

RELATO DE CASO

OSTEOARTROPATIA HIPERTRÓFICA ASSOCIADA A CARCINOMA MUCOEPIDERMÓIDE DA GLÂNDULA PARÓTIDA

MARIO ALBERTO DANTAS L. DA COSTA¹, NILSON SOARES P. DE MENDONÇA¹, MIGUEL J. FROIMTCHUK², SÉRGIO E. ALLAN³

Instituto Nacional de Câncer — Rio de Janeiro, RJ

RESUMO

A osteoartropatia hipertrófica tem sido mais freqüentemente associada a câncer de pulmão.

Raramente tem sido relacionada a doença metastática pulmonar, especialmente em osteossarcomas, sarcomas de partes moles, tumores do nasofaringe e uterinos. Os autores relatam o primeiro caso de uma síndrome de osteoartropatia relacionada a um carcinoma mucoepidermóide da glândula parótida metastático para pulmão. A evidência desta síndrome sugeriu a presença de patologia intratorácica.

A ressecção de múltiplos nódulos pulmonares trouxe alívio transitório dos sintomas.

UNITERMOS: Osteoartropatia hipertrófica, carcinoma de parótida, carcinoma mucoepidermóide metastático.

INTRODUÇÃO

A Osteoartropatia hipertrófica (OAH) foi inicialmente descrita por Von Bamberger em 1889, associada a lesões pulmonares de caráter inflamatório^{1, 2, 3}. Desde então, vem sendo relacionada a inúmeras patologias benignas e malignas. Vários exemplos de OAH secundárias a metástases pulmonares já foram descritos na literatura, sendo que o primeiro relato foi realizado por Virshov em 1895, em um paciente portador de condrossarcoma de úmero^{3, 4, 5}. Aqui apresentamos o primeiro caso de OAH associada a um carcinoma mucoepidermóide de parótida.

RELATO DO CASO

Paciente masculino, de 28 anos, branco. Em dezembro de 1982, procurou o Instituto Nacional de Câncer/Rio de Janeiro, queixando-se de dor na região parotídea esquerda, otalgia esquerda e cefaléia. Em fevereiro de 1983, foi submetido a parotidectomia total esquerda com preservação do nervo facial. O laudo histopatológico mostrou tratar-se de um carcinoma mucoepidermóide de alto grau de malignidade (Figura 1). Fez-se tratamento radioterápico complementar (6.000 cGy) no leito tumoral. O paciente ficou sem evidência de doença até setembro de 84,



FIGURA 1 — Aspecto histológico da glândula parótida, típico de carcinoma mucoepidermóide.

quando surgiu quadro de poliartrite, edema de mãos e pés, baqueteamento digital (Figura 2), sendo feito diagnóstico clínico de OAH. A radiografia de tórax mostrou presença de múltiplos nódulos pulmonares. Na ocasião a cintilografia óssea e o estudo radiológico das extremidades estavam normais. Em janeiro de 85, foi levado a toracotomia direita com retirada de 5 nódulos pulmonares, cujo laudo histopatológico revelou carcinoma mucoepidermóide metastático (Figura 3), obtendo-se grande melhora dos sintomas

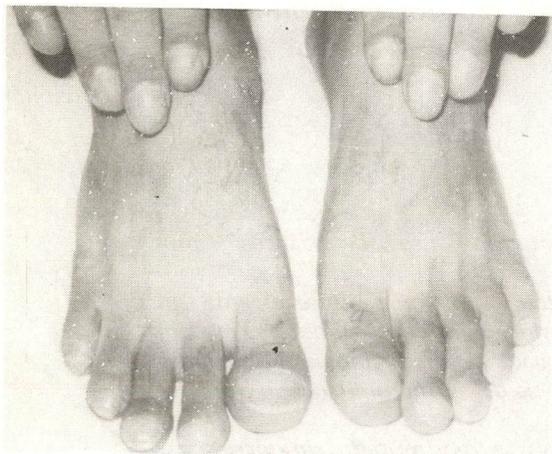


FIGURA 2 — Baqueteamento digital típico.

relacionados à OAH. Em março de 85, foi submetido a toracotomia esquerda com ressecção de 21 nódulos pulmonares. Ficou bem até novembro de 85, quando retornou com sinais e sintomas de OAH. Nova radiografia de tórax evidenciou reaparecimento de múltiplos nódulos me-



FIGURA 3 — Histologia do tecido pulmonar característica de carcinoma mucoepidermóide metastático.

tastáticos em ambos os pulmões (Figura 4). O estudo radiológico dos ossos longos e extremidades desta vez revelava nítida periostite (Figura 5). Não houve resposta subjetiva a quimioterapia com 5-Fluorouracil $1g/m^2$ por 5 dias em infusão contínua a cada 3 semanas, havendo clara progressão da doença nos pulmões após 2 ciclos.

Até abril de 86, o paciente encontrava-se em seguimento ambulatorial, fazendo uso de medicamentos à base de antiinflamatórios, com doença controlada no sítio primário e em lenta progressão pulmonar.

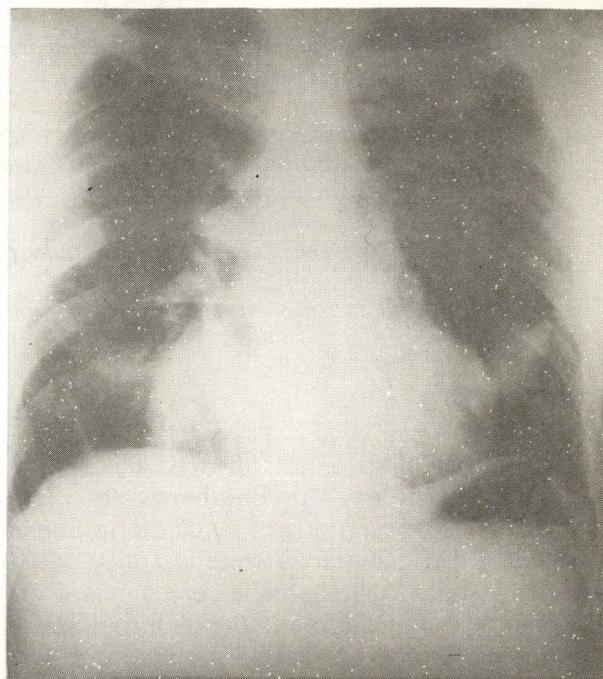


FIGURA 4 — Radiografia de tórax mostrando múltiplos nódulos metastáticos.

DISCUSSÃO

O carcinoma mucoepidermóide compreende 6 a 8% dos tumores de glândulas salivares e na maioria dos casos origina-se na parótida⁶. De acordo com o grau de diferenciação podemos classificá-lo como de alto grau de malignidade ou de baixo grau de malignidade⁷. Os tumores de alto grau de malignidade são de pior prognóstico, havendo maior incidência de recidiva local e metástases^{6, 7, 8}. Jakobson, em 63 pacientes portadores de carcinoma mucoepidermóide de parótida, relatou ocorrência de metástases em sete casos⁷. Está descrito comprometimento de linfonodos regionais e de órgãos a distância⁶.

A OAH é uma síndrome caracterizada por periostite proliferativa crônica de ossos longos, baqueteamento digital e oligo ou polissinovite^{2, 5}. A radiografia de ossos longos revela neoformação óssea periosteal simétrica. A cintilografia

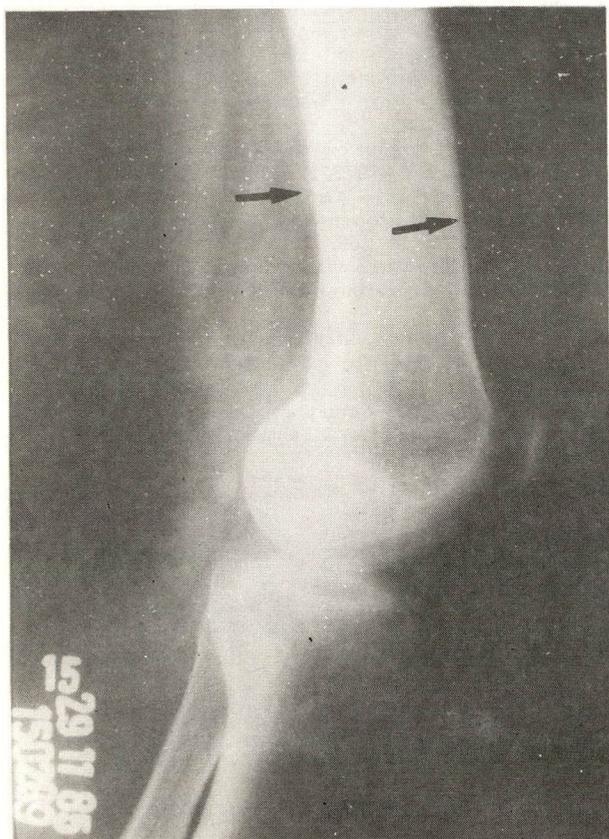


FIGURA 5 — Radiografia de ossos longos evidenciando periostite (setas).

óssea pode mostrar aumento da captação periosteal de ossos longos e periarticular^{2, 8}. Embora muitas hipóteses tenham sido formuladas para explicar a patogênese da OAH, nenhuma delas é definitiva e abrangente a todos os casos. A mais aceita relaciona-se a um mecanismo neural a partir de um estímulo aferente vagal de origem intratorácica^{2, 3, 4, 10, 11, 12}. A remoção da causa básica, quando possível, é o tratamento de escolha. Alívio sintomático aos pacientes pode ser obtido com uso de corticosteróides, anti-inflamatórios não hormonais e vagolíticos^{1, 2}.

O carcinoma broncogênico é responsável por 60% dos casos de OAH^{3, 15}. Tumores raros como mesotelioma de pleura e o neurilenoma de diafragma freqüentemente cursam com a síndrome^{5, 13, 16}. A associação com tumores metastáticos pulmonares é uma situação incomum, sendo na maioria das vezes relacionada a osteossarcomas, fibrossarcomas, tumores do

nasofaringe e uterinos^{2, 3, 4}. Diversas patologias não neoplásicas e tumores extratorácicos sem metástase pulmonar ou pleural também podem cursar com a OAH^{5, 12, 14}. Não há até o momento relato da OAH secundária a carcinoma mucoepidermóide de parótida, metastático.

O paciente do caso aqui relatado era portador de tumor histologicamente agressivo controlado localmente por cirurgia e radioterapia, manifestando-se, mais tarde, pelo aparecimento de uma síndrome de OAH. O desenvolvimento da última nos levou à procura de patologia intratorácica, sendo então evidenciados múltiplos nódulos pulmonares. A ressecção dos nódulos produziu efeito paliativo importante que perdurou por cerca de 10 meses. O tratamento com quimioterapia na recidiva dos sintomas não obteve qualquer tipo de resposta.

SUMMARY

Hypertrophic osteoarthropathy has been most frequently associated with lung cancer. Rarely, it has been reported with metastatic lung disease, particularly from osteogenic sarcomas, soft tissue sarcomas, nasopharyngeal tumors and uterine tumors. The authors report the first case of a syndrome of hypertrophic osteoarthropathy associated to a mucoepidermoid carcinoma of the parotid gland metastatic to the lung. This syndrome suggested the presence of intrathoracic pathology.

Resection of multiple lung nodes brought transitory relief of the symptoms.

UNITERMS: *hypertrophic osteoarthropathy, parotid gland carcinoma, metastatic mucoepidermoid carcinoma.*

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Howell DS. Hypertrophic osteoarthropathy in arthritis and allied conditions, Philadelphia, Lea & Febiger, 1981; 76: 1195.
2. Altman RD, Tenenbaum J. Hypertrophic osteoarthropathy in Kelley WN, Harris ED, Ruddy S, Sledge CB: Textbook of Rheumatology, Philadelphia, W.B. Saunders Co., 1981; 103: 1647.
3. Yacoub MH, Simon G, Ohnsorge J. Hypertrophic pulmonary osteoarthropathy in association with pulmonary metastases from extrathoracic Tumours. Thorax, 1967; 22: 22-231.
4. Goldstraw P, Walbaum PR. Hypertrophic pulmonary osteoarthropathy and its occurrence with pulmonary metastases from renal carcinoma. Thorax 1976; 31: 205-211.

5. Golimbu C, Marchetta P, Firooznia H, Rafil M. Hypertrophic osteoarthropathy in metastatic renal cell carcinoma. *Urology*, 1983; 22: 669-672.
6. Eversole LR. Mucoepidermoid Carcinoma: Review of 815 reported cases. *Oral Surg* 1970; 28: 490-494.
7. Jakobson PA, Blanck C, Eneroth CM. Mucoepidermoid carcinoma of parotid gland. *Cancer* 1968, 22: 111-124.
8. Batsakis JG. Metastatic Patterns of salivary gland neoplasms. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1982; 91: 465-466.
9. Lokich JJ. Pulmonary osteoarthropathy association with mesenchymal tumor metastases to the lungs. *Jama* 1977; 238: 37-39.
10. Howard CP, Telander RL, Hoffman AD, Burgert EO Jr. Hypertrophic osteoarthropathy in association with pulmonary metastasis from osteogenic sarcoma. *Mayo Clin Proc.* 1978; 53: 538-541.
11. Morgan AG, Walker WC, Mason MK, Herlinger H, Losowsky MS. A new syndrome associated with hepatocellular carcinoma. *Gastroenterology* 1972; 63: 340-345.
12. Jao JY, Barlow JJ, Krant MJ. Pulmonary hypertrophic osteoarthropathy, spider angiomas, and estrogen hyperexcretion in neoplasia. *Ann Intern Med* 1969; 70: 581-584.
13. Hollis WC. Hypertrophic osteoarthropathy secondary to upper gastrointestinal - tract neoplasm. *Ann Intern Med* 1967; 66: 125-130.
14. Ullal SR. Hypertrophic osteoarthropathy and leiomyoma of the esophagus. *Surg* 1972; 123: 356-358.
15. Firooznia H, Seliger G, Genieser NB, Barach E. Hypertrophic pulmonary osteoarthropathy in pulmonary metastases. *Radiology* 1975; 11: 259.
16. Trived SA. Neurilemoma of the diaphragm causing severe hypertrophic osteoarthropathy. *Br J Tuberc Dis Chest* 1958; 52: 214.
17. Shapiro RF, Zvaifler N. Concurrent intrathoracic Hodgkin's disease and hypertrophic osteoarthropathy 1973; 63: 912-916.
18. Arthritis and allied Conditions, Daniel J. McCarty, tenth edition Philadelphia, Lea & Febiger 1983; 76-1195.