

## ASPECTOS INTRA E EXTRABUCAIS DE MALFORMAÇÃO VASCULAR MISTA EM CRIANÇA

### INTRA AND EXTRABUCCAL ASPECTS OF MIXED VASCULAR MALFORMATION IN CHILDREN

Daniele Lucca **Longo**<sup>1</sup>, Fernanda Maria Machado Pereira Cabral de **Oliveira**<sup>2</sup>, Maya Fernanda Manfrin **Arnez**<sup>2</sup>, Giovana Gonçalves **Martins**<sup>2</sup>, Alexandra Mussolino de **Queiroz**<sup>2</sup>, Francisco Wanderley Garcia **Paula-Silva**<sup>2\*</sup>

<sup>1</sup>Universidade Rio Verde, Rio Verde, GO, Brasil.

<sup>2</sup>Universidade de São Paulo, Ribeirão Preto, SP, Brasil.

\*franciscogarcia@forp.usp.br

#### RESUMO

Anomalias vasculares constituem distúrbios de células endoteliais que podem afetar capilares, artérias, veias e/ou sistema linfático. São classificadas como “tumores vasculares” ou “malformações vasculares”. As malformações vasculares são subdivididas em malformações capilares, linfáticas, venosas, arteriovenosas e mistas de acordo com o tipo de vasos afetados. O objetivo do presente estudo é relatar um caso de um paciente com malformação vascular mista (veno-linfática) e descrever o planejamento e o tratamento dentário realizado. O paciente do sexo masculino, 7 anos, foi encaminhado para avaliação odontológica. A mãe relatou que o ele estava em tratamento médico no hospital por apresentar “hemangioma e malformação vascular linfática” em região bucal. Durante o exame clínico, foi observada malformação vascular veno-linfática no assoalho oral. A criança relatou dificuldade para realizar a higiene bucal devido à lesão, sendo encontradas várias lesões de cárie. O tratamento odontológico consistiu em restaurações dentárias, selantes e exodontia de dentes decíduos. O tratamento da malformação vascular mista foi realizado com solução esclerosante (OK-432). A atenção à saúde bucal de pacientes com malformações vasculares deve incluir orientações de higiene bucal, escovação supervisionada e indicação do uso de escovas macias para evitar lesões nas áreas já afetadas.

**Palavras-chave:** Anomalias vasculares. Malformação linfática. Malformação vascular mista.

#### ABSTRACT

Vascular anomalies are disorders of endothelial cells that can affect capillaries, arteries, veins and / or the lymphatic system. They are classified as “vascular tumors” or “vascular malformations”. Vascular malformations are subdivided into capillary, lymphatic, venous, arteriovenous and mixed malformations according to the type of vessels affected. The aim of the present study is to report a case of a patient with mixed vascular malformation (veno-lymphatic) and to describe the dental planning and treatment carried out. Male patient, 7 years old, referred for dental evaluation. The mother reported that the patient was undergoing medical treatment at the hospital for presenting “hemangioma and lymphatic vascular malformation” in the oral region. During the clinical examination, veno-lymphatic vascular malformation was observed on the oral floor. The child reported difficulty in performing oral hygiene due to the injury, and several caries lesions were found. Dental treatment consisted of dental restorations, sealants and extraction of primary teeth. The treatment of mixed vascular malformation was performed with a sclerosing solution (OK-432). The oral health care of patients with vascular malformations should include oral hygiene instructions, supervised brushing and guidance on the use of soft brushes to avoid injury to the affected areas.

**Keywords:** Lymphatic Malformation. Mixed vascular malformation. Vascular anomalies.

## INTRODUÇÃO

Anomalias vasculares constituem distúrbios de células endoteliais que podem afetar capilares, artérias, veias e/ou sistema linfático. São classificadas como “tumores vasculares” ou “malformações vasculares”, baseadas em diferenças clínicas, histológicas e bioquímicas (PERKINS *et al.*, 2010a; RASTOGI *et al.*, 2020), sendo que tumores são lesões proliferativas e malformações vasculares são devidos a uma anomalia congênita da morfogênese vascular (WASSEF *et al.*, 2021). Essa classificação foi modificada pela Sociedade Internacional para Estudo de Anomalias Vasculares (ISSVA, 2018). Essa nova classificação tem importantes implicações terapêuticas e prognósticas, pois, para cada categoria, existe um tratamento (RASTOGI *et al.*, 2020). Dessa forma, compreender a história natural de uma anomalia vascular é fundamental para que haja correto diagnóstico e terapêutica adequada dessas lesões, pelos profissionais da saúde (BUCKMILLER; RICHTER; SUEN, 2010).

As malformações vasculares são subdivididas em: capilares, linfáticas, venosas, arteriovenosas e mistas de acordo com o tipo dos vasos afetados (CARQUEJA; SOUZA; MANSILHA, 2018; DEKEULENEER *et al.*, 2020). Quase sempre benignas, tais anomalias vasculares podem envolver qualquer estrutura anatômica, sendo mais comum na cabeça e no pescoço (GREENE, 2011, PUCCIA *et al.*, 2020), estão presentes ao nascimento e crescem proporcionalmente com o paciente (SERONT; VIKKULA; BOOM, 2018; WIEGAND; DIETZ, 2021).

A malformação venosa é ligeiramente mais comum no sexo feminino (PARK *et al.*, 2019), não regride espontaneamente e pode comprimir os tecidos normais adjacentes (SERONT; VIKKULA; BOON, 2018). Sempre presente ao nascimento, mas nem sempre aparente devido à localização profunda, por isso, às vezes, é descoberta tardiamente, pois cresce à medida que a criança se desenvolve (SERONT; VIKKULA; BOON, 2018). Não regride espontaneamente e pode comprimir os tecidos adjacentes (WASSEF *et al.*, 2015), sendo a terceira anomalia vascular que mais acomete cabeça e pescoço, perdendo para o hemangioma infantil e malformações linfáticas (EIFERT *et al.*, 2000; RICHTER; BRASWELL, 2012). Os locais mais afetados são as bochechas, região labial, pescoço, espaço parafaríngeo, triângulo submandibular e músculos da mastigação (SERONT; VIKKULA; BOOM, 2018; PARK *et al.*, 2019).

A malformação vascular, tradicionalmente conhecida como linfangioma, constitui especificamente uma malformação linfática, devido ao crescimento anormal dos gânglios linfáticos e, conseqüentemente, a linfa é retida nos vasos linfáticos gerando um inchaço macio e compressível na mucosa oral (YAITA *et al.*, 2007; ELLURU; BALAKRISHNAN; PADUA, 2014). A maioria dos casos diagnosticados ocorreu antes dos dois anos de idade e estava no dorso da língua (BONET-COLOMA *et al.*, 2011; BHAYYA *et al.*, 2015). Malformação linfática não é uma patologia frequentemente encontrada (CAGIGAL *et al.*, 2007; YAITA *et al.*, 2007; LARKIN *et al.*, 2018), aparece durante a infância em 90% dos casos (BONET-COLOMA *et al.*, 2011; BHAYYA *et al.*, 2015) e a incidência é de 1:2000-4000 para os nascidos vivos (PUCCIA *et al.*, 2020).

Os sintomas dependem das estruturas afetadas, podendo ser inchaços, obstruções das vias aéreas, cegueira, isquemia, dor, trombose e sangramentos com riscos de vida (WIEGAND; DIETZ, 2021). O tratamento das malformações venosas e linfáticas depende do tamanho das lesões, em que as lesões pequenas e assintomáticas não requerem tratamento, apenas acompanhamento (PUCCIA *et al.*, 2020), mas, quando causam disfunção ou desfiguração, necessitam de intervenção, podendo ser o tratamento local ou sistêmico, cada um com seus riscos e benefícios, incluindo escroterapia, cirurgia, *laser* e embolização (PUCCIA *et al.*, 2020; WIEGAND; DIETZ, 2021). Novas terapias, incluindo Sildenafil, Propranolol, Sirolimus e a transferência de linfonodos vascularizados, estão surgindo com as novas descobertas sobre a biologia e a genética dessas malformações (BAGRODIA; DEFNET; KANDEL, 2015).

As malformações vasculares são um grupo complexo de patologias, apresentando diversas formas clínicas e opções de tratamento (CARQUEJA; SOUZA; MANSILHA, 2018). Dessa forma, para um maior conforto do paciente, o manejo por uma equipe multidisciplinar é essencial, incluindo

cirurgiões, pediatras, nutricionistas, psicólogos e fonoaudiólogos (BAJAJ *et al.*, 2011), pois quando a cura não for possível, o tratamento deve ter o objetivo de controlar os sintomas e melhorar a qualidade de vida do paciente (BAJAJ *et al.*, 2011; CARQUEJA; SOUZA; MANSILHA, 2018).

O objetivo do presente estudo é relatar um caso de um paciente com malformação veno-linfática cérvico-facial e descrever o planejamento e o tratamento dentário realizado.

## RELATO DE CASO

O paciente do gênero masculino, com sete anos de idade, natural de Cerejeiras (RO, Brasil), foi admitido na clínica no Centro de Formação de Recursos Humanos Especializado no Atendimento Odontológico para Pacientes Especiais, da Faculdade de Odontologia de Ribeirão Preto da Universidade de São Paulo. O paciente foi encaminhado ao serviço para avaliação e atendimento odontológico, pelo Hospital das Clínicas de Ribeirão Preto da Universidade de São Paulo (HCRP-USP), onde se encontrava sob tratamento médico por ser portador de malformação vascular mista na região cérvico-facial. No HCRP-USP, foi submetido a tratamento com três doses de solução esclerosante, OK-432, sendo duas doses no ano de 2009 e uma no ano de 2010. Atualmente o paciente está com 15 anos de idade.

Durante a anamnese, a mãe destacou a enorme dificuldade em encontrar atendimento odontológico para o filho devido à falta de profissionais capacitados diante do aspecto clínico da lesão, do tamanho excessivo da língua e do comportamento não cooperativo da criança.

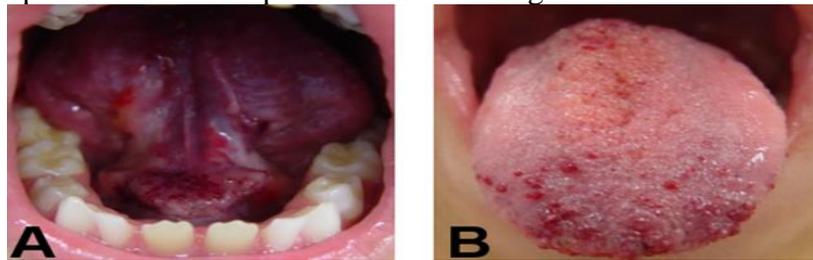
Ao exame clínico extrabucal, pôde-se observar assimetria cervical e facial (Figuras 1 A e B), porém com dimensões reduzidas se comparada a uma criança de 5 anos de idade, antes do tratamento com OK-432. Ao exame clínico intrabucal de tecidos moles, observou-se aumento do volume da língua, caracterizado como uma massa mole, lobulada, séssil, variável quanto ao tamanho, que apresentava cor entre rosa e vermelho púrpura (Figuras 2 A e 2 B). Ao exame clínico intrabucal dos tecidos mineralizados, observou-se a presença de biofilme dental visível na superfície vestibular e lingual/palatina de molares decíduos superiores e inferiores, devido à dificuldade de escovação em função do tamanho aumentado da língua e sensação de ardência quando da utilização de dentífrícios. Foi verificada a presença de manchas brancas na cervical dos dentes, indicativo de cárie ativa, caracterizando o paciente com alto risco/atividade de cárie dentária. Lesões de cárie cavitadas extensas foram observadas nos incisivos centrais superiores e primeiros molares superiores decíduos. Restaurações não foram vistas em ambos os arcos dentários. As Figuras 3 A, B, C, D, E e F mostram os dentes antes e após o tratamento dentário.

**Figura 1** - A: Vista frontal e B: cervical da criança com 5 anos de idade, antes do tratamento com OK-432



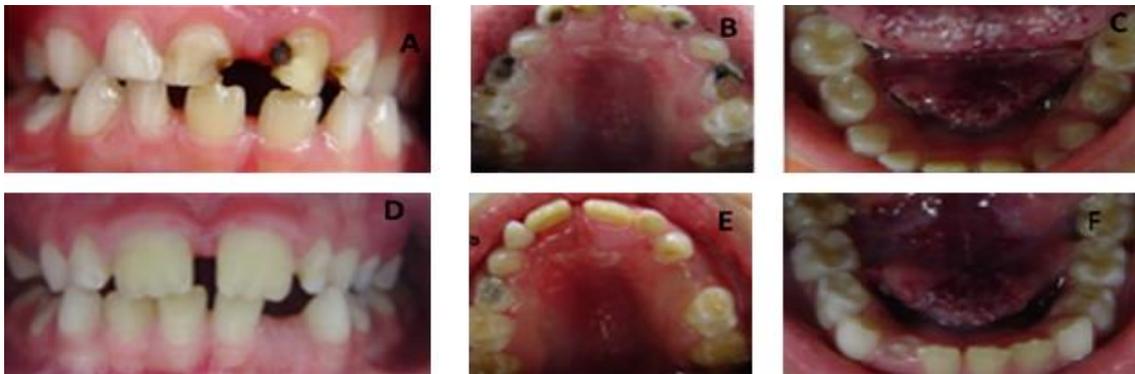
Fonte: os autores.

**Figura 2** - A: aspecto clínico da superfície ventral da língua; B: aspecto clínico da superfície dorsal da língua



Fonte: os autores.

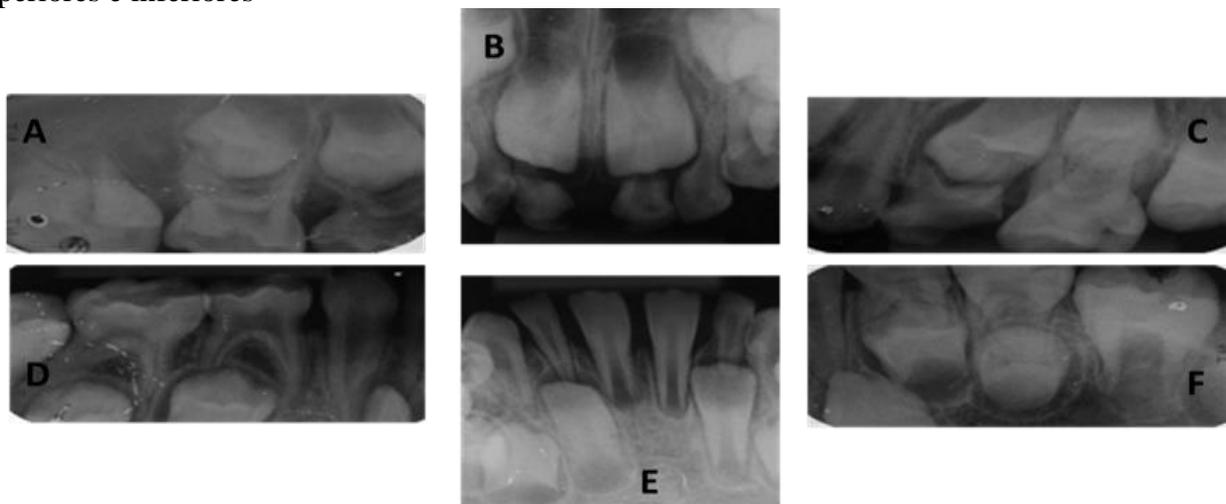
**Figura 3** - A e D: vista frontal dos arcos dentários maxilar e mandibular antes e após o tratamento dentário; B e E: vista oclusal do arco dentário maxilar antes e após o tratamento dentário; C e F: vista oclusal do arco mandibular antes e após o tratamento dentário



Fonte: os autores.

Um exame radiográfico inicial revelou que os incisivos centrais superiores apresentavam rizólise em estágio avançado e, assim como o primeiro molar decíduo superior esquerdo, extensas lesões de cárie dentária (Figuras 4 A, B, C, D, E, E, F).

**Figura 4** - Radiografias periapicais iniciais: A, D, C e F: radiografias periapicais dos molares decíduos direitos e esquerdos, superiores e inferiores; B e E: radiografias periapicais dos incisivos superiores e inferiores



Fonte: os autores.

O plano de tratamento começou com enfoque nas medidas preventivas, tais como instrução de higiene bucal, aconselhamento dietético e uma discussão sobre a seleção de um dentífrico que não provocasse a sensação de ardência descrita pelo paciente. Foi prescrito Sensodine (fluoreto de sódio 1426 ppm e fosfosilicato de cálcio e sódio a 5% - NOVAMIN) para que o paciente testasse e avaliasse o desconforto. Além disso, o tratamento constou de profilaxia profissional e aplicações tópicas de gluconato de clorexidina a 0,12% (Periogard, Colgate-Palmolive, Divisfio da Kolynos do Brasil Ltda., Campo, São Paulo, Brasil) e flúor gel neutro (Sultan Topex, DFL Ind. e Com. Ltda, Rio de Janeiro, RJ, Brasil). O objetivo dessa fase do tratamento foi motivar e estimular o paciente a realizar a higienização bucal, de modo que este não associasse a escovação dental à dor.

O tratamento cirúrgico/restaurador foi realizado sob anestesia local, constou de exodontia dos incisivos centrais superiores decíduos e primeiro molar decíduo superior esquerdo; restauração de resina composta nas faces palatinas dos incisivos laterais superiores e canino superior esquerdo decíduos, na face oclusal do segundo molar decíduo superior direito e na face distal do segundo molar decíduo superior esquerdo; selante na face palatina do segundo molar decíduo superior direito, nas faces oclusais dos primeiros molares decíduos inferiores, do segundo molar decíduo inferior direito, do primeiro molar permanente superior esquerdo, do primeiro molar permanente inferior esquerdo, nas faces oclusal e palatina do primeiro molar permanente superior direito; restauração de amálgama Classe II nas faces mesial e oclusal do primeiro molar decíduo superior direito; e restauração preventiva nas faces oclusais do segundo molar decíduo inferior esquerdo e primeiro molar permanente inferior direito.

No acompanhamento clínico e radiográfico, realizado de seis em seis meses, em função da dificuldade de acesso, dada a distância entre a clínica e a residência do paciente (2.153 km), foi reavaliado o tratamento restaurador, monitorada a remoção de biofilme dentário e observada sua saúde bucal (Figuras 3 D, E e F). Além disso, foi verificado o desconforto em relação ao dentífrico. A redução cirúrgica da língua não era uma opção viável por causa do tamanho da lesão e, portanto, o paciente foi tratado com medicamento. Ainda, foi verificado, nessas visitas de acompanhamento, que não houve redução significativa no tamanho da sua língua e região cérvico-facial (Figuras 5 A, B, C e D e 6 A, B, C e D).

**Figura 5** - Fotografias extrabucais evidenciando a evolução da lesão a cada seis meses de acompanhamento. A: inicial; B: 6 meses após o início do tratamento; C: 12 meses após o início do tratamento; e D: 18 meses após o início do tratamento



Fonte: os autores.

**Figura 6** - Fotografias intrabucais evidenciando a evolução da lesão a cada seis meses de acompanhamento. A: fotografia inicial; B: 6 meses após o início do tratamento; C: 12 meses após o início do tratamento; D: 18 meses após o início do tratamento



**Fonte:** os autores.

No exame radiográfico panorâmico, realizado após o tratamento cirúrgico/restaurador, verificou-se que o paciente apresentava agenesia de incisivos laterais superiores direito e esquerdo e molares superiores e inferiores permanentes taurodonticos. Em adição, outras alterações foram detectadas, provavelmente pela pressão produzida pelo tamanho da língua, tais como mordida aberta anterior e protrusão dos dentes anteriores inferiores ([Figura 7](#)).

**Figura 7** - Radiografia panorâmica pós tratamento



**Fonte:** os autores.

O paciente continua em acompanhamento com a equipe de cirurgia de cabeça e pescoço para avaliação da regressão da lesão e, com a equipe de cirurgiões-dentistas, com a finalidade de prevenir a ocorrência de novas lesões cariosas.

## DISCUSSÃO

Por longo período, não houve consenso em relação à terminologia e à classificação das anomalias vasculares, acarretando impacto negativo na criação de condutas, bem como, nas indicações e comparações terapêuticas. Em 1996, a Sociedade Internacional que estuda as Anomalias Vasculares (ISSVA) dividiu as anomalias vasculares em duas categorias: tumores vasculares e malformações vasculares. Dessa forma, com uma classificação diagnóstica aceita internacionalmente, pôde-se instituir condutas protocoladas e padronização de tratamentos (ENJOLRAS; WASSEF;

CHAPOT; 2012). Essa classificação sofreu algumas modificações que foram aprovadas no 20º Workshop ISSVA, na cidade de Melbourne, em abril de 2014, e teve sua última revisão em maio de 2018 (ISSA, 2018). Após essas modificações, alguns trabalhos foram revisados e ficaram constatados alguns erros de diagnóstico, em que hemangiomas cavernosos na verdade eram malformações venosas (LIBERALE *et al.*, 2020).

A incidência de malformação vascular varia de 1:2000-5000 e 1:2000-4000 para malformação linfática (BAGRODIA; DEFNET; KANDEL, 2015; SERONT; VIKKULA; BOOM, 2018). Sendo 75% das malformações linfáticas encontradas na região cérvico-facial (SCHOINOHORITI *et al.*, 2012), podendo ocorrer macroglossia e crescimento excessivo da mandíbula (PERKINS *et al.*, 2010b; CHEN *et al.*, 2020).

As malformações venosas não regridem espontaneamente e podem coprimir os tecidos normais adjacentes (WASSEF *et al.*, 2015), são a terceira anomalia mais comum que afeta a região de cabeça e pescoço (EIFERT *et al.*, 2000; RICHTER; BRASWELL, 2012). Neste relato, a malformação veno-linfática foi localizada na língua, e o paciente queixava-se de ardência quando da utilização do jato de ar durante o procedimento odontológico, tinha alimentação restrita, já que não fazia ingestão de bebidas e alimentos ácidos, não tolerava a utilização de dentifrício e, com isso, apresentava dificuldade de escovação e, conseqüentemente, um grande número de lesões de cárie no arco maxilar, diferentemente de um caso descrito na literatura, em que o paciente apresentava lesões de cárie somente em dentes do arco mandibular (QUEIROZ *et al.*, 2006). Acredita-se que a justificativa para a não ocorrência de lesões de cárie no arco inferior tenha sido o fato de a língua apresentar-se volumosa recobrando as superfícies dentais, protegendo assim, os dentes contra lesões cariosas.

Diante dessa situação, foi adotada como conduta clínica a realização de isolamento absoluto, a partir de dique de borracha, frente ao tratamento odontológico, o cuidado para não tocar áreas acometidas pela lesão com instrumentos, e outras orientações adicionais quanto à higienização bucal rigorosa a partir de escova contendo cerdas macias e a quantidade de dentifrício que deveria ser colocada sobre a cerda.

Algumas deformidades que atingem a mandíbula em função do tamanho exagerado da língua, relatadas na literatura (QUEIROZ *et al.*, 2006), não foram encontradas no caso relatado, tais como corpo e ramo da mandíbula alongado, entretanto, outras alterações como mordida aberta anterior e protrusão de dentes anteriores inferiores foram também observadas.

Com relação ao tratamento, no presente caso, o paciente apresentou uma involução frente ao tratamento medicamentoso da malformação vascular linfática.

A Malformação Linfática não é uma lesão frequentemente encontrada (CAGIGAL *et al.*, 2007; YAITA *et al.*, 2007; SEQUEIRA, 2016). De acordo com várias investigações, a localização mais comum para malformações linfáticas é o dorso de língua (YAITA *et al.*, 2007; BONET-COLOMA *et al.*, 2011; BHAYYA *et al.*, 2015; SEQUEIRA, 2016), sendo mais prevalente em mulheres caucasianas (BRENNAN; MILLER; CHEN, 1997). Neste relato de caso, o paciente apresentava a lesão situada na região cérvico-facial e língua e era do gênero masculino.

Entre as opções de tratamento para Malformação Linfática, a intervenção cirúrgica precoce é recomendada para prevenir o crescimento excessivo da lesão e a expansão para tecidos adjacentes. No entanto, a remoção cirúrgica completa pode não ser possível para lesões extensas localizadas em torno de estruturas vitais (SEQUEIRA, 2016). Nesses pacientes, o tratamento de escolha poderia ser a ressecção parcial, no entanto, isso geralmente resultaria em recidiva da lesão (JIAN, 1997). Nesse sentido, terapias alternativas têm sido propostas para esses pacientes. Dentre elas, estão a irradiação da área afetada – que tem sido abandonada em função do risco de malignidade – (ORVIDAS; KASPERBAUER, 2000), e a escleroterapia ou terapia intralesional com esteróides e/ou agentes quimioterapêuticos (ELLURU; BALAKRISHNAN; PADUA, 2014).

Embora estudos relatem que o tratamento de pacientes portadores de Malformação Linfática constitui um desafio devido ao potencial de gerar infecção recorrente e, assim, comprometimento da via aérea superior, dificuldade para a deglutição, interferência com o desenvolvimento da fala normal

e aspecto antiestético (LUZZATTO *et al.*, 2000), a criança do presente relato recebeu o tratamento medicamentoso a partir de injeção intralesional com uma solução esclerosante OK-432 (Picibanil, Chugai Pharmaceuticals Co., Tóquio, Japão), uma mistura liofilizada incubada de *Streptococcus pyogenes* e penicilina G potássica (CAGIGAL *et al.*, 2007), que, apesar de resultados promissores terem sido relatados (MELLO-FILHO; TONE; KRUSCHEWSKY, 2002; YAITA *et al.*, 2007), o paciente do caso não apresentou regressão total da lesão. O mecanismo de ação da escleroterapia OK-432 ainda não é bem compreendido. Acredita-se que a reação inflamatória causada por OK-432 iria aumentar o número de macrófagos e neutrófilos no interior da lesão, estimulando-os a produzir citocinas que aumentariam a permeabilidade endotelial da malformação linfática, acelerando, assim, a drenagem do fluido linfático e provocando uma redução no tamanho da lesão (OGITA *et al.*, 1987; BONET-COLOMA *et al.*, 2011). A única reação adversa observada com a administração de OK-432 foi a apresentação de febre baixa por alguns pacientes (MELLO-FILHO; TONE; KRUSCHEWSKY, 2002), não observada no paciente do caso. A maioria das lesões foi tratada com ressecção cirúrgica (GRASSO *et al.*, 2008; BONET-COLOMA *et al.*, 2011), diferentemente do tratamento instituído para o paciente em questão, pois isto provocaria danos estéticos e funcionais inaceitáveis em um paciente portador de uma lesão benigna, indolor, que, embora apresentasse aspecto volumoso, não foi observado o comprometimento da via aérea. Entretanto, o paciente apresentava complexo com a estética e a responsável pela criança se queixava do aspecto volumoso e irregular da língua podendo comprometer o convívio social e relacionamentos futuros. Sobretudo, a queixa principal da mãe girava em torno a dificuldade de encontrar cirurgião dentista apto para atender seu filho, haja vista os desafios do tratamento, interferindo, dessa maneira, ainda mais na qualidade de vida da criança.

## CONCLUSÃO

Os pacientes portadores de malformação vascular mista podem apresentar deficiências estéticas, distúrbios de fala, problemas respiratórios, deformidades mandibulares e, até, aumento do risco de cárie dentária, pois um aumento no volume da língua, bem como a sua imobilidade parcial e vulnerabilidade a substâncias como dentifrícios dificultam, por exemplo, a remoção de biofilme dentário.

Faz-se necessário o acompanhamento médico e odontológico criterioso e por longo tempo para avaliação da regressão da lesão e prevenção da ocorrência de novas lesões de cárie. Lembrando que a abordagem multidisciplinar para o tratamento de malformação veno-linfática deve priorizar a qualidade de vida do paciente.

É fundamental salientar que o atendimento e o tratamento odontológicos desses pacientes não devem ser negados ou evitados, já que não requerem qualquer habilidade especial, mas, ao contrário, devem ser realizados com alguns cuidados adicionais, tais como o uso de dique de borracha a fim de evitar, por exemplo, a sensação desagradável de ardência descrita nesse relato, bem como facilitar a realização dos procedimentos restauradores, mas, principalmente, para evitar qualquer lesão inadvertida à língua. Além disso, é altamente recomendado o desenvolvimento de um programa preventivo para tal paciente, a partir de instrução de higiene bucal rigorosa, escovação supervisionada e orientação para o uso de escovas macias, evitando lesionar outras áreas.

## REFERÊNCIAS

- BAGRODIA, N.; DEFNET, A. M.; KANDEL, J. J. Management of lymphatic malformations in children. **Current Opinion in Pediatrics**, v. 27, n .3, p. 356-363, 2015
- BAJAJ, Y. *et al.* Surgical excision as primary treatment modality for extensive cervicofacial lymphatic malformations in children. **International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology**, v. 75, n. 5, p. 673-677, 2011.

BHAYYA, H. *et al.* Oral lymphangioma: A rare case report. **Contemporary Clinical Dentistry**, v. 6, n. 4, p. 584-587, 2015.

BRENNAN T. D.; MILLER, A. S.; CHEN, S. Y. Lymphangiomas of the oral cavity: a clinico-pathologic, immunohistochemical, and electron-microscopic study. **Journal of Oral and Maxillofacial Surgery**, v. 55, n. 9, p. 932-935, 1997.

BONET-COLOMA, C. *et al.* Clinical characteristics, treatment, and evolution in 14 cases of pediatric orofacial lymphangioma. **Journal Oral Maxillofacial Surgery**, v. 69, n. 6, p. 96-99, 2011.

BUCKMILLER, L. M.; RICHTER, G. T.; SUEN, J. Y. Diagnosis and management of hemangiomas and vascular malformations of the head and neck. **Oral Diseases**, v. 16, n. 5, p. 405-418, 2010.

CAGIGAL, B. P. *et al.* OK-432 therapy for cervicofacial lymphangioma in adults. **Acta Otorrinolaringologica Española**, v. 58, n. 5, p. 222-224, 2007.

CARQUEJA, I. M.; SOUSA, J.; MANSILHA, A. Vascular malformations: classification, diagnosis and treatment. **International Angiology**, v. 37, n. 2, p. 127-142, 2018.

CHEN, W. L. *et al.* Comprehensive treatment of massive macroglossia due to venous and lymphatic malformations. **International Journal of Oral & Maxillofacial Surgery**, v. 49, n. 7, p. 874-881, 2020

DEKEULENEER, V. *et al.* Theranostic advances in vascular malformations. **Journal of Investigative Dermatology**, v. 140, n. 4, p. 756-763, 2020.

EIFERT, S. *et al.* Prevalence of deep venous anomalies in congenital vascular malformations of venous predominance. **Journal of Vascular Surgery**, v. 31, n. 3, p. 462-471, 2000.

ELLURU, R. G.; BALAKRISHNAN, K.; PADUA, H. M. Lymphatic malformations: diagnosis and management. **Seminars Pediatric Surgery**, v. 23, n. 4, p. 178-185, 2014.

ENJOLRAS, O.; WASSEF, M.; CHAPOT, R. **Introduction: ISSVA classification**. Cambridge University Press. [Online]. Disponível em: <https://sci-hub.se/10.1017/CBO9780511722073.001>. Acesso em: 10 mar. 2020.

GRASSO, D. L. *et al.* Lymphangiomas of the head and neck in children. **Acta Otorhinolaryngologica Italica**, v. 28, n. 1, p. 17-20, 2008.

GREENE, A. K. Vascular anomalies: current overview of the field. **Clinics in Plastic Surgery**, v. 38, n. 1, p. 1-5, 2011.

INTERNATIONAL SOCIETY FOR THE STUDY OF VASCULAR ANOMALIES. **Classification of Vascular Anomalies 2018**. Available in: < <https://www.issva.org/classification> >. Access in: 10 feb. 2020.

JIAN, X. C. Surgical excision of lymphangiomatous macroglossia: a case report. **Journal of Oral Maxillofacial Surgery**, v. 55, n. 3, p. 306-309, 1997.

LARKIN, S. C. *et al.* A case of extensive acquired progressive lymphangioma. **Pediatric Dermatology**, v. 35, n. 4, p. 486-489, 2018.

LIBERALE, C. *et al.* Stop calling me cavernous hemangioma! A literature review on misdiagnosed bony vascular anomalies. **Journal of Investigative Surgery**, v. 5, n. 1, p. 1-10, 2020.

LUZZATTO, C. *et al.* Sclerosing treatment of lymphangiomas with OK-432. **Archives of Disease in Childhood**, v. 82, n. 4, p. 316-318, 2000.

MELLO-FILHO, F. V.; TONE, L.G.; KRUSCHEWSKY, L. S. The use of picibanil (OK-432) of treatment of lymphangioma in the head and neck. **Revista Brasileira de Otorrinolaringologia**, v. 68, n. 4, p. 552-556, 2002.

OGITA, S. *et al.* Intracystic injection of OK-432: a new sclerosing therapy for cystic hygroma in children. **British Journal of Surgery**, v. 74, n. 8, p. 690-691, 1987.

ORVIDAS, L. J.; KASPERBAUER, J. L. Pediatric lymphangiomas of the head and neck. **Annals of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology**, v. 109, n. 4, p. 411-421, 2000.

PARK, H. *et al.* Venous malformations of the head and neck: a retrospective review of 82 cases. **Archives of Plastic Surgery**, v. 46, n. 1, p. 23-33, 2019.

PERKINS, J. A. *et al.* Lymphatic malformations: current cellular and clinical investigations. **Otolaryngology–Head and Neck Surgery**, v. 142, n. 6, p. 789-794, 2010a.

PERKINS, J. A. *et al.* Lymphatic malformations: review of current treatment. **Otolaryngology–Head and Neck Surgery**, v. 142, n. 6, p. 795-803, 2010b.

PUCCIA, R. *et al.* Utilizing immediate preoperative n-BCA in the resection of head and neck venous and lymphatic malformations. **International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology**, v. 138, 110388, 2020.

QUEIROZ A. M. *et al.* Dental care management of a young patient with extensive lymphangioma of the tongue: a case report. **Special Care in Dentistry**, v. 26, n. 1, p. 20-24, 2006.

RASTOGI, K. *et al.* Benign vascular anomalies: A transition from morphological to etiological classification. **Annals of Diagnostic Pathology**, v. 46, 151506. 2020.

RICHTER, G. T.; BRASWELL, L. Management of venous malformations. **Facial Plastic Surgery**, v. 28, n. 6, p. 603-610, 2012.

SCHOINOHORITI, O. K. *et al.* Lymphatic malformations in children and adolescents. **Journal of Craniofacial Surgery**, v. 23, n. 6, p. 1744-1747, 2012.

SEQUEIRA, C. F. A. **Hemangiomas e malformações vasculares da cabeça e pescoço – artigo de revisão**. 2016. 52f. Dissertação (Mestrado Integrado em Medicina) - Faculdade de Medicina da Universidade de Lisboa, Lisboa, 2016.

SERONT, E.; VIKKULA, M.; BOON, L. M. Venous malformations of the head and neck. **Otolaryngologic Clinics of North America**, v. 51, n. 1, p. 173-184, 2018.

WASSEF, M. *et al.* ISSVA Board and Scientific Committee. vascular anomalies classification: recommendations from the International Society for the Study of Vascular Anomalies. **Pediatrics**, v. 136, n. 1, p. 203-214, 2015.

WASSEF, M. *et al.* Classification des tumeurs et malformations vasculaires. Apport de la classification ISSVA 2014/2018 [Classification of vascular tumours and vascular malformations. Contribution of the ISSVA 2014/2018 classification]. **Annales Pathologie**, v. 41, n. 1, p. 58-70, 2021.

WIEGAND, S.; DIETZ, A. Vaskuläre Malformationen im Hals-Nasen-Ohren-Bereich [Vascular malformations of the head and neck]. **Laryngo-Rhino-Otologie**, v. 100, n. 1, p. 65-76, 2021.

YAITA, T. *et al.* Histomorphometrical study in cavernous lymphangioma of the tongue. **Oral Diseases**, v. 13, n. 1, p. 99-104, 2007.