

Adenoma pleomorfo de la glándula submandibular. Reporte de un caso y revisión de la literatura.

Pleomorphic adenoma of the submandibular gland. Report of a case and review of literature.

Guillermo Molina Vidal,* Penélope Ivonne Manzano Galindo,* Georgina Loyola Rodríguez,‡ Guadalupe Sánchez Fernández§

RESUMEN

Los tumores de las glándulas salivales constituyen alrededor de 5% de las neoplasias de cabeza y cuello. El adenoma pleomorfo es el tumor benigno más frecuente de las glándulas salivales, representa aproximadamente 60% de todas las neoplasias salivales, está compuesto fundamentalmente por una proliferación de células mioepiteliales y por un amplio espectro de componentes de tejido epitelial y mesenquimal, rodeado por una nítida cápsula fibrosa. Alrededor de 80% de los adenomas pleomorfos aparecen en la parótida, 10% en la glándula submandibular y 10% en las glándulas salivales menores de la cavidad oral. La edad media de presentación es a los 46 años, pero la edad oscila entre la tercera y la quinta década de la vida. No obstante, ha sido encontrado en individuos de todas las edades, presentando una ligera predilección por el sexo femenino. Respecto a su sitio de origen, el adenoma pleomorfo es asintomático, de crecimiento lento y consistencia firme. La tomografía axial computarizada (TAC) y la resonancia magnética nuclear (RMN) son de gran utilidad para evaluar la extensión de la lesión, así como el compromiso de estructuras importantes. La biopsia por aspiración con aguja fina (BAAF) es un método útil para el diagnóstico de este tipo de neoplasias. El tratamiento de este tipo de lesiones consiste en la remoción quirúrgica de la tumoración junto con la glándula afectada. Menos de 1% de los casos de adenomas pleomorfos sufren transformación maligna, especialmente los que han presentado múltiples recidivas.

Palabras clave: Adenoma pleomorfo, neoplasia, mioepitelial, BAAF, carcinoma.

ABSTRACT

The tumors of the salivary glands constitute about 5% of the neoplasms of the head and neck. The pleomorphic adenoma is the most frequent benign tumor of the salivary glands, represents approximately 60% of all salivary neoplasms, is composed mainly of a proliferation of myoepithelial cells and a wide spectrum of components of epithelial and mesenchymal tissue, surrounded by a sharp fibrous capsule. About 80% of pleomorphic adenomas appear in the parotid, 10% in the submandibular gland and 10% in the minor salivary glands of the oral cavity. The average age of presentation is 46 years, but age ranges between the third and fifth decade of life. However, it has been found in individuals of all ages, presenting a slight female predilection. Regarding its site of origin, the pleomorphic adenoma is asymptomatic, slow growing and firm consistency. Computed tomography (CT) and nuclear magnetic resonance (NMR) are very useful to evaluate the extent of the injury as well as the commitment of important structures. Fine needle aspiration biopsy (FNAB) is a useful method for the diagnosis of this type of neoplasm. The treatment of this type of injuries consists in the surgical removal of the tumor together with the affected gland. Less than 1% of cases of pleomorphic adenomas suffer malignant transformation, especially those that have presented multiple recurrences.

Keywords: Pleomorphic adenoma, neoplasia, myoepithelial, FNAB, carcinoma.

INTRODUCCIÓN

Las glándulas salivales son glándulas exocrinas, con secreción de tipo merocrina, que vierten su contenido en la cavidad bucal. Tienen a su cargo la producción y secreción de saliva, la cual humedece y protege la mucosa bucal. La saliva ejerce además acciones anticariogénicas e inmunológicas, participa en la digestión de los alimentos y en la fonación.

* Cirujano Oral y Maxilofacial, práctica privada. Docente de la Facultad de Estomatología de la Benemérita Universidad Autónoma de Puebla (BUAP). Puebla, México.

‡ Médico Especialista en Anatomía Patológica. Jefa de Laboratorio Anatomía Patológica del Hospital General de Cholula, SSA. Puebla, México.

§ Pasante del Servicio Social de Estomatología en el área de Cirugía Maxilofacial del Hospital General de Cholula, SSA. Puebla, México.

Recibido: 05 Mayo 2019. Aceptado para publicación: 21 Agosto 2019.

Las glándulas salivales se clasifican de acuerdo con su tamaño e importancia funcional, en glándulas salivales mayores (parótida, submandibular y sublingual) o menores (según su ubicación labial, genianas, palatinas y linguales).

Las unidades secretoras de las glándulas salivales están representadas por acinos o adenómeros, las cuales son agrupaciones de células de aspecto piramidal que vierten su secreción a la cavidad bucal por medio de un sistema de conductos excretores.

Los adenómeros o acinos se encuentran rodeados por una lámina basal, dentro de esta lámina basal se localiza otro tipo celular, las células mioepiteliales. La principal función de éstas es contraerse para facilitar la expulsión de la secreción de las células acinares.

Las estructuras histológicas de las glándulas salivales pueden constituir el origen de importantes patologías.¹

El tumor benigno más frecuente de las glándulas salivales es el adenoma pleomorfo (AP) o tumor mixto, representando así 60% de todas las neoplasias salivales. El término pleomorfo hace referencia a la amplia variabilidad de la diferenciación parenquimatosa y estromal mostrada por las células tumorales. El adenoma pleomorfo es derivado de una mezcla de elementos ductales, mioepiteliales o ambas, rodeados por una nítida cápsula fibrosa.²⁻⁴

La edad media de presentación es a los 46 años, la edad oscila entre la primera y la décima década de la vida; sin embargo, 60% de los casos ocurren entre la tercera y quinta década de la vida, con un ligero predominio al sexo femenino.^{3,4}

Alrededor de 80% de los adenomas pleomorfos aparecen en la glándula parótida, 10% en la glándula submandibular y 10% restante en las glándulas salivales menores.⁴ Topográficamente, el cuello se divide en triángulos dentro de los cuales se encuentran estructuras anatómicas importantes, la glándula submandibular se aloja dentro del triángulo submandibular y éste, a su vez, contiene estructuras anatómicas significativas como la rama del nervio facial y los filamentos ascendentes del nervio cervical cutáneo.

Los puntos de referencia de este triángulo son el ángulo de la mandíbula, la protuberancia mentoniana y el hueso hioides.⁵

Dentro de la glándula submandibular el AP se reconoce como una masa discreta, se caracteriza por ser de crecimiento lento, bien delimitado, blando o ligeramente firme a la palpación y libremente desplazable.² El dolor o la parálisis facial son infrecuentes, pero se puede observar en muy raras ocasiones; sin embargo, estos signos y síntomas tienden a ser sugestivos de malignidad.⁴ Desde

el punto de vista clínico, no es infrecuente que sean erróneamente diagnosticados como procesos inflamatorios u obstructivos de la saliva.⁶

Por ejemplo, un proceso inflamatorio se caracteriza clínicamente por dolor e inflamación difusa e intermitente, con episodios de exacerbación. La inflamación de las glándulas salivales (sialadenitis) puede ser de origen infeccioso o no infeccioso, en la sialadenitis bacteriana la glándula afectada se encuentra inflamada, algica, eritematosa y con hipertermia local. Puede haber fiebre y trismo asociados de bajo grado. Cuando se masajea la glándula a menudo se observa una descarga purulenta desde el orificio del conducto.

La sialadenitis también puede ser causada por el bloqueo del conducto debido a una sialolitiasis. Los sialolitos de las glándulas principales con mayor frecuencia causan dolor e inflamación episódico de la glándula afectada, especialmente a la hora de comer.

Un quiste de retención al contrario se presentaría como un aumento de volumen indoloro, fluctuante, circunscrito, junto con pérdida de permeabilidad del conducto salival afectado. El tiempo de evolución es otro factor importante, ya que una infección puede tener un tiempo de evolución que va de días a semanas en comparación con un tumor que se puede encontrar varios años en el paciente.³

Para una exploración más eficaz, se recomienda una palpación bimanual del triángulo submandibular que ayude a verificar la consistencia, la extensión, así como la sintomatología de la lesión.

Una evaluación intraoral de la permeabilidad de las glándulas salivales es de gran utilidad.^{2,6}

Ante cualquier aumento de volumen a nivel de triángulo submandibular, el clínico debe considerar el diagnóstico diferencial, en orden estadístico de probabilidad para lesiones benignas se encuentra en primer lugar sialoadenitis crónica, adenoma pleomorfo y tumor de Wharton, entre las patologías malignas más comunes que podemos encontrar están el carcinoma adenoide quístico y carcinoma mucoepidermoide.^{3,6,7}

Para el diagnóstico de las lesiones tumorales de glándulas salivales mayores, se recomienda utilizar una biopsia por aspiración con aguja fina (BAAF).

La BAAF es un método que cada día va ganando mayor aceptación en la práctica clínica debido, entre otras razones, a la relativa facilidad y rapidez con que se realiza, a las pocas molestias y mínimas complicaciones para el paciente, y a su alta validez para establecer el diagnóstico preoperatorio^{8,9} reportándose una especificidad de hasta 94%.⁷

Figura 1:

Se observa lesión submandibular bien circunscrita de aproximadamente 6 x 5 cm de diámetro.



Es una técnica altamente confiable, ya que se evita en gran medida el riesgo de lesión a estructuras importantes y la diseminación de células tumorales.

La identificación preoperatoria correcta de la naturaleza benigna o maligna del tumor es de suma importancia en la planeación quirúrgica.¹⁰

Para realizar esta técnica se utiliza una jeringa de 10-20 mL con aguja calibre 18, la aguja se introduce en la masa mientras se aplica presión negativa a la jeringa y con ayuda de la mano contraria se aplica presión sobre la lesión, la aguja se mueve hacia delante, atrás y en diversas direcciones para obtener la mayor cantidad de células. Una vez retirada la aguja, el material obtenido se expulsa sobre una laminilla de vidrio y se extiende sobre ésta. Las laminillas se introducen en alcohol etílico al 95% para su fijación y se prepara para su envío al laboratorio de patología.^{11,12}

La biopsia abierta o incisional está contraindicada debido a la diseminación e inoculación de células tumorales con un mayor riesgo de recurrencia y daño a estructuras importantes.⁶

Macrocópicamente, los adenomas pleomorfos tienden a formar tumores bien definidos, ovoides o redondos. A menudo están encapsulados, pero esta cápsula puede estar parcial o completamente ausente. En los adenomas pleomorfos de las glándulas salivales mayores existe una clara tendencia a que el tumor se separe de la cápsula al manipular la muestra.

Microscópicamente, los componentes esenciales son la cápsula, células epiteliales y mioepiteliales, así como elementos mesenquimales o estromales.⁴ Algunos tumores pueden consistir casi en su totalidad en estroma, otros son altamente celulares con poca alteración del estroma. Las células mioepiteliales constituyen un gran porcentaje de las células tumorales. Ocasionalmente se observan tumores salivales que se componen casi enteramente de células mioepiteliales sin elementos ductales, estos tumores a menudo se llaman mioepiteliomas. Las características de malignidad incluyen presencia de áreas focales de necrosis, invasión, mitosis atípica y/o hialinización extensa.^{3,13}

La tomografía axial computarizada (TAC) contrastada, así como la resonancia magnética nuclear (RMN), son auxiliares de diagnóstico fiables para determinar la extensión y localización de la lesión, permitiendo a su vez una planeación quirúrgica adecuada.⁶

El tratamiento ideal en tumores que se presentan en la glándula submandibular es la remoción total de la glándula junto con el tumor. La enucleación local debe ser evitada ya que el tumor puede no ser removido en su totalidad y la cápsula puede ser perforada, resultando en la recidiva de la lesión.³

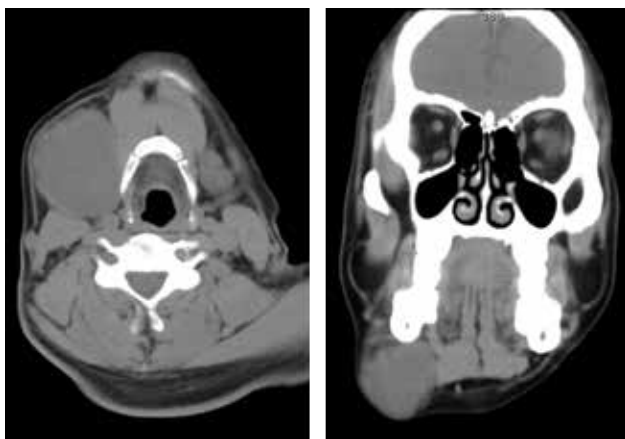


Figura 2: TAC contrastada que muestra extensión y localización de la lesión.

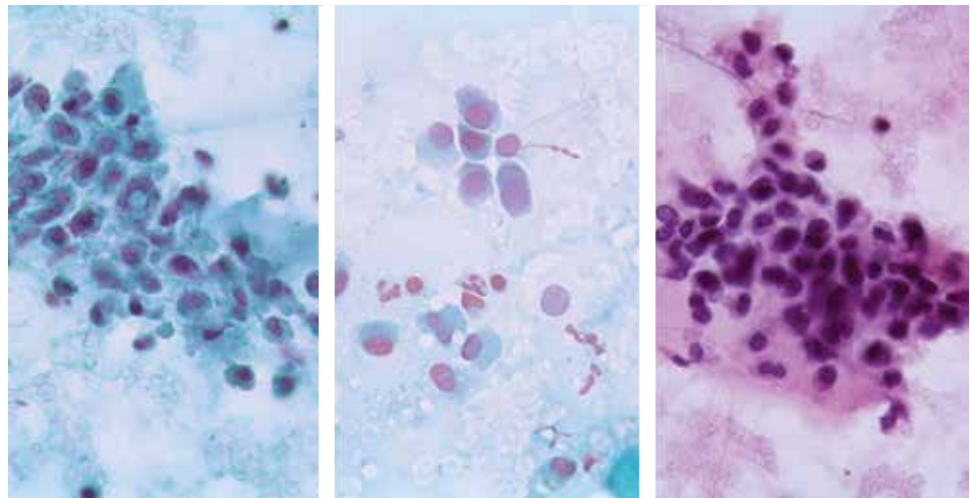


Figura 3:

Producto de BAAF, células teñidas con Papanicolaou y hematoxilina y eosina, se identifica neoplasia de glándula salival. Diagnóstico sugestivo de adenoma pleomorfo.

Según la técnica quirúrgica empleada, se debe considerar el curso de los nervios de la región submandibular como la rama n total de la glándula y tienen que ser protegidos para evitar su lesión.¹⁴

Aunque el adenoma pleomorfo es un tumor benigno, puede causar problemas en el manejo clínico debido a su tendencia a recurrir y al riesgo de transformación maligna. La tasa de recurrencia es rara siendo de 3.4% a los cinco años y aumentando con el tiempo, a los 10 años se ha observado una tasa de recurrencia de 6.8%. Las recurrencias suelen ser más probables en pacientes jóvenes. Muchos adenomas pleomorfos recurrentes son multifocales y algunos están tan ampliamente distribuidos que el control quirúrgico se hace imposible.⁴ La causa principal de un adenoma pleomorfo recurrente es una cirugía inicial inadecuada.¹⁴

Menos de 1% de los casos de adenomas pleomorfos sufren transformación maligna.

La degeneración maligna que surge del adenoma pleomorfo ocurre a menudo en pacientes con un historial de adenoma pleomorfo de larga evolución no tratado, así como múltiples recidivas, produciendo así un carcinoma exadenoma pleomorfo (CXAP).¹⁵

PRESENTACIÓN DEL CASO

Se presenta hombre de 45 años de edad con aumento de volumen en región submandibular derecha de cuatro años de evolución asintomático, de crecimiento lento.

A la exploración física cooperador, neurológicamente íntegro, correcta coloración mucotegumentaria, tumoración submandibular derecha de aproximadamente 6 x 5 cm, bien delimitada, desplazable, indurada, no álgica a la dígito-presión (*Figura 1*).

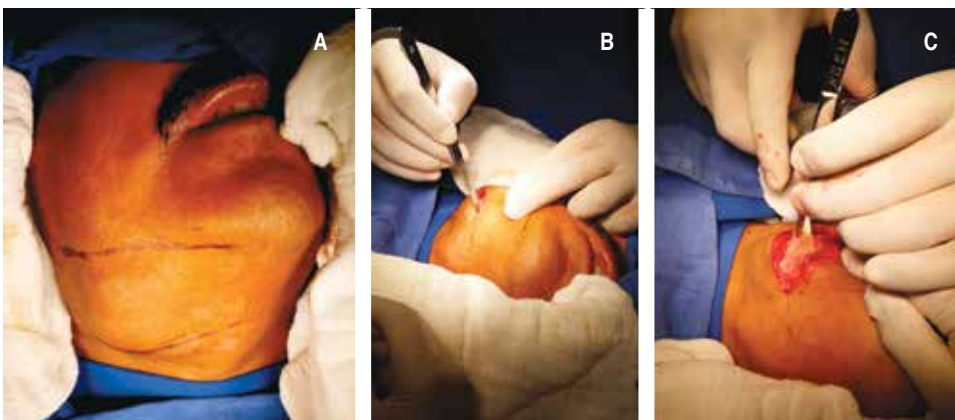


Figura 4:

A) Se marcan estructuras anatómicas de referencia. B) Abordaje tipo Risdon a 5 cm del borde inferior de la mandíbula. C) Disección por planos.

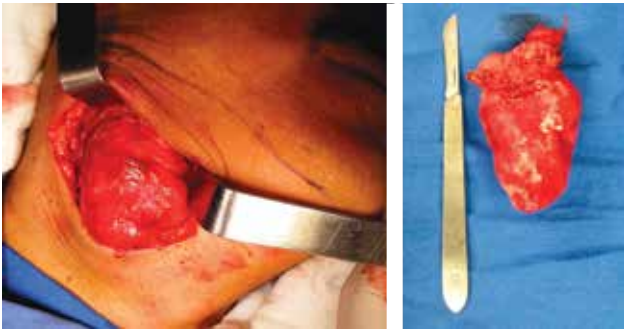


Figura 5: Exposición y retiro de lesión de aproximadamente 9 x 6 cm.

Se ordena TAC contrastada para verificar la extensión de la lesión (Figura 2).

Se programa BAAF, la cual nos da resultado sugestivo de adenoma pleomorfo submandibular (Figura 3).

Establecido el diagnóstico de presunción, se planea la cirugía definitiva para escisión de glándula submandibular así como de la lesión.

Una vez con los estudios prequirúrgicos completos y valorados por los demás servicios interconsultantes, se programa la cirugía.

De manera programada y bajo anestesia general nasotraqueal, previa asepsia y antisepsia, se procede a marcar las estructuras anatómicas de referencia, se infiltra lidocaína a 2% con epinefrina 1:100,000 a nivel de músculo platisma con fines hemostáticos, se realiza un abordaje tipo Risdon 5 cm por debajo del borde inferior de la mandíbula, se disecciona por planos (Figura 4), una vez dentro de la celda submandibular se procede a escindir la glándula (Figura 5), ligamos arteria y vena facial así como conducto de Wharton para liberar la glándula. Retiramos

lesión, lavamos, verificamos hemostasia, cerramos área intervenida por planos, se coloca una sonda preconectada (Drenovac) y damos por terminado acto quirúrgico sin complicaciones (Figura 6).

Se manda pieza de aproximadamente 9 x 6 cm para su estudio histopatológico, diagnóstico definitivo compatible con adenoma pleomorfo glándula submandibular (Figura 7).

Postoperatorio inmediato bordes de heridas afrontadas, estéticamente aceptables (Figura 8).

Postoperatorio al año herida imperceptible, estéticamente aceptable, paciente asintomático sin complicaciones (Figura 9).

DISCUSIÓN

El diagnóstico preoperatorio de neoplasias de las glándulas salivales se basa en la historia clínica y el examen físico, así como en los estudios de imagen y la citología por aspiración con aguja fina (BAAF). Aristides y colaboradores en 1981 realizaron 51 BAAF en pacientes con tumoración en glándulas salivales, y evaluaron la correlación entre los hallazgos citológicos y el resultado histológico final después de la cirugía. La BAAF identificó correctamente 96% de las lesiones benignas y 85% de las lesiones malignas.¹¹

Feinstein y su equipo en 2016 publicaron un estudio en el cual se revisaron 1,283 BAAF, tanto de glándula submandibular como de la glándula parótida, entre el año 2001 y 2004. Las lesiones de la glándula parótida fueron biopsiadas en 655 y 421 en glándula submandibular. De éstos, 343 tuvieron seguimiento quirúrgico 272 para la glándula parótida y 71 para la glándula submandibular. Se compararon los resultados de la BAAF con los del estudio histopatológico de la tumoración una vez retirada. En cuanto a la precisión diagnóstica, una BAAF benigna en la glándula parótida dio como



Figura 6:

Sutura por planos, se coloca drenovac

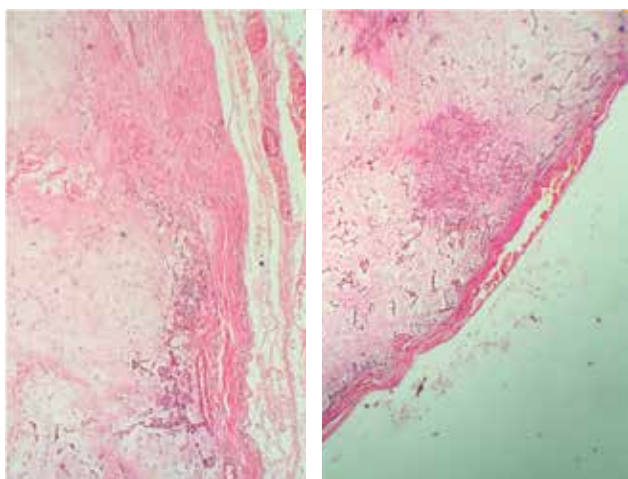


Figura 7: Componentes representativos de la lesión, cápsula, células epiteliales, estroma mixomatoso y condroide. Compatible con adenoma pleomorfo.

resultado una patología final benigna en 90.7% de los casos, mientras que una BAAF maligna resultó ser una patología final maligna en 84% de los casos. En la glándula submandibular, una BAAF benigna se confirmó como una patología final benigna en 94.1%, mientras que la malignidad se comprobó en 91.3% de los casos. La malignidad se identificó en 29% de los tumores parotídeos y en 42.3% de los tumores submandibulares. Concluyeron así que los resultados de la BAAF proporcionan información diagnóstica valiosa que puede influir en el manejo quirúrgico. También observaron que la proporción de tumores malignos es más alta en la glándula submandibular que en la glándula parótida.⁷

La degeneración maligna que surge del adenoma pleomorfo ocurre a menudo en pacientes con un historial de adenoma pleomorfo de larga evolución no tratado así como múltiples recidivas produciendo así carcinoma exadenoma pleomorfo (CXAP).¹⁶ En un estudio realizado por Peng Ye y colaboradores a 151 pacientes con diagnóstico de CXAP, la tasa de supervivencia fue de cinco años en 65% de los casos, siendo los factores de riesgo significativos para la supervivencia de la enfermedad el estadio clínico, el tamaño de la tumoración, metástasis regional o distante, la recurrencia y la invasividad.¹⁵⁻¹⁸

La terapia estándar para los tumores submandibulares benignos implica la extirpación de la glándula enferma. Diversos estudios concluyen que todas las recurrencias observadas en sus casos podrían haberse evitado mediante la extirpación completa de la glándula submandibular en la cirugía primaria.¹⁴ Laskawi y su grupo en 1995 realizaron un estudio de seguimiento a 38 pacientes operados por tumores benignos de la glándula submandibular en un periodo de 26 años. De estos pacientes, 92% presentaba AP, de los cuales 63% serían sometidos a una cirugía primaria de escisión de la lesión y la glándula submandibular; 29% restantes fueron tratados por recurrencia, sólo tres pacientes de este grupo conservaban aún la glándula submandibular. La recidiva no ocurrió en ningún paciente con cirugía primaria de adenoma pleomorfo ni en los tres pacientes tratados por recurrencia. Sólo un paciente tratado por recurrencia sin glándula submandibular desarrolló recidiva a los tres y 15 años. Estos hallazgos confirman que la neoplasia más común de la glándula submandibular es el adenoma pleomorfo y que la remoción incompleta de la tumoración así como de la glándula submandibular favorece la recurrencia.^{14,19}



Figura 8:

Control inmediato a un mes, resultados estéticamente aceptables.



Figura 9:

Control al año de la cirugía, área intervenida con cicatriz imperceptible estéticamente aceptable. Paciente asintomático.

CONCLUSIONES

El adenoma pleomorfo es el tumor más común de las glándulas salivales, sólo un 10% aparece en la glándula submandibular, el método diagnóstico más fiable es la biopsia por aspiración con aguja fina, que en conjunto con la imagenología adecuada influyen en el manejo quirúrgico y el pronóstico del paciente. El tratamiento ideal para este tipo de lesiones es la resección de la glándula junto con la lesión. Una extirpación inicial inadecuada del tumor puede provocar recurrencia, a menudo con múltiples focos tumorales. El tratamiento quirúrgico adecuado desde la etapa inicial es un determinante que disminuye el riesgo de recurrencia, así como el de malignidad de la lesión.

BIBLIOGRAFÍA

- Gómez de Ferraris ME, Campos-Muñoz A. Glándulas salivales. Histología y embriología bucodental. 2a edición. Editorial Panamericana; 2002. pp. 151-188.
- Sapp JP, Eversole LR, Wysocki GP. Trastornos de las glándulas salivales. Patología oral y maxilofacial contemporánea. España: Elsevier; 2005. pp. 338-340.
- Neville BW, Damm DD, Allen CM, Chi AC. Oral and maxillofacial pathology. 4th ed. Canada: Saunders Company; 2016. pp. 422-472.
- Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky DEL-Naggar AK, Huvos AG. In World Health Organization classification of tumours. In: Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D, editors. Pathology and genetics of head and neck tumours. Lyon: IARC Press; 2005. pp. 254-258.
- Lucioni M. Submandibular-submental region (Robbins Level I). Practical guide to neck dissection. Berlin, Heidelberg: Springer Verlag; 2007. pp. 31-40.
- Salama AR, Ord RA. Clinical implications of the neck in salivary gland disease. Oral Maxillofac Surg Clin North Am. 2008; 20 (3): 445-458.
- Feinstein AJ, Alonso J, Yang SE, St John M. Diagnostic accuracy of fine-needle aspiration for parotid and submandibular gland lesions. Otolaryngol Head Neck Surg. 2016; 155 (3): 431-436.
- Chimenos E. Clasificación y tipos de biopsia. La biopsia oral. Madrid: Consejo Dentistas; 2010. pp. 17-18.
- Mosqueda-Taylor A. Manual de procedimientos para la toma de biopsias de la región bucal. México: UAM Xochimilco, División de Ciencias Biológicas y de la Salud, Departamento de Atención a la Salud; 2007.
- Colella C, Cannavale R, Flamminio F, Foschini MP. Fine-needle aspiration cytology of salivary gland lesions: a systematic review. J Oral Maxillofac Surg. 2010; 68 (9): 2146-2153.
- Sismanis A, Merriam JM, Kline TS, Davis RK, Shapshay SM, Strong MS. Diagnosis of salivary gland tumors by fine needle aspiration biopsy. Head Neck Surg. 1981; 3 (6): 482-489.
- Mosqueda-Taylor A, Meneses-García A. Tópicos selectos de oncología bucal. México: Planeación y Desarrollo Editorial; 2008. pp. 217-247.
- Regezi JA, SSpringer-ciubba JJ, Jordan RCK. Oral pathology: clinical pathologic correlations. 5th ed. Shangai Saunders: Elsevier; 2008. pp. 196-198.
- Laskawi R, Ellies M, Arglebe C, Schott A. Surgical management of benign tumors of the submandibular gland: a follow-up study. J Oral Maxillofac Surg. 1995; 53 (5): 506-508; discussion 509.
- Ye P, Gao Y, Mao C, Guo CB, Yu GY, Peng X. Carcinoma ex pleomorphic adenoma: is it a high-grade malignancy? J Oral Maxillofac Surg. 2016; 74 (10): 2093-2104.
- Zbären P, Zbären S, Caversaccio MD, Stauffer E. Carcinoma ex pleomorphic adenoma: diagnostic difficulty and outcome. Otolaryngol Head Neck Surg. 2008; 138 (5): 601-605.
- Ellis III, Zide MF. Surgical approaches to the facial skeleton. 3rd edition. China: Wolters Kluwer; 2019. pp. 262-288.
- Delmas R, Rouviere H. Anatomía humana descriptiva, topográfica y funcional. 11ª ed. Editorial Masson; 2005.
- Meneses-García A, Mosqueda-Taylor A, Ruiz-Godoy Rivera LM. Patología quirúrgica de cabeza y cuello. Lesiones tumorales y pseudotumorales. México: Trillas; 2006. pp. 237-253.

Correspondencia:

CMF Guillermo Molina Vidal

Priv. 9 C Sur 4118, Col. Gabriel Pastor,
72410, Puebla, Pue. Teléfono: 01 (222) 884 23 84
E-mail: guillermomolv@hotmail.com