Idelmo Rangel Garcia-Júnior – 20%
Francisley Ávila Souza – 20%