

Úlcera crónica lingual inducida por lipoma de la cavidad oral. Caso clínico

Jose Luis Del Castillo Pardo de Vera ⁽¹⁾, Jose Luis Cebrián Carretero ⁽²⁾, Elena Gómez García ⁽³⁾

(1) Médico Residente

(2) Médico Adjunto

(3) Médico Adjunto. Hospital Universitario la Paz. Servicio de Cirugía Maxilofacial. Madrid. España

Correspondencia:

Jose Luis Del Castillo Pardo de Vera

Hospital Universitario La Paz

Servicio de Cirugía Maxilofacial

Pº de la Castellana 261

28046 Madrid

Tlf. 917277336 - 606409021

E-mail: delcastillo6@hotmail.com

Recibido: 5-01-2003 Aceptado: 5-9-2003

Del Castillo-Pardo de Vera JL, Cebrián-Carretero JL, Gómez-García E. Úlcera crónica lingual inducida por lipoma de la cavidad oral. Caso clínico. Med Oral 2004;9:163-7.
© Medicina Oral S. L. C.I.F. B 96689336 - ISSN 1137 - 2834

RESUMEN

Aunque se trata de uno de los tumores benignos más frecuentes del organismo, el hallazgo de lipomas en la cavidad oral es un hecho inusual. En esta localización suelen presentar un crecimiento lento, indoloro y asintomático que puede dar lugar a tumoraciones redondeadas y bien definidas de gran tamaño. En estos casos son frecuentes los síntomas relacionados con la compresión de las estructuras vecinas.

En el presente trabajo estudiamos el caso clínico de un paciente en el que el lipoma intraoral fue el hallazgo definitivo tras el diagnóstico diferencial exhaustivo de una úlcera crónica de la lengua y del suelo de la boca. La clave para el diagnóstico fueron las pruebas de imagen (TC y RNM) y el estudio citológico mediante punción aspiración con aguja fina. El tratamiento quirúrgico mediante extirpación del lipoma consiguió la curación de la úlcera.

Finalmente revisamos la bibliografía pertinente y más actual acerca de la clínica, el diagnóstico y el tratamiento de los lipomas de la cavidad oral.

Palabras clave: Lipoma, úlcera crónica lingual, neoplasias cavidad oral.

INTRODUCCION

El lipoma es un tumor benigno constituido por tejido graso maduro cuya característica fundamental es el crecimiento lento y asintomático, que se manifiesta clínicamente al causar desplazamiento y compresión en las estructuras adyacentes cuando alcanza un gran tamaño.

Aunque en términos globales es uno de los tumores más frecuentes del organismo, su localización dentro de la cavidad oral es excepcional, y en la literatura solo se encuentran referencias de casos aislados en los que lipomas -fundamentalmente de la mucosa yugal y la lengua- han alcanzado dimensiones tales que han causado deformidad de las partes blandas de la cara y la boca, e incluso han comprometido el desarrollo maxilomandibular provocando deformidades dentofaciales (1).

En el presente trabajo estudiamos un caso en el que el lipoma se manifestó al realizar el diagnóstico diferencial de una úlcera crónica del borde lateral de la lengua y el suelo de la boca, que no mejoraba tras eliminar factores irritantes. Insistimos en el proceso diagnóstico que llevó al tratamiento quirúrgico curativo, y realizamos una revisión bibliográfica acerca de la clínica, comportamiento histológico, diagnóstico diferencial y tratamiento de los lipomas de cavidad oral.

CASO CLINICO

Se presenta el caso de un paciente varón de 74 años remitido por su odontólogo general al Servicio de Cirugía Maxilofacial para la valoración de una úlcera de meses de evolución en el borde lateral derecho de la lengua y el suelo de la boca, que no había remitido tras eliminar hábitos tóxicos -tabaco y alcohol- y tras realizar tallados de cúspides adyacentes que podían traumatizar a la zona ulcerada.

Los antecedentes personales del paciente incluían como datos más relevantes alergia a los antibióticos beta-lactámicos y sus derivados, así como ciertos hábitos tóxicos, tabaco e ingesta moderada de alcohol, que el paciente había abandonado en los últimos meses.

La evaluación intraoral del paciente mostraba una deficiente

higiene con ausencia de múltiples piezas dentarias. En el borde lateral derecho de la lengua y el suelo de boca, se apreciaba una úlcera indurada con márgenes bien definidos, de aproximadamente 2 cm de diámetro que resultaba discretamente dolorosa a la palpación, y que se asentaba en la región de contacto con el primer molar. Sin embargo, el dato más llamativo en la exploración intraoral era el engrosamiento difuso, blando y depresible del suelo de la boca, sin que se apreciase una masa palpable, que propulsaba la lengua hacia el paladar y que aumentaba la fricción con el primer molar. Dicho engrosamiento no había sido advertido por el paciente ni su familia, aunque causaba una cierta dificultad en la pronunciación de ciertos fonemas. El paciente no refería síntomas de disfagia ni disfonía.

En el examen cervicofacial no apreciamos masas cervicales ni alteración de las glándulas salivales.

Las radiografías intraorales demostraron que no existían alteraciones dentales ni en los tejidos duros de la cavidad oral.

El paciente fue incluido en nuestro protocolo de úlcera crónica de la cavidad oral, y procedimos a realizar los exámenes complementarios.

En primer lugar decidimos evaluar las características histológicas de la úlcera y su extensión. Para ello, bajo anestesia local, realizamos una biopsia incisional, enviando un ojal de mucosa de 2 x 1 centímetros, que fue informada con el diagnóstico de úlcera crónica sin signos de especificidad.

Al mismo tiempo, y descartado el carácter maligno de la lesión, solicitamos una tomografía computarizada de la región cervicofacial en la que se objetivó una tumoración encapsulada dentro de la musculatura lingual con características radiológicas de tejido graso. Para evaluar de forma más precisa las características de las partes blandas de la lesión y los tejidos circundantes, realizamos una resonancia magnética, en la que de nuevo aparecía una imagen bien delimitada, de bordes netos, con densidad homogénea de características de la grasa que rechazaba el músculo genihioideo hacia abajo sin infiltrarlo, y que se asentaba en el grosor de la musculatura lingual (figura 1).

Para confirmar definitivamente el diagnóstico se procedió a realizar una punción-aspiración con aguja fina, que ofreció el diagnóstico de tejido graso sin alteraciones histológicas.

Dado que la úlcera no curaba, y que verosíblemente estaba causada por la propulsión de la lengua hacia la región de los molares provocada por la tumoración, decidimos su extirpación (figura 2). Dicho procedimiento, que se llevó a cabo bajo anestesia general, consistió en una incisión en rafe medio, seccionando la mucosa y musculatura intrínseca hasta acceder a la masa, que se trataba de un lipoma encapsulado (figuras 3 y 4). Para el cierre del defecto, procedimos a la sutura de la musculatura intrínseca lingual con material reabsorbible y a la reparación mediante Z-plastia de la mucosa.

El postoperatorio cursó sin complicaciones, y el paciente fue dado de alta con dieta suave por vía oral a las pocas horas de la cirugía. El resultado del estudio de la pieza quirúrgica fue de lipoma encapsulado (figura 5).

La extirpación de la tumoración, y la reubicación de la lengua en su lecho posibilitaron la curación de la úlcera en pocas semanas. Gracias a la Z-plastia de la mucosa, y al abordaje a tra-

vés de la línea media, el paciente no presentó ninguna secuela neurológica ni de motilidad lingual.

DISCUSION

El caso aquí presentado, es interesante para cualquier cirujano que trabaje en la cavidad oral por dos motivos.

- En primer lugar plantea el diagnóstico diferencial de la úlcera crónica de la mucosa de la cavidad oral.

- Además presenta como agente causal de dicha úlcera el efecto masa causado por un tumor que no suele ser habitual en la cavidad oral

En la presente discusión nos centraremos más en el segundo aspecto del caso clínico, ya que lo que le confiere la peculiaridad es el hallazgo de un lipoma intraoral. Sin embargo, sirva de recordatorio para todos los especialistas cuyo campo de acción es la cavidad oral, que cualquier úlcera de más de 2 o 3 semanas de evolución que no responde a la retirada de factores irritantes, debe ser evaluada y probablemente biopsiada por un cirujano oral y máxilofacial, para descartar signos de malignidad (2, 3).

En lo que se refiere a los lipomas, aunque son tumoraciones muy frecuentes en otras partes del organismo, su presencia en la cavidad oral es excepcional (2), de manera que según diferentes series, no constituyen más allá del 4% de todas las neoformaciones en esta región (1, 4, 5). Dentro de la cavidad oral, su localización más común es la mejilla seguida por el suelo de la boca y la lengua. Allí, se presentan como tumoraciones sesiles o pediculadas, de color amarillento, cubiertas por una fina capa de mucosa (6). Suelen ser lesiones solitarias, como la presentada en el presente trabajo, y si son múltiples nos deben hacer sospechar padecimientos sindrómicos como la neurofibromatosis y síndrome de Gardner (7).

En cuanto a sus características epidemiológicas, suelen presentarse como lesiones de crecimiento lento que ocurren en la cuarta o quinta década de la vida (8), sin que exista una clara predilección sexual (9).

Aunque su etiología es desconocida, se han sugerido factores como traumatismos, infección, irritación crónica y alteraciones hormonales (10).

En cuanto al curso clínico, los lipomas de la cavidad oral suelen ser asintomáticos. En los casos como el aquí presentado parece ser que provienen del tejido subcutáneo subyacente al milohioideo, desde donde se hernian a través de sus fibras, para aparecer superficialmente en el suelo de la boca cuando alcanzan un cierto tamaño (7). En otras ocasiones pueden ocasionar sintomatología dolorosa debido a infecciones ocasionadas por traumatismos accidentales (por ejemplo, con dentaduras mal ajustadas), o bien alteraciones en la función masticatoria respiratoria o deglutoria (1). Finalmente, en situaciones excepcionales pueden presentarse como deformidades dentofaciales con mordida abierta debido al crecimiento excesivo de la neoformación (1).

En lo que se refiere al diagnóstico, este suele ser evidente al realizar una punción en la que se demuestra tejido adiposo maduro (9). En las pruebas de imagen, estos tumores también toman una apariencia característica. Así, en el TAC presentan

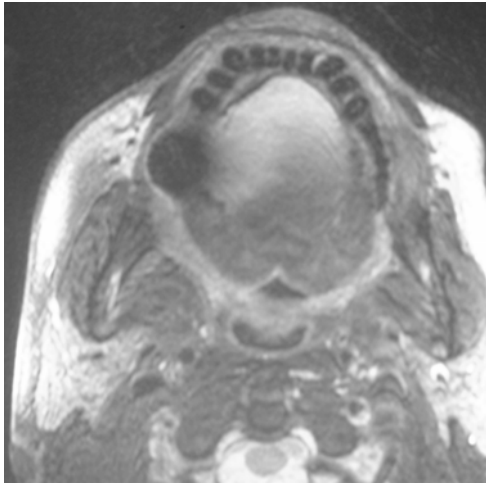


Fig. 1. Corte sagital de la resonancia magnética nuclear, con una tumoración localizada en la lengua.
Sagittal view of the MRI, with a swelling placed in the tongue.



Fig. 2. Aspecto clínico de la lesión, de consistencia elástica. Nótese la úlcera lingual.
Clinical appearance of the lesion, of elastic consistency. Note the lingual ulcer.

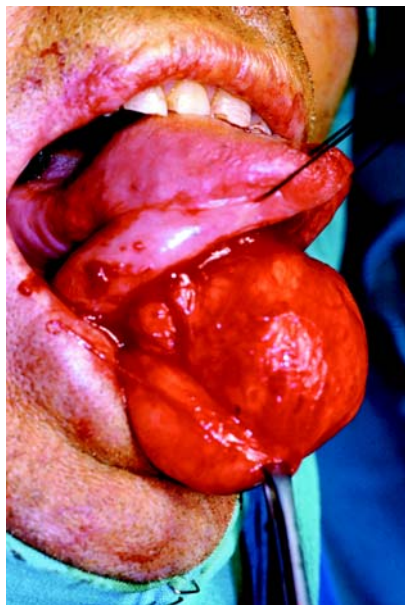


Fig. 3. Imagen intraoperatoria durante la extirpación quirúrgica de la lesión, a través de una incisión en línea media.
Intraoperative image during the surgical excision through a midline incision.

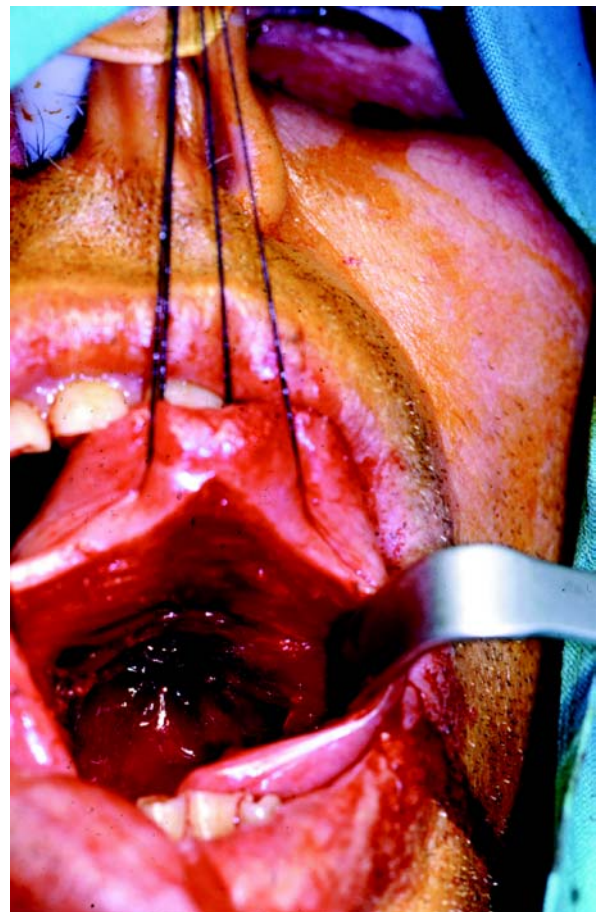


Fig. 4. La lesión se extirpó quirúrgicamente bajo anestesia general.
The lesion was removed under general anaesthesia



Fig. 5. Pieza quirúrgica.
View of the surgical specimen

una densidad que va desde 83 a 143 unidades Hamsfield, con márgenes pocos definidos, que desplaza los músculos y el tejido cercano. En la ecografía se presentan como masas hipoecoicas, mientras que en la resonancia magnética se presentan como masas hiperintensas en T1-T2 (11).

Con estas características el diagnóstico diferencial debe hacerse con la ránula, el quiste dermoide, el quiste del conducto tirogloso, el adenoma pleomorfo y el Ca. Mucoepidermoide (6). Como ya ha sido comentado, el diagnóstico definitivo lo dará la anatomía patológica, donde aparecen adipocitos maduros embebidos en un estroma de tejido conectivo y rodeados por una fina cápsula fibrosa (1, 9). En este sentido encontramos dos tipos microscópicos: una forma bien circunscrita superficial, y una forma intramuscular invasiva. Aunque algunos tipos pueden presentar atipia, la transformación maligna franca es inexistente (7).

Ahora bien, existen formas malignas per se que pueden simular un lipoma. Estos tumores son los liposarcomas, y en muchas ocasiones, si apreciamos un comportamiento más agresivo en una tumoración sospechosa de lipoma, será útil para diferenciar entre lesiones benignas y malignas la detección inmunohistoquímica de la proteína ap-2 (9).

El tratamiento del lipoma es quirúrgico, mediante excisión amplia con un manguito de tejido sano para prevenir la recurrencia local. La extirpación completa de los mismos manteniendo la integridad de todas las estructuras vecinas constituye el tratamiento de elección de este tipo de tumores, siendo rara y excepcional la recurrencia al cabo de los años. Esto es más necesario en las formas más invasivas que tienen mayor tendencia a recurrir (12).

chronic mucosal ulcer. CT scan and MRI images and microscopical examination after fine-needle aspiration were the clue for the final diagnosis. The surgical excision of the tumor was the basis for the healing of the ulcer.

We also review the most relevant and recent literature about clinic, diagnosis and treatment for these tumors.

Key words: *Oral lipoma, oral cavity tumors, chronic lingual ulcer.*

INTRODUCTION

Oral lipoma is a benign tumor made of mature fat tissue which main characteristic is its slow and asymptomatic growing. Sometimes it shows a progressive growing pattern which causes compressive symptoms and orofacial deformities.

Although it is one of the most frequent tumor of the body, the oral location is a rarity. In this sense, international literature references are mainly case reports in which lipomas of the buccal mucosa and the tongue are the cause of orofacial deformities (1). In this work, we show the case of an oral lipoma which clinical presentation was a chronic and persistent lingual and floor of the mouth ulcer. This ulcer didn't heal after the suppression of traumatic and irritant factors. We focus on the diagnosis procedures and surgical treatment, and we also review the international literature concerning about the clinical presentation, microscopical characteristics, differential diagnosis and treatment of oral lipomas.

CASE REPORT

We show the case of a 74 years old male referred to our Department of Oral and Maxillofacial Surgery for the evaluation of a lingual and floor of the mouth chronic ulcer which hadn't showed regression after the elimination of irritative agents – alcohol, smoke and sharp teeth cuspids-

Medical history included allergy to b-lactamics and risk factors, smoking and mil alcohol use, which had been abandoned in the last few months.

Intraoral examination showed a deficient oral hygiene and partial edentulism. The right lateral border of the tongue and the right lateral floor of the mouth showed a 2 cm painful ulcer with ill defined margins placed in the region of friction of the mandibular first molar. Nevertheless, the most relevant finding was the diffuse swelling of the floor of the mouth that pushed the tongue to the palate. That swelling had not been notice by the patient or his family even when he had difficulties to pronounce some words. The patient didn't show dysphagia or disnea. .

There were not cervical masses or salivary gland alterations. Intraoral X-rays didn't show dental or oral hard tissues alterations.

The patient was included in our protocol for the treatment of chronic oral cavity ulcer and the following exams were performed.

First at all incisional biopsy was performed under local anesthesia. The histologic exam revealed chronic inflammation without malignant cells.

We also performed a CT scan and a MRI of the neck and the

ENGLISH

Chronic lingual ulceration caused by lipoma of the oral cavity. Case report

DEL CASTILLO-PARDO DE VERA JL, CEBRIÁN-CARRETERO JL, GÓMEZ-GARCÍA E. CHRONIC LINGUAL ULCERATION CAUSED BY LIPOMA OF THE ORAL CAVITY. CASE REPORT. MED ORAL 2004;9:163-7.

SUMMARY

Although lipomas are among the most frequent tumors in the human body, their presentation in the oral cavity is not common. Oral cavity lipomas usually show a slow painless and asymptomatic growing. When these tumors reach big sizes, they can cause compressive symptoms and deformities.

In this paper we present the case of a patient in whom oral lipoma was the final finding in the differential diagnosis of a

face. The images were informed as a well defined encapsulated tumor placed into the tongue intrinsic muscles with radiological density and intensity of fat tissue (figure 1).

Finally, an aspiration-needle biopsy of the mass was performed, and the result was adult fat tissue without histological alterations. We decided the surgical treatment of the mass (figure 2) that was performed under general anesthesia with endotracheal intubation. The fat tissue mass was excised using a linear incision in the ventral raphe of the tongue that allowed the access to the intrinsic muscles that were released using blunt dissection (figure 3 and 4). The incision was closed using reabsorbable sutures with a Z-shaped plasty in the raphe incision.

Postoperative course was uneventful, and the patient was discharged a few hours after surgery.

The histologic exam of the surgical specimen showed a capsulated lipoma (figure 5).

The excision of the tumor and the repositioning of the tongue in its bed allowed the resolution of the ulcer. Thanks to the Z-plasty and the midline approach the patient didn't show neurological sequelae or tongue motility disturbances.

DISCUSSION

The case here presented is of special interest for the oral surgeon due to two facts.

- First at all, it opens the discussion to the differential diagnosis of the chronic ulcer of the oral mucosa.

- And it shows an infrequent oral cavity tumor, the lipoma, as the cause of this ulcer.

In this discussion we focused on this last aspect, because it gives the peculiarity to the case. Nevertheless, it is very important to remember that any ulcer of an evolution of more than 2 or 3 weeks, that shows no remission after the solution of local irritant factors must be evaluated and eventually biopsied by an oral surgeon (2, 3).

Lipomas are very frequent tumors in the human body, but their appearance in the oral cavity is exceptional (2), being no more of 4% of the tumors in this region in different studies (1, 4, 5). Buccal mucosa, floor of the mouth and tongue are the most frequent locations inside the oral cavity. Usually they are solitary lesions, covered by a thin layer of mucosa (6). Sometimes they are multiple in some syndromes as Gardner's or Bourneville's (7).

They are usually slow growing lesions that appear in the fourth and fifth decade without sexual predilection (8,9).

Their etiology is unknown, but some risk factors, like trauma, infection, chronic irritation and hormonal alterations (10).

The clinical course is usually asymptomatic until they get a big size. If they come from the subcutaneous tissue they cross the mylohyoid muscle to appear in the floor of the mouth (7). In other cases they can cause pain due to infections caused by accidental trauma (e.g. bad fitted dentures). They seldom masticatory or deglutatory alterations and dentofacial deformities with anterior open bite (1).

The radiological appearance is characteristic. CT scan shows a density from 83 to 143 Hounsfield units with well or bad defined margins depending on the capsule. In the ecography, they hypoechoic lesions, and in the MRI they are hyperintense tumors in T1 and T2 (11)

Differential diagnosis includes ranula, dermoid cyst, thyroglossal duct cyst, pleomorphic adenoma and mucoepidermoid carcinoma (2). The definitive diagnosis is microscopical, showing adult fat tissue cells (9) embedded in a stroma of connective tissue and surrounded by a fibrous capsule (1, 9). In this sense there are two different microscopical cases: a circumscribed superficial form and an invasive intramuscular one. Although sometimes they can show atypia, malignant transformation is exceptional (7). The malignant counterpart for the lipoma is the liposarcoma. Sometimes they are undistinguishable, and the only possible distinction is immunohistochemistry against protein p40 (9).

The treatment of the lipoma is surgical excision including a little cuff of surrounding tissue to prevent local recurrences (12) but being conservative to the neighbouring structures.

BIBLIOGRAFIA/REFERENCES

1. Dattilo DJ, Ige JT, Nwana EJC: Intraoral lipoma of the tongue and submandibular space. *J Oral Maxillofac Surg* 1996;54:915-7.
2. Ghandour K, Issa M. Lipoma of the floor of the mouth. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1992;73:59-60.
3. Tan IB, Roodenburg JL, Copper MP, Coebergh JW, Van der Waal I. Early diagnosis and prevention of malignant tumors in the head and neck region. *Ned Tijdschr Geneesk* 2001;12:567-72.
4. Cannell H, Langdon JD, Patel MF. Lipomata in oral tissues. *J Maxillofac Surg* 1976;4:116.
5. Greer RO, Richardson JF. The nature of lipomas and their significance in the oral cavity: review and reports of cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1973;36:551.
6. Lucas RB. Tumors of adipose tissue: Pathology of tumours of the oral tissues (ed 4). London: Churchill-Livingstone 1984. p. 176-9.
7. Gray AR, Barker GR. Sublingual lipoma: Report of an unusually large lesion. *J Oral Maxillofac Surg* 1991;49:747-50.
8. Wilson GW, Braun TW, Smith RL. Nodular mass in the anterior floor of the mouth. *J Oral Maxillofac Surg* 1990;48:492-5.
9. Epivatianos A, Markopoulos AK, Papanayotou P. Benign tumors of adipose tissue of the oral cavity: A clinicopathologic study of 13 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 2000;58:1113-7.
10. Barker GR, Sloan P: Intra-osseous lipomas. Clinical features of a mandibular case with possible etiology. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1986;24:459.
11. Chikui T, Yonetsu K, Yoshiura K, Kunihiro M, Kanda S, Ozeki S et al. Imaging findings of lipomas in the orofacial region with CT, US, and MRI. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1997;84:88-95.
12. Moore PL, Goede A, Phillips DE, Carr R. Atypical lipoma of the tongue. *J Laryngol Otol* 2001;10:859-61.