

Actualización en clasificación y manejo de anomalías vasculares laríngeas en adultos

Update on classification and management of laryngeal vascular anomalies in adults

Daniela Peñaloza R.¹, Ximena Aguirre P.¹, Daniel Cantero C.^{1,2,3},
Rodrigo Arregui V.^{1,2}, Jaime Osorio M.^{1,2,3}

Resumen

Introducción: Las anomalías vasculares (AV) de cabeza y cuello son una patología prevalente en niños, pero son poco frecuentes en adultos. La última clasificación descrita por la *International Society for the Study of Vascular Anomalies* (ISSVA) en 2018, propone dividir las en tumores vasculares (TV) y malformaciones vasculares (MV) con una aproximación basada en la etiopatogenia, comportamiento biológico e inmunohistoquímico (IHQ). **Objetivo:** Describir la experiencia en el manejo de AV laríngeas (AVL) en adultos operados en los últimos 5 años en el Servicio de Otorrinolaringología (ORL) del Hospital Barros Luco Trudeau (HBLT) y realizar una revisión actualizada en cuanto a diagnóstico y manejo. **Material y Método:** Revisión retrospectiva y descriptiva de los casos de AVL en adultos operados del servicio de ORL del HBLT informadas por biopsia en el servicio de anatomía patológica del mismo hospital entre los años 2015 a 2020. **Resultados:** Se encontraron cinco casos de AVL. Los síntomas descritos fueron disfonía, odinofagia y disfagia. La sospecha diagnóstica se fundó en historia clínica, nasofibroscopia y estudio imagenológico, y se confirmó con biopsia posoperatoria. Todos los pacientes fueron resueltos de manera quirúrgica con leve preferencia por el láser CO₂. No se registraron complicaciones ni signos de recidiva durante el seguimiento. **Conclusión:** Recomendamos el manejo quirúrgico de las AVL en adultos, realizando una resección completa de la lesión y su clasificación, según las recomendaciones de la ISSVA, con biopsia posoperatoria e inmunohistoquímica debido a la heterogeneidad de las clasificaciones previas.

Palabras clave: Anomalías vasculares laríngeas, hemangioma laríngeo adulto, linfangioma laríngeo.

Abstract

Introduction: Head and neck vascular abnormalities (AV) are common alterations found in children, but rare in adults. The latest classification described by the *International Society for the Study of Vascular Anomalies* (ISSVA) in 2018, proposes dividing them into vascular tumors (TV) and vascular malformations (MV), based on their etiopathogenesis, biological and immunohistochemical behavior (IHC). **Aim:** To describe the experience in the management of laryngeal AV (AVL) of adults treated surgically on in the last 5 years in the Otolaryngology Service (ORL) of the Hospital Barros Luco Trudeau (HBLT). **Material and Method:** Retrospective and descriptive review of cases with histologically confirmed AVL in adults treated surgically in the ORL service of the same hospital between the years 2015 and 2020. **Results:** Five cases of AVL were found. The symptoms described were dysphonia, pharyngodynia, and dysphagia. The diagnostic suspicion was based on clinical history, nasofibroscopy and imaging study, confirmed with post-operative biopsy. All patients were resolved surgically with a slight preference for the CO₂ laser. No complications or signs of recurrence were recorded during the follow-up. **Conclusion:** We recommend surgical management of AVL in adults with a complete resection and their classification according to the recommendations of the ISSVA with postoperative and immunohistochemical biopsy, due to heterogeneity of previous classifications systems.

Keywords: Laryngeal vascular anomalies, adult laryngeal hemangioma, laryngeal lymphangioma.

¹Servicio de Otorrinolaringología Hospital Barros Luco Trudeau. Santiago, Chile.

²Departamento de Otorrinolaringología. Universidad de Chile. Santiago, Chile

³Servicio de Otorrinolaringología. Clínica INDISA. Santiago, Chile.

Los autores declaran no tener conflictos de interés.

Recibido el 30 de julio de 2021. Aceptado el 25 de abril de 2022.

Correspondencia:

Jaime Osorio M.

Gran Avenida José Miguel Carrera 3204, San Miguel
Departamento de Otorrinolaringología
Universidad de Chile
Santiago, Chile.

Email: osorio.ort@gmail.com

Introducción

Las anomalías vasculares (AV) se clasifican según la *International Society for the Study of Vascular Anomalies* (ISSVA)^{1,2} en tumores vasculares benignos y malformaciones vasculares (MV) cuya última versión fue actualizada en 2018 y se resume en la Figura 1³.

Entre los tumores de laringe del adulto, los tumores vasculares (TV) son poco frecuentes. Una serie publicada en 2019 con 657 tumores de laringe en 8 años, mostró que solo 13 eran no epiteliales, y de éstos solo dos eran hemangiomas de laringe⁴. Dentro de los TV benignos de la laringe, el más frecuente es el hemangioma. Los hemangiomas son una neoplasia vascular que se caracteriza por una proliferación anormal de células endoteliales y una estructura anormal de los vasos sanguíneos. Históricamente, los hemangiomas se han clasificado en dos tipos: infantil y adulto⁵. El hemangioma infantil es el tumor congénito más frecuente en niños en cabeza y cuello, pero la ubicación en laringe es infrecuente y la mayoría se sitúa en la subglotis⁶. En adultos, los hemangiomas son una lesión muy poco

frecuente. Desde el punto de vista histológico o morfológico se solían clasificar en capilar, cavernosos o mixtos⁷, sin embargo, esto no es lo recomendado por la ISSVA, donde actualmente se realiza una aproximación desde la inmunohistoquímica (IHQ)⁸. Histológicamente, se puede ver una mucosa delgada y friable que recubre el estroma vascular y, macroscópicamente, pueden ser limitadas a la glotis o supraglotis pudiendo extenderse en algunos casos a la hipofaringe^{5,7,9}.

Dentro de las MV el linfangioma es raro, habitualmente se sitúa en cabeza y cuello y, generalmente, se manifiesta en la infancia antes de los 2 años. La localización laríngea, de manera aislada, es extremadamente rara y más aún en adultos¹⁰⁻¹². La incidencia de linfangiomas de laringe fue revisada por Cohen y Thompson en una serie de 160 pacientes pediátricos con linfangioma, de los cuales solo 10 tenían compromiso laríngeo¹³.

Los síntomas descritos ante una AVL dependerán de la localización de la lesión. Se pueden presentar como sensación de cuerpo extraño faríngeo o laríngeo, disnea, disfonía, disfagia, ronquido e incluso como sangrado

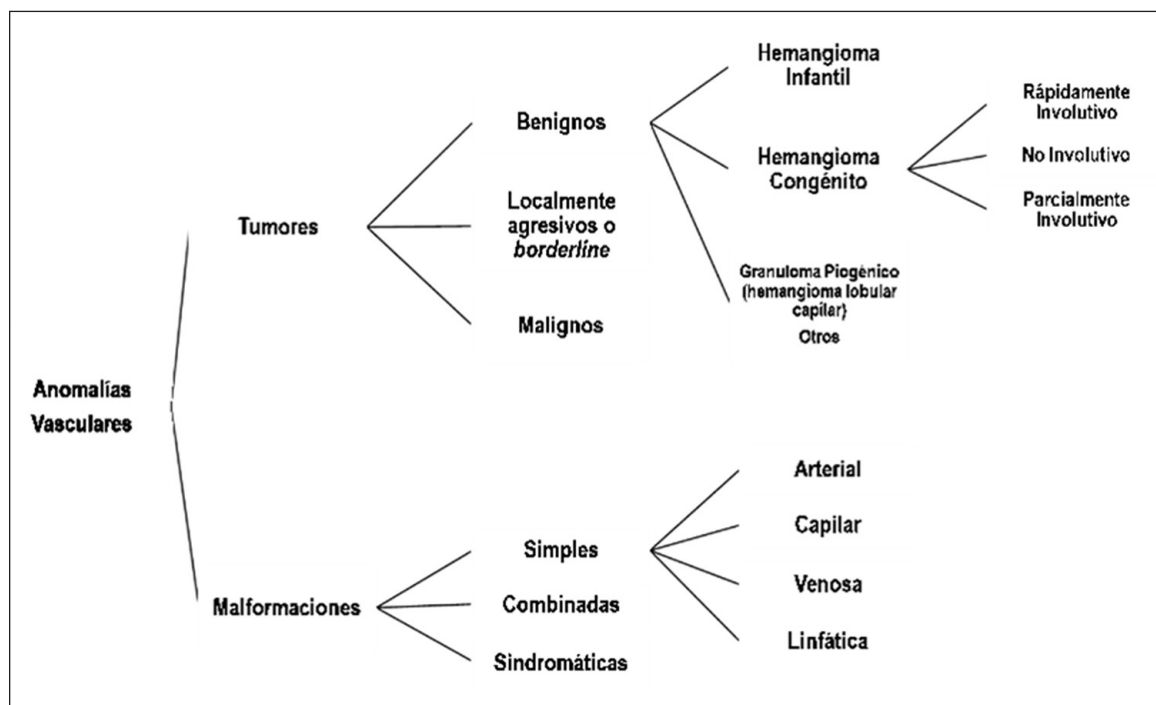


Figura 1. Sistema de clasificación abreviado adaptado y traducido de la clasificación de AV ISSVA 2018³.

del tracto respiratorio superior. Se describen también como hallazgo en pacientes asintomáticos¹⁴ e incluso existe un reporte de caso de muerte súbita por obstrucción de vía aérea¹⁵.

Objetivo

Describir la experiencia en el manejo de AVL en adultos operados en el Hospital Barros Luco Trudeau (HBLT) en Santiago, Chile. Estudiar las características clínicas de los pacientes afectados (sexo, edad, síntomas y estudio realizado), las técnicas quirúrgicas utilizadas, las complicaciones a raíz de la cirugía y los hallazgos anatomopatológicos, realizando una actualización en cuanto a su clasificación y manejo.

Material y Método

Revisión retrospectiva y descriptiva de las fichas clínicas de los casos de AVL en adultos operados del Servicio de ORL del HBLT informadas por biopsia en el Servicio de Anatomía Patológica del mismo hospital, entre los años 2015 a 2020. Se consignaron antecedentes, presentación clínica, características endoscópicas e imagenológicas, manejo, informe de biopsia y evolución. Se realizó una revisión de la literatura al respecto. Este trabajo fue aprobado por el comité de ética del Hospital Barros Luco Trudeau. Todos los pacientes firmaron consentimiento informado para el registro y

obtención de imágenes y para la realización de la cirugía respectiva.

Resultados

En la Tabla 1 se observa un resumen de los casos encontrados.

Caso Clínico 1

Mujer de 59 años, con antecedentes de hipotiroidismo y tabaquismo con un índice de consumo de paquetes por año (IPA) de 10. Consulta por 5 años de evolución de disfagia lógica de curso intermitente asociado a tos seca ocasional. Inicia estudio en otro centro con nasofibroscopia (NFC) en la que se describe gran masa tumoral con pedículo en la región retrocricoidea y aritenoidea derecha de coloración violácea (Figura 2a) y una tomografía computada (TC) de cuello con contraste (Figura 2b), más biopsia por laringoscopia directa que informó hemangioma capilar con hemorragia perilesional.

Con el diagnóstico de hemangioma capilar laríngeo es derivada al Servicio de ORL del HBLT para evaluación y resolución quirúrgica. Se realiza resección bajo microcirugía laríngea con laringoscopia directa por suspensión, utilizando Sistema láser de CO₂ tipo 40c, *Lumenis Co. Micromanipulador Acuspot 712, Scanner SurgiTouch* modo superpulso continuo, resecando lesión desde la base del pedículo con hemostasia prolija. Biopsia diferida informó linfangioma de laringe (Figura 2c). La paciente

Tabla 1. Resumen resultados								
	Sexo	Edad (años)	Síntomas	NFC	Imagen	Manejo	Biopsia	Complicación/ Recidiva
1	F	59	Disfagia	Sí	TC	Resección láser CO ₂	Linfangioma	No
2	F	30	Faringodinia	Sí	RM	Radiofrecuencia	Hemangioma capilar	No
3	M	61	Vía aérea difícil	Sí	TC	Resección láser CO ₂	Hemangioma cavernoso	No
4	M	67	Insuficiencia respiratoria	Sí	TC y RM	Laringectomía total por laringe disfuncional	Hemangioma cavernoso Carcinoma escamoso	Sí
5	M	43	Disfonía	Sí	TC	Laringofisura + TQT transitoria	Hemangioma cavernoso	No

ARTÍCULO DE INVESTIGACIÓN

se mantiene en control sin signos de complicación ni recidiva de la lesión (Figura 2d).

Caso Clínico 2

Mujer de 30 años de edad, con antecedentes de hipotiroidismo, cursando séptimo mes de embarazo. Consulta por cuadro caracterizado por faringodinia y sensación de cuerpo extraño faríngeo. A la NFC se constata lesión supraglótica. Se mantiene en control clínico seriado

y con NFC (Figura 3a) hasta el término de su embarazo sin presentar complicaciones de vía aérea. Se realiza resonancia magnética (RM) de cuello que muestra lesión bien delimitada (Figura 3b). Dado persistencia posterior al parto de sintomatología y tamaño de lesión se realiza resección quirúrgica bajo anestesia general, mediante laringoscopia de suspensión, visión endoscópica con óptica de 30° y punta de radio frecuencia laríngea Marca *Cobleitor Procise LW Wand Ei7070-01* (Figura 3c). Biopsia diferida informa hemangioma capilar. La paciente se mantiene en control ambulatorio, asintomática.

Caso Clínico 3

Hombre de 61 años con antecedentes de macroadenoma hipofisiario operado e hipotiroidismo en tratamiento. Consulta por antecedente de intubación difícil en relación con cirugía. Cuenta con informe de TC de cuello con contraste realizado hace 10 años en cuyo informe se describe como hallazgo una lesión de aspecto nodular postero-medial del pliegue ariepiglótico izquierdo que mide 14 x 11 x 19 mm y se impregna, tenuemente, con el uso de contraste, sugerente de hemangioma. Se realiza NFC en la que se visualiza una masa no oclusiva de color rojo violáceo en repliegue arienoepiglótico (RAE) izquierdo que bascula sobre seno piriforme izquierdo (Figura 4a).

Dado complicaciones de vía aérea se decide en conjunto con la paciente, resección de lesión mediante laringoscopia directa de suspensión y Sistema láser de CO₂ tipo 40c, *Lumenis Co. Micromanipulador Ácuspot 712, Scanner SurgiTouch* modo superpulso continuo bajo anestesia general, que se realiza sin incidentes (Figura 4b), logrando resección completa de la lesión (Figura 4c). Evoluciona sin complicaciones. Biopsia diferida concluye hemangioma cavernoso. Paciente se mantiene en control ambulatorio sin signos de complicación ni recidiva (Figura 4d).

Caso Clínico 4

Hombre de 67 años con antecedentes de hipertensión arterial, hipotiroidismo, tabaquismo activo con un IPA de 34. Consultó en servicio de urgencias HBLT por disnea progresiva de aproximadamente 2 meses de evolución, a la que se añade estridor larín-

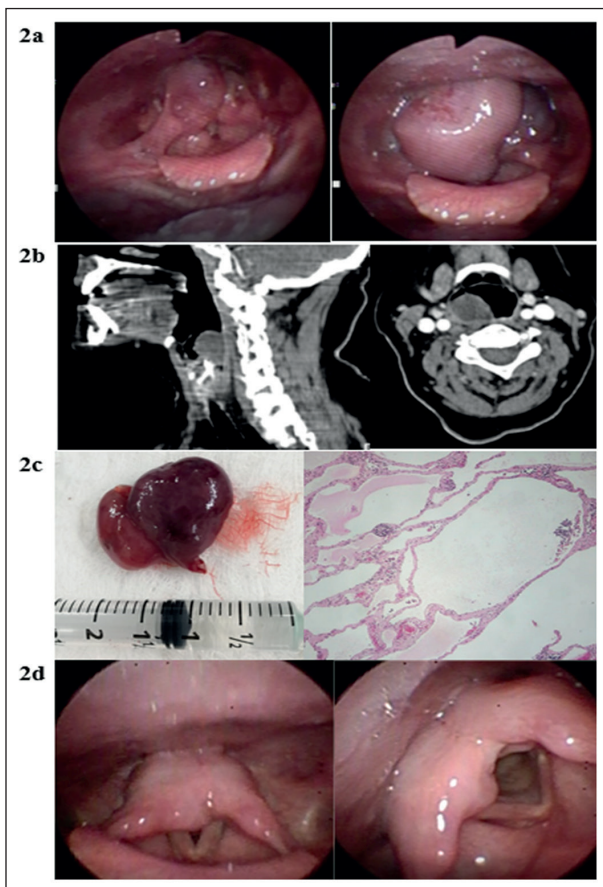


Figura 2. Caso clínico 1. **2a** Nasofibroscopia: Masa de color violáceo y superficie lisa, con pedículo en la región retrocricóidea, que se extiende hasta ambos repliegues arienoepiglóticos basculando entre seno piriforme derecho y vestibulo laríngeo, sin compromiso de epiglotis ni otras estructuras y que la paciente deglute en ocasiones. **2b** TC cuello con contraste: En región supraglótica derecha imagen de baja densidad de 35 x 20 x 24 mm sin refuerzo con medio de contraste. **2c**: Pieza operatoria y biopsia. Masa lobulada de contornos lisos, mide 3 x 2 x 1 cm, color rojo violáceo. A la tinción con hematoxilina eosina muestra espacios vasculares irregulares en estroma fibroso con acúmulos linfoides, sin sangre. **2d**: NFC control 6 meses posoperatorio sin signos de complicación local ni recidiva.

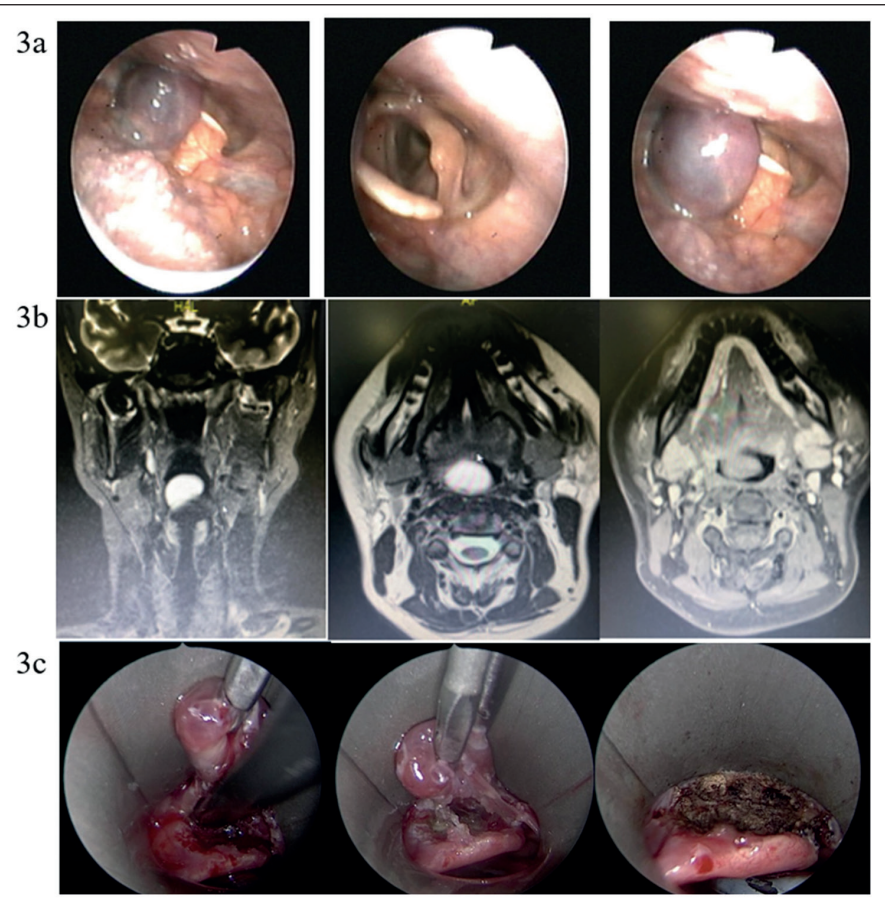


Figura 3. Caso Clínico 2. **3a** NFC: Lesión exofítica, esférica, violácea-azulada, de contornos lisos, con base de implantación en la cara lingual de epiglótis derecha, glotis indemne. **3b** RM de cuello: Coronal T2, axial T2, axial T1. Lesión bien delimitada de 2,5 cm, hiperintensa en T2, de pared fina que refuerza discretamente con gadolinio. **3c** Cirugía: Resección quirúrgica con punta de radiofrecuencia, lecho quirúrgico.

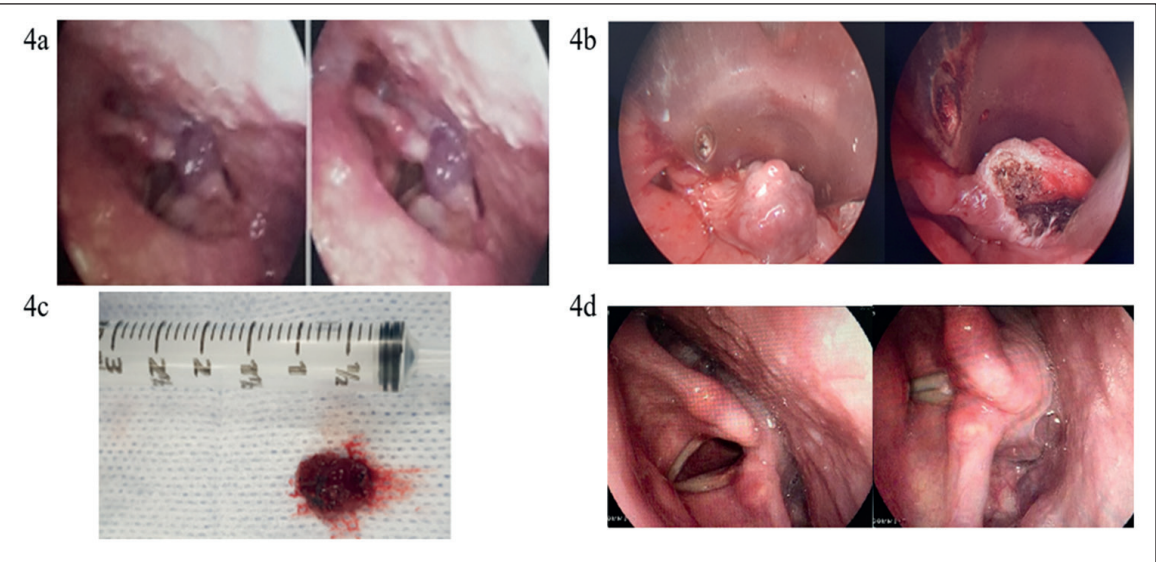


Figura 4. Caso Clínico 3. **4a** NFC: masa rojo-violácea, bien delimitada en RAE izquierdo. **4b** cirugía: Visión intraoperatoria y lecho quirúrgico. **4c** Pieza quirúrgica. **4d** NFC control sin signos de complicación ni recidiva

ARTÍCULO DE INVESTIGACIÓN

geo y mala mecánica ventilatoria. Se realizó TC de cuello (Figura 5a) que informó lesión sospechosa tumoral a nivel de borde libre de la epiglotis izquierda, improntando la grasa pre-epiglótica. Se decide intubar y conectar a paciente a ventilación mecánica. En estas condiciones es evaluado por equipo de ORL HBLT y se decide realizar traqueostomía quirúrgica, más laringoscopia de suspensión, en la que se describe aumento de volumen y mucosa redundante en RAE izquierdo que se biopsia. Biopsia informa hemangioma capilar.

Paciente evoluciona de manera tórpida, con trastorno deglutorio y aumento clínico de la lesión laríngea, que se visualiza en la NFC (Figura 5b). Se repiten biopsias por canal de trabajo, manteniendo mismo informe. Se

realiza RM de cuello (figura 5c) que informa lesión sugerente de carácter neoplásico, con infiltración extralaríngea transcartilaginosa a izquierda, de contornos más irregulares y menos definidos, visualizando una adenopatía en el compartimento II izquierdo.

Con los nuevos antecedentes se plantea una laringectomía total por laringe disfuncional con alta sospecha de cáncer. Biopsia de pieza quirúrgica informa carcinoma escamoso.

Caso Clínico 5

Hombre, 43 años, con antecedentes de tabaquismo con un IPA de 3. Consulta por historia de 1 año de evolución de disfonía progresiva persistente a la que se asocia disfagia en los últimos 3 meses. Se realiza NFC que mostraba una gran masa supraglótica que obstruye, parcialmente, la vía aérea (figura 6a) y TC de cuello (figura 6b), planteando diagnóstico de tumor laríngeo supraglótico de probable etiología benigna y se realiza resección quirúrgica mediante laringofisura con traqueostomía, la cual se realizó sin incidentes. La biopsia de la pieza operatoria informó un hemangioma cavernoso de laringe (Figura 6c). El paciente evolucionó de manera favorable. Se realizó decanulación al séptimo día y se le otorgó el alta en buenas condiciones. Se mantiene en control asintomático desde el punto de vista ORL con NFC a los 2 años, sin signos de recidiva ni complicaciones (Figura 6d).

Discusión

Pese a que la ISSVA propone su clasificación desde 1996, basada en el trabajo de Mulliken y Glowacki y cuya última actualización fue publicada en 2018^{1,2}, entre el 60% a 70% publicaciones anglosajonas en estos últimos dos años no utilizan esta clasificación¹, utilizando al igual que nosotros la clasificación morfológica.

La clasificación morfológica se basa de acuerdo al tamaño de los vasos y el grosor de la pared diferenciando 3 tipos: capilares, cavernosos y mixtos. El tipo cavernoso es el más común en adultos, observándose vasos dilatados y una pared delgada¹⁷. La etiología exacta no es completamente conocida, la mayoría son congénitos y lentamente progresivos. Se

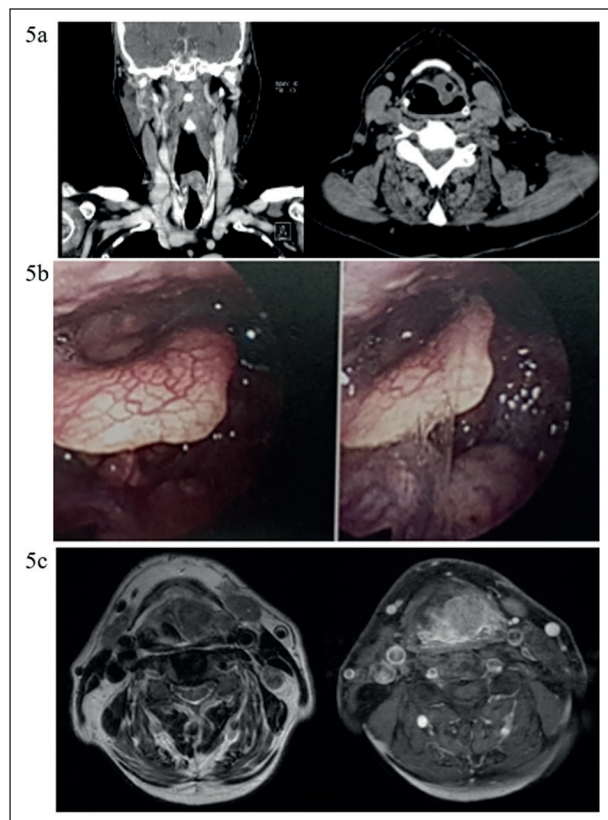


Figura 5. Caso Clínico 4. **5a** TC de cuello. **5b** NFC con paciente traqueostomizado, se visualiza ocupación supraglótica por tumor rojo violáceo, que obstruye vía aérea. **5c** RM de cuello corte axial T1 con gadolínico y corte axial T2: Lesión laríngea con significativa compresión de la vía aérea, con infiltración extralaríngea transcartilaginosa a izquierda, de contornos más irregulares. Adenopatía en el compartimento II izquierdo.

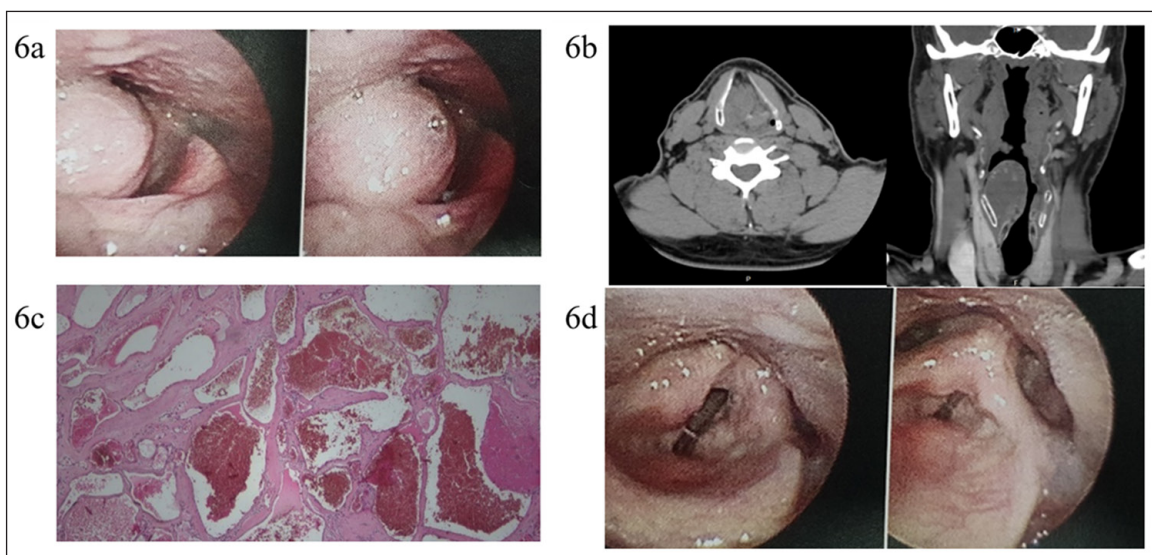


Figura 6. Caso Clínico 5: **6a** NFO: gran masa supraglótica de superficie homogénea con mucosa que impresiona sana en receso aritepiglotico derecho y que obstruye parcialmente la vía aérea. **6b** TC de cuello con contraste: lesión solida redondeada en el espacio paralaríngeo y derecho de 5 x 4 cm con refuerzo heterogéneo. Sin afectación de planos adyacentes ni presencia de adenopatías. **6c** Histología con tinción hematoxilina eosina: se observan vasos sanguíneos dilatados con células endoteliales planas y formación de algunos trombos en su interior. **6d** NFO control: a 2 años posoperatorio, sin signos de recidiva ni complicaciones.

ha descrito que los hemangiomas cavernosos pueden crecer en relación a cambios hormonales, infección, trauma o posterior a una cirugía, como el caso de nuestra paciente embarazada que inicio su sintomatología durante su embarazo¹⁸⁻²⁰, mientras que en adultos es muy infrecuente. En adultos, tiene mayor incidencia en hombres y su ubicación más frecuente es supraglótica. Su histología más frecuente es el hemangioma cavernoso (HC).

De acuerdo con la morfología extrapolada de los hemangiomas traqueales, los hemangiomas laríngeos capilares pueden clasificarse en planos, plano tuberosos o tuberonodales, y los cavernosos pueden clasificarse en submucoso, intramurales, transmurales⁷. En su estudio, Wu y cols., clasificaron a los hemangiomas laríngeos en grados mediante observación por laringoscopia, evaluando su tamaño en grados del 1 al 3 usando un método semicuantitativo basado en su eje mayor⁹.

Por otra parte, en la literatura disponible se realiza la distinción entre hemangiomas infantiles y adultos^{5,14,21-23}. Los hemangiomas que se diagnostican en la infancia se clasifican en el hemangioma infantil, hemangioma congénito y otros (Figura 1). El hemangioma

infantil es el tumor congénito más frecuente en niños en cabeza y cuello (65%), pero la ubicación en laringe es infrecuente, localizándose principalmente en la subglotis. Se ha visto una regresión espontánea en al menos la mitad de los niños a los 5 años, con buena respuesta al propranolol^{5,6,21}.

Los hemangiomas en adultos son lesiones muy poco frecuentes, más aún en la laringe, donde puede ser limitada a la glotis o supraglótica y en algunos casos se extiende a la hipofaringe⁵. De acuerdo a lo descrito en la literatura hay una predominancia en el género masculino y no muestran tendencia a la regresión espontánea, con potencial riesgo de sangrado y compromiso de vía aérea al igual que en nuestros pacientes^{5,14,24}.

La clasificación propuesta por la ISSVA es una clasificación etiológica que permite distinguir con IHQ los diferentes subgrupos de anomalías vasculares que tiene una correlación con estirpes celulares específicas⁸. Es así, como la presencia GLUT1 (*human glucose transporter protein isoform-1*) en un tumor vascular es altamente sensible y específico para hemangioma infantil que tiene buena respuesta tratamiento médico con propranolol^{6,25}.

ARTÍCULO DE INVESTIGACIÓN

Estudios muestran que los diagnósticos con la clasificación morfológica pueden variar al aplicar estos nuevos criterios, lo cual podría tener implicancia en el tratamiento y pronóstico entregado a los pacientes¹⁶. Sin embargo, existe poca disponibilidad de los reactivos para realizar esta nueva clasificación. Los síntomas descritos dependerán de la localización de la lesión, pudiendo presentar sangrado del tracto respiratorio superior, sensación de cuerpo extraño faríngeo o laríngeo, disnea, disfonía, disfagia y ronquido. Se describen también como hallazgo en pacientes asintomáticos, lo que depende del volumen de la lesión. Lesiones pequeñas pueden ser hallazgos y lesiones más voluminosas pueden presentar síntomas intermitentes¹⁴ o ser causa de muerte por obstrucción de vía aérea¹⁵.

El diagnóstico se realiza, principalmente, por historia y examen físico. El hallazgo a la evaluación endoscópica parece ser suficiente, ya que característicamente, como en nuestros casos, se identifica una masa azul-violácea, lobulada, de contornos lisos en la que se puede definir un sitio de implantación. Puede completarse el estudio con imágenes si se necesita evaluar la extensión, precisar mejor el tamaño y las relaciones anatómicas de la lesión^{5,22-26}.

La TC de cuello con contraste es una buena aproximación, pero a veces no es suficiente para evaluar partes blandas, donde la RM tiene mayor utilidad. Los hemangiomas en RM muestran una señal iso o intermedia en T1 y relativamente hiperintensa en T2, con captación de contraste²⁷. Los linfangiomas pueden presentar estructura micro (< 2 cm) o macro quísticas (> 2 cm) hiperintensas en T2 con mínimo realce periférico y una señal en T1 variable^{27,28}. La combinación de la evaluación endoscópica, TC y/o RM, pero de preferencia la RM, facilita la delineación y diagnóstico de las AVL con extensiones profundas²². Sin embargo, el diagnóstico definitivo será mediante la evaluación de anatomía patológica.

La condición y evolución clínica son fundamentales para la toma de decisiones y seguimiento de los pacientes. Queremos destacar que dos de nuestros pacientes tenían biopsia que informaba hemangioma, pero estos presentaron biopsias definitivas de linfangioma y carcinoma escamoso.

Es importante considerar que las AVL son

infrecuentes y deben diferenciarse de otras lesiones laríngeas benignas, como granulaciones polipoideas vasculares que se pueden producir en relación con biopsias, intubación o trauma vocal, y tener un diagnóstico diferencial amplio: neoplasia de glándula salival menor, sarcomas, neurofibroma, carcinoma escamoso o linfoma laríngeo, entre otros, por lo que se debe mantener una alta sospecha clínica acorde al escenario del paciente. Destacamos lo ocurrido con nuestro paciente en el caso cuatro, el cual tenía biopsias que informaban hemangioma, sin embargo, esto no era concordante con la clínica y los factores de riesgo, confirmando finalmente carcinoma en la pieza quirúrgica definitiva de laringectomía total por laringe disfuncional. Esto ocurrió, probablemente, porque la lesión era hipervascularizada y las muestras de biopsia fueron, lamentablemente, superficiales.

En cuanto al tratamiento, no hay un protocolo bien establecido para el manejo de AVL en adultos, y dado que existen pocos casos descritos en la literatura, este debiera basarse en la clasificación, forma y tamaño de la base de implantación, así como de las técnicas y recursos disponibles en cada centro⁹. En el caso de lesiones pequeñas o asintomáticas, se podría plantear la observación^{24,25}, sin embargo, no nos parece una conducta adecuada considerando que existe un reporte de caso con resultado fatal¹³.

Se han descrito tratamientos médicos como corticoide intralesional, escleroterapia, entre otros y tratamiento quirúrgico que puede ir solo o asociado a medidas complementarias^{5,24}. Los agentes esclerosantes se han utilizado para disminuir el tamaño de lesiones permitiendo una cirugía más llevadera²¹. Dentro de ellos encontramos a la bleomicina que produce apoptosis celular indiferenciada y, además, tiene un efecto específico esclerosante en el endotelio vascular con utilidad en el tratamiento de AV³⁰.

Dentro de los tratamientos quirúrgicos se puede realizar abordaje abierto o endoscópico, utilizando para la recesión técnica fría, monopolar, bipolar, láser CO₂, radiofrecuencia y cirugía robótica. Bannon y cols.²⁴ describe un caso de hemangioma laríngeo resecado con una pinza bipolar de laparoscopia introducida a través del laringoscopio, en un paciente que tuvo compromiso de vía aérea y que no se

logró la resección con monopolar ni se logró una buena embolización dado que no se logró identificar un vaso fuente. Este procedimiento ofrece un sello del tejido en 1 a 6 segundos, a una temperatura máxima que no excede los 100°C en la superficie, limitando el daño en los tejidos circundantes. En este paciente se reporta un seguimiento de 1 año sin evidencias de recurrencia²⁴.

Wang y cols.²² presenta un caso de hemangioma laríngeo en adulto resecado con bisturí ultrasónico por un acceso lateral a la hipofaringe, sin describir complicaciones del procedimiento y con un seguimiento del paciente por dos años sin signos de recurrencia, planteando esta modalidad como una alternativa segura, efectiva y poco invasiva para el manejo de hemangiomas laríngeos en adultos²².

Dentro de los principales tipos de láser usados en otorrinolaringología se encuentra el láser CO₂, el Nd YAG (*Yttrium-aluminum-garnet*) y el KTP (*fosfato de titanio potásico*), entre otros³¹. El láser CO₂ es totalmente absorbido por el vidrio, por lo que no puede usarse acoplado a un endoscopio³¹. Provee una destrucción controlada de tejidos con vaporización de agua y cauteriza la superficie de los tejidos¹⁴, esto permite una precisa escisión de neoplasias laríngeas benignas, causando un sangrado escaso sin dañar tejidos profundos, ya que su penetración es menor a 1 mm (30 µm)³¹. Se recomienda una vaporización con láser CO₂ en hemangiomas limitados a la supraglotis o pediculados, con una modalidad de súper pulso a 4-8 W^{5,14}, esto permite un intervalo de “enfriamiento” que disminuye el daño tisular adyacente³¹. Lucioni y cols.¹⁴ en 2006 describe seis casos de hemangioma laríngeo en adulto, en un período de 3 años, todos tratados con resección de láser CO₂, dos de los seis pacientes requirieron traqueostomía transitoria previo al procedimiento, con decanulación exitosa al quinto día; dentro de las complicaciones que describe, lo más frecuente fue un sangrado intra operatorio significativo¹⁴. En otras publicaciones, se ha indicado que el láser podría producir daño a la mucosa adyacente o desarrollo de estenosis en el posoperatorio²³. De los pacientes manejados con láser CO₂ en nuestro centro (casos 1 y 3) podemos señalar que esta técnica permitió la resección completa de la lesión, sin complicaciones intraoperatorias ni

posoperatorias, sin necesidad de traqueotomía transitoria y, hasta la fecha, no hay recurrencia.

El láser KTP tiene una penetración mayor que el láser CO₂, alcanzando hasta 0,9 mm. Es preferentemente absorbido por la hemoglobina, por lo que se puede direccionar con fibra óptica a los tejidos mediante los instrumentos de mano y el microscopio, lo que le daría mayor precisión con un abordaje mínimamente invasivo con escaso sangrado^{5,31,32}. Se describe la experiencia en 1 caso clínico con láser KTP, sin observar complicaciones ni recurrencia a 6 meses en este paciente⁵, sin embargo, existen reportes de que al ser usado por laringoscopia directa provee una visión restringida y es de alto costo⁹.

El láser Nd-YAG puede ser utilizado a través de fibra óptica. La absorción energética depende de la pigmentación de la célula blanco, siendo mejor para la sangre que para los tejidos circundantes. Genera efecto térmico en profundidad, con una penetración a tejidos de hasta 4 mm, lo que en algunos casos podría determinar necrosis tisular a largo plazo, lo que es difícil de predecir^{31,32}. Wu y cols.⁹ reportan una serie retrospectiva de pacientes tratados con uso de tres alternativas terapéuticas: 27 casos tratados con quimioterapia (*pingyagmycin* y bleomicina intralesionales), 9 casos tratados con láser KTP y 12 casos tratados *pingyagmycin* más láser CO₂ mostrando buenos resultados en las tres modalidades con mayor eficacia del grupo en que se combinó quimioterapia más láser CO₂ (90,9% de eficacia). No observaron efectos adversos, considerando que las lesiones fueron tratadas selectivamente, balanceando las ventajas y desventajas potenciales de cada técnica para cada paciente, con las correspondientes evaluaciones cardiovasculares para el uso de quimioterapia. Manifiestan que prefirieron láser CO₂ cuando el hemangioma estaba bien localizado, con base de implantación pequeña y con buena exposición y quimioterapia cuando se trataba de lesiones muy voluminosas y extensas, y láser KTP en lesiones planas y solevantadas⁹.

La terapia combinada también ha sido reportada por Xu y cols.³⁰, quienes en el año 2019 reportan una serie de 30 pacientes tratados con bleomicina intralesional y resección con electrobisturí envainado en caucho mediante laringoscopia de suspensión, con una tasa de

ARTÍCULO DE INVESTIGACIÓN

curación de casi un 97% a 3 años de seguimiento. Este reporte muestra una alternativa al uso del láser en centros que no lo tengan disponible.

Huang y cols.¹⁷ presentan un caso de un gran hemangioma laríngeo recurrente manejado con radioterapia tras fracaso de tratamiento farmacológico con corticoides y en quien se desestimó una cirugía por un alto riesgo de hemorragia masiva. En este paciente se logró una reducción tumoral de un 50% a 60% y no tuvo complicaciones durante el período de seguimiento (15 meses)¹⁷, sin embargo, dada la posibilidad de inducción de malignidad, es necesario un seguimiento a largo plazo del paciente.

Wang y cols.²³ reportan un caso de hemangioma laríngeo tratado con cirugía transoral robótica con resultados satisfactorios. Este sistema permite utilizar instrumental de características adaptables y precisas, evitando la extracción excesiva de tejidos normales circundantes y acortando el tiempo de recuperación poscirugía dado el enfoque mínimamente invasivo. La pérdida de sangre es mínima por lo que se podría recomendar esta técnica para hemangiomas laríngeos pequeños o medianos²³.

La radiofrecuencia *coblation* es un proceso no térmico controlado, que utiliza energía eléctrica para excitar los electrolitos de un medio conductor y romper enlaces moleculares dentro del tejido, lo que produce la descomposición del tejido a temperaturas relativamente bajas. Se han reportado pocos estudios de uso radiofrecuencia en hemangioma laríngeo, pero con buenos resultados. Dentro de las ventajas de este método sobre el láser CO₂ se encuentran: un menor costo, facilidad de uso con endoscopio y bajo daño a los tejidos con buena hemostasia³³⁻³⁵.

Dentro de los factores pronósticos y que determinan la elección de una técnica sobre otra, uno de los más importante a considerar es el tamaño de la base de implantación de la lesión. En el caso 5, la lesión no está al alcance de la microcirugía laríngea y la laringofisura con traqueostomía transitoria permitió dar una solución eficaz al paciente⁹. Después de la escisión es necesario un seguimiento estricto del paciente en el posoperatorio por el riesgo de sangrado secundario y posibilidad de recurrencia¹⁴.

En el caso de los linfangiomas laríngeos, la conducta terapéutica es mandatoria, puesto que en casos de infección los síntomas pueden empeorar rápidamente y llevar a complicaciones como obstrucción de vía aérea¹⁰. En las escasas publicaciones respecto a tratamiento de linfangioma laríngeo se describe la escisión quirúrgica, laser, *debulking*, escleroterapia y corticoides intralesionales. En la mayoría de las veces se requiere traqueotomía para proteger la vía aérea. La cirugía láser es considerada particularmente adecuada para lesiones en laringe, ya que permite ablación precisa y delimitando el tejido para mantener funcionalidad. Pese a una escisión completa de la lesión, la tasa de recurrencia es alta¹⁰⁻¹².

Como hemos visto, el tratamiento quirúrgico de preferencia endoscópico para las lesiones sintomáticas constituye el pilar de tratamiento en las anomalías vasculares de laringe en adultos, ya que nos permite tener certeza histológica de la lesión, alivianar los síntomas y evitar complicaciones. Tratamientos médicos asociados estarían indicados para disminuir masa tumoral y en caso de tener contraindicaciones de cirugía.

Conclusión

Las AVL en el adulto son poco frecuentes de observar. Se deben sospechar en pacientes que consultan por síntomas aéreo digestivos altos que presentan una masa laríngea cubierta por mucosa normal y complementar con estudio imagenológico para definir la extensión de la lesión. Se recomienda el uso de la clasificación (ISSVA 2018) etiológica más que morfológica, ya que tiene implicancia en el manejo de las anomalías vasculares. En la mayoría de los casos será necesaria una intervención quirúrgica para determinar la etiología de la lesión.

Un procedimiento quirúrgico realizado endoscópicamente es, generalmente, suficiente para extirpar completamente la lesión. Sin embargo, no deben descartarse los procedimientos externos como la laringofisura, principalmente cuando la visión y/o el acceso endoscópico es limitado. En centros donde no está disponible el láser para la resección quirúrgica, la evidencia disponible respalda el uso de otras técnicas endoscópicas. La elección

de la terapia para el paciente debe incluir la edad del paciente, el tipo de tumor, tamaño y la localización, así como también los recursos locales.

Bibliografía

1. International Society for the Study of Vascular Anomalies ISSVA classification for vascular anomalies (Approved at the 20th ISSVA Workshop, Melbourne, April 2014, last revision May 2018) 2018 February 2019. Disponible en <http://www.issva.org/classification>. Consultado en Mayo de 2021.
2. International Society for the Study of Vascular Anomalies. ISSVA classification for vascular anomalies. 2014 July 2017. Disponible en: <http://www.issva.org/UserFiles/file/Classifications-2014-Final.pdf>. Consultado en Mayo de 2021.
3. DeHart A, Richter G. Hemangioma: Recent advances. *F1000Research*. 2019; 8:6-11.
4. Saraydaroglu O, Narter S, Ozsen M, Coskun H. Non-epithelial tumors of the larynx: case series of 12 years. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2019;276(10):2843-2847. doi:10.1007/s00405-019-05527-0.
5. Lin YH, Ho HC. Adult Laryngeal Hemangioma. *Tzu Chi Medical Journal*. 2010; 22(4): 237-240.
6. Osorio M. J, Gajardo O. P, Tapia M. C. Propanolol for the treatment of subglottic hemangioma- A new therapeutic alternative. Case Report. *Revista Chilena Pediatría*. 2013;84(2):182-188.
7. Cholewa D, Waldschmidt J. Laser treatment of hemangiomas of the larynx and trachea. *Lasers Surg Med*. 1998;23(4):221-232. doi:10.1002/(sici)1096-9101(1998)23:4<221::aid-lsm5>3.0.co;2-a.
8. Rastogi K, Singh L, Khan NA, Goyal S, Khatri A, Gupta N. Benign vascular anomalies: A transition from morphological to etiological classification. *Ann Diagn Pathol*. 2020;46:151506. doi:10.1016/j.anndiagpath.2020.151506.
9. Wu X, Mao W, He P, Wei C. Curative effect of chemotherapy, KTP lasers, and CO₂ lasers combined with chemotherapy in the treatment of adult laryngeal hemangioma. *Acta Otolaryngol*. 2018;138(6):567-573. doi:10.1080/00016489.2017.1419577.
10. Gupta N, Goyal A, Singh PP, Sharma S. Isolated laryngeal lymphangioma: a rarity. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg*. 2011;63(Suppl 1):90-92. doi:10.1007/s12070-011-0210-1.
11. Vaishali B, Nambiar A, Indudharan R. Lymphangioma of the larynx. *J Laryngol Otol*. 2007;121(4):e2. doi:10.1017/S0022215107005695.
12. Naito K, Iwata S, Nishimura T, Yagisawa M, Sakurai K. Laryngeal lymphangioma--case report. *Auris Nasus Larynx*. 1985;12(2):111-116. doi:10.1016/s0385-8146(85)80008-0.
13. Cohen SR, Thompson JW. Lymphangiomas of the larynx in infants and children. A survey of pediatric lymphangioma. *Ann Otol Rhinol Laryngol Suppl*. 1986;127:1-20. doi:10.1177/00034894860950s601.
14. Lucioni M, Marioni G, Della Libera D, Rizzotto G. Adult laryngeal hemangioma CO₂ laser excision. A single institution 3-year experience (Vittorio Veneto 2001-2003). *Acta Otolaryngol*. 2006;126(6):621-626. doi:10.1080/00016480500452517.
15. Kiho L, Byard RW. Acute fatal upper airway obstruction from an occult cavernous hemangioma of the larynx. *J Forensic Sci*. 2015;60 Suppl 1:S93-S96. doi:10.1111/1556-4029.12587.
16. Steele L, Zbeidy S, Thomson J, Flohr C. How is the term haemangioma used in the literature? An evaluation against the revised ISSVA classification. *Pediatr Dermatol*. 2019;36(5):628-633. doi:10.1111/pde.13885.
17. Huang CM, Lee KW, Huang CJ. Radiation therapy for life-threatening huge laryngeal hemangioma involving pharynx and parapharyngeal space. *Head Neck*. 2013;35(4):E98-E101. doi:10.1002/hed.21919.
18. Gauna F, Moreno P, Abarca A, Cancino M, Arregui R. Hemangioma cavernoso laríngeo en adultos: Reporte de un caso y revisión de la literatura. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello*. 2018;78: 84-88. doi: 10.4067/s0717-75262018000100084.
19. Baer AH, Parmar HA, DiPietro MA, Kasten SJ, Mukherji SK. Hemangiomas and vascular malformations of the head and neck: a simplified approach. *Neuroimaging Clin N Am*. 2011;21(3):641-viii. doi:10.1016/j.nic.2011.05.007.
20. Kurdoglu Z, Kurdoglu M, Cankaya H. An unusual cause of dyspnea in a pregnant woman: supraglottic hemangioma. *Ear Nose Throat J*. 2014;93(8):E11-E13. doi:10.1177/014556131409300820.
21. Shpitzer T, Noyek AM, Witterick I, et al. Noncutaneous cavernous hemangiomas of the head and neck. *Am J Otolaryngol*. 1997;18(6):367-374. doi:10.1016/s0196-0709(97)90055-7.
22. Wang X, Zhao X, Zhu W. Resection of a laryngeal hemangioma in an adult using an ultrasonic scalpel: A case report. *Oncol Lett*. 2015;9(6):2477-2480. doi:10.3892/ol.2015.3069.
23. Wang WH, Tsai KY. Transoral robotic resection of an adult laryngeal haemangioma and review of the literature. *J Laryngol Otol*. 2015;129(6):614-618. doi:10.1017/S0022215115001036.
24. Bannon R, Gohil R, Manickavasagam J. Laparoscopic instrument use in laryngeal surgery: transoral resection of a supraglottic haemangioma. *J Laryngol Otol*. 2017;131(9):823-826. doi:10.1017/S0022215117001438.
25. Zhang B, Ma L. Updated classification and therapy of vascular malformations in pediatric patients. *Pediatr Investig*. 2018;2(2):119-123. Published 2018 Jul 16. doi:10.1002/ped4.12043.

ARTÍCULO DE INVESTIGACIÓN

26. Martins RH, Lima Neto AC, Semenzate G, Lapate R. Laryngeal hemangioma. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2006;72(4):574. doi:10.1016/s1808-8694(15)31009-0.
27. Brahmbhatt AN, Skalski KA, Bhatt AA. Vascular lesions of the head and neck: an update on classification and imaging review. *Insights Imaging*. 2020;11(1):19. doi:10.1186/s13244-019-0818-3.
28. Güneyli S, Ceylan N, Bayraktaroğlu S, Acar T, Savaş R. Imaging findings of vascular lesions in the head and neck. *Diagnostic and Interventional Radiology*. 2014;20(5):432-437.
29. Bennett ML, Fleischer AB Jr, Chamlin SL, Frieden IJ. Oral corticosteroid use is effective for cutaneous hemangiomas: an evidence-based evaluation. *Arch Dermatol*. 2001;137(9):1208-1213. doi:10.1001/archderm.137.9.1208.
30. Xu S, Yu Y, ElHakim H, Cui X, Yang H. The Therapeutic Effect of the Combination of Intratumor Injection of Bleomycin and Electroresection/ Electrocautery on the Hemangiomas in Hypopharynx and Larynx Through Suspension Laryngoscopy. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2019;128(6):575-580. doi:10.1177/0003489419831715.
31. Castillo M, Lanas A. Láser en otorrinolaringología. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello*. 2006;66:126-132.
32. Orgain C, Rothholtz V, Wong B. Laser/Light applications in Otolaryngology. in Nouri K, et al *Lasers in Dermatology and Medicine: Dental and Medical Applications*. 2018. Chapter 5: 81-113.
33. Carney AS, Timms MS, Marnane CN, Krishnan S, Rees G, Mirza S. Radiofrequency coblation for the resection of head and neck malignancies. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2008;138(1):81-85. doi:10.1016/j.otohns.2007.08.022.
34. Gonik N, Smith LP. Radiofrequency ablation of pediatric vallecular cysts. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2012;76(12):1819-1822. doi:10.1016/j.ijporl.2012.09.008.
35. Somogyvári K, Gerlinger I, Lujber L, Burián A, Móricz P. Radiofrequency transoral microsurgical procedures in benign and malignant laryngeal and hypopharyngeal lesions (institutional experiences). *ScientificWorldJournal*. 2015;2015:926319. doi:10.1155/2015/926319.