

## ADENOMA PLEOMORFO BENIGNO CONTRALATERAL EN GLANDULAS PAROTIDA Y SUBMANDIBULAR - REPORTE DE UN CASO

*Recibido para arbitraje: 18/10/2005*

*Aceptado para publicación: 21/11/2005*

**Contralateral Benign Pleomorphic Adenoma in parotid and submandibular glands. A case report.**

- **Dra. Ligia Pérez.** Patólogo Bucal. Profesora Titular de la Cátedra de Patología Estomatológica.
- **Br. Orlando Yoris.** Estudiante de cuarto año de Pregrado.
- **Dr. Cesar Molina.** Profesor Agregado de la Cátedra de Anatomía Humana.
- **Dr. Bayron Castro.** Cirujano Oncólogo.

Facultad de Odontología. Universidad del Zulia. Hospital Universitario. Maracaibo.

### RESUMEN

Se reporta el caso de una paciente de 36 años quien acude a consulta en el servicio de Oncología del Hospital Universitario de Maracaibo, por presentar aumento de volumen en región infraauricular del lado derecho y submandibular del lado izquierdo. Imagenológicamente se evidencia múltiples lesiones nodulares, de tamaño variable en regiones laterales de cuello con extensión a espacios parotídeo y submandibular. Las lesiones se eliminan quirúrgicamente, diagnosticándose en el estudio histopatológico Adenoma Pleomorfo Benigno en ambas patologías. Se realizó una investigación bibliográfica exhaustiva de esta patología para determinar si había sido reportada con estas características, consiguiéndose que es el primer caso en Venezuela y el segundo en el mundo con estas mismas características.

**Palabras clave:** Glándula salival, Adenoma Pleomorfo Benigno, bilateral, contralateral.

### ABSTRACT

A 36 years old, female, goes for consultation at the Oncology service, University Hospital of Maracaibo, due to swelling on her right infraauricular region and her left submandibular area. The tomography showed different sizes, nodular lesions on the lateral neck areas, extending to parotid and submandibular spaces. After a surgical procedure and microscopic examination, the final diagnosis of Benign Pleomorphic Adenoma was given for both lesions. A bibliographic search was done, especially to determine, synchronous, contralateral, bilateral cases of this entity. To our knowledge, this is the first case in Venezuela and the second on the world with these features.

**Key words:** Salivary gland, benign pleomorphic adenoma, bilateral, contralateral.

### INTRODUCCION

De todos los tejidos en el cuerpo humano, las glándulas salivales tienen la mayor diversidad de características morfológicas entre sus células, por lo tanto comprenden el más heterogéneo grupo de tumores desde el punto de vista histológico. El lugar más frecuente para la aparición de estas lesiones es glándulas parótidas, siendo el tumor más común el Adenoma Pleomorfo Benigno (APB) o Tumor Mixto Benigno, representando del 33% al 77% de los tumores en estas glándulas, del 44% al 68% de los tumores de las glándulas Submandibulares y del 38% al 43% en las glándulas salivales menores; es muy raro detectarlo en las glándulas sublinguales. (1-4) La histogénesis de esta lesión 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. Dependiendo del predominio del tipo de células, existen tumores epiteliales, o mioepiteliales, o formados por células menos maduras, con características de ambas. Se piensa que la proliferación simultánea de estos dos tipos de células es la responsable de estas neoplasias. (1-4)

### Características Clínicas

Cualquiera que sea su localización el APB, se caracteriza por ser una masa nodular asintomática, de crecimiento lento y consistencia firme. Se presenta en cualquier sexo, es ligeramente más frecuente en el sexo femenino con predilección entre los 30 y 50 años de edad. Su localización predilecta en la glándula parótida ocurre en la mayoría de los casos en el polo inferior del lóbulo superficial de la misma, el 10% de los tumores parotídeos se localiza en el lóbulo profundo de la glándula, por debajo del nervio facial. Cuando este tumor se ubica en la cola de la parótida, la lesión se observa clínicamente debajo del

pellón de la oreja. El paladar es la segunda localización más frecuente del APB, detectándose en esta área el 60% de estos tumores cuando son intrabucales y el 20% en el labio superior. (1-4)

#### Características macroscópicas

En glándulas mayores se observa como una masa bien circunscrita de superficie lisa, usualmente rodeado por una cápsula de espesor variable que demarca bien la separación del tumor con el tejido glandular vecino. Cuando el tumor es predominantemente mixoide su superficie al corte es blanca, brillante, de alguna manera gelatinosa. Si contiene material parecido al cartilago su superficie de corte es blanca, translúcida y con una tonalidad azulada. En tumores con una larga evolución no es raro encontrar cavidades quísticas, áreas blandas de necrosis y hemorragia (3).

#### Características microscópicas

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. 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. Las células mioepiteliales pueden ser fusiformes, plasmocitoides, estrelladas o claras; considerándose estas células responsables del aspecto mesenquimal del tumor. Se puede observar un material hialino amorfo, el cual se considera lámina basal formada por estas mismas células. Pueden contener células, eosinofílicas oncocíticas, además de células mucosas o sebáceas y cristales de diferente composición. (3,4)

Usualmente este tumor es solitario, unifocal y único, sin embargo, existen varias publicaciones que reportan sobre diferentes situaciones, donde el Adenoma Pleomorfo Benigno puede presentarse múltiple, en la misma glándula, en glándulas diferentes, homolateral o contralateral, o con otro tumor histológicamente diferente. (5-12)

La finalidad de esta publicación es la de reportar un caso de APB, ubicado en parótida derecha y glándula submandibular izquierda, situación que según nuestro conocimiento no había sido reportada en nuestro país anteriormente y a través de la revisión bibliográfica determinar los casos múltiples de tumores de glándulas salivales, incluyendo el nuestro como el segundo con estas características específicas, a nivel mundial.

#### REPORTE DEL CASO

Paciente del sexo femenino, de 36 años de edad, acude a la consulta de Oncología del Hospital Universitario de Maracaibo, por presentar aumento de volumen bilateral en el cuello de aproximadamente cuatro años de evolución, asintomático. Al interrogatorio niega antecedentes, que tuviesen relación con la presencia de las lesiones. Manifiesta el consumo de cuatro cigarrillos diarios, hábito abandonado desde hace aproximadamente 10 años. Extrabucalmente se evidenció una masa tumoral, bien delimitada, firme, fija en la región infra-auricular derecha, de aproximadamente 5 cm. de diámetro (Fig.1). Así mismo se detectó otra lesión de aproximadamente 6 cm. de diámetro, de superficie lobulada con las mismas características clínicas, en la región submandibular izquierda (Fig. 2).



Fig.1. Masa tumoral bien circunscrita en región infraauricular derecha.



Fig. 2. Masa tumoral bien circunscrita en región submandibular izquierda.

La tomografía computarizada de cabeza y cuello, reveló: "Presencia de múltiples lesiones nodulares, de tamaño variable en regiones laterales de cuello con extensión a espacios parotídeo, submandibular y parafaríngeo." (Figs.3 y 4).



Fig.3. Lesión ocupante de espacio en región parotídea derecha.



Fig.4. Lesión ocupante de espacio en región submandibular izquierda.

Las pruebas de laboratorio que incluyen hematología completa y química sanguínea, se encontraron todas dentro de los valores normales. Una vez elaborada la historia clínica, el caso fue discutido, planteándose los siguientes diagnósticos diferenciales:

1. Linfadenopatía crónica.
2. Cistoadenoma Papilar Linfomatoso (tumor de Warthin) bilateral.
3. Linfoma

Bajo anestesia general se realizó la eliminación de ambas lesiones, las cuales durante el procedimiento quirúrgico se describen como masas nodulares blandas, de superficie pardo clara, eliminadas completas e intactas. Todo el material fue enviado al departamento de Anatomía Patológica del mismo centro asistencial.

Microscópicamente ambas lesiones son muy similares, mostrando nódulo rodeado por una cápsula de tejido conectivo fibroso, con áreas hipo e hiper celulares formadas por células mioepiteliales de configuración estrellada, organizadas en sabanas, cordones e islas. Se observó también áreas mixoides, hialinas y condroides. La muestra correspondiente a parótida presentó acinos serosos, la submandibular mostró acinos mixtos con predominio seroso. Se diagnosticaron ambas como Adenoma Pleomorfo Benigno (Tumor Mixto Benigno). (Figs. 5 y 6).



Fig.5. Sección del tumor parotídeo, teñida con H&E donde se observa Acinos serosos (as), cápsula (c) y proliferación de células epiteliales y mioepiteliales (cel).

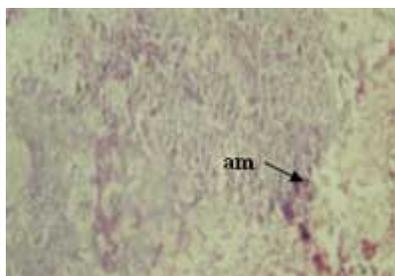


Fig. 6. Sección del tumor submandibular teñida con H&E, donde se observan acinos mixtos (am) y proliferación de células epiteliales y mioepiteliales.

Una vez realizado el tratamiento, se procedió a hacer controles periódicos de la paciente, con resultados satisfactorios, hubo correcta cicatrización y hasta el momento no ha habido indicios de recidiva.

## DISCUSION

El Adenoma Pleomorfo Benigno (APB) es la neoplasia de glándula salival más común que existe. Su localización predilecta es

en glándula parótida. Su presentación usualmente es solitaria, unifocal y unilateral, sin embargo, existen diversidad de reportes donde este tumor ha sido observado en múltiples situaciones, tales como:

- Bilateral en glándula parótida reportado por Kuhn (5) quién en su investigación encontró seis casos de APB múltiple, cinco ubicados bilateral en esta glándula. Turnbull (6), reportó dos pacientes con las mismas características de bilateralidad, mientras que Brill (7), Weimert (8), Ishikawa (9) y Sataloff (10) reportaron cada uno un caso de APB bilateral en glándula parótida, coincidiendo con la mayor parte de la literatura en relación a la localización predilecta de esta patología y parcialmente con el caso reportado, donde a pesar que hay bilateralidad, solo uno de los tumores se ubicó en esta glándula.
- Unilateral múltiple en la misma glándula, acompañado o no, de otros tumores histológicamente diferente, como en los casos reportados por Behnke (11) de dos adenomas Pleomorfos en la parótida derecha y por Krogdahl (12) donde habían varios adenomas en la misma parótida, además este ultimo autor también reportó un caso de APB acompañado de un Cistadenoma Papilar Linfomatoso en la misma glándula parótida. Janecka (13) publicó cuatro casos de APB dentro de la misma glándula con un tumor de Warthin, y un paciente con un APB mas un Carcinoma mucoepidermoide de bajo grado, también en la misma parótida, demostrando que el APB puede estar acompañado también de otros tumores de glándula salival malignos, esto mismo es apoyado por la publicación de Misselevich (14) de un APB con un Carcinoma de Células acinares en la parótida izquierda simultáneamente. Curiosamente Lefor (15) reporta el caso de una paciente con nueve nódulos en la parótida derecha, ocho de los cuales resultaron ser tumor de Warthin y el noveno APB; años más tarde la misma paciente presenta ocho nódulos en su Parótida izquierda, diagnosticados como tumor de Warthin.
- Unilateral, en diferente glándula, tenemos por ejemplo, los resultados de la investigación de Nagler (16), donde el reporta un APB en parótida y otro en submandibular del mismo lado. Kwittken (17) demuestra que esta situación no solo esta representada por tumores benignos, sino que en ocasiones como en el caso reportado por él, el APB puede aparecer simultáneamente con una lesión maligna ubicada en otra glándula salival mayor, donde este tumor se encuentra ubicado en Parótida y un Carcinoma Adenoidequístico se localizó en la glándula Submandibular del mismo lado, esto coincide con nuestro reporte, con la capacidad que el tumor tiene en afectar a mas de una glándula salival mayor al mismo tiempo, sin embargo, específicamente en nuestro caso los tumores están ubicados contralateralmente y pertenecen al mismo tipo histológico.

Solo se encontraron dos reportes donde el tumor se localizó en Parótida y Submandibular simultáneamente contralateral. Uno fue hecho por Mc Grath (18), quien publicó sobre un caso de Adenoma Pleomorfo Benigno en esta localización, sin embargo, contrasta con el nuestro porque este autor señala que ambos tumores tenían focos de malignización. Y el otro reporte de Gates (19) el cual coincide exactamente en la localización con las lesiones en nuestra paciente, ya que uno de los tumores se localizó en Parótida derecha y el otro en Submandibular izquierda. Sin embargo, es de hacer notar que mientras ambos pacientes son del sexo femenino, en el caso de este ultimo autor, la paciente tenía para el momento de la cirugía 58 años, mientras que la nuestra tenía para el momento del procedimiento quirúrgico 36 años. Algunas de las características histopatológicas del tumor parotídeo en ambos casos coinciden, ya que ambos presentan áreas mixoides y material condroide. Algunas células de los tumores reportados por Gates (19) son hiper cromáticas, así como también lo fueron algunos componentes celulares del tumor submandibular en este reporte.

A pesar que las situaciones de multiplicidad se presentan con mayor frecuencia en glándula parótida, nuestro caso exhibe características menos comunes en cuanto a localización.

### CONCLUSIONES

A través de la revisión bibliografica realizada y el caso clínico reportado se determinó que el Adenoma Pleomorfo Benigno puede presentarse aislado, unifocal y unilateralmente, siendo esta ultima su presentación más común.

La multiplicidad de este tumor ocurre con mayor frecuencia bilateralmente a nivel de las Parótidas, situación que puede ser confundida con patologías linfoproliferativas.

A pesar que un diagnostico tentativo puede emitirse basándose en las características clínicas e imagenológicas, no es sino con el estudio histopatológico que se obtiene el diagnostico definitivo.

El caso reportado es el segundo publicado en el mundo y el primero en Venezuela.

### BIBLIOGRAFÍA

1. Neville, Brad; Damm, Douglas; Allen, Carl; Bouquot, Jerry. Oral & Maxillofacial Pathology. Second Edition. Philadelphia. W.B. Saunders Company. 2002.
2. Regezi, Joseph; Sciubba, James. Oral Pathology. Clinical Pathologic Correlations. Third Edition. Philadelphia. W.B. Saunders Company. 1999.
3. Ellis, Gary; Auclair, Paul; Gnepp, Douglas. Surgical Pathology of the Salivary Glands. Philadelphia. W.B. Saunders Company. 1991.
4. Dardick, Irving. Salivary Gland Tumor Pathology. New York. Igakyo-Shoin Medical Publishers, Inc. 1996.
5. Kuhn, A, Slaughter, F. Multiple benign mixed tumor. Mayo Clinic Proc 1956; 31:544-552.
6. Turnbull, A; Frazell, E; Multiple Tumors of the Major Salivary Glands. The American Journal of Surgery. 1969.118;787-788.
7. Brill, A; Slaughter, F. Bilateral Synchronous Mixed Tumors of Parotid Gland. Arch Otolaryngology. 1975. 101: 751-753.
8. Weimert, T; Work, W. Bilateral Asynchronous Mixed Tumors of the Parotid Gland. Arch. Laryngology. 1976; 102:702.
9. Ishikawa, N; Hashimoto, K. Bilateral Pleomorphic Adenoma of the Parotid Glands The Journal of Otolaryngology, 1998; 27:2. 94-96.
10. Sataloff, R; Price, D. Bilateral synchronous mixed tumors of the Parotid Glands Arch. Otolaryngology Head Neck Surg. 19: 113:880-881.
11. Behnke, E. Unilateral multiple benign mixed tumor of the parotid gland. Laryngoscope. 1982;92:1265-1268.
12. Krogdahl, S; Bretlau P. Multiple tumors of the parotid glands. The journal of Laryngology and otology. 1983; 97:1035-1037.
13. Janecka, I; Perzin, K. Rare synchronous parotid tumors of different histologic types. Plastic and reconstructive surgery.1983; 72:6. 798-802.
14. Misselevich, I; Fradis, M; Salivary gland double tumor: synchronous ipsilateral Pleomorphic adenoma and acinic cell carcinoma of the parotid gland. Ann Otol Rhino. 106:1997.227-229.
15. Lefor, A; Ord, R; Multiple synchronous bilateral Warthin's tumor of the parotid glands with pleomorphic adenoma. Oral surg, Oral med, Oral Pathol 1993; 76:319-24.
16. Nagler, R; Laufer, D; Synchronous Pleomorphic adenomas of the major salivary glands. Oral surgery, oral med, oral Pathol, oral radiol, Endo.1999;87:735-737.
17. Kwitten, J; Ober, W. Bilateral salivary gland tumors. Journal of medicine. 1996. 42:649-651.  
  
McGrath, M. Malignant transformation in concurrent benign mixed tumors of the parotid and submandibular glands. Plastic and reconstructive surgery. 1983. 72:6.7  
802.
18. Gates, G; Ritter, F; Multiple Primary Mixed Tumors of the Salivary Gland. Arch Otolaryng. 1966. 88:111-113.

