

Caso clínico

Arteria labial de calibre persistente

Alberto Díez Montiel, Diego Fernández Acosta, Saad Khayat
y Javier López de Atalaya Gutiérrez

Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial. Hospital General Universitario Gregorio Marañón. Madrid, España

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido: 12 de mayo de 2023

Aceptado: 24 de mayo de 2023

Palabras clave:

Arteria labial de calibre persistente,
lesión vascular, mucocele.

Keywords:

Caliber-persistent labial artery, vacula
lesion, mucocele.

RESUMEN

La arteria labial de calibre persistente (ALCP) es una entidad poco común, que se caracteriza por una arteria labial cuyo calibre permanece invariable tras su penetración en la submucosa. El diagnóstico diferencial debe apoyarse en pruebas de imagen pues la biopsia puede ocasionar sangrados importantes. El tratamiento varía desde el seguimiento clínico hasta la escisión quirúrgica. Presentamos el caso de una mujer de 40 años que acude a nuestra consulta por una tumoración lineal submucosa en labio superior, que le ocasionaba problemas estéticos y funcionales.

Caliber-persistent labial artery

ABSTRACT

Caliber-persistent labial artery is an uncommon lesion of the lip, which consists of a labial artery that penetrates into the submucosal tissue of the lip, without a loss of caliber. The differential diagnosis must be supported by image tests, since the surgical biopsy can cause significant bleeding. Treatment varies from clinical follow-up to surgical excision. We present the case of a 40-year-old woman who attends to our consultation for a lineal submucosal lesion that caused her aesthetical and functional compromise.

*Autor para correspondencia:

Correo electrónico: diezmontiel@gmail.com (Alberto Díez Montiel).

<http://dx.doi.org/10.20986/recom.2023.1450/2023>

1130-0558/© 2023 SECOM CyC. Publicado por Inspira Network. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

INTRODUCCIÓN

Gallard en 1884 describió 3 casos de pacientes que fallecieron por sangrado gástrico en los que se hallaron arterias de un calibre anormalmente grande en la submucosa gástrica¹. En 1962, Voth estableció el término “arteria de calibre persistente” para referirse a arterias anormalmente grandes en la submucosa gástrica². En 1973, Howell y Freeman fueron los primeros en acuñar el término “arteria labial inferior prominente”, que posteriormente Mikó llamó “arteria labial de calibre persistente” en 1980^{2,3}.

Mashall y Leppard, en 1985, publicaron un caso en un varón de 72 años que debutó con una ulceración labial inferior de larga evolución, cuyo diagnóstico de sospecha fue de carcinoma escamoso labial, siendo diagnosticado finalmente de ALCP en la anatomía patológica⁴.

Se estima que la incidencia de ALCP se sitúa en el 3 % de la población⁵, si bien, dada su poca sintomatología, su prevalencia podría ser mayor^{1,4}. Se aprecia una frecuencia similar en hombres que en mujeres, quizás con ligero predominio de mujeres³. Se ha descrito la aparición de esta entidad en un rango de edad entre 2 y 88 años, siendo infrecuente por debajo de los 30-40 años⁵. La frecuencia de aparición en el labio superior o inferior también es similar (49,6 % y 50,4 %, respectivamente).

La ALCP se puede presentar como un nódulo pulsátil palpable o visible, una pápula, o una úlcera, pero lo más frecuente es que sea asintomática. Es infrecuente que el paciente debute con sangrado^{1,3,6}. El diagnóstico puede ser difícil en un primer momento, pues resulta fácil confundirlo con otras lesiones vasculares⁶.

CASO CLÍNICO

Presentamos el caso de una mujer de 40 años que acude por la aparición desde hace 8 meses de una tumoración en la mucosa labial superior derecha, pulsátil, no dolorosa. La lesión se ha mantenido estable desde su aparición y la paciente no refiere traumatismos ni sangrado.

A la exploración física se aprecia una tumoración prominente no ulcerada, blanda y elástica, de 1 cm aproximadamente, en la zona de transición entre el bermellón y la mucosa labial derecha, pulsátil, no adherida a planos profundos, que se extiende desde la región central de la mucosa labial hasta la comisura labial. El resto de la mucosa oral y de la piel adyacente no presenta alteraciones relevantes (Figura 1).

En la exploración mediante ECO-DOPPLER se apreció una estructura vascular tortuosa de 5 mm de calibre con curva espectral de morfología arterial sin identificación de flujo venoso, siendo la sospecha diagnóstica de una malformación vascular de alto flujo (Figura 2). En la ANGIO-TAC se identificó en la región labial superior una estructura vascular arterial aislada, sin evidencia de nidus malformativos o áreas quísticas coexistentes, compatible con el diagnóstico de ALCP.

Con el diagnóstico de sospecha de ALCP, se decidió extirpar quirúrgicamente la lesión bajo anestesia local debido a las molestias que le ocasionaban a la paciente (Figura 3).

En la anatomía patológica se halló un segmento vascular arteriolar con fibrosis intimal concéntrica, identificándose lá-



Figura 1. Aspecto clínico de la lesión en el que se aprecia la protrusión lineal en la mucosa labial superior.

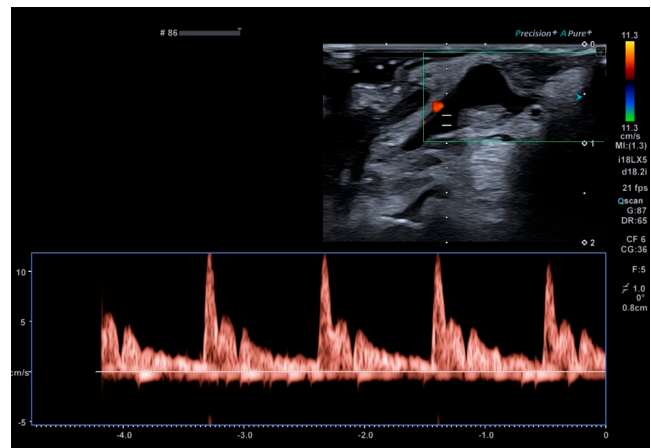


Figura 2. ECO-DOPPLER de la lesión con curva espectral arterial.

mina elástica externa y lámina elástica interna de manera focal con la tinción para reticulina. La inmunohistoquímica para actina ML reveló una capa muscular concéntrica en la pared vascular (Figura 4). Con estos hallazgos se diagnosticó de segmento vascular arterial con fibrosis intimal compatible con arteria labial de calibre persistente.

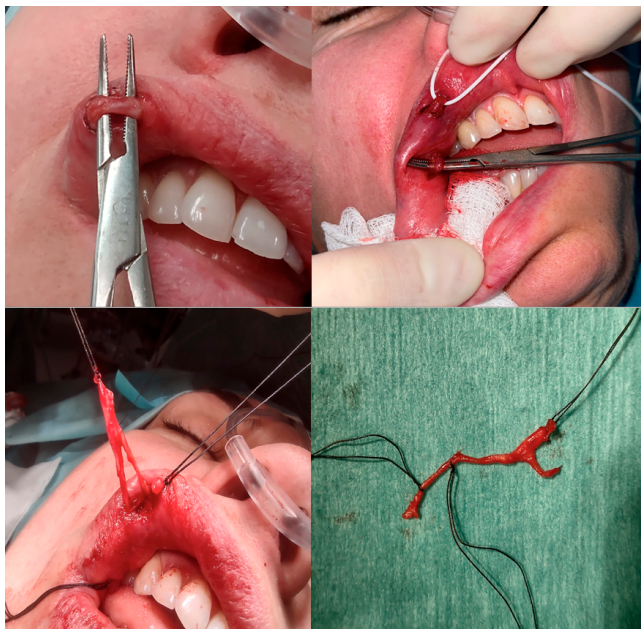


Figura 3. Procedimiento de extirpación quirúrgico.

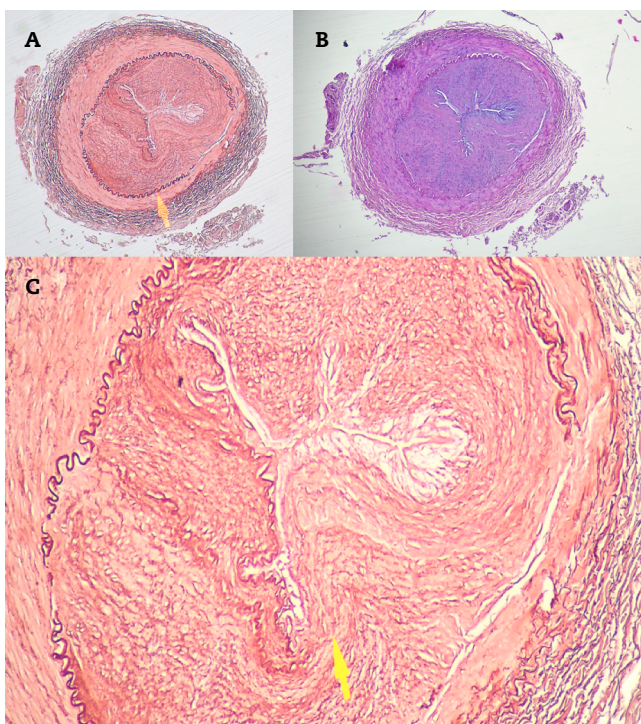


Figura 4. Figuras de corte histológico de la pieza en donde se aprecian las láminas elástica interna y externa (flechas amarillas de figuras A y C).

descrito en un rango de edad muy amplio, si bien la mayoría de los casos aparecen a partir de los 40 años.

Esta entidad puede presentarse como una lesión indolente de años de evolución hasta su manifestación sintomática. La frecuencia de aparición en labio superior o inferior es similar. Se trata de una lesión solitaria y aislada, que se presenta como una ligera sobre elevación, que puede presentar ulceración de la mucosa por presión e isquemia de los tejidos suprayacentes, pues el latido de esta arteria dificulta el flujo sanguíneo hacia los territorios próximos por capilares colindantes⁷. También puede revelarse como una lesión de tono azulado, o como una mucosa normal, con forma lineal, papular o nodular. En nuestro caso presentaba una protuberancia de forma lineal desde la comisura labial derecha hasta la región central del labio superior entre la transición del bermellón con la mucosa labial.

La etiología permanece desconocida. Miko y cols. propusieron una atrofia senil de los tejidos blandos causadas por ectasias vasculares sumadas a factores externos, como la exposición solar, traumatismos o por presión de pulsación de la arteria anómala⁷. Sin embargo, esta teoría no se sustentaría debido a los numerosos casos descritos en gente de edad media y algunos casos descritos en gente joven y en niños.

Para su diagnóstico se ha empleado la ecografía-doppler, angiografía convencional, angio-TAC o RMN. La prueba de elección sería la ecografía doppler, evitando así posibles artefactos que pueden alterar las imágenes del TAC^{8,9}.

El diagnóstico diferencial puede suponer un reto. Es posible confundir la ALCP con un mucocele si la lesión está muy superficial, lo que podría generar una gran hemorragia si se procediera a la cirugía sin diagnóstico previo. También se debe plantear el diagnóstico diferencial con las malformaciones arteriovenosas (MAV), que consisten en numerosas comunicaciones aberrantes entre arterias y venas debido a la ausencia de una red capilar normal que causa un conglomerado de vasos tortuosos con alteración del flujo sanguíneo normal. Asimismo, es prudente diferenciarla de la fístula arteriovenosa en la que existe una comunicación entre una arteria y una vena, provocando el ensanchamiento y la tortuosidad de ambos vasos similar a una variz, siendo típica la presencia de una masa pulsátil con frémito palpable y soplo continuo. Otra patología incluida en el diagnóstico diferencial es el aneurisma arterial, provocado por un ensanchamiento anómalo de un vaso debido a la debilidad de sus capas, siendo su localización más frecuente en este territorio la arteria facial y la temporal superficial^{2,6}; otras lesiones como los hemangiomas, angiomas venosos, fibromas, o los carcinomas escamosos o basocelulares entrarían en el grupo de posibles diagnósticos diferenciales, pues la aparición de una lesión sobre elevada con ulceración de la mucosa suprayacente es sugestiva de alguna de las patologías mencionadas. En la literatura se han descrito casos infrecuentes de ALCP asociados a carcinoma escamoso¹⁰.

Respecto al tratamiento, muchos autores recomiendan vigilancia, pero en casos sintomáticos o sospecha de malignidad, estaría indicada la cirugía.

DISCUSIÓN

La ALCP es una entidad en la que la arteria labial mantiene un calibre constante a lo largo de su trayecto desde la capa muscular hasta la submucosa. En los estudios publicados se aprecia una ligera predilección hacia el sexo femenino. Se ha

ÉTICA DE LA PUBLICACIÓN

Las imágenes mostradas en este artículo han sido obtenidas y publicadas con el consentimiento informado del paciente.

CONFLICTO DE INTERESES

Ninguno de los autores de este artículo presenta conflicto de intereses.

FINANCIACIÓN

Ninguna.

BIBLIOGRAFÍA

1. Piccione MJ, Manganaro AM, Almony JS. Caliber-persistent labial artery: diagnosis and treatment--case report. *J Oral Maxillofac Surg.* 2010;68(8):1987-9. DOI: 10.1016/j.joms.2009.05.433.
2. Santagata M, Maglione M, Colella G, D'Amato S. Calibre Persistent Labial Artery: Clinical Features and Immunohistochemistry Diagnosis. *J Maxillofac Oral Surg.* 2015;14(3):845-7. DOI: 10.1007/s12663-014-0740-7.
3. Awni S, Conn B. Caliber-Persistent Labial Artery: A Rarely Recognized Cause of a Lower Lip Swelling-Report of 5 Cases and Review of the Literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 2016;74(7):1391-5. DOI: 10.1016/j.joms.2016.01.015.
4. Thanthoni M, Rajeev P, Sathasivasubramanian S. Caliber-Persistent Labial Artery: A Report of a Rarely Recognized Lip Swelling. *J Clin Imaging Sci.* 2018;8:41. DOI: 10.4103/jcis.JCIS_43_18.
5. Costa CS de O, Rolim LSA, Mafra RP, Souza LB de, Pinto LP. Caliber Persistent Artery in the Upper Lip: A Case Report with Unusual Histopathological Findings. *Braz Dent J.* 2020;31(3):344-8. DOI: 10.1590/0103-6440202003058.
6. Rosdy NMMNM, Firth NA, Rich AM. Calibre-persistent labial artery: often misdiagnosed as a mucocoele. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2010;39(12):1230-3. DOI: 10.1016/j.ijom.2010.05.003.
7. Miko T, Adler P, Endes P. Simulated cancer of the lower lip attributed to a «caliber persistent» artery. *J Oral Pathol Med.* 1980;9(3):137-44. DOI: 10.1111/j.1600-0714.1980.tb00370.x.
8. Segundo-Jiménez M del MGS, Puche-Torres M, Torres-Gaya J, Marqués-Mateo M. Caliber-persistent Artery: A Case Report. *Int J Clin Pediatr Dent.* 2019;12(5):475-7. DOI: 10.5005/jp-journals-10005-1662.
9. Llamas Carmona JA, Rivera Mercado Á, Lova Navarro M, Gómez Moyano E. Caliber-persistent labial artery: report of 3 cases. *An Bras Dermatol.* 2022;97(1):99-101. DOI: 10.1016/j.abd.2021.01.004.
10. Mikó TL, Molnár P, Vereckei L. Interrelationships of calibre persistent artery, chronic ulcer and squamous cancer of the lower lip. *Histopathology.* 1983;7(4):595-9. DOI: 10.1111/j.1365-2559.1983.tb02271.x