

Gabriella de Camargo Dias<sup>1</sup>Helena Miguel Cotter<sup>2</sup>

Ricardo Luiz Cavalcanti de Albuquerque

Júnior<sup>2</sup>Gustavo Davi Rabelo<sup>1</sup>Alessandra Rodrigues de Camargo<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Departamento de Odontologia,  
Universidade Federal de Santa Catarina,  
Florianópolis, Santa Catarina, Brasil.

<sup>2</sup>Departamento de Patologia, Universidade  
Federal de Santa Catarina, Florianópolis,  
Santa Catarina Brasil.

✉ Alessandra Camargo

Endereço: R. Delfino Conti, 275, Trindade,  
Florianópolis SC.

CEP: 88040-370

✉ alessandrarcamargo@gmail.com

Submetido: 28/01/2026

Aceito: 06/04/2026

## RESUMO

**Introdução:** O hamartoma leiomiomatoso oral (HLO) é uma malformação benigna rara da cavidade oral, caracterizada pela proliferação desorganizada de fibras musculares lisas. A língua é o principal sítio de acometimento, predominantemente em áreas de fusão embrionária, como dorso e base lingual. No entanto, não há registros prévios de ocorrência no ventre da língua, especialmente em pacientes adultos, o que evidencia o ineditismo do presente relato. **Objetivo:** Descrever um caso inédito de HLO localizado no ventre lingual de paciente adulta, enfatizando os aspectos clínicos, histopatológicos e imunohistoquímicos que permitiram o diagnóstico definitivo e sua importância no diagnóstico diferencial de lesões nodulares ventrolinguais. **Relato de Caso:** Paciente do sexo feminino, 34 anos, apresentou nódulo assintomático em ventre lingual direito, de crescimento lento e limites bem definidos, inicialmente sugestivo de mucocele de Blandin-Nuhn. A lesão foi removida cirurgicamente e submetida à análise histopatológica, que revelou proliferação desorganizada de feixes de músculo liso associados a vasos sanguíneos de diferentes calibres. A imuno-histoquímica demonstrou positividade para  $\alpha$ -SMA e marcação seletiva de CD34 no endotélio vascular, com expressão focal de podoplanina em vasos linfáticos marginais, confirmando o diagnóstico de HLO com fenótipo angioleiomiomatoso. A paciente encontra-se sem sinais de recidiva após 11 meses de acompanhamento. **Conclusão:** Este é o primeiro relato de HLO localizado no ventre lingual em paciente adulta, ampliando o espectro anatômico dessa entidade e destacando a necessidade de sua inclusão no diagnóstico diferencial de lesões nodulares ventrolinguais. Apesar da associação da polidactilia pós-axial tipo B com mutações no gene GLI3, os achados clínicos, histopatológicos e imuno-histoquímicos não sustentaram correlação sindrômica com o HLO, sugerindo tratar-se de uma associação esporádica. A correlação entre achados clínicos, histopatológicos e imuno-histoquímicos é fundamental para o diagnóstico preciso, evitando tratamentos inadequados. O manejo cirúrgico conservador mostrou-se eficaz, com prognóstico favorável.

Palavras-chave: Hamartoma Leiomiomatoso; Língua; Músculo Liso; Imuno-histoquímica; Cavidade Oral.

## ABSTRACT

**Introduction:** Oral leiomyomatous hamartoma (OLH) is a rare benign malformation characterized by the disorganized proliferation of mature smooth muscle fibers. The tongue is the most commonly affected oral site, with lesions predominantly occurring in embryonic fusion areas such as the dorsal or basal surface. To date, no cases involving the ventral surface of the tongue body in adult patients have been documented, highlighting the novelty and clinical relevance of the present report. **Objective:** To describe the first reported case of OLH located on the ventral surface of the tongue in an adult patient and to discuss its clinical, histopathological, and immunohistochemical features. **Case Report:** A 34-year-old female presented with a solitary, asymptomatic, slow-growing nodular lesion on the ventral surface of the tongue, initially suggestive of a Blandin-Nuhn gland mucocele. The lesion was surgically excised and submitted for histopathological evaluation, which revealed a disorganized proliferation of smooth muscle bundles interspersed with blood vessels of varying calibers. Immunohistochemical staining demonstrated strong positivity for  $\alpha$ -SMA, CD34 positivity restricted to vascular endothelial cells, and focal podoplanin expression in marginal lymphatic vessels, confirming the diagnosis of OLH with angioleiomyomatous features. No recurrence was observed after an 11-month follow-up period. **Conclusion:** This case represents the first documented occurrence of OLH on the ventral surface of the tongue in an adult patient, expanding the current anatomical spectrum of this entity. The clinical similarity to salivary gland lesions underscores the need to consider OLH in the differential diagnosis of ventrolingual nodules. Despite the association of postaxial polydactyly type B with mutations in the GLI3 gene, the clinical, histopathological, and immunohistochemical findings did not support a syndromic correlation with OLH, suggesting a sporadic association. Accurate diagnosis relies on clinical examination together with histopathological and immunohistochemical analysis, and conservative surgical excision remains as the effective treatment with excellent prognosis.

Keywords: Leiomyomatous hamartoma; Tongue; Smooth muscle; Immunohistochemistry; Oral cavity. Viruses; Case Reports.

## INTRODUÇÃO

Os hamartomas são malformações benignas caracterizadas pela proliferação desorganizada de tecidos maduros nativos do sítio anatômico em que se desenvolvem, geralmente com predomínio de um componente tecidual específico.<sup>1</sup> Embora amplamente descritos em órgãos como fígado, baço, pulmões e rins, sua ocorrência na cavidade oral é rara, representando uma pequena fração das anomalias congênitas dessa região.<sup>2</sup> Dentre essas entidades, destaca-se o hamartoma leiomiomatoso oral (HLO), composto predominantemente por fibras musculares lisas e considerado uma das formas mais raras de hamartoma em tecidos orais.<sup>3,4</sup>

O HLO apresenta predileção por áreas de fusão embrionária, como a linha média da língua e a região da papila incisiva, o que sugere uma origem relacionada ao desenvolvimento embrionário.<sup>5</sup> Clinicamente, manifesta-se como um nódulo de aspecto polipoide bem delimitado, de coloração semelhante à mucosa adjacente, superfície lisa e consistência firme, variando de poucos milímetros a aproximadamente 4 cm.<sup>3-5</sup> A maioria dos casos é descrita em crianças, reforçando seu caráter congênito, embora apresentações em adolescentes e adultos também tenham sido relatadas.<sup>2,6</sup>

Do ponto de vista histopatológico, o HLO é composto por epitélio pavimentoso estratificado sobrejacente a um estroma fibrovascular contendo feixes irregulares de músculo liso, entremeados por elementos neurovasculares e desprovidos de cápsula delimitante.<sup>3</sup> Esses achados permitem diferenciá-lo de neoplasias de músculo liso, como o leiomioma, sustentando sua classificação como malformação não neoplásica.<sup>1</sup> O comportamento clínico benigno leva à excisão cirúrgica, considerada curativa, sem relatos de recorrência.<sup>7-8</sup>

Apesar de sua baixa prevalência, o hamartoma leiomiomatoso localizado na língua possui relevância clínica significativa, uma vez que pode interferir em funções como mastigação, deglutição e respiração.<sup>4</sup> Além disso, por apresentar características clínicas que sobrepõem a outras lesões benignas da cavidade oral como cistos, tumores vasculares, papilomas e tireoide lingual ectópica, e às vezes, mesmo que raramente, até lesões malignas, o HLO deve ser criteriosamente considerado no diagnóstico diferencial.<sup>7,8</sup> Essa sobreposição clínica e topográfica pode levar a interpretações diagnósticas equivocadas e procedimentos invasivos desnecessários, reforçando a importância da correlação clínico-patológica para o estabelecimento do diagnóstico definitivo.

Diante desses aspectos, o presente estudo tem como objetivo relatar um caso de hamartoma leiomiomatoso oral localizado no ventre da língua em uma paciente adulta, uma localização ainda não descrita na literatura. Ademais, considerando o número limitado de casos relatados em indivíduos adultos, este trabalho

busca contribuir para ampliar o conhecimento sobre o espectro clínico e anatômico dessa entidade, ressaltando sua importância no diagnóstico diferencial de lesões nodulares na região ventral da língua.

## RELATO DE CASO

Paciente do sexo feminino, leucoderma, 34 anos, procurou atendimento no serviço de Estomatologia, em 2024, referindo um "carocinho redondo na língua desde 2021", com crescimento lento, progressivo e com ausência de sintomas. A anamnese revelou ausência de hábitos como tabagismo ou etilismo, histórico médico de gastrite crônica sem uso de medicamentos e relato familiar de malformações congênitas menores (polidactilia em pai e irmã).

Ao exame físico geral, observou-se malformação congênita menor caracterizada por apêndice digital compatível com sexto artelho no dedo mínimo (Figura 1A). No exame físico intraoral, identificou-se nódulo submucoso localizado em ventre de língua do lado direito, medindo aproximadamente 1,3 cm, móvel, de consistência firme-fibrosa e com limites bem definidos, mimetizando clinicamente lesão cística (Figura 1B-C). Com base nos achados, foi considerado no diagnóstico diferencial a mucocèle de Blandin-Nuhn ou outra lesão benigna de origem muscular ou neural. Optou-se por biópsia excisional sob anestesia local. Foi realizada tração da língua mediante reparo em ápice, seguida de incisão mediana do ventre lingual, divulsão dos planos superficiais e profundos e ligadura arterial seletiva, com isolamento da artéria lingual visando prevenir hemorragia intraoperatória (Figura 1D-G). O espécime foi encaminhado para análise histopatológica.

Nas secções histológicas coradas em Hematoxilina e Eosina (H&E), observou-se proliferação desorganizada de vasos sanguíneos de diferentes calibres, muitos deles hiperemiados, revestidos por camadas espessas de músculo liso. Entre os vasos, havia a presença de células alongadas, com núcleos vesiculosos e extremidades rombas, compatíveis com leiomioblastos, distribuídas de maneira desorganizada. O estroma apresentava tecido conjuntivo frouxo e cápsula periférica fibrosa e descontínua (Figura 2A-C). Na coloração por tricrômico de Masson, evidenciou-se rede vascular exuberante com vasos de paredes espessas, formados por fascículos de músculo liso coradas em vermelho/rosa, entrelaçados e desorganizados entre si, contrastando com um tecido conjuntivo corado em verde (Figura 2D-F).

A imunohistoquímica (IHQ) demonstrou positividade difusa para  $\alpha$ -actina de músculo liso na parede vascular e em fascículos irregulares, positividade para anti-CD34 no endotélio vascular e marcação focal de podoplanina em vasos linfáticos marginais (Figura 2G-I). As características morfológicas associadas ao perfil histoquímico e imunohistoquímico foram conclusivas

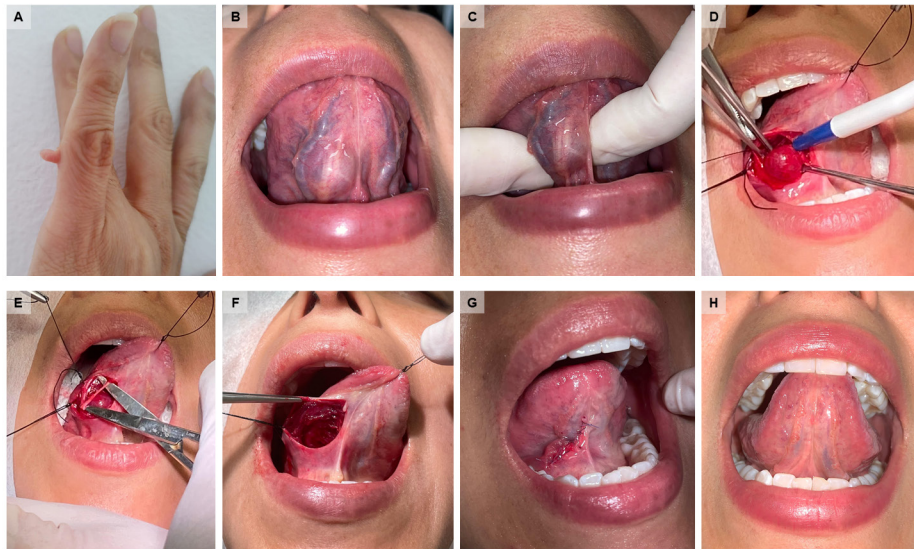
para o diagnóstico de Hamartoma Leiomiomatoso Oral (HLO).

A paciente foi informada do diagnóstico e permanece em acompanhamento clínico, apresentando 11 meses de seguimento sem sinais de recidiva (Figura 1H).

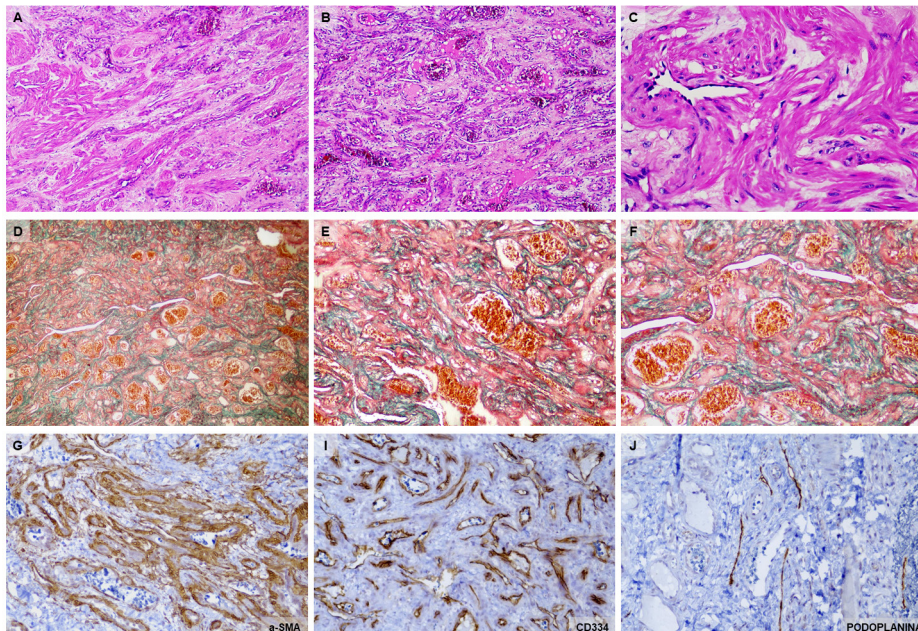
## DISCUSSÃO

O hamartoma leiomiomatoso oral (HLO) é

uma malformação benigna rara caracterizada pela proliferação desorganizada de fibras musculares lisas maduras, sem evidências de atividade mitótica significativa ou comportamento neoplásico.<sup>1</sup> Embora o músculo liso esteja presente na cavidade oral em estruturas como vasos sanguíneos, ductos glandulares e músculos intrínsecos da língua, a ocorrência nessa região é incomum e representa uma pequena fração dos hamartomas descritos no corpo humano.<sup>2</sup> Alarcón-Sánchez *et al*<sup>3</sup>, em sua revisão sistemática, identificaram



**Figura 1:** A - Presença de artelho acessório em dedo mínimo; B-C - Aspecto intraoral de lesão nodular localizada no ventre lingual direito; D-F - Procedimento transcirúrgico evidenciando divulsão dos tecidos e isolamento vascular; G - Aspecto pós-operatório imediato; H - Aspecto intraoral após 11 meses de seguimento (follow-up).



**Figura 2:** A-C - Perfil histológico em H&E, evidenciando proliferação desorganizada de vasos sanguíneos e feixes de músculo liso; D-F - Coloração por tricrômio de Masson demonstrando abundante rede vascular com fascículos de músculo liso corados em vermelho/rosa e tecido conjuntivo em verde; G-I - Perfil imuno-histoquímico com positividade para  $\alpha$ -SMA (actina de músculo liso), CD-34 - (marcador endotelial) e podoplanina (marcador linfático).

66 casos de HLO, dos quais aproximadamente metade localizava-se na língua, principalmente em áreas de fusão embrionária, como dorso médio e base lingual. Contudo, não foram identificados relatos envolvendo o ventre lingual, tornando o presente caso a primeira descrição documentada nessa localização anatômica específica, ampliando o espectro topográfico dessa lesão.

Embora o HLO seja mais frequentemente diagnosticado em crianças, reforçando seu caráter congênito, apenas seis casos foram documentados em pacientes maiores de 18 anos.<sup>5</sup> O presente relato representa o sétimo caso descrito em adultos e destaca uma apresentação topográfica inédita, reforçando que o espectro clínico do HLO pode ser mais amplo do que previamente considerado. A localização ventral contribui para a dificuldade diagnóstica inicial, uma vez que lesões ventrais são mais frequentemente associadas a glândulas salivares menores, como as mucocelas de Blandin-Nuhn.<sup>2,9,15,16</sup> Com base nos achados clínicos, foram considerados no diagnóstico diferencial a mucocela de Blandin-Nuhn e outras lesões benignas de origem mesenquimal que podem ocorrer na região ventral da língua, incluindo leiomioma, rabiomioma, neurofibroma e schwannoma.<sup>15,23</sup>

Clinicamente, os HLO apresentam-se como nódulos bem delimitados, de crescimento lento e indolor, com aspecto róseo e superfície lisa, características que podem mimetizar diversas lesões benignas, incluindo neurofibromas, leiomiomas, hiperplasia fibrosa focal, epúlides congênita e neurofibroma/schwannomas e cistos glandulares.<sup>9,11</sup>

Conforme descrito por Ashish Lommba<sup>7</sup>, os hamartomas são compostos por tecidos próprios do órgão de origem e permanecem em estado proliferativo dormente, o que os distingue de neoplasias verdadeiras. Nava-Villalba *et al*<sup>11</sup> destacam que os HLO orais tendem a apresentar-se como lesões menores que 1,5 cm, com morfologia polipoide ou pedunculada, coloração rósea e predileção por áreas de fusão embrionária, como a linha média da língua e o palato. No entanto, essas características podem se sobrepor a outras lesões benignas, tornando a análise histopatológica e imunohistoquímica determinantes para o diagnóstico.

Com o objetivo de contextualizar epidemiologicamente o presente caso dentro do conjunto restrito de relatos de HLO em adultos, realizou-se a compilação da Tabela 1. Como demonstrado, a maioria dos casos ocorreu na língua, com predileção pelas regiões dorsal e basal. Nenhum caso havia sido descrito no ventre lingual, reforçando a originalidade da apresentação aqui documentada e a necessidade de ampliar os critérios anatômicos considerados no diagnóstico do HLO. Além disso, observa-se que todos os casos foram tratados por excisão cirúrgica, com prognóstico favorável e baixa morbidade, corroborando

a conduta terapêutica adotada neste relato.

Do ponto de vista histopatológico, os achados característicos incluem proliferação desorganizada de vasos sanguíneos de diferentes calibres associados a feixes de músculo liso maduros, sem atipias musculares, padrão evidenciado pelas colorações em Hematoxilina e Eosina e tricômio de Masson. A positividade difusa para  $\alpha$ -SMA confirmou a origem miogênica da lesão,<sup>5,17</sup> enquanto a marcação seletiva de CD34 evidenciou o endotélio vascular e ajudou a excluir neoplasias de proliferação vascular.<sup>18</sup> A expressão focal de podoplanina em vasos linfáticos marginais corroborou a presença de componente linfovascular acessório, sem predomínio linfangiomatoso, reforçando o diagnóstico de HLO, subtipo angioleiomiomatoso.<sup>5,17,18</sup> Esses achados imunohistoquímicos são fundamentais, pois permitem diferenciar o HLO de outras lesões fusiformes, como o leiomioma típico, fibroma, neurofibroma e neoplasias mesenquimais de maior agressividade.<sup>5,17,18</sup>

É importante diferenciar o hamartoma leiomiomatoso oral do angioleiomioma, que representa uma neoplasia benigna verdadeira composta por proliferação de músculo liso vascular. Em contraste, os hamartomas são malformações do desenvolvimento caracterizadas pela proliferação desorganizada de tecidos maduros nativos do local afetado, sem comportamento neoplásico verdadeiro.<sup>5,22</sup>

A presença de polidactilia pós-axial tipo B observada na paciente introduz um elemento embriológico de relevância clínica. Segundo Kyriazis *et al*<sup>20</sup>, a polidactilia é uma malformação congênita frequentemente herdada como traço autossômico dominante, com penetrância variável, relacionada à desregulação no desenvolvimento axial embrionário e associada, em muitos casos, a mutações no gene *GLI3*.<sup>21</sup> Embora a literatura não descreva associação sindrômica entre polidactilia e HLO, a coexistência dessas duas condições sugere possível origem comum em distúrbios da diferenciação mesenquimal. Tal observação levanta uma hipótese etiopatogênica relevante, justificando a importância da documentação deste caso e incentivando futuras investigações genéticas em apresentações semelhantes.

A presença de polidactilia pós-axial tipo B observada na paciente representa uma malformação congênita relativamente comum, frequentemente associada a alterações no desenvolvimento embrionário e, em alguns casos, a mutações no gene *GLI3*.<sup>24</sup> Entretanto, até o momento, não há evidências na literatura que estabeleçam associação sindrômica entre polidactilia e HLO. Assim, a coexistência dessas duas condições no presente caso deve ser interpretada com cautela, podendo representar apenas uma ocorrência coincidente. Estudos futuros poderão contribuir para esclarecer eventuais relações embriológicas ou genéticas entre essas alterações.<sup>5,20,21</sup>

O tratamento de escolha para o HLO é a excisão cirúrgica conservadora, com margens limitadas ao tecido lesional.<sup>4,19</sup> Em revisão de Alarcón-Sánchez<sup>5</sup>, a excisão foi o tratamento realizado em 78,4% dos casos, com ausência de recidiva em todos os pacientes acompanhados. No presente caso, a paciente permanece sem sinais de recidiva após 11 meses de seguimento, confirmando o excelente prognóstico do HLO após ressecção completa. A necessidade de isolamento da artéria lingual durante o procedimento destaca ainda a importância do conhecimento anatômico da

região ventral da língua para prevenir complicações hemorrágicas.

Do ponto de vista clínico e científico, este relato contribui de maneira significativa para a literatura ao apresentar a primeira descrição de HLO no ventre lingual, sugerindo que essa região também deve ser considerada no diagnóstico diferencial de lesões nodulares ventrolinguais. Além disso, a associação com malformação congênita menor reforça o potencial papel de mecanismos embrionários compartilhados na patogênese dessa entidade. A compreensão ampliada

**Tabela 1:** Casos de hamartoma leiomiomatoso oral em pacientes adultos (≥18 anos)

Autor (ano) / País	Tipo de estudo	Idade (anos)	Sexo	Aspecto clínico	Tamanho (cm)	Localização	Tratamento
Perri et al. (1956) <sup>10</sup> EUA	Relato de caso	40	Feminino	Amarelado, liso, tumor firme, assintomático	2.0	Base de língua	Excisão cirúrgica
Nava-Villalba et al. (2008) <sup>11</sup> México	Série de casos	19	Feminino	Lesão polipoide normocrômica, pediculada, lisa, firme e assintomática	0.5	Crista alveolar maxilar anterior	Excisão cirúrgica
De Faria et al. (2008) <sup>12</sup> Brasil	Relato de caso	61	Feminino	Lesão pediculada, rosada, assintomática	4.0	Dorso de língua	Excisão cirúrgica
McGuff et al. (2009) <sup>13</sup> EUA	Relato de caso	20	Masculino	Informação não disponível	1.0	Crista alveolar maxilar anterior	Excisão cirúrgica
Wang et al. (2013) <sup>14</sup> Taiwan	Relato de caso	29	Masculino	Nódulo firme, exofítico, avermelhado e assintomático	2.0	Dorso de língua	Excisão cirúrgica
Nguyen et al. (2018) <sup>15</sup> Austrália	Relato de caso	20	Masculino	Lesão amarelada, exofítica, polipoide	1.5	Dorso de língua	Excisão cirúrgica
Dias et al. (2026) Brasil	Relato de caso	34	Feminino	Nódulo móvel, de palpação fibrosa, de limites bem definidos, de consistência "resiliente" como de um cisto, assintomático	1.3	Ventre de língua	Excisão cirúrgica

das possíveis localizações anatômicas e manifestações clínicas do HLO é essencial para evitar diagnósticos equivocados, orientar o manejo cirúrgico apropriado e promover conduta terapêutica conservadora e eficaz.

## CONCLUSÃO

O hamartoma leiomiomatoso oral é uma entidade rara, cuja ocorrência no ventre da língua, como apresentada neste relato, representa uma localização inédita na literatura, ampliando o espectro anatômico conhecido dessa lesão. Embora a polidactilia pós axial do tipo B esteja frequentemente associada a mutações no gene *GLI3*, não há, até o momento, evidências que indiquem correlação sindrômica ou patogênica entre essa malformação e o desenvolvimento de hamartomas

musculares lisos, sugerindo tratar-se de uma associação esporádica. Este relato reforça a necessidade de incluir o HLO no diagnóstico diferencial de lesões nodulares ventrolinguais, sobretudo quando mimetizam cistos de glândulas salivares menores. A análise histopatológica, associada ao painel imunohistoquímico, demonstrou-se fundamental para o diagnóstico definitivo e diferenciação de outras lesões mesenquimais. O tratamento cirúrgico conservador foi eficaz, com excelente prognóstico e ausência de recorrência no seguimento. A documentação de apresentações atípicas, como aqui descrita, é essencial para ampliar o entendimento clínico-patológico do HLO e favorecer o reconhecimento de padrões não clássicos na prática diagnóstica.

## FINANCIAMENTO

Esta pesquisa não recebeu qualquer subsídio específico de agências de fomento dos setores público, comercial ou sem fins lucrativos.

## AGRADECIMENTOS

Gostaríamos de expressar nossa gratidão à paciente por sua colaboração e confiança, ao prof. Dr. Heitor Fontes da Silva pelo auxílio durante a excisão cirúrgica e à Caroline Alfaia da Silva e Túlio Silva Rosa pela realização das reações de imuno-histoquímica e colorações especiais.

## CONFLITO DE INTERESSES

Os autores declaram não haver conflito de interesses.

## CONFORMIDADE COM PADRÕES ÉTICOS

Todos os procedimentos envolvendo participantes humanos neste estudo estiveram em conformidade com os padrões éticos do comitê de pesquisa institucional e/ou nacional, bem como com a Declaração de Helsinque (1964) e suas emendas subsequentes ou diretrizes éticas equivalentes. A participante foi incluída em um projeto submetido ao Comitê de Ética institucional (CAAE nº 93737125.3.0000.0121) e parecer de aprovação nº 8.134.554.

## DECLARAÇÃO SOBRE O USO DE IA GENERATIVA E TECNOLOGIAS ASSISTIDAS POR IA NO PROCESSO DE ESCRITA

Durante a preparação deste trabalho, os autores utilizaram o ChatGPT (<https://chatgpt.com/>) para auxiliar na revisão gramatical. Após a utilização desta ferramenta, os autores revisaram e editaram cuidadosamente o conteúdo conforme necessário, assumindo total responsabilidade pela versão final para publicação.

## REFERÊNCIAS

1. Raghunath V, Manjunatha BS, Al-Thobaiti Y. Gingival leiomyomatous hamartoma of the maxilla: a rare entity. *BMJ Case Rep.* 2016; 2016:bcr2015213598. DOI: 10.1136/bcr-2015-213598.
2. Nguyen AP, Firth N, Mougos S, Kujan O. Lingual leiomyomatous hamartoma in an adult male. *Case Rep Dent.* 2018; 2018:4162436. DOI: 10.1155/2018/4162436.
3. Yancoskie AE, Trochesset DA, Merer D, Fantasia JE, Kumar AM. Oral leiomyomatous hamartoma: presentation of 3 cases

and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2024; 137(1):e1–e7. DOI: 10.1016/j.oooo.2023.07.045.

4. Pal SS, Khan SA, Navit S, Sah K, Agrawal S, Gaidhane H. Leiomyomatous hamartoma of incisive papilla with high frenal attachment: a case report. *Int J Clin Pediatr Dent.* 2024; 17(6):717–22. DOI: 10.5005/jp-journals-10005-2848.
5. Alarcón-Sánchez MA, Nava-Villalba M, Escoto-Vasquez LS, Heboyan A. A systematic review of the clinicopathological characteristics of oral leiomyomatous hamartoma. *World J Surg Oncol.* 2024; 22(1):326. DOI: 10.1186/s12957-024-03607-y.
6. Montero JA, Anaut MB, López-Andrés N, Martín-Calvo N, Pascual CB. A tumor at the base of the tongue. *J Pediatr.* 2022; 242:256–57. DOI: 10.1016/j.jpeds.2021.11.005.
7. Loomba A, Garg S, Dhindsa A, Kaur H, Jain N, Dhindsa P. Oral subcutaneous midline leiomyomatous hamartoma presenting as congenital incisive papilla overgrowth in a toddler. *Contemp Clin Dent.* 2017; 8(1):148–50. DOI: 10.4103/ccd.ccd\_249\_17.
- 8, Fadzilah N, Azman M, See GB. Congenital midline tongue base mass in an infant: lingual hamartoma. *J Clin Diagn Res.* 2016; 10(9):MD01–03. DOI: 10.7860/JCDR/2016/16741.8399.
9. Nakanishi K, Nomura J, Matsumura Y, Yanase S, Kato H, Tagawa T. Leiomyomatous hamartoma of the tongue in an infant: a case report [Internet]. *J Dent Child (Chic).* 2012 [citado em 2026, 01. 28]; 79(2):111–14. Disponível em: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/22828769/>.
10. Perri FA. Myoepithelial hamartoma of tongue. *AMA Arch Otolaryngol.* 1956; 64:289–90. DOI: 10.1001/archotol.1956.03830160037006.
11. Nava-Villalba M, Ocampo-Acosta F, Seamanduras-Pacheco A, Aldape-Barrios BC. Leiomyomatous hamartoma: report of two cases and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2008; 105:e39–e45. DOI: 10.1016/j.tripleo.2007.12.021.
12. Faria PR, Batista JD, Duriguetto Jr AF, Souza KCN, Candelori I, Cardoso SV, *et al.* Giant leiomyomatous hamartoma of the tongue. *J Oral Maxillofac Surg.* 2008; 66(7):1476–80. DOI: 10.1016/j.joms.2007.06.679.
13. McGuff HS, Jones AC, Heim-Hall J, Keller TA. Case of the month. Leiomyomatous hamartoma [Internet]. *Tex Dent J.* 2009 [citado em 2026, 01. 28]; 126:544–5, 548–9. Disponível em: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/19639921/>.
14. Wang HL, Chiang FY, Tai CF, Tsai KB, Wang LF. Lingual leiomyomatous hamartoma with bifid tip and ankyloglossia in a patient without orofacial-digital syndrome: a case report and literature review. *World J Surg Oncol.* 2013; 11:230. DOI: 10.1186/1477-7819-11-230.

15. Adachi P, Soubhia AMP, Horikawa FK, Shinohara EH. Mucocele of the glands of Blandin-Nuhn: clinical, pathological, and therapeutical aspects. *Oral Maxillofac Surg.* 2011; 15(1):11-3. DOI: 10.1007/s10006-010-0221-1.
16. Mandel L, Kaynar A. Mucocele of the gland of Blandin-Nuhn [Internet]. *N Y State Dent J.* 1992 [citado em 2026, 01. 28]; 58:40-1. Disponível em: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/1565337/>.
17. Sánchez-Romero C, Bonan PRF, Pires FR, Silva-Junior GO, Azañero WD, Almeida OP, et al. Leiomyomatous hamartomas of the oral cavity: clinicopathological and immunohistochemical features of 4 cases and literature review. *Int J Surg Pathol.* 2019; 27(6):624-30. DOI: 10.1177/1066896919843337.
18. Miyaoka M, Ogura G, Hamanaka R, Nakagawa T, Masuda R, Iwazaki M, et al. Giant pulmonary hamartoma with dominant CD34-positive smooth muscle cell component [Internet]. *Tokai J Exp Clin Med.* 2018 [citado em 2026, 03. 13]; 43(1):1-4. Disponível em: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/29637532/>.
19. Gao TZ, Schafer A, Althubaiti A, Fung B, Elmaraghy C. A case of an infantile lingual leiomyomatous hamartoma. *Case Rep Otolaryngol.* 2022; 2022:5377771. DOI: 10.1155/2022/5377771.
20. Kyriazis Z, Kollia P, Grivea I, Stefanou N, Sotiriou S, Dailiana ZH. Polydactyly: clinical and molecular manifestations. *World J Orthop.* 2023; 14(1):13-22. DOI: 10.5312/wjo.v14.i1.13.
21. Ahmad Z, Liaqat R, Palander O, Bilal M, Zeb S, Ahmad F, et al. Genetic overview of postaxial polydactyly: updated classification. *Clin Genet.* 2023; 103(1):3-15. DOI: 10.1111/cge.14224.
22. Silva LAB, Medeiros AMC, Oliveira PT, Silveira EJD, Miguel MCC. Angioleiomioma oral: relato de caso e revisão da literatura. *J Vasc Bras.* 2017; 16(4):327-31. DOI: 10.1590/1677-5449.000417.
23. Nagar SR, Fernandes G, Sinha A, Rajpari KN. Mucocele of the tongue: A case report and review of literature. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2021;25(1):S37-S41. DOI:10.4103/jomfp.jomfp\_396\_20.
24. Al-Qattan MM, Shamseldin HE, Salih MA, Alkuraya FS. GLI3-related polydactyly: a review. *Clin Genet.* 2017; 92(5):457-66. DOI: 10.1111/cge.12952.