

Glosoplastía con Técnica de Harada, en un Paciente con Macroglosia por Amiloidosis

Glossoplasty with Harada Technique in a Patient with Macroglossia for Amyloidosis

Nicolás Reyne Silva¹; Hilda Moris Vidal¹; Diego Bustamante Correa² & Felipe Astorga Mori³

REYNE, S. N.; MORIS, V. H.; BUSTAMANTE, C. D.; ASTORGA, M. F. Glosoplastía con técnica de harada, en un paciente con macroglosia por amiloidosis. *Int. J. Odontostomat.*, 16(1):19-22, 2022.

RESUMEN: La Macroglosia, corresponde a un cuadro caracterizado por un aumento de tamaño lingual, pudiendo causar alteraciones estéticas y funcionales, llegando incluso a comprometer la vía aérea. Es una de las manifestaciones temprana de la amiloidosis, que a su vez se encuentra asociada a algunos casos de Mieloma Múltiple. Se presenta caso clínico de paciente sexo masculino de 73 años de edad, que presenta macroglosia en servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital del Carmen Maipú, Santiago de Chile. Donde se determinó que la macroglosia estaba en contexto de una amiloidosis, se describe diagnóstico y tratamiento quirúrgico realizado, además de complicación caracterizada por obstrucción de vía aérea, requiriendo Glosoplastía mediante técnica de Harada.

PALABRAS CLAVE: macroglosia, amiloidosis, mieloma múltiple, glosoplastía.

INTRODUCCIÓN

Macroglosia se define como aumento de volumen anormal de la lengua. Puede ser consecuencia de patologías que causan hipertrofia o hiperplasia de las células musculares o glándulas linguales. Su etiología es variada y es posible clasificarla en: congénitas o adquiridas. Las causas congénitas se deben principalmente a consecuencia de hipertrofia muscular o hiperplasia glandular causada por hemangiomas o linfangiomas, se encuentran también asociadas a diferentes condiciones como, por ejemplo: Síndrome de Down, Síndrome de Hurler, diabetes mellitus neonatal, macroglosia autosómica dominante entre otras (Martínez, 2006). Por otra parte, dentro de las causas adquiridas, encontramos que se puede asociar a diversas enfermedades como: acromegalia, mixedema neonatal, sífilis terciaria, sarcomas, edema producido por fármacos y amiloidosis primaria. Esta última, corresponde a uno de los cuadros más frecuente, siendo la principal causante, por ende, se considera un signo patognomónico para el diagnóstico, ya que se encuentra en un 20 % de los pacientes con amiloidosis primaria (Wolford & Cottrell, 1996; Bestard Matamoros *et al.*, 2008; Kurchan

et al., 2016). Dentro de las complicaciones de la macroglosia, existen: alteración de fonación, deglución, respiratorias, desarrollo y crecimiento craneofacial. Las alteraciones respiratorias corresponden a las más complejas y riesgosas, debido a la disminución y obstrucción de la vía aérea, causando graves problemas en la respiración o ventilación pudiendo requerir tratamiento de urgencia (Irhamni, 2015).

La valoración del tamaño de la lengua se basa en criterios subjetivos al observar la discrepancia clínica entre su tamaño y el de la cavidad oral. También puede ser por medida mediante telerradiografía lateral de cráneo en posición habitual con la lengua en reposo, ya que en posición céntrica el dorso de la lengua contacta al paladar y no se puede trazar su contorno, también se puede evaluar con una resonancia magnética (Gasparini *et al.*, 2002). Dentro de las características de los pacientes y macroglosia podemos encontrar: proyección lingual más allá de los procesos alveolares, indentaciones de las piezas dentales en las caras laterales de la lengua, incompetencia labial o

¹ Hospital Clínico Metropolitano el Carmen Maipú, Santiago, Chile.

² Residente Cirugía Maxilofacial, Universidad de Chile. Hospital Clínico Metropolitano el Carmen Maipú, Santiago, Chile.

³ Cirujano Maxilofacial, Hospital Clínico Metropolitano el Carmen Maipú, Santiago, Chile.

imposibilidad de cerrar los labios, respiración bucal, obstrucción de la vía aérea y apneas del sueño, la lengua presenta una superficie lisa y seca, fisurada, pápulas y nódulos, con aumento de su tamaño y grosor (Martinez; Raposo *et al.*, 2011).

REPORTE DE CASO

Paciente de sexo masculino, 73 años de edad, derivado desde el consultorio al Hospital el Carmen Maipú por dificultad respiratoria, presentaba aumento del tamaño de la lengua y sensación de ardor de 1 año de evolución. Señaló que en el último tiempo ha sentido que la lengua aumentaba de tamaño causándole incomodidades y dificultades tanto respiratorias, fonéticas y alimentarias. Presentaba antecedentes de síndrome del Túnel Carpiano bilateral, hipertensión arterial, insuficiencia renal crónica y enfermedad pulmonar obstructiva crónica consecuyente a tabaquismo, recibió tratamiento farmacológico con Amlodipino, Enalapril, y Quetiapina. No tenía alergias.

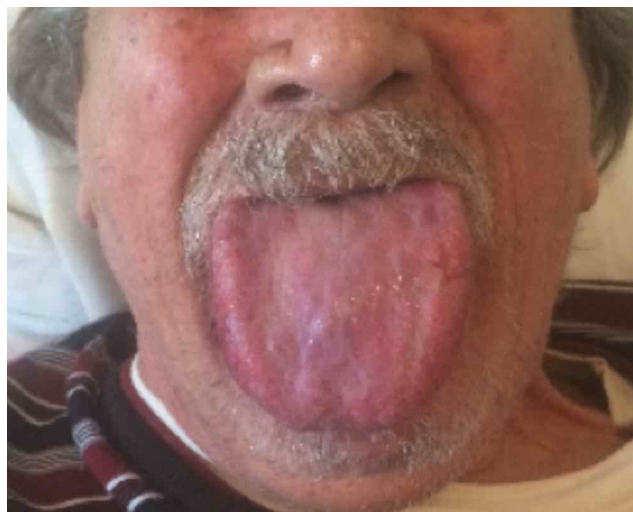


Fig. 1. Lengua con considerable aumento de tamaño en sentido transversal, sagital y corono caudal.

Al examen físico, a primera impresión simétrico sin aumento de volumen evidente. Se evidencia respiración bucal, cierre labial incompleto y cavidad oral entreabierta con prognatismo mandibular. Además, destacaba dislalia. A nivel intraoral, se observó, lengua con aumento de tamaño, presentaba indentaciones en el margen lateral bilateral, zonas eritematosas y depapiladas (Fig. 1). Se observó obstrucción parcial de la vía aérea y Mallampati IV. Además, de fondo de vestíbulos desocupados sin alteración de mucosa oral y desdentado parcial.

En sus exámenes de laboratorio destacó electroforesis de proteínas en suero con inmunofijación con peak monoclonal de predominio gamma, electroforesis de proteínas en orina con inmunofijación con peak monoclonal IgG Lambda, recuento de inmunoglobulina G 1520 mg/dL.

La imágenes por tomografía computarizada evidenciaron riñones de tamaño adecuado, a pesar de enfermedad renal crónica y ecocardiograma con disfunción diastólica grado I.

Por hallazgos clínicos sugerentes a macroglosia, se decidió biopsiar lengua, para estudio etiológico. Se estudió el caso en conjunto con el equipo de anestesia y otorrinolaringología. Debido a dificultad respiratoria que afectaba al paciente, se realizó glosoplastia mediante técnica descrita por Harada, para aumentar permeabilidad de vía aérea, disminuir tamaño lingual en los tres sentidos del espacio con la menor morbilidad posible y para preservar las funciones primordiales de la lengua. El procedimiento se realizó bajo anestesia general, requirió traqueostomía por vía aérea difícil.

Respecto a procedimiento quirúrgico, primero se diseñó colgajo con colorante Anilina, se realizó incisión semilunar en zona posterior de lengua por cara dorsal, respetando las papilas caliciformes. Se



Fig. 2. Incisión con técnica de Harada sin comprometer ápex lingual ni márgenes laterales (A). Remoción de la cara dorsal de la lengua hasta llegar al plano muscular (B). Reposición de los márgenes de la incisión mediante sutura por planos (C).

complementó con una incisión central en cara dorsal de lengua que se extendió 2/3 anteriores sin comprometer el apex lingual ni los márgenes laterales. Posteriormente se realizó remoción de cara dorsal de lengua hasta llegar a plano muscular, para finalmente reposicionar los márgenes de la incisión mediante una sutura por planos (Fig. 2). Por último, se tomó muestra del tejido lingual extirpado para realizar estudio histopatológico (Fig. 3), el cual confirmó el diagnóstico de amiloidosis.

Luego del tratamiento y estudio histopatológico (Fig. 4), se evidenció coexistencia de amiloidosis con mieloma múltiple. Se inició tratamiento con quimioterapia y radioterapia, con intolerancia, por lo cual se ingresó a cuidados paliativos para alivio sintomático. Finalmente, el paciente fallece a los 5 meses posterior a intervención.



Fig. 3. Muestra del tejido lingual extirpado para realizar el estudio histopatológico.

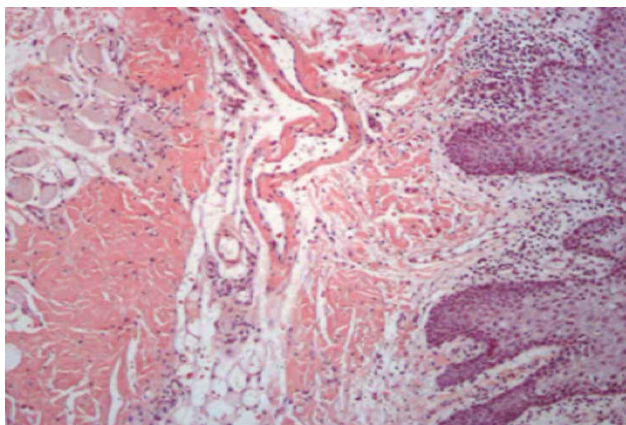


Fig. 4. Estudio histopatológico arroja muestra lingual con tinción de rojo Congo (+), material acelular en la submucosa separando los haces musculares.

DISCUSIÓN

La amiloidosis, es una patología con múltiples causas que se caracteriza por depósito de material amiloide en espacio extracelular de diferentes tejidos. Causando grandes alteraciones funcionales, anatómicas y fisiológicas de los órganos afectados, generando variabilidad en expresión clínica y baja sospecha como consecuencia (Bestard Matamoros *et al.*).

La macroglosia, por otra parte, corresponde al aumento de volumen anormal de la lengua, siendo la amiloidosis Sistémica Primaria una de las principales causas de ésta y una de las principales manifestaciones tempranas (Martinez).

La amiloidosis primaria idiopática, corresponde a la forma más común de amiloidosis sistémica. Se puede manifestar de forma independiente, sin presentar patrón genético asociado. Un 75 % de los casos, se encuentra asociada al Mieloma Múltiple, comprometiendo principalmente órganos como la lengua, la tiroides, tracto intestinal, hígado, bazo y musculatura cardíaca (Kurchan *et al.*; Martos *et al.*, 2008).

Existen múltiples y variadas técnicas que buscan reducir el tamaño de la lengua. A través de los años se han intentado plantear diversas técnicas que ayuden a mejorar el post operatorio del paciente y disminuir sus complicaciones como lo son hemorragias, alteraciones en el gusto, en la sensibilidad o movilidad lingual (Raposo *et al.*).

La glosoplastia planteada por Harada descrita en 1995, consiste en realizar una línea en forma de cuña en el centro de la lengua, y una forma de medialuna en la parte posterior del dorso. La combinación de estos dos, más la profundidad del colgajo, resulta en la reducción en los tres sentidos del espacio. Es una de las técnicas más utilizadas hoy en día ya que busca evitar las zonas sensoriales de la lengua, causando la menor alteración de la sensación del gusto al paciente, además de lograr de manera eficiente una considerable disminución del tamaño de la lengua (Raposo *et al.*; Harada & Enomoto, 1995)

Si bien las técnicas quirúrgicas para disminuir el tamaño de la lengua son variadas, no hay estudios concluyentes, que comparen las diferentes técnicas de glosoplastias, consideramos importante unificar el criterio diagnóstico de macroglosia que nos permita objetivar el tamaño de la lengua en cada paciente.

REYNE, S. N.; MORIS, V. H.; BUSTAMANTE, C. D.; ASTORGA, M. F. Glossoplasty with harada tecnie in a patient with macroglossia for amyloidosis. *Int. J. Odontostomat.*, 16(1):19-22, 2022.

ABSTRACT: Macroglossia corresponds to a condition characterized by an increase in lingual size, which can cause aesthetic and functional alterations, even compromising the airway. It is one of the early manifestations of amyloidosis, which is associated with some cases of Multiple Myeloma. Presented a clinical case of a 73-year-old male patient, presenting macroglossia in the Maxillofacial Surgery service of the Hospital del Carmen Maipú, Santiago de Chile, where it was determined that the macroglossia was in the context of amyloidosis. The diagnosis and surgical treatment performed is described, as a complication characterized by airway obstruction requiring Glossoplasty using the Harada technique.

KEY WORDS: macroglossia, amyloidosis, multiple mieloma, glossoplasty.

Dirección para correspondencia:
Nicolás Reyne Silva
Hospital Clínico Metropolitano el Carmen
Santiago
CHILE

E-mail: nreyne.silva@gmail.com

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Bestard Matamoros, O.; Poveda Monje, R.; Ibernón Vilaró, M.; Carrera Plans, M. & Grinyó Boira, J. M. Amiloidosis secundaria (AA) asociada a tumoraciones benignas. *Nefrología*, 28(1):93-8, 2008.
- Gasparini, G.; Saltarel, A.; Carboni, A.; Maggiulli, F. & Becelli, R. Surgical management of macroglossia: discussion of 7 cases. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 94(5):566-71, 2002.
- Harada, K. & Enomoto, S. A new method of tongue reduction for macroglossia. *J. Oral Maxillofac. Surg.*, 53(1):91-2, 1995.
- Irharni, B. R. Case report macroglossia: Review and application of tongue reduction technique. *J. Pediatr. Surg. Case Rep.*, 3(5):198-200, 2015.
- Kurchan, A.; Mur, N.; Díaz, G.; Arbia, C.; Escobar, O. & González, S. Amiloidosis primaria asociada a mieloma múltiple. *Rev. Hematol. Argent.*, 16:55-6, 2016.
- Martínez, L. P. Macroglosia: Etiología multifactorial, manejo múltiple. *Colomb. Med.*, 37(1):67-73, 2006.
- Martos, P.; Sastre, J.; Mancha de la Plata, M.; Reina, T.; Rosón, S. & Naval, L. Amiloidosis oral nodular. *Rev. Esp. Cir. Oral y Máxilofac.*, 30:35-40, 2008.
- Raposo, A.; Preisler, G.; Salinas, F. & Muñoz, C. Glossoplasty with Harada's technique in a patient with Down syndrome. *Int. J. Odontostomat.*, 5(3):245-8, 2011.
- Wolford, L. M. & Cottrell, D. A. Diagnosis of macroglossia and indications for reduction glossectomy. *Am. J. Orthod. Dentofacial Orthop.*, 110(2):170-7, 1996.