

# Adenoma pleomorfo gigante de glándula parotida: presentación de un caso y revisión de literatura

Parotid gland giant pleomorphic adenoma: report of a case and literature revision

Recibido: Agosto, 2010. Aceptado: Enero, 2011

Descriptor: adenoma pleomorfo de parótida, parotidectomía total conservadora, adenoma pleomorfo gigante

Dr. Guillermo Sánchez Acuña\*  
Dra. Laura Elena Franco Garrocho\*\*  
Dr. Salvador Tobias Alonso\*\*\*  
Dra. Laura Karina Uribe Fentanes\*\*\*\*

Universidad Autónoma de Ciudad Juárez

\*Cirujano maxilofacial de primer grado adscrito al hospital Calixto García de la Habana, Cuba. Profesor invitado en la UACJ. Autor responsable

\*\*Cirujana oral y maxilofacial: Coordinadora de la especialidad en cirugía oral y maxilofacial de la UACJ

\*\*\*Médico patólogo, profesor de patología general en pregrado y posgrado de la UACJ

\*\*\*\*Residente de cuarto año en la especialidad en cirugía oral y maxilofacial de la UACJ

Sánchez, A.G., Franco, G.L.E., Tobias, A.S., Uribe, F.L.K. Adenoma pleomorfo gigante de glándula parotida: presentación de un caso y revisión de literatura. Oral Año 12 Núm. 36. 2011. 679-683

Keyword: pleomorphic adenoma, total conservatory parotidectomy, giant pleomorphic adenoma

## resumen

Objetivo: presentar un caso de Adenoma Pleomorfo (AP) gigante en el que a pesar del volumen, se logró realizar la extirpación de la tumoración de forma exitosa, conservando la integridad del nervio facial, sin datos de malignidad. Diseño: presentación de un caso clínico. Metodología: se reporta el caso de un AP gigante en un paciente femenino de 46 años de edad que presentaba un aumento de volumen del lado derecho de la cara que había crecido gradualmente durante 15 años, a quien se le realizó parotidectomía total conservadora y no se reportó malignidad del proceso tumoral. Resultados: a un año de realizar el procedimiento quirúrgico, se observan resultados estéticos y funcionales sumamente favorables. Conclusiones: durante la parotidectomía total conservadora, es importante mantener la integridad del nervio facial y esto puede lograrse realizando una disección cuidadosa y mientras la tumoración no infiltre al nervio, sin importar el volumen de la tumoración.

## abstract

Objective: presentation of a Giant Plemorphic Adenoma in which spite of its volume, it was possible to resect it successfully, preserving the facial nerve, and with no show of malignancy. Design: presentation of a case. Method: we report a case of a giant pleomorphic adenoma on a 46 year old patient, who presented a enlargement on her left side of the face during a 15 year interval, for which a total conservatory parotidectomy was realized and no arrival of a malignancy of the tumoral mass. Results: one year after the surgical procedure, there are excellent esthetic and functional outcomes. Conclusion: during the total parotidectomy, it's important to maintain the integrity of the facial nerve, which can be accomplished through a careful dissection and no with taking of the nerve by the tumoral mass with no relevance the size of the tumor.

## Introducción

El adenoma pleomorfo (AP) es el tumor más común de las glándulas salivales, y es el más frecuente de las neoplasias de glándula parótida. Sin embargo es la neoplasia más rara que se presenta en cabeza y cuello. Menos del 3% de los tumores que se presentan en cabeza y cuello afectan las glándulas salivales y el 75% de éstos afectan la glándula parótida. Debido a que los AP son de crecimiento lento y asintomático, no son tratados de forma temprana, por lo que pueden alcanzar un gran tamaño. Se dice que el porcentaje de malignidad durante los primeros cinco años es de 1.5%, sin embargo se incrementa a 9.5% después de 15 años.

## Caso clínico

Se presentó para atención médica una paciente de 46 años de edad, ama de casa, por presentar un gran aumento de volumen del lado derecho de la cara en Octubre de 2007, el cual había crecido gradualmente durante 15 años, en el transcurso de los cuales le habían realizado dos resecciones de la tumoración presentando la recidiva actual.

A la exploración se observa aumento de volumen de forma ovalada en la hemicara derecha a expensas de la glándula parótida del mismo lado (figura 1).

La tumoración medía entre 15 y 20 centímetros móvil, de consistencia firme y asintomática a la palpación profunda. Aparentemente no involucraba estructuras profundas, ya que no había desviación de la línea media cervical, (figuras 2 y 3) sin evidencia de daño al nervio facial ni injurgitación yugular. Intraoralmente se aprecia invasión al espacio parafaríngeo

## Introduction

The Pleomorphic Giant Adenoma it's the most common tumor of the salivary glands, and the most frequent of the parotid gland neoplasms. Nonetheless it's uncommon in head and neck tumors. Less than 3% of the tumors presented on head and neck affect salivary glands and 75% of these affect the parotid gland.

Due to the slow and asymptomatic growth of these tumors, they are not treated in a early stage for which they can grow into heavy masses during the first five years reported of a 1.5%, and a 9.5% increase after 15 years.

## Report of the case

46 year old house worker female visits our unit for a medical consult, presenting an increase of volume on her right side of her face on October of 2007, which had growth gradually during a 15 year interval. Two previous resections had been performed both ending with the current reappearance.

Upon exploration, a great volume increase was observed on the patient's face due to the parotid gland on the affected side. (figure 1).

The tumor measured between 15 to 20 cm, with a firm consistency, and was asymptomatic to deep palpation.

Apparently no deep structures were involved due to the fact that the facial middle line did not present deviation. (Figures 2 y 3). There was no evidence of any injuries to the facial nerve nor jugular ingurgitation. Parapharyngeal space invasion was ob-

(figura 4).

La impresión diagnóstica en ese momento fue de una tumoración benigna de glándula parótida, dado que no había sintomatología ni otro tipo de características clínicas que evidenciara un proceso maligno.

La Tomografía Computada simple y contrastada mostró una masa sólida de 15 x 12 x 8 centímetros dependiente de los lóbulos superficial y profundo de la glándula parótida derecha (figuras 5, 6).

En la resonancia magnética se pudo comprobar que no había infiltración de la tumoración a tejido nervioso. (Figuras 7, 8).

Dado que se contaba con diagnóstico histopatológico previo de adenoma pleomorfo se realizó parotidectomía total conservadora.

### Técnica quirúrgica

Los pacientes con tumores de la glándula parótida son sometidos a parotidectomía superficial o total mediante la incisión tradicional de Blair.

Se realizó una incisión cutánea estándar (de Blair o de Redon) que permite una mejor exposición de la parte posterior de la glándula en previsión de una posible prolongación posterior de la misma (figuras 9 y 10). Se realizó disección del colgajo cutáneo, que debe de llegar hasta la porción anterior de la celda parotídea (figura 11). Se identificó y seccionó el nervio auricular mayor y la vena yugular externa, posteriormente se identificó el nervio facial (NF) a nivel de su salida por el agujero estilo-mastoideo. El NF se introduce en la glándula sin un plano de despegamiento auténtico y su disección depende fundamentalmente de la lesión a extirpar. La situación más normal es que el tumor esté situado en plena glándula (figura 12).

Después de la disección e identificación del NF se procedió a la parotidectomía propiamente dicha.

La disección glandular estuvo determinada por la importancia del tumor. Es fundamental evitar romper el tumor, sin embargo, en este caso fue necesario para evitar dañar el nervio facial.

Por tanto no se puede decir que haya una técnica rigurosa para la exéresis de la glándula, si no que ésta va a depender de la posición anatómica de la misma y del tumor a extirpar.

En este caso se obtuvo un espécimen de forma ovoidal con medidas de 12 x 15 x 8 centímetros y un peso aproximado de 0.750 kg (figura 13).

Tras una cuidadosa hemostasia, se realizó la sutura en dos planos. Se colocó un drenaje dirigido hacia la parte posterior (figura 14).

Se colocó vendaje compresivo para prevención de hematoma. En el postoperatorio inmediato, se observa que se han conservado los movimientos musculares faciales, con ligero debilitamiento (figura 15).

El estudio histopatológico reportó que la tumoración estaba compuesta por células epiteliales en un estroma mixocondroide y diferenciación ductal, compatible con adenoma pleomorfo poliquístico en el lóbulo superficial y profundo de la glándula parótida sin datos de malignidad (figura 16).

A un mes del postoperatorio, se observa conservación del nervio facial sin cambios de coloración ni textura en la piel (figuras 17 y 18).

served intraorally. (Figure 4).

An Incisional biopsy was performed in spite of the type of the presented tumor given that no oral pathologist was present at the time.

The CT scan showed a solid mass of 15 x 12 x 8 cm, dependent on the superficial and deep lobes of the right parotid gland (figures 5, 6).

The magnetic resonance imaging it was found that there was no infiltration of the tumor to nerve tissue. (Figures 7, 8).

Biopsy resulted in Pleomorphic Adenoma, without evidence of any kind of malignant growth, and a total conservative parotidectomy was chosen to be realized.

### Surgical technique

Patients with parotid gland tumors are subjected to total or superficial parotidectomy via a Blair incision.

A standard cutaneous incision was realized (Redon or Blair) which allows a better exposition of the posterior part of the gland in case an extension is needed. (Figures 9 and 10).

A cutaneous flap was designed to open until the anterior parotid cell. (Figure 11).

The greater auricular nerve and the jugular vein was identified and dissected to posteriorly identify the facial nerve upon its exit the stylo mastoid foramen.

Facial nerve it's introduced within the gland and its dissection depends fully on the tumor to extract. The most common situation resides in the tumor to be situated in the gland. (Figure 12).

After dissection and identification of the FN, the parotidectomy was performed. The gland dissection was determined by the size of the tumor.

It's of great importance to avoid sementation or breaking the tumor to avoid facial nerve injuries. In spite of this a specific surgical technique to resect the gland does not apply given that it will fully depend on its anatomical position and the size of the tumor to extract.

In this clinical case, an ovoidal specimen with measurements of 12 x 15 x 8cm and an approximated weight of .750 kg was obtained. (Figure 13).

After a careful hemostasia a two plane suture technique was performed. A gravity drainage was placed on the posterior part of the defect. (Figure 14).

Compressive dressing was placed to prevent the formation of a hematoma. On the immediate post surgical care we observed that muscle facial movement was conserved. (Figure 15).

The histopathological result reported that the specimen was composed of epithelial cells with a mixcondroid stroma, with some ductal differentiation; compatible with a polycystic pleomorphic adenoma with no malignancy data on the superficial and deep lobes of the gland. (Figure 16).

After a month follow-up, facial nerve conservation was observed, and no changes on skin color nor was texture observed. (Figures 17 and 18).

### Discussion

Pleomorphic Adenoma it's the most frequent mass of all salivary glands, a 45-74% apparition is reported<sup>1,11</sup>. The parotid gland it's the salivary gland with the most cases reported<sup>1</sup> and it represents 65% of all parotid gland pathology<sup>1,2</sup>.

## Discusión

El adenoma pleomorfo es el tumor más frecuente de las glándulas salivales, 45-74%<sup>1,11</sup>. Se presenta con mayor frecuencia en la glándula parótida<sup>1</sup>, representa el 65% de todas las neoplasias de esta glándula<sup>1,2</sup>.

Típicamente se presentan en el polo inferior y el lóbulo superficial de la glándula parótida<sup>3</sup>. La localización en el lóbulo profundo es extremadamente rara 10% aproximadamente<sup>4</sup> y se pueden expandir intraoralmente hasta el espacio para-faríngeo<sup>1</sup>.

La glándula submandibular y glándulas salivales menores del paladar, mucosa bucal y labio superior son infrecuentemente afectadas<sup>1</sup>. El AP se presenta como un crecimiento lento, asintomático con discreta inflamación, que gradualmente alcanza gran tamaño. La vasta mayoría de estos tumores miden de 2 a 6 centímetros cuando son extirpados<sup>2,15</sup>.

Los tumores grandes frecuentemente forman una sola masa irregular y multinodular. El peso de estos tumores puede variar desde algunos gramos hasta más de 8 kgs<sup>5</sup> y el peso incrementa junto con el tamaño de la tumoración. En nuestro caso, el tumor extirpado fue de 15 x 12 x 8 centímetros de dimensión y un peso de 0.750 kgs.

En una revisión de 31 adenomas pleomorfos gigantes de glándula parótida, en un periodo de 140 años, realizado por Schultz-Coulton en 1989, la mayoría se presentó en mujeres (64.5%) y sólo el 35.5% se presentó en hombres<sup>6, 12, 13</sup> que además concuerda con los tumores de otras glándulas salivales, excepto el tumor de Warthin. La edad en la que se manifestó por primera vez la tumoración fué de entre 20 y 40 años. Además, los pacientes pediátricos pueden presentar esta afección también<sup>7,14</sup>. Los adenomas pleomorfos han mostrado malignidad, presentándose como carcinomas y carcinosarcomas o también pueden presentar metástasis benignas.

El desarrollo de un carcinoma secundario en un AP preexistente es de 3-4%<sup>8,13,14,15</sup>. Los cambios a malignidad sólo ocurrieron en 10% de los casos revisados por Schultz-Coulton. La incidencia de malignidad reportó que el riesgo es de 1.5% en los primeros cinco años, sin embargo incrementa hasta 9.5% o más después de 15 años<sup>9</sup>. La transformación maligna se sospecha con cambios superficiales como dolor, ulceración, sangrado espontáneo o invasión profunda<sup>10,11,15</sup>. Además, el tamaño del tumor juega un rol importante en el cambio a la malignidad.

Las características clínicas de transformación maligna se reportaron como una larga historia de AP, edad avanzada, localización en una glándula salival mayor y un crecimiento rápido asociado a dolor y ulceración. En lo que se refiere a la histogénesis, éste tumor está constituido por la diferenciación de varios elementos contenidos en la glándula salival: células epiteliales y mesenquimatosas. En años recientes, la microscopía electrónica y la inmunocitoquímica se han aplicado para conocer el origen de este tumor.<sup>4,5</sup>

Hübner y cols<sup>6</sup> postularon que la célula mioepitelial es la causa de la diversidad morfológica de las células que componen la estructura microscópica del tumor, incluyendo la presencia de áreas fibrosas, mucinosas, condroides y óseas. Batsakis y Regezi<sup>7</sup> postularon que la célula de reserva del conducto intercalado puede diferenciarse en células ductales y mioepiteliales y que, a su vez, el tejido tumoral puede presentar metaplasia mesenquimal.

En 1986, Batsakis<sup>8</sup> examinó la tumorigénesis de la glándula salival y mientras que aún se consideraba a las células de reserva del conducto intercalado como el precursor histogénico del AP, él estableció que el papel de la célula

It's typically presented on the inferior pole and the superficial lobe of the gland<sup>3</sup>. Presentation on the deep lobe of the parotid it's extremely rare to a 10% approximation<sup>4</sup> and intra-orally to the parapharyngeal space<sup>1</sup>.

Submandibular gland, minor saliva glands of the palate, oral mucosa and superior lip are common unaffected sites.<sup>1</sup> PA is presented as an slow growing, asymptomatic swelling that gradually rises to great sizes. Most of these tumors measure from 2-6 cm when dissected.<sup>2,15</sup>

Giant tumors frequently form one solid irregular mass with multiple nodes. Weight of this tumors can vary from grams up to 8 kg.<sup>5</sup> In this case the resected tumor was 15 x 12 x 8 cm and a weight of .750 kg.

In a 31 cases revision in a 140 year period interval realized by Shultz-Coulton in 1989, the majority was presented on females (64%) and only 35.5% on men.<sup>6, 12, 13</sup> also consistent with other salivary gland tumors other than Warthin's tumor. The age at which first manifested the tumor was 20 to 40 years. In addition, pediatric patients may have this condition also<sup>7, 14</sup>. Pleomorphic adenomas showed malignancy, presenting as carcinomas and carcinosarcomas or metastasis may also benign.

The development of a Secondary carcinoma in a pre-existing AP is 3-4%<sup>8,13,14,15</sup>. Malignant changes only occurred in 10% of the cases reviewed by Schultz-Coulton.

The incidence of malignancy reported that the risk is 1.5% in the first five years, however increased to 9.5% or more after 15 years<sup>9</sup>.

Malignant transformation is suspected with cosmetic changes such as pain, ulceration, spontaneous bleeding or deep invasion<sup>10,11,15</sup>. Furthermore, tumor size plays an important role in the change to malignancy.

Advanced age, anatomical localization and a rapid growth are associated to pain and ulceration. The histogenesis of this tumor is constituted by elements contained in saliva: epithelial and mesenchymal cells. In recent years electronic macroscopy and immunochemistry has been applied to know the origin of this tumor.<sup>4,5</sup>

Hubner et al<sup>6</sup> refer that a myoepithelial cell is the cause of the morphologic diversity of the cells that form the tumor, including presence of fibrous areas, and osteoid areas. Batsakis and Regezi<sup>7</sup> postulated that a reserve cell can differentiate on ductal cells and that tumoral tissue can present mesenchymal metaplasia.

In 1986, Batsakis<sup>8</sup> examined the salivary gland tumorigenesis and while still considered a reserve cells of intercalated duct histogénico as the precursor of the AP, he stated that the role of myoepithelial cell is still uncertain and may histogénica have an active or passive participation. Dardick et al<sup>9</sup> questioned the role of ductal cells and myoepithelial reserve. In addition, they established that an epithelial cell neoplastic disorder has presented has the potential to make a re-differentiation multidirectional, which is important from the standpoint histogénico at the origin of AP. Minssen<sup>9,10</sup> suggested that the origin of the AP is in the tissue.

Immunocytochemical studies<sup>9, 10</sup> demonstrate that tumor cells contain pre-keratin and vimentin.

mioepitelial todavía es incierto y que puede tener una participación histogénica activa o pasiva. Dardick y cols<sup>9</sup> cuestionaron el papel de las células de reserva ductal y mioepitelial. Además, establecieron que una célula epitelial que ha presentado alteración neoplásica, tiene el potencial para realizar una re-diferenciación multidireccional, lo que es importante desde el punto de vista histogénico en el origen del AP. Minssen<sup>9, 10</sup> sugirió que el origen del AP está en el tejido conjuntivo.

Estudios inmunocitoquímicos<sup>9,10</sup> demuestran que las células tumorales contienen pre-queratina y vimentina.

### Conclusiones

Nuestro paciente concuerda con la descripción del AP y no presentaba signos de malignidad, a pesar del antecedente de crecimiento por 15 años.

El AP no tratado crece gradualmente hasta alcanzar un gran volumen.

Los AP gigantes son más comunes en mujeres y crecen durante algunas décadas.

Algunos de estos tumores permanecen de gran tamaño y presentan cambios malignos.

El diagnóstico temprano y el tratamiento del AP es esencial para preservar estética, función y evitar los cambios a malignidad.

Durante la parotidectomía total conservadora, es importante mantener la integridad del nervio facial y esto puede lograrse realizando una disección cuidadosa y mientras la tumoración no infiltre al nervio, sin importar el volumen de la tumoración.

Nota: Ver imágenes en la siguiente página

### Conclusions

Our patient's pathology concurs with an PA without malignancy tendency in spite of having the growth for around 15 years.

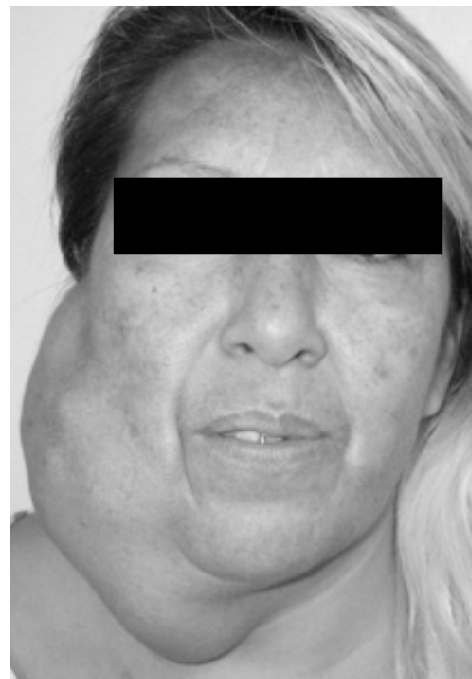
A Pleomorphic Adenoma without treatment can grow even to the event to size several Kg.

Pleomorphic Adenoma are distinctly common on women and can grow for decades.

Some of these tumors can steadily be giant and eventually present malignancy tendency.

Early Diagnostics and treatment of PA it's essential to preserve esthetics, function and avoid malignancy ingrowths.

Note: See pictures on next page



**Figura 1. Vista frontal de la paciente.  
Front view of the patient.**

### Bibliografía / References

- 1.-Ellis, G.L., Auclair, P.L. Atlas of tumor pathology. Tumors of the salivary glands. Washington, DC: Armed Forces Institute of Pathology; 1995. pp. 3941.
- 2.-Buenting, J.E., Smith, T.L., Holmes, D.K. Giant pleomorphic adenoma of the parotid gland: case report and review of the literature. *Ear Nose Throat J* 1998;77(8):643, 6378, 640.
- 3.-Speight, P.M., Barrett, A.W. Salivary gland tumours. *Oral Dis* 2002; 8(5): 22940.
- 4.-Morita, N., Miyata, K., Sakamoto, T., Wada, T. Pleomorphic 1. adenoma in the parapharyngeal space: report of three cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1995;53(5):60510.
- 5.-Guerriere, C.N., Goff, J.J., Cummings, G.H., Aube, R.A.E. An unusually large, solid tumor of the parotid gland. *Ann Plast Surg* 1999;43(5):52932.
- 6.-Schultz-Coulon, H.J. Pleomorphic giant adenomas of the parotid gland. *Laryngorhinootologie* 1989;68(8): 4459.
- 7.-Uslu, S.S., Inal, E., Ataoglu, O., Sezer, C. Pleomorphic adenoma of an unusual size in the deep lobe of the parotid gland. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1995;33(2):1639.
- 8.-Mizui, T., Ishimaru, J.I., Miyamoto, K., Toida, M. Malignant transformation of a gigantic pleomorphic adenoma of the submandibular gland: a case report. *J Oral*

*Maxillofac Surg* 2000; 58:14224.

9.-Thackray, A.C., Lucas, R.B. Atlas of Tumor Pathology. Tumors of the major salivary glands. Washington DC: Armed Forces Institute of Pathology; 1974. p. 37.

10.-Boneu, F., Gonzalez-Lagunas, J., Huguet, P., Bassas, C. Massive malignant pleomorphic adenoma of the palate. *J Oral Maxillofac Surg* 1998;56:916.

11.-Bradley, P.J. Recurrent salivary gland pleomorphic adenoma: etiology, management, and results. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg* 2001;9:100108.

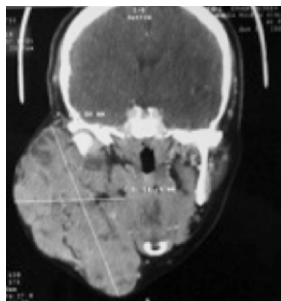
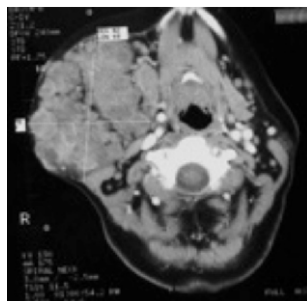
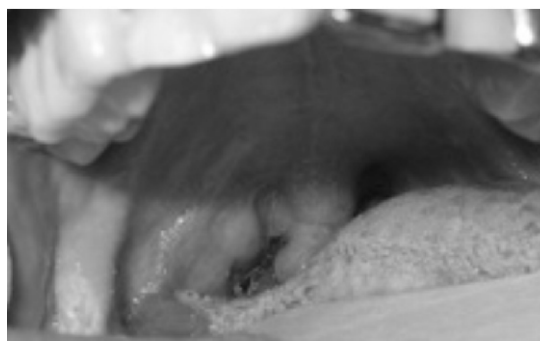
12.-McFarland, J. Three hundred mixed tumours of the salivary glands of which sixty were removed. *Surg Gynecol-Obstet* 1936;63:457468.

13.-Krolls, S.O., Boyers, R.C. Mixed tumors of salivary glands. Long-term follow-up. *Cancer* 1972;30:276281.

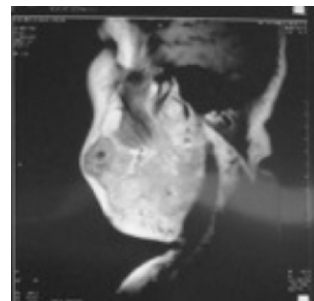
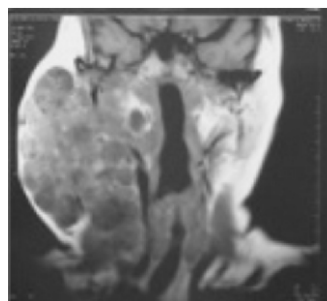
14.-Natvig, K., Soberg, R. Relationship of intraoperative rupture of pleomorphic adenomas to recurrence: an 1125 year follow-up study. *Head Neck* 1994; 16: 213217.

15.-Guntinas-Lichius, O., Kick, C., Klusmann, J.P., Jungehuelsing, M., Stennert, E. Pleomorphic adenoma of the parotid gland: a 13-year experience of consequent management by lateral or subtotal parotidectomy. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2004;261:143146.

**Figuras 2, 3 y 4.**  
Mostrando diferentes  
vistas de la paciente.  
*Showing different  
views of the patient.*



**Figuras 5 y 6.** TAC con cortes coronal y axial.  
*CT coronal and axial.*



**Figuras 7 y 8.** RM en cortes coronal y sagital.  
*MRI in coronal and sagittal sections.*



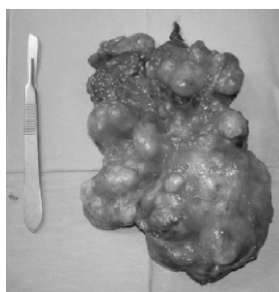
**Figuras 9 y 10.**  
Que permiten observar la preparación del campo operatorio y el diseño de la incisión tipo Blair.  
*That allow us to observe the preparation of the operative field and the design of the incision rate Blair.*



**Figura 11.**  
En donde se aprecia la disección del colgajo con conservación de una delgada capa de tejido celular subcutáneo.  
*Shows where the dissection of the flap with preservation of a thin layer of subcutaneous tissue.*



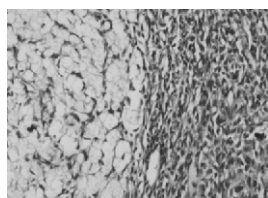
**Figura 12.**  
En la que se aprecia la identificación y disección del NF.  
*Which shows the identification and dissection of the FN.*



**Figura 13.**  
Vista macroscópica de la tumoración extirpada  
*Macroscopic view of the tumor removed.*



**Figuras 14 y 15.**  
Que permiten observar el cierre quirúrgico, la colocación de drenaje, vendaje compresivo y debilidad muscular sin aparente daño al NF.  
*Which allow to observe the surgical closure, placement of drainage, compressio bandaging and muscle weakness without apparent damage to the FN.*



**Figura 16.**  
Aspecto histológico postoperatorio de la lesión.  
*Postoperative histologic appearance of the lesion.*



**Figuras 17 y 18.**  
Vista frontal y lateral a un mes de POP. Se observa conservación del NF y cicatriz discreta.  
*Front and side of one month's POP. NF conservation is observed and discrete scar.*