

Hallazgo de flebolitos en la región bucal: Reporte de dos casos.

*Oscar Arturo Benítez-Cárdenas, Elhi Manuel Torres Hernández,
Esteban Raúl Mar Uribe y Jairo Mariel Cárdenas*

Departamento de Cirugía Bucal y Maxilofacial, Facultad de Estomatología
de la Universidad Autónoma de San Luis Potosí, San Luis Potosí, México.

Palabras clave: flebolitos; patología vascular; trombo; calcificación.

Resumen. Los trombos formados en vasos sanguíneos, aunque suelen tener un flujo sanguíneo normal, pueden experimentar la deposición de minerales, dando como resultado la formación de flebolitos y, cuando afectan la región bucal, pueden provocar asimetría facial debido a un aumento de volumen, confiriendo a la mucosa un aspecto azulado. A pesar de que el diagnóstico de flebolitos suele ser incidental, se hace necesario diferenciarlos de otras calcificaciones. En este artículo, se presentan dos casos clínicos relevantes. El primero está asociado con un evento traumático y se diagnosticó clínicamente como un probable sialolito. El segundo caso, inicialmente diagnosticado como flebolito, no mostraba asociación con patología vascular. Estos casos subrayan la importancia de considerar la posible presencia de flebolitos en el diagnóstico diferencial de lesiones vasculares y otras calcificaciones en la región bucal. Además, se destaca la necesidad de un enfoque cuidadoso y una evaluación detallada para determinar el origen y la naturaleza de las calcificaciones en la mucosa oral para garantizar un tratamiento apropiado y evitar complicaciones potenciales.

Finding phleboliths in the oral region: Report of two cases.

Invest Clin 2024; 65 (4): 454 – 461

Keywords: phleboliths; vascular pathology; thrombus; calcification.

Abstract. Thrombi formed in blood vessels, although typically experiencing normal blood flow, may undergo mineral deposition, resulting in the formation of phleboliths. When affecting the oral region, they can lead to facial asymmetry due to volume increase, imparting a bluish appearance to the mucosa. Despite phlebolith diagnosis often being incidental, distinguishing them from other calcifications becomes imperative. This article presents two pertinent clinical cases: the first associated with a traumatic event clinically diagnosed as a probable sialolith, and the second case, initially identified as a phlebolith, showed no association with vascular pathology. These cases underscore the importance of considering the presence of phleboliths in the differential diagnosis of vascular lesions and other calcifications in the oral region. Furthermore, it highlights the necessity for a meticulous approach and detailed assessment to determine the origin and nature of calcifications in the oral mucosa to ensure appropriate treatment and mitigate potential complications.

Recibido: 24-11-2023

Aceptado: 29-06-2024

INTRODUCCIÓN

Los trombos formados en vasos sanguíneos con interrupción normal del flujo sanguíneo pueden sufrir la deposición de minerales, formando los flebolitos. Los cuales están principalmente asociados a lesiones diagnosticadas como malformaciones vasculares (MV) o hemangiomas (considerados como tumores vasculares benignos) ¹⁻⁴. Chin y col. ⁵, menciona que los primeros hallazgos, desde un punto de vista anatómico, sobre los flebolitos, se realizaron tras observar nódulos calcificados intravenosos en disecciones de pelvis humana. Según Garry y col. ², los flebolitos son trombos organizados calcificados, que no surgen libremente en la luz de las venas, sino que se fijan desde el principio como trombos en la pared de un vaso. Una vez pasado un tiempo, el trombo empieza a tener más organización; se pueden distinguir 2 secciones, una central (en la cual aún se reconocen muchos glóbulos

rojos) y otra secundaria, en forma de media-luna, donde se observa una gran cantidad de fibrina y una capa de tejido conectivo en el interior. En un estadio más organizado, la sección secundaria muestra fibras irregularmente dispuestas en sentido concéntrico densamente empaquetadas, característico de los flebolitos. Cuando ya se encuentra organizado, comienza la calcificación desde el interior hacia el exterior del trombo y el centro forma un campo redondeado y homogéneo; una vez fusionada la fibrina con los glóbulos rojos, absorben sales de fosfato de calcio y carbonato de calcio. Su periferia la recubre una capa densamente fibrosa². La clasificación de las MV de la Sociedad Internacional para el Estudio de Anomalías Vasculares (ISSVA por sus siglas en inglés) de 2018, las divide en 4 tipos: simples (capilares, linfáticas, venosas y arteriovenosas) y combinadas, de vasos principales y asociadas a otras anomalías ⁶. Además de las MV, también se asocian a hemangiomas intramusculares

(HIM; entidad actualmente no clasificada por la ISSVA) ^{7,8}, siendo el músculo masetero el más afectado de la región de cabeza y cuello ⁹. Las malformaciones vasculares son anomalías que se forman por alteraciones durante el desarrollo y morfogénesis de los vasos. Se pueden observar en el momento del nacimiento o pueden aparecer en la primera infancia, suelen aumentar su tamaño de manera proporcional al crecimiento del niño, aunque también la infección, cambios hormonales (pubertad o embarazo) o traumatismos pueden desencadenar su expansión repentina ¹⁰⁻¹². El diagnóstico de flebolitos suele ser incidental por hallazgo, durante estudios de imagen de rutina o estudios de lesiones vasculares. Sin embargo, requieren diferenciarse de otras calcificaciones, tales como sialolitos, tonsilolitos, ganglios linfáticos calcificados, placas ateroscleróticas en la arteria carótida, cisticercosis y/u osteomas cutáneos miliares^{13,14}. Los flebolitos que afectan la región bucal clínicamente pueden causar asimetría facial como consecuencia del aumento de volumen y - a su vez- brinda un aspecto azulado a la mucosa ^{8,14}. A la palpación se pueden percibir nódulos indurados. Puede o no presentar sintomatología, siendo estos en ocasiones dolorosa.

La literatura científica contemporánea proporciona una diversidad de casos clínicos que arrojan luz sobre la presencia y manifestaciones de flebolitos en la región bucal. En un estudio reciente, Sato y col. ¹⁵, presentaron un caso de múltiples flebolitos mediales a la rama mandibular derecha, identificados como un hallazgo incidental durante una exploración oral, previa a una intervención quirúrgica general. Este caso resalta la importancia de la detección temprana de lesiones bucales sin presentar signos visibles a la exploración médica. Castro-Abrantes y col. ¹⁶, documentaron un caso de malformación vascular con múltiples flebolitos en un paciente que experimentaba cuerpos duros a la palpación que se extendían desde la región de la apófisis coronoides hasta la base de la mandíbula. Este hallazgo enfatiza la

necesidad de considerar los flebolitos en el diagnóstico diferencial de las lesiones mandibulares, especialmente en pacientes con manifestaciones clínicas sugerentes de patologías vasculares y óseas. Por otro lado, un informe de Freitas y col. ¹⁷, describen un caso de flebolitos en la región posterior de la mucosa bucal izquierda que no estaban relacionados con parestesia o disfasia, pero presentaban dolor. El análisis histopatológico y por tomografía reveló depósitos concéntricos de laminillas calcificadas con focos de material anfilo amorfo calcificado y una zona periférica revestida por tejido de musculo liso compatible con las paredes vasculares. El diagnóstico final fue de múltiples flebolitos hamartosos calcificados. Sivrikaya y col. ¹⁸, refieren un paciente que presentó hinchazón dolorosa en la región bucal izquierda con evidente lesión mucosa azulada; al análisis por radiografía y tomografía se observaron múltiples flebolitos. Tal información es de gran importancia por los hallazgos clínicos, las posibles localizaciones inespecíficas, así como el probable tratamiento. Este último puede ser invasivo o no, dependiendo de la ubicación, accesibilidad, profundidad de la invasión, edad, estética y riesgos de posibles hemorragias en el tratamiento quirúrgico. Finalmente, Costa y col. ¹⁹, presentaron el caso de una consulta por nódulo benigno, levemente doloroso en la región cigomática derecha. A través de biopsia se diagnosticó como flebolito asociado a hemangioma evolucionado, lo cual demostró la importancia del reconocimiento adecuado de los flebolitos para un manejo clínico apropiado.

Estos casos recientes subrayan la diversidad de presentaciones clínicas de los flebolitos en la región bucal y destacan la necesidad de una evaluación clínica exhaustiva para su detección y diagnóstico adecuados.

En el presente artículo, se presentan dos casos clínicos, el primero, asociado con un evento traumático, clínicamente diagnosticado como probable sialolito versus flebolito y el segundo caso, con diagnóstico inicial de flebolito no asociado a patología vascular.

CASOS CLÍNICOS

Caso 1

Se presenta paciente femenina de 29 años de edad, sin antecedentes crónicos degenerativos, con motivo de consulta por asimetría facial posterior a un trauma contuso, de dieciocho meses de evolución, considerándose de lento y progresivo crecimiento. A la exploración clínica se evidencia la asimetría facial debido al aumento de volumen en la región bucal del lado izquierdo (Fig. 1A). No se observaron cambios de color ni de temperatura; se identifica de superficie blanda con múltiples nódulos indoloros, perceptibles a la palpación, no se observan cambios de coloración ni de temperatura; se identifica de superficie blanda, múltiples nódulos perceptibles a la palpación de forma indolora. A la exploración intraoral no presenta limitación a la apertura, mucosas hidratadas, conductos de glándulas salivales mayores permeables con adecuada producción salival y mucosa

yugal del lado izquierdo con ligera tonalidad azulada. De acuerdo con los datos clínicos previamente mencionados, se decide realizar una tomografía computarizada para valorar estado y posición de las lesiones palpables. En la reconstrucción 3D de la tomografía, se observaron 3 nódulos isodensos en el hueso de la región bucal del lado izquierdo; uno de mayor tamaño y dos menores a éste (Fig. 1B).

Debido a las características imagenológicas de los nódulos y a la exploración clínica, se da la impresión diagnóstica de flebolitos, por lo que se decide su escisión quirúrgica bajo anestesia local. El procedimiento quirúrgico consistió en realizar la técnica de asepsia y antisepsia, se infiltró lidocaína 2% con epinefrina en la mucosa y submucosa yugal del lado izquierdo y se realizó una incisión 1cm por debajo al plano paralelo al conducto de Stenon, se hizo disección roma con una pinza moquito hasta acceder a los nódulos que estaban inmersos a la bola adiposa de Bichat.

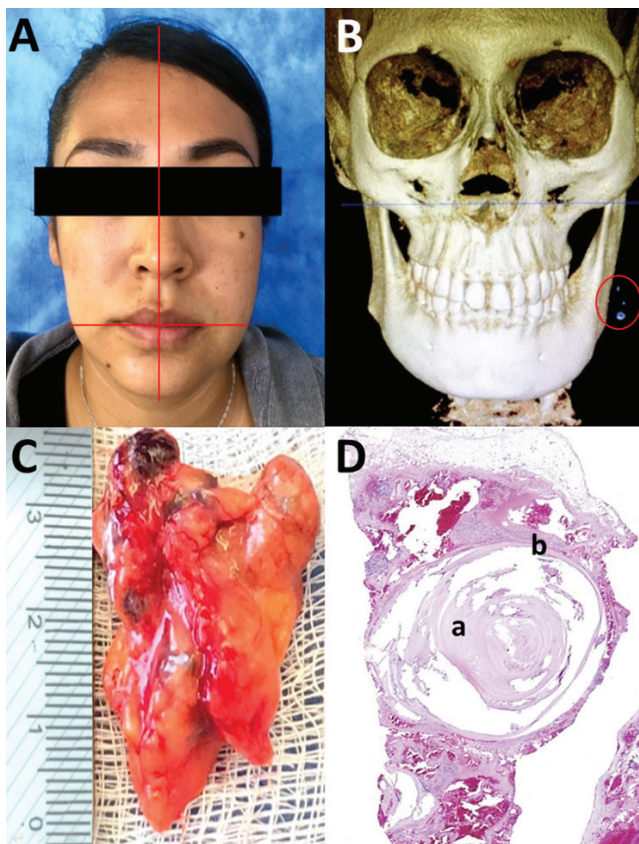


Fig. 1. Caso 1. A. Fotografía frontal de la paciente con asimetría facial por aumento de volumen en región bucal izquierda, sin cambios de coloración. B. Reconstrucción 3D de tomografía facial muestra masas isodensas en el hueso en región bucal izquierda. C. Pieza quirúrgica de 35mm x 30mm con tonalidades amarillas, rojizas y violáceas. D. Imagen histológica muestra tejido adiposo residual, malformaciones vasculares y flebolito en la luz vascular: a. flebolito, b. endotelio.

Se pinzó y traccionó el tejido adiposo con pinzas mosco, para después extraerla. Durante el procedimiento hubo sangrado mínimo, al finalizar, se colocaron puntos de sutura simples con vicryl 4-0. Se obtuvo una pieza quirúrgica de aproximadamente 37x30 mm, de aspecto adiposo con zonas de hematoma (Fig. 1C). A la palpación superficial de consistencia blanda y a la palpación profunda se percibían múltiples nódulos indurados. Al analizar la biopsia se identificó un hallazgo histopatológico en el cual se identifica el depósito de calcio formando estructuras redondas y pétreas circunscritas de endotelio vascular (Fig. 1D).

Caso 2

Paciente femenino de 15 años de edad, sin antecedentes crónico degenerativo ni alérgico. Inicia su padecimiento actual 6 meses previos a su consulta, refiriendo que la madre nota ligera asimetría facial debido a un aumento de volumen en la hemicara izquierda, por lo que decide ir con un cirujano oral y maxilofacial particular para recibir una valoración especializada. A la exploración clínica se observa un aumento de volumen en la región bucal lado izquierdo (Fig. 2A), se identifica de consistencia blanda con múlti-

ples nódulos palpables e indoloros, sin cambios térmicos ni cromáticos. A la exploración intraoral, se evidencia un ligero aumento de volumen en mucosa yugal del mismo lado, sin cambios cromáticos, conductos de glándulas salivales permeables, con buena calidad y cantidad de producción salival. En base a la exploración clínica se tiene la impresión diagnóstica de flebolitos, por lo que se solicita examen imagenológicos a través de tomografía. A su valoración, se observan múltiples nódulos isodensos a hueso en región bucal y maseterina de lado izquierdo (Fig. 2B). Por lo que se decide realizar una biopsia excisional de los nódulos de la región bucal para el diagnóstico definitivo. Para el procedimiento, se realizó la técnica de asepsia y antisepsia pertinente, se infiltró lidocaína al 2% con epinefrina en la mucosa y submucosa yugal del lado izquierdo, y realizar una incisión de 1 cm por debajo al plano paralelo al trayecto del conducto de Stenon, se hizo disección roma con una pinza mosquito hasta acceder a los nódulos que estaban inmersos a la bola adiposa de Bichat. Se pinzó y traccionó el tejido adiposo con pinzas mosco, para después extraerla.

Se continuó con la disección roma con pinzas mosquito hasta localizar los nódulos calcificados, una vez que se localizaron, se

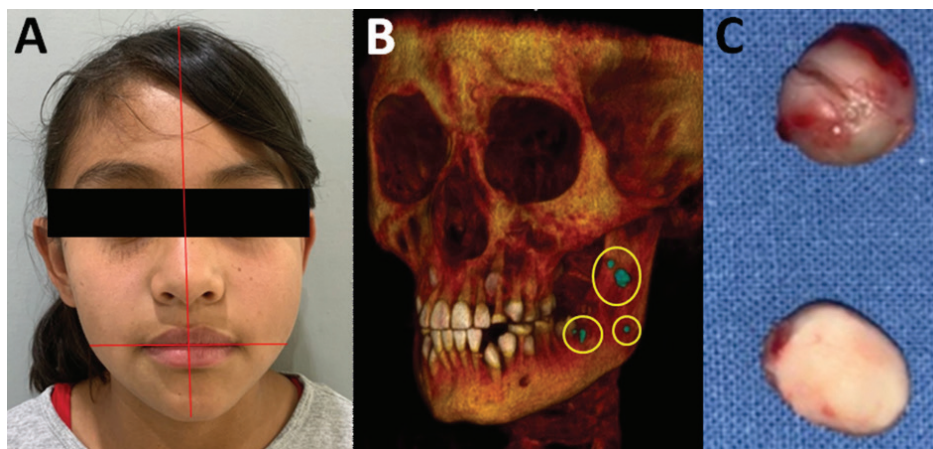


Fig. 2. Caso 2. A. Fotografía frontal de la paciente con ligera asimetría facial por aumento de volumen en región bucal izquierda. B. Reconstrucción 3D de tomografía muestra múltiples masas isodensas en el hueso en región bucal y maseterina izquierda. C. Piezas quirúrgicas: 2 fragmentos ovoides, uno de 10 x 9mm y otro de 10 x 7mm.

pinzaron y traccionaron con pinzas mosco, y se removieron, obteniendo 2 piezas quirúrgicas (Fig. 2C). El sangrado durante la cirugía fue mínimo; se realizó el cierre de la incisión quirúrgica con puntos simples con vicryl 4-0.

DISCUSIÓN

Los flebolitos son trombos calcificados comúnmente asociados a hemangiomas intramusculares y malformaciones vasculares, aunque se han reportado casos raros como calcificaciones solitarias y no asociadas a estas lesiones¹⁴. También se han relacionado a eventos traumáticos, siendo la causa que los origina³, tal como el primer caso que se describe. Clínicamente, el signo más común de las MV es una masa de tonalidad púrpura-azulada de crecimiento lento que, a la palpación, suele ser fluctuante, dicha masa puede presentarse en la primera infancia. Los flebolitos pueden encontrarse en glándulas salivales principalmente la parótida, en músculos y tejidos blandos como labios o mejilla. Las malformaciones vasculares son resultado de un error congénito en la morfogénesis vascular, lo cual sucede entre la cuarta y la décima semana de vida intrauterina. El tratamiento de las anomalías vasculares depende de muchos factores, tales como el estadio de desarrollo de la lesión, la edad del paciente, la localización y la intensidad de la lesión. En la mayoría de los casos los hemangiomas sufren una involución total o casi completa, y no suelen requerir tratamiento, aunque sí control y seguimiento clínico, caso contrario a las malformaciones vasculares²⁰. Las indicaciones de tratamiento están vinculadas a la asociación con dolor, daño articular, desfiguración o eventos hemorrágicos²¹.

Cuando es necesario el tratamiento, a menudo se requiere un procedimiento quirúrgico único, u otras terapias como el láser Nd:YAG, terapia combinada con esteroides²⁰, escleroterapia (como el etanol deshidratado, tetradeilsulfato de sodio, polidocanol y la bleomicina) con o sin resección

quirúrgica subsiguiente¹¹, embolización, relleno de cera ósea, infiltración de pegamento de fibrina, terapia electroquímica, entre otras^{22,23}. En ambos casos mencionados se realizó la escisión quirúrgica sin previo tratamiento; en el segundo caso, asociado a una MV, hubiera sido valiosa la valoración previa para descartar alguna anomalía vascular y evitar un sangrado considerable durante el procedimiento quirúrgico. Ante la sospecha de una anomalía vascular, el US Doppler es el primer estudio de imagen a solicitar, ya que es un estudio económico y no invasivo; además, permite diferenciar entre una lesión de alto y bajo flujo, y se podría identificar la presencia de flebolitos. Una vez identificada la presencia de una anomalía vascular, la resonancia magnética permitirá identificar y definir la extensión de la lesión así como su relación con otras estructuras²². Los flebolitos suelen ser laminados, con un núcleo radiopaco, aunque en ocasiones éste puede ser radiolúcido; los flebolitos de menor tamaño son uniformemente radiopacos²⁴. En los estudios de imagen de los casos presentados, las lesiones se mostraron como múltiples masas de núcleo y halo radiopaco de aspecto laminado, reforzando la impresión diagnóstica de flebolitos.

Los flebolitos no deben confundirse con los sialolitos; los HIM masetéricos se encuentran en estrecha relación anatómica con la glándula parótida; sin embargo, la sialolitiasis causará obstrucción del conducto de Stenon y sialoadenitis, hallazgos que no se observan en los dos casos presentados; además, la ovalidad del flebolito en comparación con la forma típicamente elíptica del sialolito, puede servir como criterio para distinguirlos²⁵.

En conclusión, la presencia de flebolitos en la región bucal es un hallazgo clínico relevante que puede estar asociado a diversas condiciones, como malformaciones vasculares, hemangiomas intramusculares, y eventos traumáticos. Los flebolitos pueden provocar asimetría facial y tener manifestaciones clínicas variables, lo que resalta la im-

portancia de considerarlos en el diagnóstico diferencial de lesiones bucales. Los estudios de imagen, como la tomografía computarizada, son fundamentales para confirmar el diagnóstico y planificar el tratamiento adecuado. En los casos presentados, la escisión quirúrgica fue el tratamiento elegido; sin embargo, la evaluación previa para descartar anomalías vasculares habría sido beneficiosa, especialmente para evitar complicaciones durante el procedimiento quirúrgico. Es crucial destacar la importancia del diagnóstico diferencial entre flebolitos y otras calcificaciones bucales como los sialolitos, para garantizar un manejo clínico adecuado y evitar tratamientos innecesarios. Además, se subraya la necesidad de una evaluación multidisciplinaria y un seguimiento adecuado para garantizar el éxito del tratamiento y prevenir recurrencias.

Financiamiento

No se recibió financiamiento.

Conflicto de interés

Los autores declaran que no existe ningún conflicto de intereses económicos, personales o profesionales que puede obstaculizar este trabajo.

Números ORCID de los autores

- Oscar A. Benítez Cárdenas (OABC): 0009-0006-5780-2890
- Elhi M. Torres Hernández (EMTH): 0009-0008-3824-3039
- Esteban Raúl Mar Uribe (ERMU): 0009-0002-1421-1071
- Jairo Mariel Cárdenas (JMC): 0000-0002-4733-7271

Contribución de los autores

OABC, EMTH, ERMU y JMC participaron en la propuesta, concepto y diseño del trabajo, EMTH y ERMU realizaron la prepa-

ración de materiales, la recopilación de datos y el análisis de los casos. OABC Y JMC escribieron el primer borrador del manuscrito, diseño de las figuras y discusión en el manuscrito. Todos los autores analizaron los artículos, así como participaron activamente en cada una de las revisiones enviando sus comentarios, sugerencias y aprobación el manuscrito final.

REFERENCIAS

1. **Becerra-Heredia JL, Fiori-Chíncaro GA, Agudelo-Botero AM.** Flebolitos en la región maxilofacial: un desafío para el diagnóstico por imágenes. *Rev Cient Odontol (Lima)*. 2021 Dec 9;9(4):e086.
2. **Garry S, Wauchope J, Moran T, Kieran SM.** Phleboliths in a vascular malformation within the parotid gland. *J Pediatr Surg Case Rep* 2022; 83: 102327.
3. **Gouvêa Lima G de M, Moraes RM, Cavalcante ASR, Carvalho YR, Anbinder AL.** An isolated phlebolith on the lip: an unusual case and review of the literature. *Case Rep Pathol* 2015;2015:507840.
4. **Mallya SM, Lam EWN, Board A, Radiology M, Chapman K, Science C.** White and Pharoah 's Oral Radiology Principles and Interpretation. 8Th Edition. 2019. ELSEVIER.
5. **Chin On Luk A, Cleaveland P, Olson L, Neilson D, Siringam SJ.** Pelvic phlebolith: a trivial pursuit for the urologist? *J Endourol* 2017; 31(4): 342-347.
6. **ISSVA classification for vascular anomalies.** Available from: <https://www.issva.org/>
7. **Kanaya H, Saito Y, Gama N, Konno W, Hirabayashi H, Haruna S.** Intramuscular hemangioma of masseter muscle with prominent formation of phleboliths: A case report. *Auris Nasus Larynx* 2008; Dec;35(4):587-591.
8. **Sano K, Ogawa A, Inokuchi T, Takahashi H, Hisatsune K.** Buccal hemangioma with phleboliths. Report of two cases. *Or Surg Or Med Or Pa.* 1988;65(2):151-156.
9. **Park JW, Kim CH, Moon CW.** Intramuscular hemangioma in buccal cheek: A case

- report. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 2017;43(4):262–266.
10. **Scolozzi P, Laurent F, Lombardi T, Richter M.** Intraoral venous malformation presenting with multiple phleboliths. *Oral Surg Oral Med. Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2003;96(2):197–200.
 11. **Sousa Costa JR, Torriani MA, Hosni ES, D'Avila OP, de Figueiredo PJ.** Sclerotherapy for vascular malformations in the oral and maxillofacial region: Treatment and follow-up of 66 lesions. *J Oral Maxillofac Surg* 2011;69(6):e88–92.
 12. **Eivazi B, Ardelean M, Bäuml W, Berlien HP, Cremer H, Elluru R, Koltai P, Olofsson J, Richter G, Schick B, Werner JA.** Update on hemangiomas and vascular malformations of the head and neck. *Eur Arch Otorrinolaringol* 2009;266(2):187–197.
 13. **March S, Noffke CEE, Raubenheimer EJ, Chabikuli NJ.** Radiopacities in soft tissue on dental radiographs: Diagnostic considerations. *SADJ* 2015;70(2):53–57.
 14. **Mandel L, Perrino MA.** Phleboliths and the vascular maxillofacial lesion. *J Oral Maxillofac Surg* 2010;68(8):1973–1976.
 15. **Sato S, Takahashi M, Takahashi T.** A case of multiple phleboliths on the medial side of the right mandible. *Case Rep Dent* 2020; 27;2020:6694402.
 16. **Castro-Abrantes T, Barra SG, Silva LVO, Abrahão AC, Mesquita RA, Abreu LG.** Phleboliths of the head and neck Region - A case report. *Ann Maxillofac Surg* 2022; 12(2):231-233.
 17. **Freitas AO, Mota MRL, Sousa FB, Nogueira RLM, Lima-Verde MEQ, Azevedo NO, Alves APN.** Multiple calcified hamartomatous phleboliths in buccal mucosa. *Oral Surg Oral Med. Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2023;136 (1): e69.
 18. **Sivrikaya EC, Cezairli B, Ayranci F, Omezli MM, Erzurumlu ZU.** Buccal vascular malformation with multiple giant phleboliths: a rare case presentation and review of the literature. *Oral Maxillofac Surg* 2019;23(3):375-380.
 19. **Costa-Cavalcante SCR, Costa-Alves K, Breda-Junior MA, Lima SBJA, Bessa-Nogueira RV.** Solitary phlebolith in the zygomatic region: a case report. *Oral Surg Oral Med. Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2020; 130(3): e188.
 20. **Buckmiller LM, Richter GT, Suen JY.** Diagnosis and management of hemangiomas and vascular malformations of the head and neck. *Oral Dis* 2010;16(5):405–418.
 21. **Wójcicki P, Wójcicka K.** Epidemiology, diagnostics and treatment of vascular tumours and malformations. *Adv Clin Exp Med* 2014;23(3):475–484.
 22. **Dubois J, Alison M.** Vascular anomalies: what a radiologist needs to know. *Pediatr Radiol* 2010;40(6):895–905.
 23. **Ramakrishnan K, Palanivel I, Narayanan V, Chandran S, Gurram P.** Management of vascular malformations in the oral and maxillofacial region: A systematic review. *J Stomatol Oral Maxillofac Surg* 2021;122(6):588–599.
 24. **O'Riordan B.** Phleboliths and salivary calculi. *Br J Oral Surg* 1974;12(2):119–131.
 25. **Mandel L, Surattanont F.** Clinical and imaging diagnoses of intramuscular hemangiomas: The wattle sign and case reports. *J Oral Maxillofac Surg* 2004;62(6):754–758.