

Tumor de Warthin. Reporte de un caso bilateral

Luz Ma. Viveros Añorbe,* Juan Felipe Sánchez Marle*

RESUMEN

El tumor de Warthin es la segunda neoplasia benigna más frecuente de la glándula parótida (6 a 10%). Predomina en varones en relación 5:1 y su mayor frecuencia es entre la sexta y séptima décadas de la vida. Estos tumores pueden ser multicéntricos y aparecer en varias regiones de la misma glándula; en 6 a 10% son bilaterales. Se originan de tejido salival glandular ductal heterotópico y entre los ganglios incluidos o adyacentes de la glándula parótida. Las recurrencias ocurren en 12% y se explican por el carácter multicéntrico de esta enfermedad. La etiología del tumor de Warthin ha sido discutida por mucho tiempo, pero sigue siendo aún motivo de controversia. El tabaquismo es un importante factor de riesgo asociado al desarrollo de esta neoplasia. Se presenta el caso de un hombre de 51 años, de raza blanca, con tumor de Warthin bilateral; fue tratado mediante parotidectomía superficial, primero del lado izquierdo y dos años después del lado derecho. Evolucionó favorablemente, sin complicaciones y con integridad de ambos nervios faciales.

Palabras clave: Cistadenoma papilar linfomatoso, Tumor de Warthin.

ABSTRACT

Warthin's tumor is the second more frequent benign neoplasm of the parotid gland. It prevails in the masculine sex in a relationship of 5:1 and the highest frequency occurs between the sixth and seventh decade of life. These tumors can be multicentric and appear in several regions of the same gland. In 6 to 10% of cases are bilateral. They originate in the ductal heterotopic glandular salivary tissue and in adjacent glands. Recurrences occur in 12% due to the multicentric characteristic of this illness. The etiology of Warthin's tumor has been discussed widely, but it continues being object of controversy. Smoking is an important risk factor associated to the development of this neoplasm. The case of a 51 year old white man with bilateral tumors is presented. He was treated by superficial parotidectomy, first on the left side and two years later in the right. It evolved favorably without complications and integrity to both facial nerves.

Key words: Papillary cystadenoma lymphomatosum, Warthin's tumor.

INTRODUCCIÓN

Es la segunda neoplasia benigna más frecuente de la glándula parótida (6 a 10%). Predomina en varones en relación 5:1 y su mayor frecuencia es entre la sexta y séptima décadas de la vida.¹ Estos tumores pueden ser multicéntricos y aparecer en varias regiones de la misma glándula; en 6 a 10% son bilaterales. Se originan de tejido salival glandular ductal heterotópico y entre los ganglios incluidos o adyacentes de la glándula parótida. Casi 20% de estas neoplasias se presentan como masas extraparotídeas en el cuello. Las recurrencias ocurren en

12% y se explican por el carácter multicéntrico de esta enfermedad.¹

Se presenta como un bulto blando e irregular en la glándula parótida, el 85% de ellos ocurren en el polo inferior superficial de la glándula.²

Estos tumores han sido reportados predominantemente en blancos, menos frecuentemente en orientales, y como raros en la raza negra.³

El rango de incidencia es más alto que el cáncer de la glándula salival, pero es menor que el de tumores mixtos benignos (adenoma pleomórfico). La transformación maligna es rara.³

Si consideramos la patología del tumor, se sabe que su crecimiento es muy lento y que, por lo tanto, puede permanecer estático durante muchos años.

Éste se presenta más comúnmente como un bulto no doloroso en un paciente masculino. El promedio del tamaño del tumor al momento del diagnóstico es de alrededor de 2 a 4 cm⁴, aunque éste puede variar

* Otorrinolaringología, Hospital ABC.

Recibido para publicación: 27/05/99. Aceptado para publicación: 17/01/01.

Dirección para correspondencia: Dra. Luz Ma. Viveros Añorbe
Ing. Braulio Martínez núm. 75
Col. Guadalupe Insurgentes, 07870 México, D.F.

de 1 a 10 cm en el diámetro; sin embargo, se han reportado casos de tumores de Warthin extremadamente largos.^{5,6} La fluctuación en el tamaño del tumor aparentemente no ocurre.⁷

Estos tumores son fácilmente removidos de su posición superficial y rara vez recurren; los cambios malignos pueden presentarse si existe el antecedente de radioterapia regional.⁸ El tumor posee ciertas características las cuales pueden ser de valor diagnóstico: está rodeado por una delgada y fuerte cápsula, la superficie puede ser lisa o lobulada y es comúnmente de color rosa-grisáceo. El diagnóstico sólo puede ser establecido con base en el examen histológico. Microscópicamente, los componentes esenciales del tumor de Warthin son un parénquima epitelial y un estroma linfoide, el tejido parenquimatoso está formado de túbulos y espacios quísticos dilatados dentro del lumen del cual se proyectan procesos papilares delgados como dedos dándole al tumor su apariencia característica.⁷

La presencia de tumores múltiples de diferente tipo histológico es extremadamente rara en la glándula salival; sin embargo, hay algunos reportes de tumor de Warthin asociado con adenoma pleomórfico en la misma glándula parótida.⁹

Antecedentes históricos

El tumor de Warthin fue descrito por primera vez en 1895 por Hildebrand, quien consideró a éste como una variante de un quiste congénito lateral del cuello.¹⁰ Tres años más tarde, en 1898, Neisse observó numerosos nódulos linfáticos que contenían inclusiones de tejido salival ductal dentro de la glándula parótida de un feto.¹¹

En 1910, Albrecht y Artz describieron dos casos y propusieron el nombre de cistadenoma papilar y enfatizaron que ocurrían en nódulo linfáticos de parótida.¹²

Nicholson en 1923 describe los tumores como adenomas de glándulas salivales ectópicas en nódulos linfáticos preparotídeos.¹³

Para 1929, Aldred Scott Warthin revisó todos los tumores de parótida y quistes branquiales cervicales registrados en un periodo de 35 años en la Universidad de Michigan. Esto es interesante porque en esta fecha fue cuando por primera vez fue descrita esta lesión por Hildebrand. Warthin observó dos casos que llamó cistadenoma papilar linfomatoso; él creyó que era una forma de tumor parotídeo que debía ser muy rara, no sólo por su baja incidencia, sino porque no había reportes en la literatura sobre éste. Sin embargo, consideró que estos cistadenomas "papilíferos" con estroma linfoide representaban un desarrollo entorpecido de la trompa de Eustaquio, la cual había

crecido lentamente a través de los años y asumido una tendencia neoplásica tardía.¹⁴

En 1931, Hamperl fue el primero en hablar sobre los oncocitos.¹⁵ En 1932, Jaffe clasificó el cistadenoma papilar linfomatoso como un oncocitoma, porque ambos tienen el mismo tipo de células.¹⁶

En 1933, Kraissl y Stout avanzaron la teoría del origen del tumor. En 1944, Martin y Ehrlich reportaron 22 casos de cistadenoma papilar linfomatoso de glándula parótida y sugirieron el epónimo de "tumor de Warthin" para conmemorar la original observación de Aldred Scott Warthin.¹⁷

La controversia sobre la histogénesis del tumor de Warthin fue ilustrada por Thompson y Bryant en 1950. Ellos describieron la encapsulación de la glándula parótida en la embriogénesis y notaron la proximidad del tejido linfoide de la glándula parótida; esta característica anatómica y embriológica resulta en nódulos linfáticos que contenían tejido salival ductal; consideraron que la proliferación neoplásica de estos restos de tejido glandular salival habían sido atrapados en nódulos linfáticos adyacentes a las glándulas parótidas durante el crecimiento y desarrollo, y que pueden ser responsables de la génesis de este tumor.⁷

Foote y Frazell, en 1954, confirmaron la persistencia de inclusiones parotídeas en nódulos linfáticos de adultos normales.¹⁸

En 1964, Azzopardi y Hou describieron dos casos de adenolinfomas de región parotídea acompañados de nódulos linfáticos con inclusiones de tejido salival ductal y microadenomas, una clara transición de ductos a microadenomas fue demostrada.¹⁹

En 1971, Allegra indicó que el tumor de Warthin probablemente no es un tumor del todo, pero sí una enfermedad de hipersensibilidad por lo que debería ser llamada enfermedad de Warthin.²⁰

PRESENTACIÓN DEL CASO

Se trata de hombre de 51 años de edad, de raza blanca, que acude al consultorio en octubre de 1996 con masa parotídea izquierda asintomática de dos meses de evolución, historia de tabaquismo intenso (una cajetilla diariamente por 35 años, actualmente dos cajetillas diarias). El examen reveló una masa de aproximadamente 3 x 3.5 cm en la cola de la parótida izquierda, lisa, móvil, no dolorosa a la palpación, bien delimitada; ganglios negativos en cuello.

Se realizó estudio de tomografía axial computarizada de la región parotídea, el cual evidenció masa con diferentes densidades en parótida izquierda y pequeña masa parotídea contralateral (*Figura 1*).

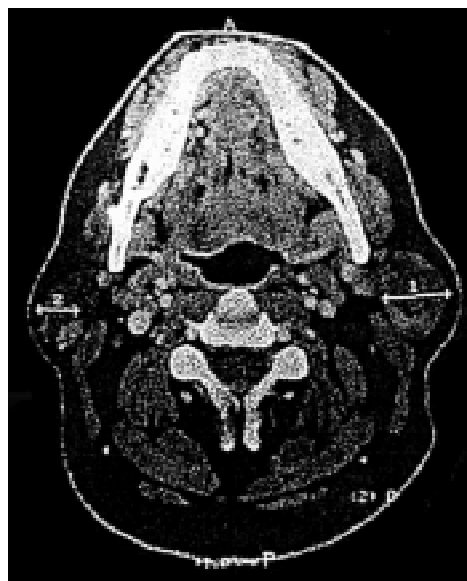


Figura 1.

Imágenes de tomografía axial computarizada de cuello del caso reportado. Se observa el tumor de Warthin bilateral.



No presentaba déficit del VII par. Se realizó parotidectomía superficial izquierda bajo control neurofisiológico del nervio facial en noviembre de 1996.

El examen del espécimen de la parótida izquierda mostró un tumor de 50 g, que midió 8.0 x 5.0 x 3.5 cm. Fue señalado como cistadenoma papilar linfomatoso y ganglios linfáticos parotídeos profundos con inclusiones ductales epiteliales con componente oncocítico.

Posteriormente, regresa en noviembre de 1998 para la extirpación de la masa parotídea derecha. Nuevamente se realizó parotidectomía superficial, en esta ocasión derecha, bajo control neurofisiológico. El informe de patología indicó lóbulo superior parotídeo derecho con presencia de dos tumores de Warthin con un peso de 26 g y dimensiones de 7 x 4.5 x 2.5 cm.

El paciente evolucionó favorablemente, sin complicaciones y con integridad de ambos nervios faciales.

DISCUSIÓN

Tumores de glándulas salivales bilaterales son inusuales; representan el 1.1% de las lesiones de glándulas salivales mayores y sólo el 0.7% de la glándula parótida.

El tumor de Warthin es el tumor parotídeo multifocal más común, el 4% al 7.5% son bilaterales.⁴

Aunque el tumor de Warthin ha sido considerado como multifocal (4% de los casos), teniendo tumores múltiples unilaterales y más del 12% de pacientes desarrollan más de una lesión sincrónicamente o metacrónicamente, los tumores bilaterales sincrónicos son raramente documentados en la literatura y es más inusual encontrar tumor de Warthin múltiple sincrónico bilateral.²¹ Los tumores son bilaterales

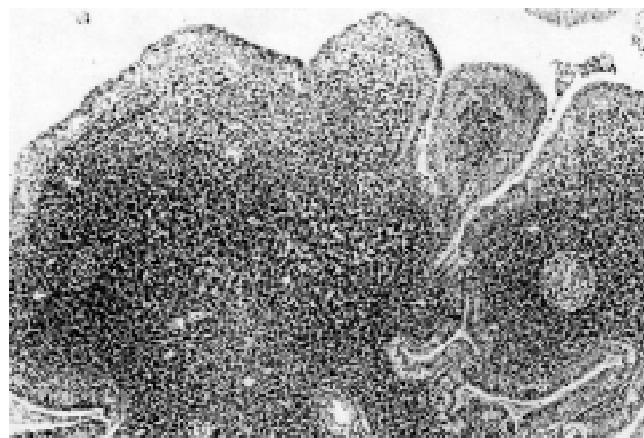


Figura 2. Corte histológico de tumor de Warthin (Hematoxilina-eosina).



Figura 3. Corte histológico. Tumor de Warthin.

en una notoria proporción de casos; esto indica que el desarrollo de los tumores es multifocal. De tal modo el origen puede explicar el 9-12% de recurrencia siguiendo aparentemente una adecuada extirpación.

En realidad, el número sustancial de reportes en la literatura sobre tumor de Warthin múltiple sugiere que un foco independiente insospechado puede ser más la regla que la excepción.²²

En cuanto al origen, recientes evidencias sugieren una posible relación con el tabaquismo. El estudio realizado por Pinkston y Cole en 1996²³, en el que se realizó una revisión de 21 años en Alabama, reporta un incremento en la incidencia del tumor de Warthin asociado con el tabaquismo. De este reporte de casos de tumor de Warthin, el 90% fueron fumadores; esta fuerte asociación resultó independiente del sexo del paciente. Los autores observaron que los fumadores con tumor de Warthin fumaban más intensamente que los fumadores con otros tumores de glándulas salivales. Esta posible relación del tabaquismo con el incremento en la frecuencia de tumor de Warthin había sido consignada previamente por Ebbs y Webb en un reporte efectuado por ellos; su estudio incluyó 57 casos vistos en un periodo de 35 años, entre los cuales el 94% fueron fumadores.²⁴ En 1987, Lamelas y colaboradores revisaron 122 casos correspondientes a un periodo de 29 años y reportaron que el 89% fueron fumadores.²⁵ En 1992, Monk y Church encontraron la misma asociación en 42 casos con tumor de Warthin ya que el 85% eran fumadores.²⁶

Podemos concluir que el tumor de Warthin puede presentarse bilateralmente, en cuyo caso el estudio radiológico es de suma importancia para el diagnóstico. El tabaquismo es un factor de riesgo importante y, por su origen, hay que pensar en su incidencia.

BIBLIOGRAFÍA

1. Escajadillo JR. Tumores de glándulas salivales. *Oídos, Nariz, Garganta y Cirugía de Cabeza y Cuello* 1991; 755-756.
2. Nyhus, Baker. Manejo quirúrgico de la glándula parótida. *Mas-tery Surg* 1992; 121-122.
3. Pinkston AJ, Cole P. Cigarette smoking and Warthin's tumor. *Am J Epidemiol* 1996; 144 (2): 183-187.
4. McGurk FM, Main JH, Orr JA. Adenolymphoma of the parotid gland. *Br J Surg* 1970; 57 (5): 321-325.
5. Pitt P. Surgery-Ancient and Modern Guy's. *Hosp Rep* 1971; 120 (1): 47-55.
6. White RR, Arm RN, Randall P. A large Warthin's tumor of the parotid. Case report. *Plast Reconstr Surg* 1978; 61 (3): 452-454.
7. Chapnik JS MD. The Controversy of Warthin's Tumor. *Laryngoscope* 1983; 93: 695-716.
8. Caldwell EH, Armiger WG, McDonald HM. Malignant transformation of a Warthin's tumor: Case report, review of the literature, and discussion of pathology. *Ann Plat Surg* 1979; 3 (2): 177-181.
9. Gaynor EB, Hershberg R. Unilateral multiple tumors of the parotid gland. *J Laryngol Otol* 1976; 90 (3): 295-298.
10. Hildebrand O. Über angeborene epitheliale cysten and fisteln des halses. *Arch Klin Chir* 1895; 49: 167-206.
11. Neisse R. Über den einschluss von parotislapppchen in lymphknoten. *Anat Hefte Wiesb* 1898; 10: 289-306.
12. Albrecht D, Arzt L. Beitrage zur Frage der Gewebsverirrung. Papillare cystadenoma lymphdrusen. *Frankfurt Z Pathol* 1910; 4: 47-69.
13. Nicholson GW. Studies of tumor formation. *Guy's Hosp Rep* 1923; 73: 37.
14. Warthin AS. Papillary cystadenoma lymphomatosum. A rare teratoid of the parotid region. *J Cancer Res* 1929; 13: 116-125.
15. Hamperl H. Onkocyten unde geschwulste der speichldrusen. *Virchows Arch F Pathol Anat* 1931; 282: 724-736.
16. Jaffe RH. Adenolymphoma (onkocytoma) of the parotid gland. *Am J Cancer* 1932; 16: 1415-1423.
17. Martin H, Ehrlich HE. Papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin's tumor) of the parotid gland. *Surg Gynecol Obstet* 1944; 79: 611-623.
18. Foote FW Jr, Frazell EL. Tumours of the major salivary glands. *Cancer* 1953; 6: 1065-113.
19. Azzopardi JG, Hou LT. The genesis of adenolymphoma. *J Pathol Bact* 1964; 8: 213-281.
20. Allegra SR. Warthin's tumor. A hypersensitivity disease? *Hum Pathol* 1971; 2: 403-420.
21. Lefor A, Ord R. Multiple Synchronous bilateral Warthin's tumors of the parotid glands with pleomorphic adenoma. *Oral Surg Oral Pathol* 1993; 76: 319-324.
22. Beck LD, Maguda TA. Papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin's tumor): A multicentric benign tumor. *Laryngoscope* 1967; 77 (10): 1840-1848.
23. Pinkston JA, Cole P. Cigarette smoking and Warthin's tumor. *Am J Epidemiology* 1996; 144 (2): 183-187.
24. Ebbs SR, Webb AJ. Adenolymphoma of the parotid: etiology, diagnosis and treatment. *Br J Surg* 1986; 73: 627-630.
25. Lamelas J, Terry JH Jr., Alfonso AE. Warthin's tumor multicentricity and increasing incidence in women. *Am J Surg* 1987; 154: 347-351.
26. Monk JS Jr., Church JS. Warthin's tumor. A high incidence and no sex predominance in central Pennsylvania. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1992; 118: 477-8.