

Adenoma Pleomorfo en Glándulas salivales menores. Reporte de una Serie de casos

Pleomorphic adenoma in minor salivary glands. Cases series report

Grajeda-Cruz Jonathan Alexis ^{1a}; Narvaez-Ruiz Raul ^{2b}; Benitez-Cardenas Oscar Arturo ^{3c}; Garrocho-Rangel Jose Arturo ^{4d}

RESUMEN

El adenoma pleomórfico (AP) es el tumor benigno más común de las glándulas salivales, el cual es caracterizado por su amplia arquitectura pleomórfica. Esta condición representa el 53 -77% de todas las neoplasias de glándulas salivales. Afecta principalmente a las glándulas salivales mayores; sin embargo, las glándulas salivales menores, es poco representando, con un 8-10% de los casos, principalmente en el paladar y el labio, cavidad nasal, faringe, laringe y tráquea. El diagnóstico confirmatorio se realiza mediante un estudio histopatológico. El tratamiento indicado es la resección amplia del tumor. Por lo que es de elemental importancia conocer la técnica quirúrgica para evitar la recurrencia de la neoplasia. Por ello, el objetivo del presente artículo es presentar tres casos representativos de AP localizados en sitios poco frecuentes como son las glándulas salivales menores.

Palabras clave: Adenoma pleomórfico; Glándulas salivales menores; Cirugía bucal. (Fuente: DeCS BIREME)

ABSTRACT

Pleomorphic adenoma (PA) is the most common benign tumor of the salivary glands that is characterized by its broad pleomorphic architecture. It represents 53-77% of all salivary gland neoplasms, mainly affecting the major salivary glands; however the minor salivary glands is an infrequent site of occurrence, representing 5-10% of cases, mainly on the palate and lip, nasal cavity, pharynx, larynx and trachea. The confirmatory diagnosis is performed with a histopathological study. The indicated treatment is the wide resection of the tumor. It is essential to know the surgical technique to avoid the recurrence of the disorder. Therefore, the aim of the present paper is to describe three cases of PA located in infrequent sites of PA, such as the minor salivary glands.

Key Words: Pleomorphic adenoma; Minor salivary glands; Oral surgery. (Source: MeSH NLM)

Recibido: 10 de Diciembre de 2020

Aprobado: 15 de Marzo de 2021

Publicado: 07 de octubre de 2021

- 1.Hospital Central "Dr. Ignacio Morones Prieto". San Luis Potosí, S.L.P., México.
- 2.Hospital General de Zona #11, Xalapa, Veracruz, México.
3. Hospital Central "Dr. Ignacio Morones Prieto". San Luis Potosí, S.L.P. México
4. Universidad Autónoma de San Luis Potosí, México.
 - a. Residente. Departamento de Cirugía Oral y Maxilofacial
 - b. Adjunto. Departamento de Cirugía Oral y Maxilofacial
 - c. Coordinador Académico del posgrado en Cirugía Oral y Maxilofacial
 - b. Docente-Investigador

Correspondencia:

Nombre: Jonathan Alexis Grajeda Cruz.
Dirección: Matehuala #170, Col Lomas, CP 78219, San Luis Potosí, SLP.
Correo electrónico: jonathangrajedar5@gmail.com

Este es un artículo de acceso abierto distribuido bajo la licencia Creative Commons Atribución 4.0 Internacional (CC BY 4.0)
<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/d>



Citar como: Grajeda-Cruz JA; Narvaez-Ruiz R; Benitez-Cardenas OA; Garrocho-Rangel JA. Adenoma Pleomorfo en Glándulas salivales menores. Reporte de una Serie de casos. KIRU. 2021 Oct-Dic; 18(4): 207- 212. <https://doi.org/10.24265/kiru.2021.v18n4.01>

INTRODUCCIÓN

El adenoma pleomorfo es el tumor benigno más común de las glándulas salivales, representa 53-77% de todas las neoplasias de glándulas salivales. Epidemiológicamente, es el tumor más frecuente en adultos, ocurre en individuos entre la tercera y sexta décadas de la vida. La edad promedio de presentación está entre los 43 y 46 años, sin predilección por sexo. Presenta una incidencia de aproximadamente 2 a 3.5 casos por 100,000 habitantes ⁽¹⁾.

Estos tumores ocurren por lo general en glándulas salivales mayores, siendo la cola del lóbulo superficial de la glándula parótida el sitio más común, lo que representa el 70-80% de los casos ⁽²⁾. Las glándulas salivales menores se distribuyen a lo largo de la porción superior de la vía aérea y el tubo digestivo, sin embargo, a la ocurrencia de AP en las glándulas salivales menores representan el 8-10% de los casos, y por lo general se presentan en el paladar y el labio, cavidad nasal, faringe, laringe y tráquea ⁽³⁾.

Las manifestaciones clínicas de los adenomas pleomorfos varían dependiendo de las glándulas salivales involucradas, así como con el grado de afectación, tamaño, tiempo de evolución y velocidad de crecimiento. Por lo general, se trata de un tumor único, con límites bien definidos, encapsulado, de consistencia firme a la palpación, y frecuentemente de aspecto multilobulado. El tratamiento de elección es la resección quirúrgica con escisión local amplia junto con el periostio y hueso alveolar afectados ⁽⁴⁾.

Es importante valorar el sitio anatómico y la extensión del AP a través de una Tomografía Computarizada (TC) o Resonancia Magnética (RM), los patrones de imagenología a menudo son atípicos debido a los diversos hallazgos en su comportamiento y crecimiento tumoral, por lo general en la TC se observa en la imagen hiperdensa bien circunscrita en el margen de la lesión e hipodensidad en su interior. Así también en la RM en imágenes potenciadas T2 se observa hiperintensidad en el interior e hipointensidad en el margen de la lesión correspondiente a la capsula fibrosa característica del AP ⁽⁵⁾.

Es importante tener en cuenta como parte de las herramientas diagnósticas la biopsia por punción aspirativa por aguja fina (PAAF) previo a la toma de decisión del manejo en el AP. La PAAF

permite diferenciar entre lesiones originadas en las glándulas salivales y el tejido linfático, por lo cual puede ayudar a cambiar conducta dado que provee un diagnóstico preoperatorio confiable ⁽³⁾. Histológicamente, el AP es extremadamente heterogéneo, su nombre deriva del pleomorfismo arquitectónico observado por microscopía óptica, que se caracteriza por una mezcla de elementos mioepiteliales, epiteliales y fusiformes, con un estroma variable que puede ser mucosoide, mixoide, cartilaginoso o hialino. El riesgo de malignidad de esta neoplasia es aproximadamente del 6%. La etiología de adenoma pleomórfico se desconoce, sin embargo, la exposición a la radiación después de 20 años y al virus de los simios SV40 puede desempeñar un papel importante. Su aparición se ha asociado a anomalías clonales cromosómicas con aberraciones que involucran a 8q12 y 12q15 ⁽⁶⁾.

En este contexto, el objetivo del presente trabajo es describir una serie de casos de AP en glándulas salivales menores en subsitios poco frecuentes de cavidad oral, así como dar a conocer el diagnóstico y manejo adecuado a este tipo de lesiones tumorales.

REPORTE DE CASOS

Caso 1. Se presenta a consulta del servicio de Cirugía Maxilofacial, paciente masculino de 38 años de edad, sin antecedentes crónicos degenerativos; a la examinación clínica presenta un aumento de volumen en el lado derecho del labio superior, de tres años de evolución con crecimiento progresivo y lento. Esta condición fue previamente tratada como un proceso infeccioso y manejado con antibióticos sistémicos por un médico general en múltiples ocasiones, sin remisión de la lesión. El paciente no refiere dolor asociado ni epistaxis. La lesión era de tipo nodular en labio superior derecho de 25 mm de diámetro, de coloración similar a la piel circundante, de consistencia firme, móvil a la palpación, bordes bien limitados y superficie lisa. Después de analizar las características físicas del tumor, el comportamiento de la lesión y los signos clínicos previo toma de, se decide realizar resección local amplia de la lesión, bajo anestesia local. Se obtuvo una lesión amarillenta circunferencial firme, con múltiples vasos sanguíneos, y se retiró la cápsula en su totalidad (figura 1). Al ser el labio una estructura compleja por la presencia de múltiples tejidos, se decidió realizar un examen histopatológico, el cual reportó un AP.

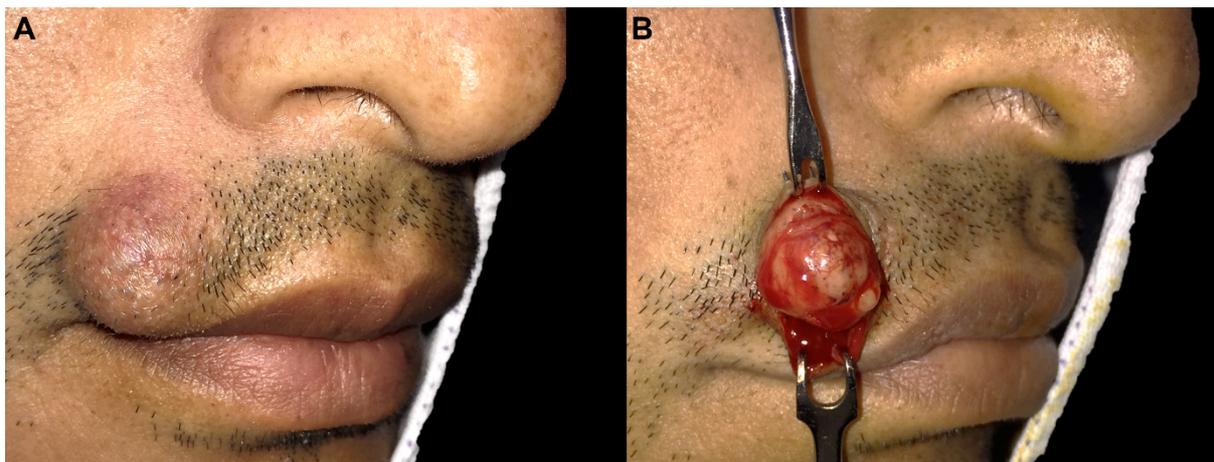


Figura 1. Caso 1. A. Lesión única, nodular, indurado, móvil de 25 mm de diámetro en labio superior derecho, de bordes regulares y empujantes hacia la comisura labial. **B.** Resección de Nódulo a través de disección roma, donde se observa lóbulo único de bordes regulares y patrón marcado de capsula fibrosa acorde a neoplasia benigna de glándulas salivales.

Caso 2. Paciente masculino de 53 años de edad, diagnosticado previamente con diabetes mellitus tipo II desde hace 14 años además de hipertensión arterial desde hace 4 meses. Se presentó al servicio de Cirugía Maxilofacial con un aumento de volumen en paladar duro lado izquierdo de 5cm de diámetro aproximadamente, con probable diagnóstico previo de patólogo oral de AP a través de PAAF, a la exploración con ligero desplazamiento, de consistencia dura, no fluctuante ni doloroso (figura 2a). Se solicitó tomografía cone beam del macizo facial simple con reconstrucción 3D para obtener una visión general del sitio así como la extensión de la lesión. Se observó una imagen hipodensa en paladar duro de bordes empujantes hacia la porción palatina ósea, con comunicación al antro maxilar izquierdo; con margen hiperdenso correspondiente a la cápsula, que es una característica imagenológica del AP. Se decide realizar la resección local del maxilar con cápsula completa bajo anestesia general balanceada. Se obtuvo una lesión blanco-amarillenta en las áreas mucoides en su parte interna, rodeada de una cápsula altamente fibrosa. El espécimen se envía al servicio de Patología para un examen histopatológico, el cual reporta AP.

Caso 3. Paciente femenino de 42 años de edad, sin antecedentes crónico-degenerativos. La paciente manifiesta aumento progresivo y lento, previamente tratando por varios odontólogos como una hiperplasia fibrosa focal causada por trauma oclusal, por lo que se realizaron

desgastes selectivos en varios órganos dentales; sin embargo, la lesión no remitió, razón por la cual se envió al servicio de cirugía maxilofacial para su valoración y manejo, a la exploración clínica se encontró una lesión nodular en la mucosa del triángulo retromolar izquierdo, de 30 mm de diámetro, normocrómica, consistencia firme, móvil a la palpación y bordes bien delimitados. Después de analizar los hallazgos del caso, el comportamiento de la lesión y la evidencia clínica, se decidió tomar PAAF previa la cual reporto lesión glandular, por lo que posteriormente se realizó la resección local amplia del nódulo bajo anestesia general balanceada. Durante el periodo de seguimiento posoperatorio, la paciente mostró una recuperación complicada debido a que presentó ulcera en el sitio de la resección; no obstante, a través de la anamnesis, se determinó que la dieta y los cuidados postoperatorios por parte de la paciente no habían sido realizados de acuerdo a las indicaciones, por lo que se enfatizó en las medidas locales, así como, en los cuidados generales. Posteriormente la recuperación fue adecuada (figura 3), sin recurrencia de la lesión. **Análisis histopatológico.** El diagnóstico histopatológico de los tres casos clínicos presentados fue AP. Fueron evidentes los constituyentes fundamentales de un AP como lo son el tejido epitelial y el componente mesenquimatoso, con bordes de la pieza libres de lesión. Actualmente los tres casos se encuentran en periodo de seguimiento cercano, sin recurrencia tumoral. (figura 4)

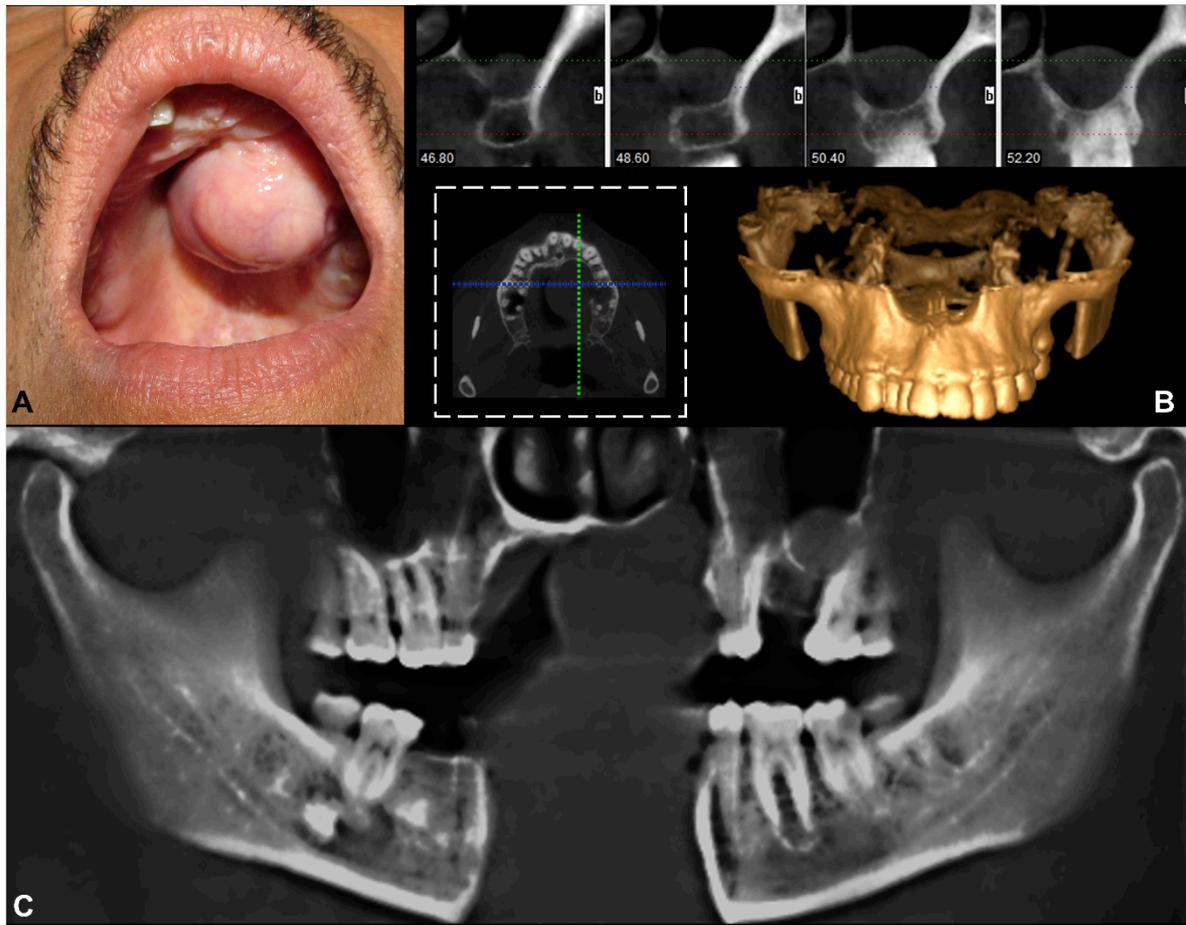


Figura 2. Caso 2. A. Lesión única, nodular, indurado de 4 mm de diámetro en paladar duro lado izquierdo, de bordes regulares. **B.** Tomografía Cone Beam de Maxilar con corte Axial y coronal del tumor donde se observa las periferia de la lesión con bordes empujantes hacia el antro maxilar izquierdo, respetando la porción de hueso alveolar. **C.** Reconstrucción Panorámica de Tomografía donde se observa el diámetro transversal así como bordes de la lesión hiperdenso e interior hipodenso.

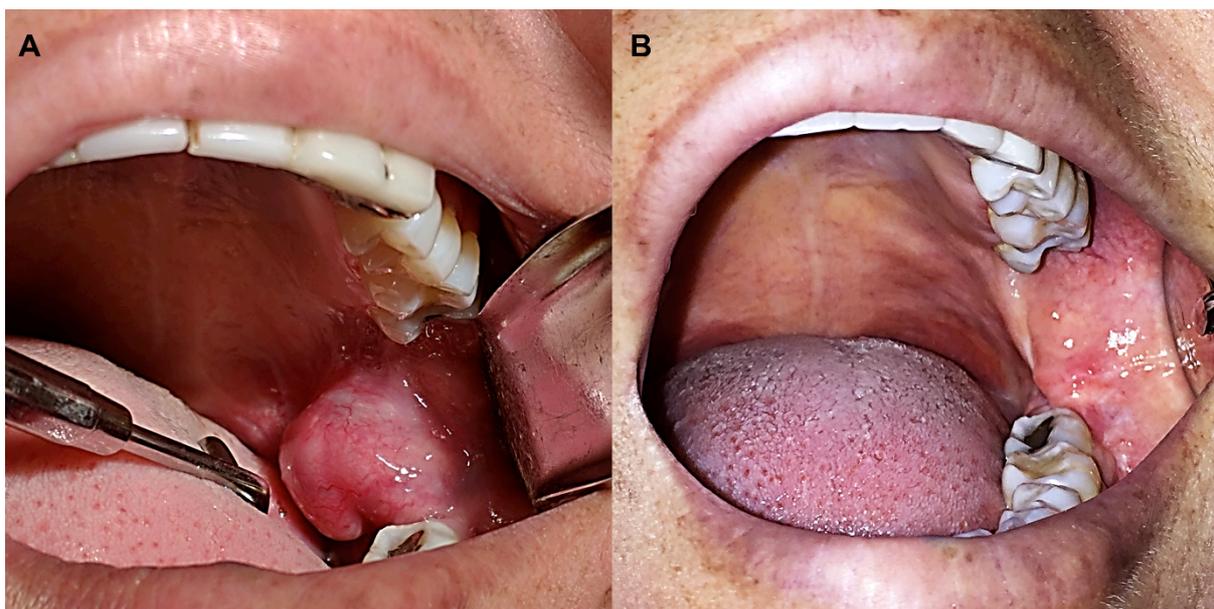


Figura 3. Caso 3. A. Lesión nodular, exofítica, indurada, móvil de 30 mm de diámetro en mucosa de trigono retromolar, de bordes regulares. **B.** Postoperatorio de 1 mes sin recurrencia de lesión y con adecuada cicatrización de la mucosa.

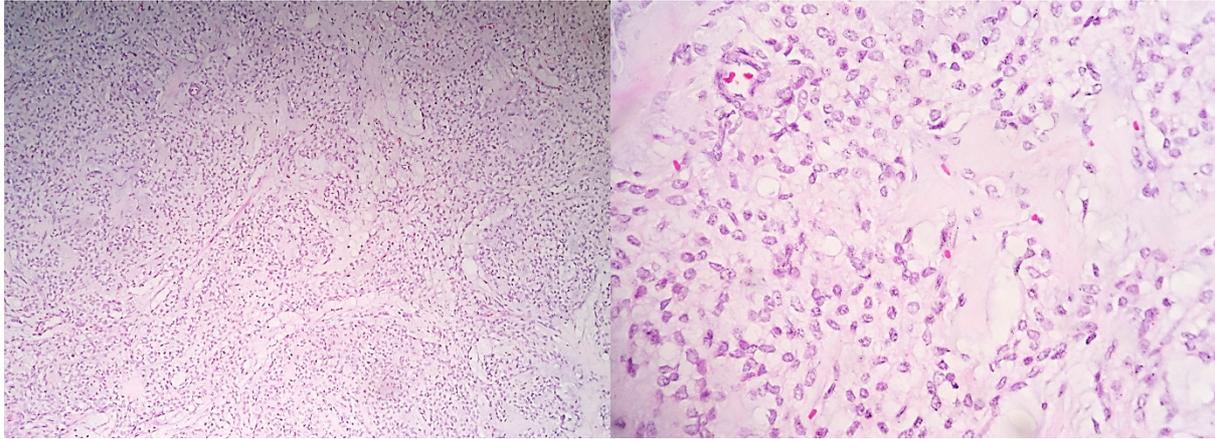


Figura 4. Microfotografías de cortes histopatológico de neoplasia benigna de origen salival en la que se observa una proliferación de células mioepiteliales semejantes a plasmocitos sobre un estroma fibroso con un componente ductal en el espesor de la lesión se observa zonas mixoides e infiltrado inflamatorio linfocitario difuso.

DISCUSIÓN

Los tumores que ocurren en glándulas salivales menores son poco frecuentes, representan del 8 al 10% de todos los casos a nivel mundial; sin embargo, se ha reportado que tienen un potencial mayor de malignización en comparación con aquellos de las glándulas salivales mayores⁽⁶⁾. El AP se presenta clínicamente como una masa indolora de crecimiento lento, que puede estar presente durante muchos años. Los signos y síntomas dependen de la ubicación anatómica del tumor y presentan sintomatología dolorosa principalmente por compromiso de las estructuras nerviosas circundantes. Los pacientes con AP de glándulas salivales menores, específicamente en labio o vía aérea, pueden presentar otros síntomas tales como disfagia, disnea, ronquera, dificultad en la masticación y epistaxis. En los tres casos presentados en este reporte no existieron tales signos o síntomas debido a que fueron diagnosticados y tratados oportunamente y de forma correcta⁽⁷⁾.

La tomografía computarizada y la resonancia magnética pueden ayudar a determinar con precisión la ubicación, el tamaño del tumor y la extensión hacia las áreas circundantes, especialmente el tejido óseo. Los hallazgos en las imágenes dependen de la densidad celular, proporción de epitelio, componentes en su estroma, y cambios histológicos secundarios (fibrosis, lipometaplasia, osificación, degeneración quística e infarto). Estos aspectos fueron de gran ayuda en el caso 2, en el que se observó un contenido hipodenso con el margen de la lesión hiperdenso, así como, la extensión

hacia el antro maxilar. Se debe saber que es un examen necesario mas no elemental para la decisión de manejo en los AP de glándulas salivales menores⁽⁵⁾.

El diagnóstico del AP se basa principalmente en una historia clínica completa y minuciosa, además del examen clínico e imagenológico. Se requiere además de una biopsia con punción aspirativa con aguja fina (PAAF) para guiar el diagnóstico y así poder brindar un manejo adecuado, según el caso. Aparte de los métodos convencionales de diagnóstico, también se pueden realizar pruebas de tinción inmunohistoquímica (IHC), se ha demostrado que son de utilidad diagnóstica la Keratin Cam, EMA P-63 Calponin, Maspín, S-100 HHF-35, actina específica de músculo, Proteína glial y el Aggrecan, los cuales ayudan a diferenciar al adenoma pleomórfico de otros tumores de apariencia similar⁽⁶⁾.

Los AP ubicados en las glándulas salivales menores presentan una tasa de recurrencia de 2 a 44%⁽¹⁾. Se ha considerado que la falta de una técnica quirúrgica adecuada es una de las principales causas de la recurrencia tumoral. La resección local amplia con márgenes negativos junto con biopsia y la histopatología deben ser considerados como los tratamientos de primera elección. La técnica quirúrgica adecuada debe siempre ser utilizada para evitar la recurrencia, así como el mantenimiento del paciente bajo estrecha vigilancia para actuar de manera oportuna y evitar la recurrencia tumoral.

CONCLUSIONES

Los adenomas pleomorfos son poco frecuentes en las glándulas salivales menores. La cirugía con resección amplia es el tratamiento de elección, y el objetivo debe ser lograr márgenes negativos de la neoplasia. La mayoría de los pacientes afectados son candidatos a la cirugía. Además, es importante contar con un profundo conocimiento de los abordajes pertinentes de acuerdo a cada caso, conocer el sub-sitio donde se localiza el tumor, tomando siempre en cuenta la mejor opción funcional y estética para el tratamiento quirúrgico definitivo. Sin embargo, la resección incompleta del tallo del tumor aumenta las posibilidades de recurrencia.

Contribuciones de autoría: GCJA, NRR, BCOA, GRJA participaron en el diseño, redacción y aprobación del artículo.

Fuente de financiamiento: Autofinanciado.

Conflictos de interés: Declararon que no existe ningún tipo de conflicto de intereses entre los miembros de este artículo.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Hiyama T, Kuno H, Sekiya K, Oda S, Kobayashi T. Imaging of Malignant Minor Salivary Gland Tumors of the Head and Neck. *RadioGraphics*. 2021;41(1):175-91
2. Khan MN, Raza SS, Hussain Zaidi SA, Haq IU, Hussain AK, Nadeem MD, et al. Pleomorphic Adenoma Of Minor Salivary Glands. *Journal of Ayub Medical College, Abbottabad: JAMC [Internet]*. 2016 Jul 1 [cited 2020 Dec 15];28(3):620–622.
3. Alves FA, Perez DEC, Almeida OP, Lopes MA, Kowalski LP. Pleomorphic Adenoma of the Submandibular Gland. *Archives of Otolaryngology–Head & Neck Surgery*. 2012 Dec 1;128(12):1400.
4. Rha M-S, Jeong S, Cho H-J, Yoon J-H, Kim C-H. Sinonasal pleomorphic adenoma: A single institution case series combined with a comprehensive review of literatures. *Auris Nasus Larynx*. 2019 Apr;46(2):223–9.
5. Vento SI, Numminen J, Kinnunen I, Rautiainen M, Tarkkanen J, Hagström J, et al. Pleomorphic adenoma in the nasal cavity: a clinicopathological study of ten cases in Finland. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology*. 2016 Apr 7;273(11):3741–5.
6. Kato H, Kawaguchi M, Ando T, Mizuta K, Aoki M, Matsuo M. Pleomorphic adenoma of salivary glands: common and uncommon CT and MR imaging features. *Japanese Journal of Radiology*. 2018 May 29;36(8):463–71.
7. Choi J-S, Cho BH, Kim H-J, Kim Y-M, Jang J-H. Identification of new genes of pleomorphic adenoma. *Medicine*. 2019 Dec;98(51):e18468.
8. Cerulli G, Renzi G, Perugini M, Becelli R. Differential Diagnosis Between Adenoid Cystic Carcinoma and Pleomorphic Adenoma of the Minor Salivary Glands of Palate. *Journal of Craniofacial Surgery*. 2014 Nov;15(6):1056–60.

Grajeda-Cruz Jonathan Alexis

ORCID iD:  <https://orcid.org/0000-0002-7390-6503>

jonathangrajedar5@gmail.com

Narvaez-Ruiz Raul

ORCID iD:  <https://orcid.org/0000-0002-2270-4573>

ranarvaez@uv.mx

Benitez-Cardenas Oscar Arturo

ORCID iD:  <https://orcid.org/0000-0003-3450-0911>

cmfoscarbenitez@gmail.com

Garrocho-Rangel Jose Arturo

ORCID iD:  <https://orcid.org/0000-0001-9193-0300>

arturo.garrocho@uaslp.mx

Copyright © La revista. La revista Kiru es publicada por la Facultad de Odontología de la [Universidad de San Martín de Porres](#), en Lima, Perú.