



## Manejo anestésico de épulis congénito

### Anesthetic Management of Congenital Epulis

Ana Sepúlveda Blanco\*, Soledad Bellas Catán\*\*, Ramón Reina González\*\*\*, Antonio Ontanilla López\*\*\*\*

Recibido: febrero 28 de 2011. Enviado para modificaciones: abril 14 de 2011. Aceptado: mayo 18 de 2011.

#### RESUMEN

**Introducción.** El épulis del recién nacido es un tumor de células granulares originado en la mucosa de la cresta alveolar dental. Se presenta como una masa de tejido blando pedunculado, que puede ser lobular o multinodular. Es más habitual en mujeres que en hombres (8:1), debido, quizás, a factores hormonales en su génesis. Puede acompañarse de otras malformaciones congénitas. El manejo anestésico se basa en su potencial dificultad para la intubación y el riesgo de sangrado.

**Objetivos.** Presentar el caso de un recién nacido con épulis congénito y hacer revisión de esta entidad y de su manejo anestésico.

**Métodos y resultados.** Presentación de este caso clínico.

**Conclusiones.** Hay descritos varios tipos de anestesia, dependiendo, entre otros factores, del tamaño del tumor y de los profesionales que intervienen en su exéresis. En nuestro caso, y dadas las características del tumor, optamos por una sedación inhalatoria con O<sub>2</sub> /aire / sevoflurane, posición en decúbito lateral e infiltración local en la base del implantación. El éxito de la intervención debe basarse en una buena colaboración quirúrgico-anestésica.

#### SUMMARY

**Introduction.** epulis of the newborn is a granular cell tumor arising in the mucosa of the dental ridge. It presents as a pedunculated soft tissue mass that can be lobular or multinodular. It is more common in females than in males (8:1) perhaps due to hormonal factors. It may be accompanied by other congenital malformations. Anesthetic management is based on a potentially difficult intubation and the risk of bleeding.

**Objectives.** To present the case of a newborn with congenital epulis and to review this pathology and its anesthetic management.

**Methods and Results.** Clinical case presentation.

**Conclusions.** Several types of anesthesia have been described depending, among other factors, on tumor size and on the professionals involved in excising the lesion. In our case, and given the characteristics of the tumor, we chose inhalation sedation with O<sub>2</sub> / air / sevoflurane, lateral decubitus position and local infiltration at the base of implantation. Good collaboration between the surgeon and the anesthesiologist is critical for success.

\* Médica residente de III año en anestesiología y reanimación, Hospital Infantil Virgen del Rocío, Sevilla, España. Correspondencia: C/Alfonso de Cossio 5 8C CP 41004, Sevilla, España. Correo electrónico: anitasepul@hotmail.com

\*\* Soledad Bellas Catán, Médico Interno Residente Anestesiología y Reanimación, III año, Hospital Infantil Virgen del Rocío. Sevilla, España. Correo electrónico: solebellas@hotmail.com.

\*\*\* Médico adjunto, especialista en anestesiología y reanimación, Hospital Infantil Virgen del Rocío, Sevilla, España.

\*\*\*\* Director, Unidad de Gestión Hospital Infantil Virgen del Rocío, Sevilla, España.

**Palabras clave:** Anestesia, tumor de células granulares, anomalías congénitas, laringoscopia, neoplasias gingivales. (Fuente: DeCS, BIREME).

### CASO CLÍNICO

Recién nacido de 48 horas de vida y 3,2 kg de peso diagnosticado con épulis congénito, propuesta para exéresis en cirugía prioritaria. Estudio preanestésico normal para la edad del paciente. A la inspección llamó la atención un gran tumor que protruía por fuera de la cavidad oral y ocluía casi totalmente el espacio interlabial, con discreta movilidad a ambos lados (figura 1). Por palpación, la consistencia era gomosa insertada en el borde gingival superior, mediante un pedículo de 0,5 cm de longitud y un grosor de 3-5 mm, aproximadamente, la base de implantación era algo más extensa (figura 2).

Su manejo anestésico impresionaba como complicado, debido a la potencial dificultad de intubación, dado que el tamaño del tumor no permitía una buena laringoscopia directa, así como el potencial riesgo de sangrado, característico de estas tumoraciones.

Dentro de las diferentes alternativas anestésicas descritas en la literatura para el manejo de estos pacientes, se optó por infiltración en la base de implantación del tumor con anestésico local, asociada a vasoconstrictor (lidocaína al 1 % + epinefrina), posición en decúbito lateral y sedación con mascarilla facial, con una mezcla O<sub>2</sub>/



**Figura 1.** Visión frontal de la tumoración protruyendo por fuera de la cavidad oral

**Figure 1.** Frontal view of the tumor bulging out of the oral cavity

**Key Words:** Anesthesia, granular cell tumor, congenital abnormalities, laryngoscopy, gingival neoplasms. (Source: MeSH, NLM).

### CLINICAL CASE

Forty-eight-hour old newborn weighing 3.2 kg, diagnosed with congenital epulis, referred for priority surgical excision. The pre-anesthetic exam was normal for the age of the patient. The examination revealed a large tumor protruding outside the oral cavity and filling almost the entire space between the lips, with discrete side-to-side mobility (Figure 1). Upon palpation, the mass had a gummy consistency and was attached to the upper gingival ridge by means of a pedicle 0.5 cm in length and 3-5 mm thick, with a broader implantation base (Figure 2).

Anesthetic management seemed complex due to a potentially difficult intubation because the size of the tumor prevented adequate direct laryngoscopy. Additionally, there was a potential risk of bleeding, characteristic of these tumors.

Of the various options described in the literature for the management of these patients, a local anesthetic infiltration at the implantation base was selected, together with the use of a vasoconstrictor (1 % lidocaine + epinephrine), lateral decubitus positioning and facial mask sedation with a 50 % O<sub>2</sub>/ air mix plus 3 % sevoflurane, under spontaneous breathing.

The tumor was excised successfully (Figure 3). After reinforcing hemostasis with the electro-



**Figure 2.** Lateral view of the tumor occluding almost all interlabial space

**Figura 2.** Visión lateral de la tumoración ocluyendo la casi totalidad del espacio interlabial

aire al 50 % y sevoflurane al 3 %, pero permitiendo la respiración espontánea.

La tumoración fue extirpada exitosamente (figura 3). Después de reforzar la hemostasia con electrobisturí y compresión con gasa, se dio por terminada la intervención, con el paciente totalmente despierto y el traslado a su lugar de origen (Unidad de Neonatología).

### DISCUSIÓN

El épulis congénito, descrito por primera vez en 1871 por Neumann, constituye una lesión originada en la cresta alveolar de los recién nacidos y cuya ubicación típica es en la cresta maxilar; específicamente, el área de los incisivos y los caninos. Su tamaño puede variar desde unos pocos milímetros hasta 9 cm de diámetro.

Dentro de sus principales diagnósticos diferenciales podemos mencionar: nódulos de Bohn, perlas de Epstein, mucocele, quiste de erupción, tumor neuroectodérmico melanótico infantil y tumor de Abrikossoff (1) Debido a su localización, puede dificultar la respiración o la alimentación. Una vez extirpado quirúrgicamente no deja alteraciones dentarias ni recidiva, y existen muy pocos casos comunicados en los que se haya experimentado involución espontánea. Histológicamente es un tumor de células granulares (2) por lo general, estos no se asocian a otras anomalías congénitas mayores, excepto la polidactilia y la neurofibromatosis (3).

Se han propuesto múltiples teorías para explicar su histogénesis, una de las teorías más aceptadas es la posible influencia de las hormonas ováricas en el feto dado que la formación intrauterina de estos tiene mayor incidencia en los recién nacidos femeninos que en los masculinos (8:1); por ello para el diagnóstico prenatal se propone realizar tests inmunohistoquímicos de influencia estrogénica y receptores de progesterona (4,5), no obstante, dicha idea se encuentra aún en fase de experimentación, en la actualidad la mayoría de los diagnósticos de épulis congénitos constituyen hallazgos postnatales.

No existe consenso para el manejo anestésico de estos pacientes (6,7) y por ello son todo un reto para el anestesiólogo tanto por su potencial

scalpel and gauze compression, the intervention was completed with the patient fully awake, and transfer back to the Neonatology Unit.

### DISCUSSION

Congenital epulis was first described by Neumann in 1871. It is a lesion arising from the alveolar crest in neonates, typically localized on the maxillary crest, particularly in the area of the incisor and canine teeth. It may vary in size, from just a few millimeters up to 9 cm in diameter.

The main differential diagnoses include Bohn's nodules, Epstein's pearls, mucocele, eruption cyst, infantile melanotic neuroectodermal tumor, and Abrikossoff's tumor (1). Because of its location, this lesion may impair breathing or feeding. After surgical removal, there is no relapse or dental abnormality, and there are very few reports of spontaneous involution. Histologically, it is a granular cell tumor (2) rarely associated with other major congenital abnormalities, except for polydactily and neurofibromatosis (3).

Multiple theories have been proposed to explain its histogenesis, and one of the most widely accepted is the possible influence of ovarian hormones on the fetus, considering that the incidence is higher among female fetuses compared to males (8:1). Consequently, the proposal for prenatal diagnosis is to conduct immunohistochemistry tests for estrogen influence and progesterone receptors (4,5). However, that theory is still under investigation and most congenital epulis are postnatal findings.



**Figure 3.** Tumor successfully removed

**Figura 3.** Tumoración extirpada con éxito

capacidad de sangrado como por el manifiesto compromiso para la vía aérea que estas lesiones representan.

Canavan Holliday y Lawson proponen una intubación orotraqueal con el paciente en ventilación espontánea, inducido con mezcla de halotano y oxígeno mediante laringoscopia directa con la ayuda de un asistente quien retira con suavidad del *épulis* hacia el lateral de la comisura oral. Merrett y Crawford describen la extirpación de pequeñas masas de *épulis* bajo anestesia local. Swami *et al.* optan por la anestesia general y la intubación orotraqueal para asegurar la vía aérea, en vista de la posibilidad de sangrado oral y aspiración. En nuestro caso, la infiltración con anestésico local, el papel del agente vasoconstrictor en la prevención del sangrado quirúrgico y la rápida exéresis del tumor permitieron un manejo anestésico poco agresivo, así mismo resultaron fundamentales para el éxito de la intervención el papel de un experimentado personal de enfermería y la buena comunicación entre el anesthesiólogo y el cirujano.

### CONCLUSIONES

El *épulis* representa un verdadero reto para el anesthesiólogo, en este tema cobra especial relevancia el manejo de la vía aérea. Al no existir en la actualidad una única pauta de actuación, se deberán evaluar con cuidado las diferentes alternativas en función del caso y de la experiencia del personal implicado en él.

### REFERENCES

1. Kizlansky V, Saint Genes D, Casas G, et al. *Épulis* congénito. *Dermatol Pediatr Latinoam.* 2009;7:38-41.
2. Senoo H, Iida S, Kishino M, et al. Solitary congenital granular cell lesion of tongue. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2007;104:e45-8.
3. Canavan-Holliday KS, Lawson RA. Anaesthetic management of the newborn with multiple congenital *epulides*. *Br J Anaesth.* 2004;93:742-4.
4. Subramaniam R, Shah R, Kapur V. Congenital *epulis*. *J Postgrad Med.* 1993;39:36.
5. Reinshagen K, Wessel LM, Roth H, et al. Congenital *epulis*: A rare diagnosis in pediatric surgery. *Eur J Pediatr Surg.* 2002;12:124-6.
6. Kusukawa J, Kuhara S, Koga C, et al. Congenital granular cell tumor (congenital *epulis*) in the fetus: a case report. *J Oral Maxillofac Surg.* 1997;55:1356-9.
7. Merrett SJ, Crawford PJM. Congenital *epulis* of the newborn: a case report. *Int J Paediatr Dent.* 2003;13:127-9.

There is no consensus regarding the anesthetic management of these patients (6,7) who are a true challenge for the anesthetist because of the risk of bleeding as well as the obvious airway compromise.

Canavan Holliday and Lawson propose orotracheal intubation with the patient on spontaneous ventilation, using a mix of halothane and oxygen under direct laryngoscopy for induction, with the help of an assistant whose role is to mobilize the *epulis* gently towards the oral commissure. Merrett and Crawford describe the excision of small *epulis* masses under local anesthesia. Swami *et al.* prefer general anesthesia and orotracheal intubation in order to secure the airway, given the possibility of bleeding and aspiration. In our case, the infiltration with the local anesthetic, the role of the vasopressor in preventing intraoperative bleeding, and rapid excision, contributed to a less aggressive anesthetic management. Also, critical for the success of the operation were the participation of experienced nursing staff and a good communication between the surgeon and the anesthetist.

### CONCLUSIONS

*Epulis* represents a true challenge for the anesthetist, in particular as concerns airway management. Given the absence of guidelines, the different options must be carefully assessed depending on the case and the expertise of the staff involved.

**Conflicto de intereses:** Ninguno declarado.

**Financiación:** Servicio de Anestesiología Pediátrica del Hospital Infantil Virgen del Rocío, Sevilla, España.