

Abordagem clínico-cirúrgica de Linfangiomatose Cervical Ventral em canino: relato de caso

Clinical-surgical approach to Ventral Cervical Lymphangiomatosis in a canine: a case report

Emanuel Tres **Bernicker**^{1*} , Andressa Antunes **de Lima**² , Rayssa Emiliavaca **de Moraes**³ , Bianca Maria Odorcick **da Silva**³ , Renata **Seibel**³ , Valentina Ricci **de Oliveira**³ , Tanise Policarpo **Machado**³ , Michelli Westphal **de Ataíde**⁴ 

¹Programa de Residência em clínica cirúrgica de pequenos animais, Universidade de Passo Fundo (UPF), Passo Fundo-RS, Brasil.

²Programa de Residência em clínica médica de pequenos animais, Universidade de Passo Fundo (UPF), Passo Fundo-RS, Brasil.

³Universidade de Passo Fundo, Passo Fundo-RS, Brasil.

⁴Escola de Ciências Agrárias, Inovação e Negócios, Universidade de Passo Fundo (UPF), Passo Fundo-RS, Brasil.

*Autor para correspondência: emanuelbernicker@gmail.com

Informações do artigo

Palavras-chave

Capilares linfáticos
Histopatológico
Morfogênese linfática

DOI

10.26605/medvet-v18n3-6617

Citação

Bernicker, E. T., de Lima, A. A., de Moraes, R. E., da Silva, B. M. O., Seibel, R., de Oliveira, V. R., Machado, T. P., & de Ataíde, M. W. (2024). Abordagem clínico-cirúrgica de Linfangiomatose Cervical Ventral em canino: relato de caso. *Medicina Veterinária*, 18(3), 207-212.
<https://doi.org/10.26605/medvet-v18n3-6617>

Recebido: 18 de janeiro de 2024

Aceito: 24 de junho de 2024



Resumo

A linfangiomatose se caracteriza como malformações anatômicas nos capilares linfáticos. Na medicina veterinária, há poucos relatos disponíveis sobre esse distúrbio de morfogênese linfática. Seu diagnóstico é baseado em exames histopatológicos, e o tratamento de escolha é a excisão cirúrgica completa. O presente estudo relatou um caso de linfangiomatose cervical ventral recorrente em um cão, bem como sua abordagem clínico-cirúrgica. Um cão da raça Pastor Maremano Abruzês, macho, não castrado, com dois anos de idade, recebeu cuidados veterinários no sul do Brasil devido a um aumento de volume na região cervical ventral, conforme relatado pelo tutor cinco meses antes. Com base na história do paciente e nos exames anteriores, optou-se por um procedimento cirúrgico exploratório. O exame histopatológico confirmou o diagnóstico de linfangiomatose. O paciente retornou trinta dias após o procedimento com uma recorrência, exigindo uma nova intervenção cirúrgica para remover o tecido linfático restante. Trinta dias após a segunda cirurgia, o cão retornou ao hospital veterinário para avaliação clínica e remoção dos pontos, sendo observada completa recuperação da lesão cirúrgica sem recorrência.

Abstract

Lymphangiomatosis is characterized by anatomical malformations in the lymphatic capillaries. In veterinary medicine, there are few reports available on this lymphatic morphogenesis disorder. Diagnosis is based on histopathological examinations, and the treatment of choice is complete surgical excision. This study reported a case of recurrent ventral cervical lymphangiomatosis in a dog, and its clinical-surgical approach. A two-year-old, non-castrated male Maremano-Abruzzese Sheepdog received veterinary care in southern Brazil due to an increase in volume in the ventral cervical region, as reported by the tutor five months earlier. An exploratory surgical procedure was chosen based on the patient's history and previous exams. The histopathological examination confirmed the diagnosis of lymphangiomatosis. The patient returned thirty days after the procedure with a recurrence, necessitating a new surgical intervention to remove the remaining lymphatic tissue. Thirty days after the second surgery, the dog returned to the veterinary hospital for clinical evaluation and suture removal, showing complete recovery from the surgical lesion without recurrence.

Keywords: lymphatic capillaries; histopathological; lymphatic morphogenesis.

1 | Introdução

Na medicina humana, a linfangiomatose é uma condição congênita rara que envolve a proliferação benigna difusa e a dilatação dos vasos linfáticos, resultando em distúrbios hemostáticos e alterações anatômicas devido ao extravasamento de linfa (Le et al., 2020).

As malformações congênitas de origem linfática são raras na literatura veterinária e, inicialmente, foram denominadas de linfangiomas, sugerindo ser um processo neoplásico benigno. Contudo, o termo mais adequado, linfangiomatose, foi adotado devido à natureza dos distúrbios na morfogênese linfática (Kulungowski e Patel, 2020), levando ao uso intercambiável desses termos (Driessen et al., 2020; Park et al., 2023).

A sintomatologia observada consiste em neoformações cutâneas e subcutâneas, que se assemelham a edemas flutuantes, sendo capazes de mensurar até 18cm de diâmetro. A apresentação típica consiste em tumefações nodulares, geralmente indolores, que podem ser difusos e mal definidos, localizados em áreas como as regiões cervicais, axilares e inguinais (Driessen et al., 2020). Além disso, essas massas podem ulcerar, resultando na drenagem de fluidos claros proteicos ou quilosos (Park et al., 2023). Ainda, há uma forma menos comum, a generalizada, que pode afetar sistemicamente órgãos parenquimatosos, geralmente o baço ou pulmões, além de regiões intraperitoneais e ossos (Le et al., 2020).

A natureza benigna, mas infiltrativa, da linfangiomatose dificulta a distinção precisa entre anomalias linfáticas de outras patologias, se tornando úteis exames de imagem para a triagem e elaboração de planos de tratamento individualizados (Lodzinska et al., 2019). A tomografia computadorizada é considerada padrão-ouro para diagnóstico, pois permite visualizar a dimensão, morfologia e padrão da lesão. Além disso, a ultrassonografia pode detectar malformações linfáticas, que aparecem como massas multicísticas. Contudo, o diagnóstico definitivo ocorre através do exame histopatológico, microscopia eletrônica e imunohistoquímica. (Lodzinska et al., 2019; Snyder et al., 2022).

A abordagem terapêutica primária é a excisão cirúrgica completa, embora nem sempre seja viável devido ao possível envolvimento de múltiplas áreas anatômicas, estruturas vitais ou invasão de tecidos adjacentes, tornando-as ocasionalmente inoperáveis

(Kulungowski e Patel, 2020; Santos e Alessi, 2023). Nessas situações, o tratamento se concentra em controlar o acúmulo de líquido e aliviar os sintomas decorrentes da compressão dos órgãos circundantes (Le et al., 2020). Desta forma, este trabalho tem como objetivo relatar um caso de linfangiomatose em um canino, com ênfase na descrição clínica, diagnóstico e terapia.

2 | Descrição do Caso

Um canino da raça Pastor Maremano Abruzês, macho, não castrado, dois anos de idade e pesando 41,2kg, foi submetido a atendimento clínico veterinário no sul do Brasil com queixa de há cinco meses estar apresentando aumento de volume em região cervical e sialorreia persistente. Durante o exame físico, no dia 0 (D0), o paciente apresentou um escore corporal adequado, temperatura em 37,8°C, mucosas normocoradas e hidratado. Além disso, apresentava uma massa aderida em região cervical ventral esquerda, mensurando aproximadamente, 11,5cm, de coloração avermelhada, consistência flutuante e ausência de sensibilidade dolorosa. Os demais parâmetros fisiológicos estavam dentro da normalidade.

Diante do quadro clínico, foram solicitados exames complementares, como hemograma, perfil bioquímico, com dosagem de alanina aminotransferase (ALT), fosfatase alcalina (FA), albumina, ureia e creatinina séricas e citologia aspirativa por agulha fina (CAAF). O líquido viscoso e de cor avermelhada aspirado da massa cervical revelou a presença de linfócitos maduros e reativos, além de discreto número de neutrófilos, macrófagos e hemácias, achados citológicos sugestivos de inflamação linfocítica. Baseado nisso, foi optado pelo tratamento medicamentoso através da prescrição de prednisolona na dose de 0,5mg/kg por via oral (VO), uma vez ao dia (SID) e uso tópico de Reparil Gel® para massagear a região acometida.

No D4, o paciente retornou para a realização de exames radiográficos contrastados, considerando o diagnóstico diferencial de mucocele. A sialografia mostrou uma delimitação da glândula salivar mandibular esquerda, mas com uma área aumentada adjacente de origem desconhecida. Após avaliação, foi recomendado um procedimento exploratório.

No D5, o protocolo pré-anestésico constou de acepromazina na dose de 0,02mg/kg, por via intramuscular (IM) e cloridrato de metadona

(0,25mg/kg/IM). Na indução, utilizou-se propofol na dose de 4mg/kg/via intravenosa (IV), e fentanil (5µg/kg/IV). Posteriormente, realizou-se a intubação endotraqueal e a manutenção anestésica com infusão contínua intravenosa de dexmedetomidina na dose de 1µg/kg/ hora (h), fentanil (5µg/kg/h) e cloridrato de cetamina (0,6mg/kg/h).

Primeiro, foi realizada a incisão da pele na região ventral mandibular esquerda, seguida pela incisão do tecido subcutâneo e do músculo subcutâneo do pescoço para expor a cápsula fibrosa, tomando cuidado com os vasos sanguíneos locais. Em seguida, o tecido fibroso foi afastado e, ao expor o complexo das glândulas salivares supostamente acometidas, foi aplicada tração caudal na glândula mandibular para então realizar a ligadura com mononylon nº 2-0 e secção (Figura 1). Nos ramos arteriais e venosos, foi realizada ligadura circular e transfixante com mononylon nº 4-0. O leito cirúrgico foi irrigado após o desbridamento da região e foram colocados dois drenos de sucção fechada nº 12, fixados à pele com sutura tipo bailarina usando mononylon nº 3-0, para drenar o seroma (Figura 2). Por fim, o espaço morto foi reduzido com sutura contínua simples em duas camadas, utilizando poliglecaprone 25 nº 3-0, seguida da dermorrafia em padrão Wolff com mononylon nº 3-0.

A amostra foi encaminhada para exame histopatológico, o qual demonstrou extensa proliferação de vasos linfáticos ectásicos. Centralmente, um dos fragmentos apresentou tecido linfoide (linfonodo) com hiperplasia reacional moderada. Nos fragmentos de amostras encaminhadas para exame histopatológico, não foram observados tecidos glandulares sugestivos de glândula submandibular e/ou sublingual bem como não se evidenciou infiltração/proliferação neoplásica maligna. Os achados anatomopatológicos favoreceram o diagnóstico de linfangiomatose.

No D9, o paciente recebeu alta médica e como conduta terapêutica domiciliar utilizou-se enrofloxacina na dose de 5mg/kg/VO, duas vezes ao dia (BID), omeprazol sódico (1mg/kg/VO/BID), carprofeno (2,4mg/kg/VO/SID) e dipirona sódica (25mg/kg/VO/BID). Recomendou-se a restrição de esforço no local da cirurgia, além de permanecer em repouso em local limpo, com retorno em dez dias para a avaliação clínica. Contudo, no D30, o paciente retornou ao hospital veterinário com recidiva no sítio operado, apresentando aumento de volume, sialorreia excessiva, apesar da ferida cirúrgica

cicatrizada. Sendo assim, com base no resultado da análise histopatológica e nos achados clínicos de recidiva pós-operatória, optou-se pela realização de reabordagem cirúrgica para retirada do tecido linfático remanescente.



Figura 1. Procedimento cirúrgico de exérese de linfangiomatose em Pastor Maremano Abruzês, macho, dois anos de idade. Visualização do sítio cirúrgico após remoção das glândulas salivares e a remoção do tecido em excesso adjacente.



Figura 2. Procedimento cirúrgico de exérese de linfangiomatose em Pastor Maremano Abruzês, macho, dois anos de idade. Resultado final da intervenção cirúrgica, com a colocação de dois drenos de sucção fechada para diminuir a formação de seroma.

O manejo anestésico seguiu o protocolo anterior. Com o animal devidamente preparado, o procedimento começou com a realização do mesmo acesso cirúrgico anterior para expor o local. Em seguida, as glândulas salivares e o tecido linfangiomatoso remanescente foram removidos, buscando uma margem de segurança máxima para

prevenir a recorrência. Fez-se a irrigação do leito e aproximação das bordas com a técnica de *walking suture*, utilizando polidioxanona nº 2-0. O espaço morto foi reduzido com polidioxanona nº 3-0 em padrão contínuo simples, sendo novamente posicionados drenos de sucção fechada. Por fim, dermorrafia em padrão Wolff mediante uso de mononylon nº 3-0 (Figura 2).

O paciente permaneceu internado por quinze dias, nesse período recebeu cloridrato de metadona (0,2mg/kg), via subcutânea (SC) a cada quatro horas, omeprazol sódico (1mg/kg/VO/BID), cloridrato de cetamina (1mg/kg/SC) três vezes ao dia (TID), dipirona sódica (25mg/kg/VO/BID), meloxicam (0,1mg/kg/IV/SID), cefalotina sódica (25mg/kg/IV/TID) e cloridrato de ondasentrona (0,5mg/kg/IV/TID). Foram realizadas radiografias torácicas para pesquisa de massas linfáticas pulmonares, as quais não foram evidenciadas.

Na alta médica, no D46, foi instituído como tratamento domiciliar prednisolona (0,5mg/kg/VO/BID) durante sete dias, após redução gradual da dose para SID durante cinco dias e, por fim, a cada 48 horas, durante 30 dias, e lisado ácido de timo de vitelo (5mL/animal/VO/BID) por 15 dias. No D62, o animal retornou para retirada de pontos, que na ocasião, observou-se recuperação da lesão cirúrgica e sem demais complicações, não havendo recidiva até o momento da alta.

3 | Discussão

Na área da medicina veterinária, há evidências de que essa malformação linfática tem acentuada predileção pelos sítios cervicais, axilares, inguinais e retroperitoneais. Ademais, a afecção acomete animais jovens, entre o primeiro e o oitavo ano de vida (Santos e Alessi, 2023), semelhante às características do paciente do relato supracitado. Após o diagnóstico definitivo de linfangiomatose, a realização da radiografia torácica teve como objetivo detectar possíveis anomalias linfáticas nos pulmões, uma vez que essa é uma das áreas comumente afetadas nos relatos de casos em humanos.

Essas lesões são consideradas congênitas e estão relacionadas à falha dos sacos linfáticos primitivos em estabelecer comunicações venosas. Durante o desenvolvimento, os brotos endoteliais continuam a proliferar e infiltrar nos tecidos circundantes, resultando em pressão e necrose subsequente (Snyder et al., 2022). Isso leva à

formação de tumefações nodulares, principalmente superficiais, que são indolores, infiltrativas e cobertas por pele normal, com crescimento lento, podendo ulcerar e drenar conteúdo seroso. Clinicamente, são assintomáticas ou perceptíveis devido à compressão de estruturas normais à medida que crescem (Williams, 2005; Kulungowski e Patel, 2020).

Devido à escassez de dados na literatura veterinária, é necessário extrapolar informações da literatura humana, que são consistentes com o que foi observado em nosso paciente. Ele apresentava uma massa cística, de evolução crônica, indolor e infiltrativa nos planos teciduais. Clinicamente, o paciente também exibia sialorreia constante, possivelmente devido ao extravasamento da linfa e à compressão das glândulas salivares e estruturas da região cervical ventral.

Considerando as restrições financeiras do tutor e devido às limitações de logística para a realização de tomografia computadorizada, optou-se pela radiografia contrastada das glândulas salivares neste caso específico. Esse procedimento permitiu avaliar a integridade preservada das glândulas salivares e, conseqüentemente, descartar a possibilidade de que o aumento de volume na região estivesse relacionado a patologias como a mucocele (Lodzinska et al., 2019). No entanto, é importante observar que esse exame não resultou em um diagnóstico definitivo, pois não conseguiu demarcar toda a extensão nem determinar ser uma malformação linfática, o que seria melhor respondido com a tomografia computadorizada.

A CAAF foi realizada para identificar as células presentes no aumento de volume cervical. Este método fornece um diagnóstico sugestivo, sendo necessário descartar diferenciais como processos inflamatórios, neoplásicos e mucocele. Na medicina humana, a presença de líquido quiloso é patognomônico da doença, associada a visualização predominante de linfócitos. No entanto, dependendo da localização da malformação linfática, o líquido contido no cisto pode ser um transudato claro (Park et al., 2023). Assim, a análise citológica foi fundamental para auxiliar no diagnóstico deste caso de linfangiomatose. O fluido foi classificado como um transudato, com a presença predominante de linfócitos, o que permitiu, inicialmente, excluir a possibilidade de neoplasias e mucocele.

O diagnóstico definitivo requer o exame histopatológico, que revela os vasos linfáticos dilatados e parcialmente interconectados, revestidos

por uma camada de células endoteliais uniformes, com atividade mitótica mínima. Observam-se também septos de tecido conjuntivo com aspecto edematoso e um leve infiltrado de linfócitos, células plasmáticas e mastócitos (Oui et al., 2014; Le et al., 2020). Neville et al. (2009) destacam que no interior da lesão, encontra-se líquido linfático rico em proteínas, vasos linfáticos dilatados de diferentes tamanhos, revestidos por endotélio fino típico sem a presença de cápsula. Neste caso relatado, foi observada uma extensa proliferação de vasos linfáticos ectásicos, sem atipias celulares, e circundados por densos feixes de colágeno dérmico, conferindo-lhes a aparência de numerosas fendas ou canais. Esses vasos linfáticos estavam revestidos por uma única camada de células endoteliais normotípicas. A análise histopatológica desempenhou um papel fundamental na identificação dessa malformação de origem linfática, com a descrição microscópica dos achados sendo compatível com casos documentados em humanos e com os raros casos veterinários.

Em algumas situações, a diferenciação entre linfangiomatose e linfangiossarcoma é dificultosa, pois possuem características histopatológicas semelhantes. Os linfangiossarcomas são caracterizados por uma proliferação mais pleomórfica e invasiva em comparação com a linfangiomatose (De Souza Dyer e Jennings, 2016), não estando claro se o mesmo ocorre de forma isolada ou se é uma progressão da lesão (Williams, 2005). Quando o exame histopatológico não diferencia com precisão entre linfangiomatose e linfangiossarcoma, a imunohistoquímica é um método complementar. Marcadores específicos possibilitam uma identificação mais precisa de células endoteliais linfáticas neoplásicas das malformações linfáticas, além de facilitar o estadiamento tumoral em casos neoplásicos (Halsey et al., 2016). As colorações de rotina foram eficazes na diferenciação das estruturas linfáticas e os critérios de malignidade descritos na literatura não foram identificados nas amostras analisadas deste paciente, auxiliando na confirmação do diagnóstico definitivo de linfangiomatose.

O tratamento para linfangiomatose envolve a excisão cirúrgica completa da lesão, com a abordagem dependendo da localização, tamanho e envolvimento de estruturas adjacentes (Kulungowski e Patel, 2020). Devido à natureza infiltrativa, a taxa de

recorrência em seres humanos varia de 20% a 40% em casos de remoção parcial, não havendo este tipo de dados na literatura veterinária (Oui et al., 2014; Park et al., 2023). Isso decorre do crescimento da malformação linfática remanescente no tecido normal (Kulungowski e Patel, 2020). Durante a intervenção cirúrgica inicial, a invasão dos tecidos circundantes dificultou a remoção completa, resultando em recorrência. Após a confirmação do diagnóstico histopatológico de linfangiomatose e, dada a sua natureza infiltrativa, foi decidido realizar uma segunda cirurgia, ampliando a área de ressecção para garantir a remoção completa de todo o tecido afetado, o que foi bem-sucedido.

4 | Conclusão

O diagnóstico da linfangiomatose é desafiador devido à sua apresentação clínica inespecífica e à sua natureza pouco comum, sendo confirmado definitivamente por meio de exame histopatológico. A excisão cirúrgica completa nem sempre é viável devido às características infiltrativas da condição, resultando em uma taxa variável de recorrência. No entanto, o paciente demonstrou uma recuperação satisfatória após a reabordagem cirúrgica. Em última análise, a escassez de dados veterinários leva à dependência de informações provenientes de casos humanos para desenvolver planos de manejo individualizados e adaptados para malformações linfáticas em pequenos animais. Esta abordagem demonstrou-se eficaz no paciente deste caso.

5 | Declaração de Conflito de Interesse

Os autores declaram não existir conflito de interesse.

6 | Referências

De Souza Dyer, C.; Jennings, S.H. Pathology in Practice. **Journal of the American Veterinary Medical Association**, 249(11): 1263-1265, 2016.

Driessen, F.; Cushing, T.; Baines, S.J. Retroperitoneal lymphatic malformation in a dog. **Acta Veterinaria Scandinavica**, 62(8): 1-7, 2020.

Halsey, C.H.C. et al. The use of novel lymphatic endothelial cell-specific immunohistochemical markers to differentiate cutaneous angiosarcomas in

dogs. **Veterinary and Comparative Oncology**, 14(3): 236-44, 2016.

Kulungowski, A.M.; Patel, M. Lymphatic malformations. **Seminars in pediatric surgery**, 29(5): 150971, 2020.

Le, H.D.T. et al. Generalized lymphangiomatosis-A rare manifestation of lymphatic malformation. **Radiology case reports**, 16(1): 66-71, 2020.

Lodzinska, J. et al. Presumed congenital lymphangioma in a dog: ultrasonographic and computed tomography findings, presentation and treatment. **Veterinary Record Case Reports**, 7(4): e000901, 2019.

Neville, B.W. et al. Tumores das glândulas salivares. In: Neville, B.W. **Patologia oral e maxilofacial**. 3ª ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan, 2009. p. 89-418.

Oui, H. et al. Congenital lymphangiomatosis and an enteric duplication cyst in a young dog. **The Journal of small animal practice**, 55(7): 379-382, 2014.

Park, S.H. et al. Case report: Generalized lymphatic anomaly of multiple abdominal organs in a young dog. **Frontiers in veterinary science**, 10(1): 1154210, 2023.

Santos, R.L.; Alessi, A.C. Sistema Cardiovascular. In: Ocarino, N.M.; Paixão, T.A.; Estrela-Lima, A. **Patologia veterinária**. 3ª ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan, 2023. p 55-103.

Snyder, E.J. et al. Lymphatic Anomalies in Children: Update on imaging diagnosis, genetics, and treatment. **American Journal of Roentgenology**, 218(6): 1089-1101, 2022.

Williams, J.H. Lymphangiosarcoma of dogs: a review. **Journal of the South African Veterinary Association**, 76(3): 127-131, 2005.