

Adenoma pleomorfo de glándula parótida y submaxilar izquierdo: reporte de un caso con riesgo de mortalidad por compresión

Caso Clínico

Pleomorphous adenoma of left parotid gland and lower jaw: report of a case with high risk of mortality by compression

Concepción Guillermin Vázquez¹, Roberto C. Mendoza Morales², Guadalupe Melo Santiesteban³, Raúl Infanzón Ruiz⁴

RESUMEN

Presentamos el caso clínico de un paciente del sexo masculino con un adenoma pleomorfo en región parotídea y submaxilar izquierda, con crecimiento progresivo en un individuo en situación de calle, con riesgo de morbimortalidad por compresión de estructuras vecinas o malignización. Se trató de una neoformación de 5 x 6 cm, con histología compatible con adenoma pleomorfo. El adenoma pleomorfo es una neoplasia benigna de ubicación en glándula parótida (85% de los casos), submaxilar (7% de los casos) y salival (8% de los casos); su incidencia mundial es 1-2 por cada 100,000. Puede aparecer a

cualquier edad, muestra ligera predilección por mujeres y tiene mayor prevalencia del cuarto al sexto decenio de la vida; es habitualmente indoloro y de crecimiento lento, bien delimitado, blando, ligeramente firme a la palpación y libremente desplazable en glándulas salivales; no se adhiere a la piel ni a los planos profundos. No teniendo tratamiento quirúrgico puede alcanzar gran volumen; suele localizarse por debajo de la oreja, detrás de la mandíbula y las lesiones antiguas pueden ocasionar atrofia por la compresión del elemento óseo y eventualmente malignizarse.

Palabras clave: Adenoma pleomorfo, glándula parótida, caso clínico

Recibido: 11 Junio 2017, Aceptado: 21 Junio 2017, Publicado: 15 Agosto 2017

¹ Cirujano Dentista, Máster en Medicina Forense

² Médico Anatomopatólogo, Laboratorio de Patología, Instituto de Ciencias Forenses, CDMX.

³ Médico Cirujano, Máster en Medicina Forense, Especialista en Patología, Instituto de Medicina Forense, UV

⁴ Químico Clínico, Doctorante en Ciencias Forense, Instituto de Medicina Forense, UV

Corresponding author: Dra. Concepción Guillermin, revmforense@uv.mx

SUMMARY

We present the case of a male patient with a pleomorphic adenoma in the left parotid and submaxillary region, with progressive growth in an individual in a homeless patient, with as high risk of morbidity and mortality due to compression of neighboring structures or malignancy. The pleomorphic adenoma is a benign neoplasm of parotid gland (85% of cases), submaxillary (7% of cases) and salivary (8% of cases); its global incidence is 1-2 per 100.000. It may appear at any age, shows a slight

preference for women and is more prevalent from the fourth to the sixth decade of life; it is usually painless and slowly growing, well delimited, soft, slightly firm to palpation and freely movable in salivary glands. In it doesn't undergo surgical treatment it can reach a large volumen, usually located below the ear and behind the jaw; the older lesions can cause atrophy by compression of the bony structures and eventual malignization.

Keywords: Pleomorphic adenoma, parotid gland, clinical case.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Se trata de un masculino fallecido, con edad aparente de 65 a 70 años; ingresa al Instituto de Ciencias de Forenses de la Ciudad de México en calidad de desconocido; el Perito Médico Forense realiza la necrocirugía; al examen externo, el cadáver presenta livideces que no desaparecen a la digito presión en zonas de declive y con una temperatura aproximada a los 25 °C.

Corresponde a un cadáver con edad aparente de 65 a 70 años de edad, sexo masculino, color de piel morena, complexión delgada, con un peso de 55 kg y una talla de 167 cm; la línea de inserción de pelo es posterior, con presencia de calvicie; barba y bigote

ralos y crecidos; presenta cicatriz hipertrófica traumática antigua en ceja izquierda, lineal, de 5 cm de longitud; conjuntiva con presencia de mancha esclerótica melanótica, mordida borde a borde con múltiples restos radiculares de órganos dentarios en ambas arcadas; apreciamos aumento de volumen en región parotídea y submaxilar izquierda.

En el estudio de la cavidad oral observamos una masa de aspecto neoplásico, de superficie lisa irregular, hipocrómica, de bordes bien definidos, de 5 cm de ancho por 6 cm de largo. Su localización era en la región parotídea y submaxilar izquierda con compresión de los elementos óseos vecinos. Procedimos a la extirpación completa de la neoplasia (figuras 1 y 2) para su envío al Departamento de Patología.



Figura 1. Aspecto macroscópico de la lesión neoplásica extirpada



Figura 2. Corte sagital de la lesión neoplásica extirpada

Se realizó el procesamiento histológico de rutina para su examen macroscópico y microscópico, usando tinción de Hematoxilina y Eosina. De acuerdo a las características observadas, se trataba de una neoplasia formada por

tejido de tipo conjuntivo fibroso denso, que forma una cápsula que delimita a una lesión de aspecto tumoral compuestos por fibras hialinas que se entremezclan con islas y cordones de células mioepiteliales de aspecto escamoso y zonas de

hialinización de aspecto basófilo. Como parte de la extirpación de la lesión realizamos la biopsia excisional de

ganglios submandibulares y salivales, sin encontrar alteración histológica de los mismos (figura 3-6).

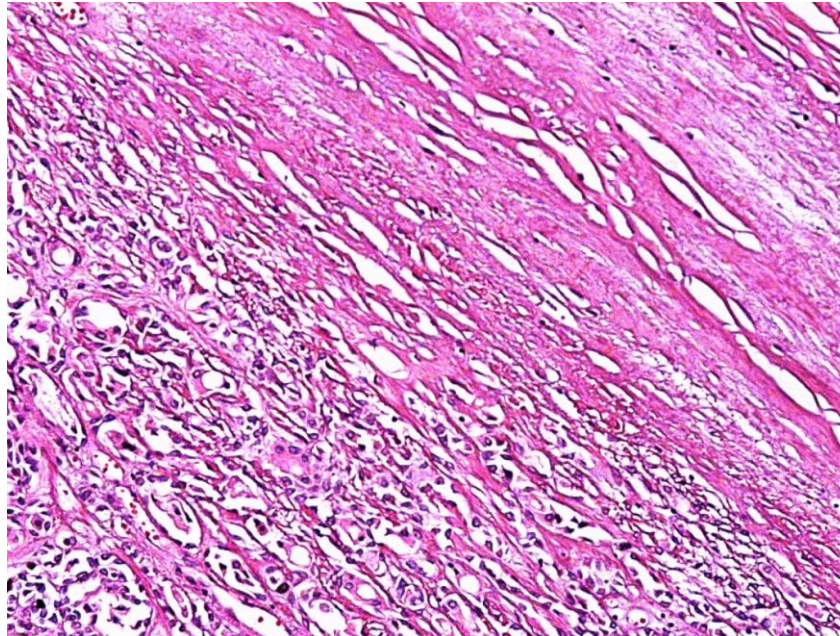


Figura 3. Adenoma pleomorfo, bien delimitado revestido por una cápsula fibrosa (parte superior derecha). 10x HyE.

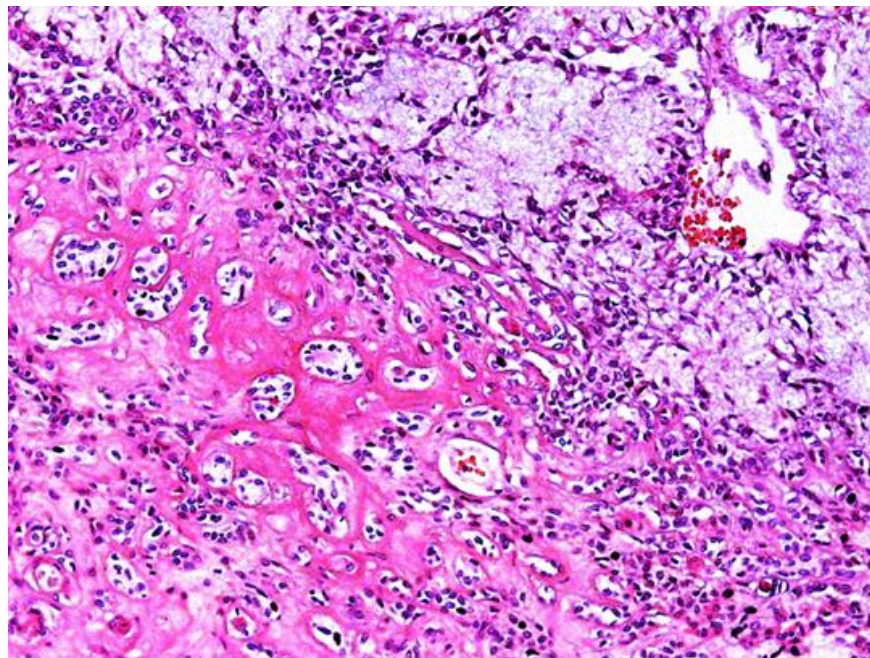


Figura 4. Adenoma pleomorfo, donde se identifican elementos epiteliales, así como estroma hialino (parte inferior izquierda) y mixoide (parte superior derecha). 20x, HyE.

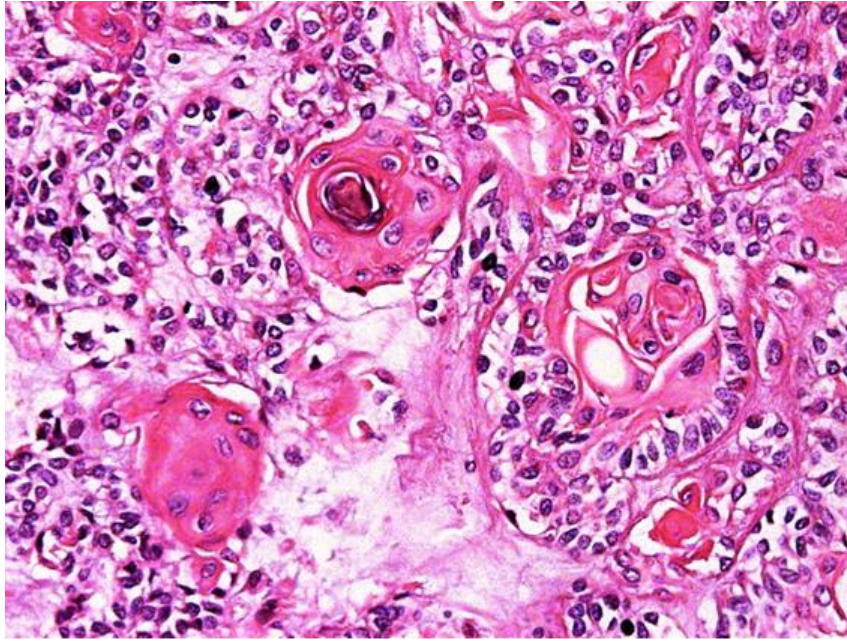


Figura 5. Adenoma pleomorfo, constituido de células epiteliales que forman túbulos con ocasionales áreas de diferenciación escamosa. 40x, HyE.

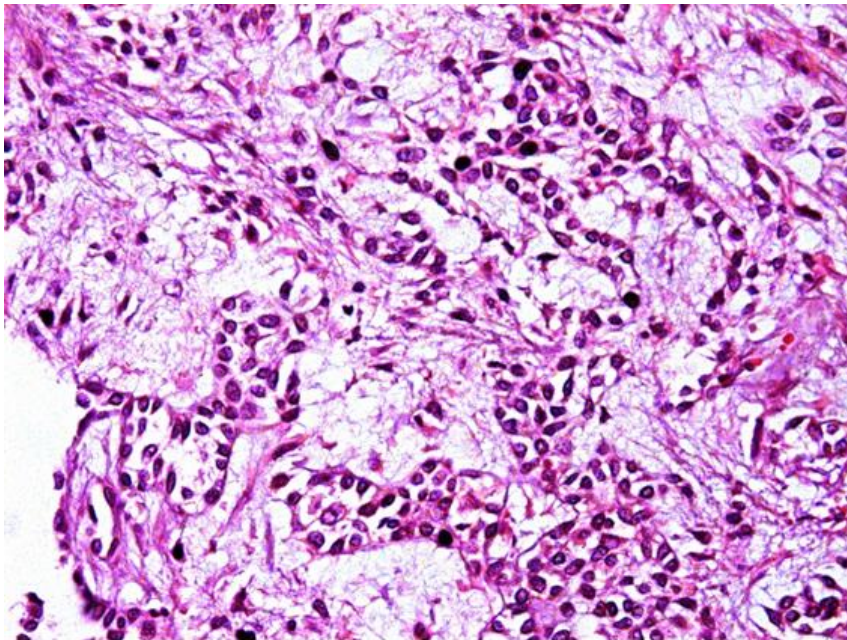


Figura 6. Adenoma pleomorfo, con cordones de células epiteliales inmersos en una matriz mixoide. 40x, HyE

Con las características morfológicas e histológicas realizamos el diagnóstico definitivo de Adenoma Pleomorfo Benigno de localización submandibular y parotídea izquierda, con compresión de elementos óseos vecinos.

DISCUSIÓN DEL CASO

Prevalencia

Las glándulas salivales tienen la mayor diversidad de características morfológicas entre sus células; por lo

tanto, son el sitio de origen del grupo más heterogéneo tumores desde el punto de vista histológico; constituyen alrededor del 5% de las neoplasias de cabeza y cuello. El lugar más frecuente para la aparición de estas lesiones son las glándulas parótidas (85% de los casos) seguidas por las glándulas submaxilares y salivales menores (paladar), que representan el 7 y 8% de los casos en forma respectiva (Regezi, 2000; Blasterra, 2009).

Las neoplasias de glándula saliva pueden derivar del epitelio salival parenquimatoso o del estroma conjuntivo mesenquimal; afectan a 1 de cada 3 individuos por cada 100.000. Más del 70% se desarrolla en las glándulas salivales mayores y el resto en las glándulas salivales menores (Sapp, 2004). En la glándula parótida casi el 70% de los tumores del parénquima salival son adenomas benignos, mientras los tumores de la glándula submandibular y de las glándulas menores de la cavidad oral, nasal y senos paranasales muestran igual proporción de tumores benignos y malignos. Los tumores de las glándulas salivales menores intraorales son más frecuentes en el paladar, seguido por el labio superior y de la mucosa bucal. Mientras las glándulas palatinas y de la mucosa bucal presentan similar incidencia de tumores malignos y benignos. Los tumores salivales derivados de glándulas localizadas en la lengua, el labio inferior y el trígono retromolar son con mayor frecuencia adenocarcinomas (Sarmiento, 2016)

En conjunto, los tumores parenquimatosos benignos son adenomas, mientras los tumores malignos de las glándulas salivales se clasifican como adenocarcinomas. La histogénesis del Adenoma Pleomorfo Benigno es a partir

de la proliferación de células ductales y mioepiteliales; estas últimas desempeñan un rol muy importante en la apariencia y composición de los tumores mixtos (Hughes, 2013).

Los tumores salivales pueden derivar de cualquiera de los componentes celulares del árbol glandular, como células ductales basales o de reserva, conductos estriados, conductos intercalados, acinos y células mioepiteliales. Las diversas neoplasias se denominan según la diferenciación de las células tumorales. Algunos tumores elaboran una amplia variedad de células secretoras, ductales y mioepiteliales, mientras que otros son más monomorfos, formados únicamente por células ductales o acinares (Sapp, 2004). El adenoma pleomorfo es el más frecuente de los tumores benignos de las glándulas salivales (Krishnaraj, 2008); representa el 80% de los tumores benignos y el 50% de todos los tumores de las glándulas salivales. Está compuesto fundamentalmente por una proliferación de células mioepiteliales y por un amplio espectro de componentes del tejido epitelial y mesenquimal y rodeado de una nítida cápsula fibrosa (Raspall, 2000).

El término pleomorfo hace referencia a la amplia variabilidad de la diferenciación parenquimatoso y estromal mostrada por las células tumorales. Este tumor afecta las glándulas mayores (parótida, submaxilar y sublingual) y las menores que se encuentran en paladar, labio, mucosa bucal y orofaringe. Fue descrito por Minsén en 1874 y posteriormente por Broca como un tumor mixto (debido al aspecto al microscópico) por creer que su origen era doble epitelial y conectivo (Pradies, 2008).

Willis fue el primero en denominarle adenoma pleomórfico en sustitución del término tumor mixto (Shaffer, 2005). El adenoma pleomorfo es conocido con diversos nombres: enclavoma, branquioma, endotelioma, encondroma, tumor mixto (Minsen, 1874), tumor mixto benigno y adenoma pleomorfo. Este último término, el que ha permanecido, fue sugerido por Willis en 1967 debido al patrón histológico poco usual que le caracteriza, pues exhibe tejido epitelial entremezclado con diferentes tejidos mesenquimatosos (Ledezma, 2002).

Características clínicas

El adenoma pleomorfo surge a cualquier edad, muestran ligera predilección por mujeres y tienen mayor prevalencia del cuarto al sexto decenio de la vida. No obstante, ha sido encontrado en individuos de todas las edades (Waldron, 2001).

Constituyen casi el 50% de todas las malformaciones de glándulas salivales menores intraorales; son movibles salvo cuando se presentan en paladar duro; tiene la forma de tumefacciones indoloras y firmes; en la mayor parte de los casos no ulceran la mucosa que las recubre. Dentro de la glándula submandibular los adenomas pleomorfos se reconocen como masas discretas desde el punto de vista clínico, es imposible distinguirlos de los tumores malignos de la glándula salival en las primeras etapas de desarrollo, también puede ser difícil diferenciarlos de ganglios linfáticos hipertrofiados en el triángulo submandibular (López, 2002; Sander, 2007).

El adenoma pleomorfo benigno es habitualmente indoloro y de crecimiento lento, bien delimitado, blando,

ligeramente firme a la palpación y libremente desplazable en glándulas salivales mayores de mayor tamaño; no se adhiere a la piel ni a los planos profundos. No teniendo tratamiento quirúrgico puede alcanzar gran volumen; suele localizarse por debajo de la oreja detrás de la mandíbula; algunos están surcados por la extensión posterior de la rama mandibular y las lesiones antiguas pueden ocasionar atrofia por la compresión del elemento óseo. Cuando están situados en el polo inferior o la cola de la parótida, las tumefacciones aparecen por debajo del ángulo de la mandíbula y delante del musculo esternocleidomastoideo (DÁversana, 2013; Makeieff, 2010; Witt, 2015).

El tamaño de los adenomas pleomorfo benigno varía desde unos cuantos milímetros hasta varios centímetros de diámetro y alcanzan proporciones gigantes en las glándulas salivales mayores en particular en la parótida. El tumor típico es lobulado y encerrado en una capsula de tejido conectivo cuyo espesor es variable, en áreas donde la capsula presenta un defecto el tejido neoplásico puede estar en contacto directo con el tejido salival adyacente. Generalmente, el tiempo de evolución hasta que se manifiesta clínicamente oscila entre 2 y 5 años (Makeieff, 2010). El tumor mixto es una neoplasia benigna que tiende a veces a malignizarse; esta tendencia se relaciona con el tiempo de evolución de la lesión y con la edad del paciente. Entre los signos de malignización figura el cambio de velocidad de crecimiento, la adherencia a planos profundos y a la piel, el dolor y la parálisis facial (Hadlock, 2010).

Histopatología

Histopatológicamente, el APB exhibe una amplia variedad de características histopatológicas, observándose grandes diferencias no solo de un tumor a otro, sino de una zona a otra dentro del mismo tumor. Algunos son predominantemente mixoides con un componente epitelial escaso. Otros son muy celulares con escasas zonas de tejido mixo-condroide (Neville, 2002). El componente epitelial puede estar organizado en conductos, nidos o sabanas sólidas de células o cordones individuales o que se anastomosan entre si u organizados en un patrón cribiforme, además de focos de células escamosas con queratina o no. Casi todos los APB poseen elementos tubulo-ductales formados por células cúbicas alrededor de una luz con células mioepiteliales fusiformes; en algunos tumores estas células están incluidas en un estroma mixomatoso (Phillip, 2014).

También se puede observar que las capas de células mioepiteliales pueden ser fusiformes, plasmocitoides, estrelladas o claras; considerándose estas células responsables del aspecto mesenquimal del tumor, pierden su aspecto fusiforme haciéndose poligonales; presentan núcleos excéntricos con citoplasmas hialinizados amorfo, el cual se considera lámina basal formada por estas mismas células; a éstas se les conoce como células mioepiteliales plasmocitoides. El estroma se hace densamente hialinizado o también se han observado elementos estromales condroides, adiposos e incluso óseos (Neville, 2002).

Pueden contener células, eosinofílicas oncocíticas, además de células mucosas o sebáceas y cristales de diferente composición. Estos tumores presentan una transformación maligna de menos del 1% de los casos, teniendo

como características presencia de áreas focales de necrosis, invasión, mitosis atípica y hialinización extensa (Conley, 1975; Adams, 2008).

Usualmente este tumor es solitario, unifocal y único, sin embargo, existen varias publicaciones que reportan sobre diferentes situaciones, donde el APB puede presentarse múltiple, en la misma glándula, en glándulas diferentes, homolateral o contralateral, o con otro tumor histológicamente diferente (Abu-Ghanem, 2016).

Diagnóstico

La tomografía axial computarizada (TAC) es de utilidad para evaluar la erosión y perforación ósea, y posible compromiso de estructuras vecinas como los senos paranasales, la cavidad nasal y la base de cráneo, al cual invade a través del conducto palatino (Hong, 2013). La resonancia magnética nuclear (RMN) es una técnica diagnóstica valiosa para el estudio de estos tumores, especialmente de los que se circunscriben a tejidos blandos y en glándulas mayores (Gao, 2017). En la TAC y RMN se observa una masa dentro de la glándula afectada. En una lesión benigna se observa un contorno liso y se diferencia del tejido glandular adyacente, mientras que en una lesión maligna se observan bordes irregulares e infiltrativos. Estos estudios nos ayudan a determinar la extensión de la lesión y diferenciar una lesión maligna de una benigna (Loh, 2017)

Tratamiento

El tratamiento quirúrgico incluye parotidectomía total parotidectomía superficial y la disección extracapsular. Todos demuestran un bajo riesgo de

recurrencia de entre el 5 y el 9,7%, pero conllevan riesgos significativos de daño del nervio facial; se ha encontrado que alrededor de 16.1% de los pacientes que son sometidos a este procedimiento muestran características histológicas de malignidad (Neville, 2002).

Efectos del daño al nervio facial pueden incluir asimetría facial, sinquinesis y el síndrome de Frey, que pueden afectar la imagen de un individuo, la salud mental y la capacidad de comunicarse (Petrovic, 2016).

Otro procedimiento conocido como estimulación eléctrica (EE) consiste en colocar electrodos de superficie sobre el nervio afectado para estimular y recuperar su función. El estimulador genera un potencial de acción en ambos nervios y tejidos musculares que se ha demostrado en modelos animales para favorecer su recuperación estructural (Guzzo, 2010).

Implicaciones del caso

Los adenomas pleomorfos son neoformaciones de baja frecuencia; en el presenta caso, se trata de un individuo indigente que falleció en la vía pública y en el que dicha tumoración pudiera estar vinculada con morbilidad y/o con la causa de muerte; en la necrocirugía no se encontraron hallazgos en el examen externo e interno que pudiera sugerir otra causa de muerte. La importancia de este caso radica en su poca frecuencia y la posible morbimortalidad asociada.

REFERENCIAS

1. Regezi J, Sciubba J (2000). Patología bucal. Correlaciones clinicopatológicas. Tercera edición.

- Ed. McGraw-Hill Interamericana. Mexico; 243-247.
2. Basterra A (2009). Tratado de Otorrinolaringología y Patología Cervicofacial. Ed. Elsevier Masson. Barcelona, España: 702-703, 711-714.
3. Sapp JP, Wysocki G, Eversole LR (2004). Patología oral y maxilofacial contemporánea. 2ª ed. Ed. Elsevier. España: 347-351.
4. Krishnaraj S (2008). Salivary gland tumors: a single institution experience in India. British Journal of Oral and Maxillofacial Surgery Association: 46: 635-638.
5. Raspall G (2000). Boca, cabeza y cuello. Atlas clínico. Segunda edición. Ed. Masson. Barcelona – España: 2-3
6. Pradies RG, Pérez QM, Martín AC (2008). Adenoma pleomorfo de glándulas palatinas: revisión, actualización y caso clínico. Avances en Odontología, 15 (7): 377-84.
7. Shaffer W, Levy B (2005). Tratado de Patología Bucal. Nueva Edit. Interamericana, México, DF: 233-238.
8. Ledezma MC, Garcés OM, Gómez ML (2002). Adenoma pleomorfo. Asociación Dental Mexicana: 59 (2): 58-62.
9. Waldron CA. (2001). Mixed tumor (Pleomorphic adenoma) and myoepithelioma. En: Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR, eds. Surgical pathology of the salivary glands. W.B. Saunders Company editores: 165-86.
10. Raspall G. (2000). Boca, cabeza y cuello. Atlas clínico. Segunda

- edición. Ed. Masson. Barcelona – España: 2-3.
11. López JP (2002). Alteraciones de las glándulas salivales. Murcia: Universidad de Murcia, Servicio de Publicaciones: 116.
 12. Sander MO (2007). Tratado de cirugía oral y maxilofacial. Introducción básica a la enseñanza. Ed. Amolca. Colombia: 665-666.
 13. D'Aversana G, Bonavolontà P, Iaconetta G (2013). Surgical management of benign tumors of the parotid gland: extracapsular dissection versus superficial parotidectomy--our experience in 232 cases. *J Oral Maxillofac Surg*; 71(2):410-3.
 14. Makeieff M, Pelliccia P, Letois F (2010). Recurrent pleomorphic adenoma: results of surgical treatment. *Ann Surg Oncol*: 17(12): 3308-13.
 15. Witt RL, Eisele DW, Morton RP (2015). Etiology and management of recurrent parotid pleomorphic adenoma. *Laryngoscope*: 125(4):888-93.
 16. Hadlock T, Lindsay R, Edwards C (2010). The effect of electrical and mechanical stimulation on the regenerating rodent facial nerve. *Laryngoscope*: 120(6):1094-102.
 17. Witt RL, Eisele DW, Morton RP. Etiology and management of recurrent parotid pleomorphic adenoma. *Laryngoscope*: 125(4):888-93.
 18. Neville BW, Damm DD, Allen CM (2002). *Oral and-Maxillofacial Pathology*. 2nd ed. Philadelphia: Saunders: 426-428.
 19. Philip SJ, Eversole LR, Wysocki GP (2014). *Patología Oral y maxilofacial contemporánea*. 2a ed. Madrid: Elsevier, 348-351, 355-356.
 20. Conley J (1975). *Recurrent pleomorphic adenoma. Salivary Glands and the Facial Nerve*. New York: Grune and Stratton. 112-118.
 21. Adams AJ, Patterson AR, Brady G (2008). Resolution of obstructive sleep apnoea after resection of a pleomorphic salivary adenoma. *British Journal of Oral and Maxillofacial Surgery Association*; 46: 53-54.
 22. Abu-Ghanem Y, Mizrahi A, Popovtzer A (2016). Recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland: Institutional experience and review of the literatura. *J Surg Oncol*; 114(6):714-718.
 23. Gao M, Hao Y, Huang MX (2017). Salivary gland tumours in a northern Chinese population: a 50-year retrospective study of 7190 cases. *Int J Oral Maxillofac Surg*; 46(3):343-349.
 24. Loh D, Galloway S, Slavin J (2017). Synchronous contralateral pleomorphic adenoma of the parotid gland and submandibular gland. *Pathology*;49(1):92-94.
 25. Neville B, Damm D, Allen C (2002). *Oral & Maxilofacial Pathology*. Second Edition. Philadelphia. W.B. Saunders Company:156-176.
 26. Petrovic S, Petrović D (2016). Giant pleomorphic adenoma of submandibular gland. *Indian J Med Res*: 144(3):485-486.
 27. Guzzo M, Locati LD, Prott FJ (2010). *Major and minor salivary gland*

- tumors. Crit Rev Oncol Hematol; 74(2):134-148.
28. Sarmiento DJ, Morais ML, Costa AL (2016). Minor intraoral salivary gland tumors: a clinical-pathological study. Einstein (Sao Paulo); 14(4):508-512.
29. Hughes CA, Brown J (2017). Pediatric trans-oral submandibular gland excision: A safe and effective technique. Int J Pediatr Otorhinolaryngol;93:13-16
30. Hong HJ, Byeon HK, Bae SH (2013). Carcinoma ex pleomorphic adenoma in the oral cavity: a huge oral cavity mass with neck metastasis. J Craniofac Surg: 24(6):e543-6.
31. mass with neck metastasis. J Craniofac Surg: 24(6):e543-6.



**Revista Mexicana de Medicina Forense
y Ciencias de la Salud**