

Cistoadenocarcinoma de glándula salival ectópica. Revisión bibliográfica. Reporte de un caso.

[Cistoadenocarcinoma of salivary gland ectopic. Revision bibliography. Report of a case.]

Autores:

Mg. Od. Ressia, Ernesto Ariel [1]
Dr. Agüero, Mauricio Gerardo [2]

Fecha de recepción:

03/07/2012

Fecha de aprobación:

18/09/2012

Sociedad Odontológica de La Plata
Biblioteca
"Dr. Anibal E. Inchausti"

[1] Odontólogo.

Magíster en Cirugía y Traumatología Buco Maxilo Facial. Especialista en Cirugía y Traumatología Buco Maxilo Facial. Docente de la Asignatura Cirugía A F.O.U.N.L.P.

Cirujano Buco Maxilo Facial del Hospital General de Agudos Mixto - Ho.G.A.M U 22 Servicio Penitenciario Bonaerense.

[2] Médico.

Especialista en clínica quirúrgica.

Especialista en cirugía de cabeza y cuello.

Cirujano de planta del Hospital General de Agudos Mixtos - Ho.G.A.M U 22 - Servicio Penitenciario Bonaerense.

Cirujano de planta del Hospital Mi pueblo, de la localidad de Florencio Varela. Cirujano de planta del Hospital Español de la Ciudad de La Plata.

RESUMEN

Los cistoadenocarcinomas, son neoplasias raras recientemente incluidas en la nueva clasificación de tumores de glándulas salivales de la Organización Mundial de la Salud (OMS) como un tipo específico de carcinoma diferenciado histomorfológicamente por exhibir un patrón quístico y un crecimiento papilar; y carecer de otras características histológicas presentes en otras formas de carcinomas de glándulas salivales que pueden formar estructuras quísticas.

Los autores presentamos un caso clínico quirúrgico de un cistoadenocarcinoma de glándula salival ectópica, y la revisión bibliográfica correspondiente.

PALABRAS CLAVE

Cistoadenocarcinoma, glándulas salivales, tumores de glándulas salivales, tejido glandular ectópico.

SUMMARY

Cystadenocarcinomas are rare neoplasias recently included in the World Health Organization (WHO) new classification of salivary gland tumors as a specific type of histomorphologically differentiated carcinoma, since it exhibits papillary growth and lacks of other histologic characteristics present in other forms of salivary gland carcinomas that can form cystic structures.

A surgical clinical case of cystadenocarcinoma of ectopic salivary gland, and the corresponding bibliographical revision are presented here.

KEY WORDS

Cistoadenocarcinoma, salivary glands, tumors of salivary glands, woven glandular ectopic.

INTRODUCCIÓN

Las glándulas salivales mayores, parótidas, submaxilares y sublinguales, son las encargadas de proveer la mayor parte del flujo salival de la cavidad oral a través de sus respectivos conductos. Además, hay entre 600 y 1000 glándulas salivales menores distribuidas en la lengua, amígdalas, faringe, paladar, cavidad nasal, senos paranasales, laringe y tráquea. El conjunto de glándulas salivales alcanza a producir entre 1000 y 1500 cc de saliva por día. [1]

Los tumores que se presentan en estas glándulas representan tan sólo al 3% de las neoplasias del organismo y el 1% los que se hallan en la cabeza y el cuello. En EE.UU. se registra una incidencia de 2 por cada 100.000 habitantes. La incidencia aumenta con la edad, hallándose la máxima ocurrencia entre la cuarta y sexta década de la vida. Menos del 2% ocurren antes de los 16 años de edad. [3, 4]

Los tumores salivales pueden desarrollarse en cualquiera de las glándulas salivales bajo el mismo patrón histológico. El 80% de los tumores salivales se presentan en la parótida, el 10 a 15% en la glándula submaxilar y entre un 5 y 10% en la sublingual y glándulas salivales menores [1, 2]. El género y la edad de presentación varía para cada tipo específico de tumor; en el cistoadenocarcinoma el rango va de los 5 a 87 años, (con una media de 60) con predilección por el sexo masculino. [2]

El cistoadenocarcinoma papilar, es una neoplasia extremadamente rara caracterizada por presentar quistes y proyecciones papilares, primero fue definido en 1991 por la Organización Mundial de la Salud como entidad separada siendo las localizaciones más importantes de esta neoplasia en la glándula parótida, la glándula sublingual, y glándulas salivales de menor importancia, mientras que la ocurrencia en la glándula submandibular es extremadamente rara. [3, 4, 6]

Los cistoadenocarcinomas de las glándulas salivales son neoplasias enquistadas con arquitectura y citología diversas, estas pueden tener un componente epitelial intracanalicular considerable. Estos quistes, están compuestos por un epitelio plano, cuboide, acolumnado, y apocrino como las células. Los quistes y los conductos más pequeños tenían apocrino como las células que formaban lúmenes glandulares secundarios. Las células ductales se encontraban rodeadas por las células mioepiteliales claras. El pleomorfismo y la hiperchromasia nuclear fueron vistos en apocrino como las células.

Adyacente a los quistes más grandes, había una proliferación adenomatoide de los conductos pequeños rodeados por las células mioepiteliales. No se identificó ninguna actividad mitótica ni necrosis, o invasión estromal. Las células ductales eran difusamente positivas para la queratina 7 y los receptores del andrógeno con la expresión focal de la queratina 19 y queratina de molecularidad elevada del peso. S-100, los receptores del estrógeno y de la progesterona, y BRST-2 eran negativos en las células ductal [7]. El cistoadenocarcinoma papilar que implica a las glándulas salivales es raro, y hay solamente cerca de 13 informes en la literatura. [6, 8]

Esta neoplasia es un carcinoma de calidad inferior, y el examen pre operatorio puede no demostrar las características típicas de la misma, por lo tanto, en estos casos el diagnóstico diferencial de estas lesiones es a veces difícil. Éste es el primer informe sobre el cistoadenocarcinoma de la glándula submandibular en la lengua inglesa y la primera para demostrar una proyección de imagen de la exploración de la tomografía computada (TAC) y de resonancia magnética nuclear (RMN) de esta neoplasia en la glándula submandibular. [6, 7, 9]

El cistoadenocarcinoma de la glándula submandibular es una expresión tumoral, asociada a la glicoproteína 72 (TAG-72). En un estudio inmunohistoquímico realizado, se utilizó el anticuerpo monoclonal (MAB) CC49, con el propósito de poder estudiar e investigar la inmunohistoquímica sobre la expresión de la glicoproteína 72 (TAG-72) que usaba el anticuerpo monoclonal (MAB) CC49 en las neoplasias de las glándulas salivales normales en un intento por determinar la utilidad potencial de MAB CC49 para el diagnóstico y planes terapéuticos. Los especímenes de Eighty-six (21 tumores benignos, 41 malos, y 24 glándulas salivales normales), fijados en formalina del 10% y encajados en parafina, fueron recuperados de los archivos del departamento de la medicina oral y de la patología oral en la escuela dental de la universidad de Aristotle, Thessaloniki, Grecia, y estudiados retrospectivamente con hematoxilina y eosina y con el método streptavidin-biotin-complejo usando el MAB CC49. El inmunoreactivo fuerte para TAG-72 fue observado en carcinoma salival del conducto, adenocarcinoma, cistoadenocarcinoma papilar, carcinoma de calidad inferior del mucoepidermoide glándulas salivales submandibular, sublingual, y de menor importancia. Débil o ningún inmunoreactivo fue encontrado en carcinoma enquistado adenoideo, ade-

nocarcinoma básico de la célula, adenocarcinoma de calidad inferior polimorfo y glándula parótida normal. Nuestros resultados sugieren el uso potencial de MAB CC49 en el diagnóstico diferencial de algunas neoplasias salivales de la glándula en los cuales sus características histopatológicas se trasladen, y en la inmunolocalización de la radiación y la inmunoterapia de los tumores malos que se localizan en la glándula parótida [10]. Dentro de las variantes histológicas malignas, ordenadas según el grado de malignidad, el cistoadenocarcinoma se localiza dentro de los tumores de grado intermedio. [11]

CASO CLÍNICO

Paciente de 63 años de edad, de género femenino, lucida, ubicada en tiempo y espacio, normotensa, afebril, hemodinámicamente estable, buen estado general y fumadora de aproximadamente 20 cigarrillos por día desde hace 40 años.

El motivo de su consulta, fue por presentar una molestia al tragar desde hacia aproximadamente 30 años, cuyo comienzo fue a partir de una cirugía que le realizaron de las amígdalas palatinas sobre todo del lado derecho. Hasta el momento de la consulta había sido examinada por diferentes profesionales, donde le habían realizado la toma de muestras para biopsia mediante punch, siendo el resultado de las mismas la de tejido inflamatorio crónico, por el cual no requería ningún tipo de tratamiento y que con el tiempo iba a desaparecer sobre todo si suprimía el consumo de cigarrillos.

En el momento de la inspección clínica, al desplazar la lengua hacia el lado izquierdo, se pudo observar junto a la mucosa bucal que recubre la cara interna de la rama ascendente mandibular a nivel del ángulo goníaco, una lesión de 1 x 1 cm aproximadamente de aspecto quístico, fluctuante, indurado e hiperálgica. A la presión se podía observar el drenaje de un líquido de aspecto ámbar e inoloro (Fig. N° 1). No se palpaban adenopatías locorregionales y el flujo salival no estaba alterado en las pruebas realizadas como tampoco se observó congestión de las vías aéreas superiores. Se solicitaron estudios por imágenes y de laboratorio para poder complementar el diagnóstico clínico realizado y determinar el tratamiento a seguir.

T.A.C. de cuello con contraste oral y E.V., donde se informó que mediante escanograma lateral se efectuaron cortes con un scan helicoidal obteniendo reconstrucciones axiales con un espesor e intervalo de corte

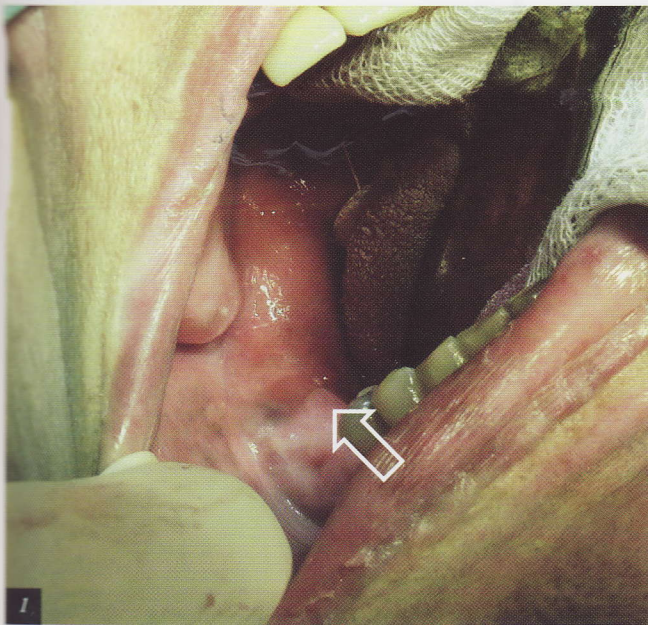


Fig. 1: Imagen clínica prequirúrgica.

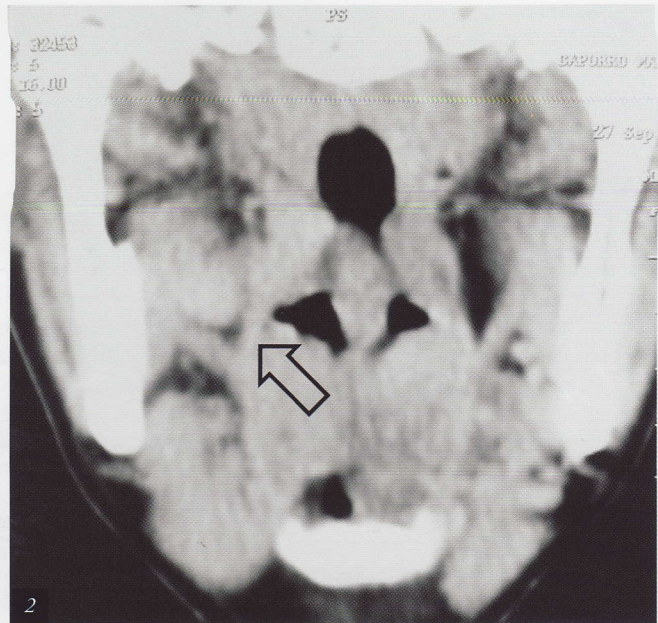


Fig. 2: T.A.C. Prequirúrgica

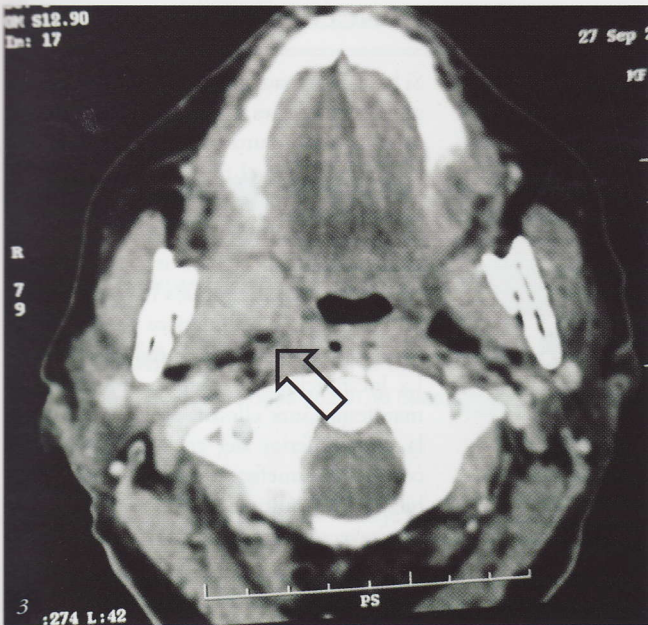


Fig. 3: T.A.C. Prequirúrgicas

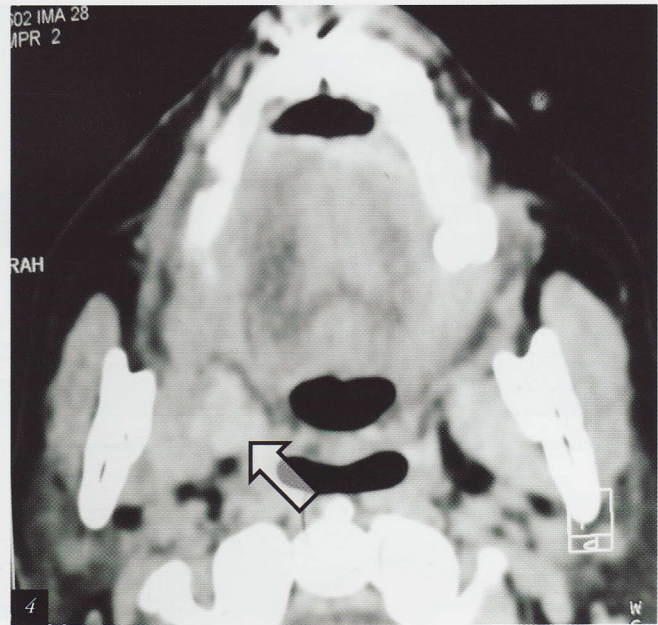


Fig. 4: T.A.C. Prequirúrgicas

de 5 mm, a nivel del área cervical. Se observó una asimetría de partes blandas localizada en la región parafaríngea preestiloidea derecha, en relación al músculo pterigoideo externo, en un área de aproximadamente 25 mm. No se reconocieron alteraciones del plano óseo. No se observaron adenomegalias cervicales. Glándulas parótidas y submaxilares respetadas de morfología y densidad conservadas.

Adicionalmente se visualizó un engrosamiento mucoso en el piso del seno maxilar

izquierdo. Calcificaciones vasculares carotídeas a predominio derecho e hipertrofia adenoidea (Fig. N° 2, 3 y 4).

Bajo anestesia general, se procedió a realizar la extirpación quirúrgica de la lesión comenzando por la resección de la mucosa bucal que recubría la cara interna de la rama ascendente a nivel del ángulo goniaco y mediante divulsión se fue retirando la lesión la cual se extendía entre el pilar anterior del velo y la cara interna de la rama ascendente mandibular llegando hasta la

pared lateral de la faringe, donde se observó la presencia de un material de aspecto blanquecino de consistencia mucosa que emergía del interior (Fig. N° 5). Procediéndose a retirar el contenido junto con el saco que lo cubría (Fig. N° 6). Luego de realizar la toilette de la herida correspondiente, se procedió a la síntesis de los tejidos incididos con vicryl 3-0 puntos simples separados. Enviándose el material para ser analizado por anatomía patológica. Control post operatorio a distancia (Fig. N° 7).

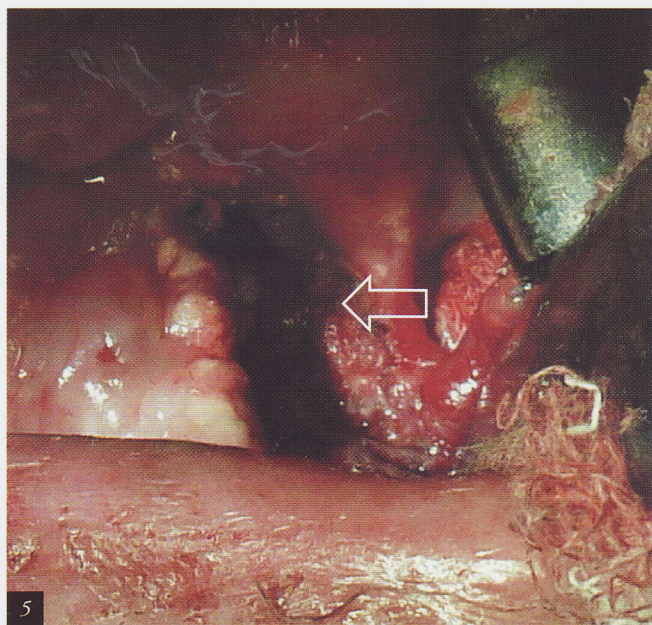


Fig. 5: Imagen intraquirúrgica (detalle de fig. 8).

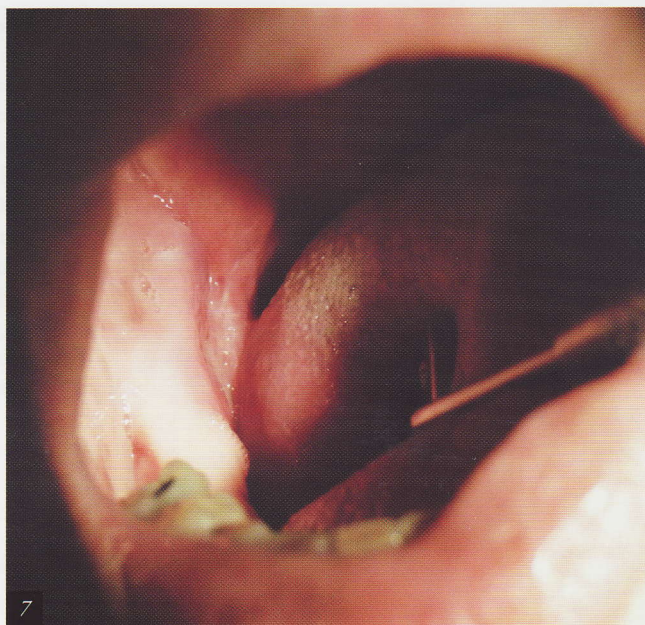


Fig. 7: Control postquirúrgico.

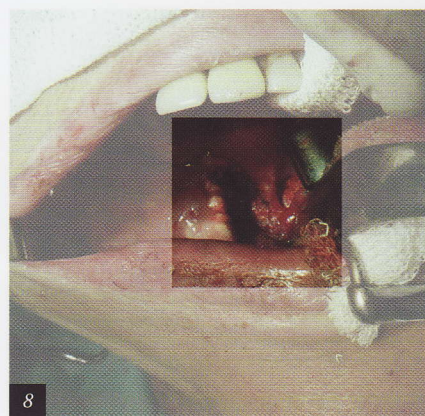


Fig. 8: Imagen intraquirúrgica.

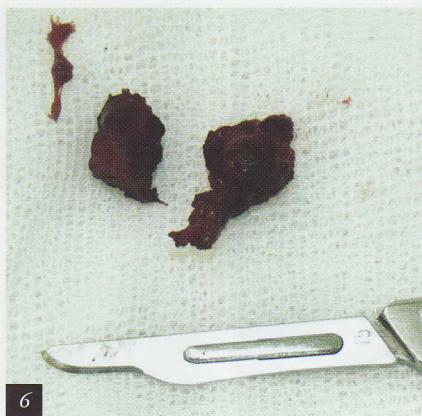


Fig. 6: Pieza quirúrgica.

INFORME ANATOMOPATOLÓGICO

Tumor de aspecto quístico fragmentado en dos partes.

EXAMEN MACROSCÓPICO

Se recibieron dos fragmentos irregulares de 1,5 y 2 cm de diámetro máximo. Al corte de aspecto quístico sin contenido. Suelto, material de aspecto mucoso.

EXAMEN MICROSCÓPICO

Se observó neoformación subepitelial (epitelio malpighiano típico) de estructura quística, con proliferación adenoide atípica, de bajo grado histológico. Constituida

por células cuboides a cilíndricas de disposición adenoide abortiva, micropapilar, con estroma hialino denso.

Mucosecreción intercelular apical, endoluminal glandular y estromal, con reacción gigante celular de tipo cuerpo extraño. No se observaron actividad mitótica conspicua. Coloración PAS-H con y sin digestión positiva.

DIAGNÓSTICO

Cuadro de Cistoadenocarcinoma de glándula salival. ICD-Ocode 8440/3 (OMS). El tratamiento post quirúrgico consistió en la aplicación de radioterapia.

CONCLUSIÓN

Si bien el cistoadenocarcinoma de glándula salival ectópica es raro, el mismo se habría originado sobre una patología quística preexistente ya que el mismo no tendría más de un año según hace referencia el servicio de anatomía patológica y oncología.

Generalmente afecta con más frecuencia a cabeza y cuello, siendo los lugares más comunes los ganglios linfáticos paratiroides, el oído medio y la parte inferior del cuello. La localización del tejido condiciona las manifestaciones clínicas asociadas. Así, en la parte inferior del cuello se manifiesta como una tumefacción anterior del ECM, bilateral en múltiples ocasiones, asociadas a un trayecto de drenaje, de características análogas a un quiste branquial. Estos restos tisulares pueden ser el origen de neoplasias. [1]

Ante la presencia de tumores de lento crecimiento, asintomáticos y que tanto al examen clínico como por imágenes sean de aspectos quísticos, se debe pensar en este tipo de neoplasia maligna poco frecuente y menos aún en el sexo femenino, como el caso nuestro. El estudio histopatológico es una herramienta fundamental para el diagnóstico temprano; asimismo la escisión quirúrgica con márgenes de seguridad y el tratamiento oncológico correspondiente, son la elección para los tumores de bajo grado y en estadios tempranos, con excelente pronóstico. [2, 3]

Bibliografía

- [1] Douglas R. Gnepp; *Diagnostic Surgical Pathology of the Head and Neck; chapter nº 6: Salivary and Lachrymal glands*; pág. 325-419.
- [2] Foss, R. D., Ellis, G. L., Auclair, P. L.; Salivary Gland Cystadenocarcinomas. *A Clinic pathologic Study of 57. Cases. Am J. W.; Pathol.* 1996 Dec; 20(12): 1440-7.
- [3] Eveson, J. W.; Salivary Gland Tumors. En: World Health Organization Classification of Tumors. *Pathology and Genetics. Head and Neck Tumors*; pág. 190 - 192.
- [4] Shiotani, A., Kawaura, M., Tanaka, Y., Fukuda, H., Kanzaki, J.; Papillary adenocarcinoma possibly arising from an intraductal papiloma of the parotid gland. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec.* 1994 Mar-Apr;56(2):112-5.
- [5] Nagao, T., Sugano, I., Matsuzaki, O., Hara, H.,

Kondo, Y., Nagao, K.; Intraductal papillary tumors of the major salivary glands: case reports of benign and malignant variants. *Arch Pathol Lab Med.* 2000 Feb; 124(2): 291-5.

[6] Mardi. K. Sharma. S. Grupa. N: *J Cancer Res Ther.* 2010 Jul-Sep; 6(3). 330-2. Papillary cystadenocarcinoma of submandibular salivary gland: a rare case report.

[7] Koc M. Yanilmaz M. Yildirim H. Gok U. Cobanoglu B. MRI findings of papillary cystadenocarcinoma of the submandibular gland. *Diagn Interv Radiol.* 2010 Mar; 16(1): 20-3. *Epub* 2009. Dec 28.

[8] Agarwal S. Das, P. Singh MK. Sharma A. Karak AK. Papillary cystadenocarcinoma of salivary glands with oncocytic epithelial lining: report of 22 cases. *Int. J. Surg. Pathol.* 2008. Jul; 16(3): 341-4.

[9] Harimaya, A.; Somekawa, Y.; Sasaki, M.; Ohuchi, T. Cystadenocarcinoma (papillary cystadenocarcinoma) of the submandibular gland. *J. Laryngol Otol.* 2006. Dec; 120(12): 1077-80. *Epub* 2006. Sep. 25.

[10] Epivatianos A.; Pouloupoulos. A.; Kayavis. I.; Papanayotou. P. Tumor associated glycoprotein 72 (TAG - 72) expression in salivary gland neoplasia an immunohistochemical study using monoclonal antibody (MAb) CC49. *Oral Dis.* 2000. Mar;6(2): 112-7.

[11] J. M. Barrios Robredo, F. Soler Presas, A. B. Guerra Martinez, C. Navarro Cuellar. Tumores malignos de las glándulas salivales. Cap. 57. *Tratado de cirugía oral y maxilofacial. Tomo II.* 946-947.2004.

La mutual Argentina Salud
y Responsabilidad Profesional
www.lamutual.org.ar

Praxis I Médica Odontológica

Mas de 1000 odontólogos gozan de nuestros beneficios.

Nuestro valor

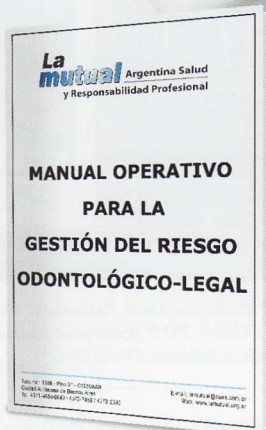
- La prevención y gestión del riesgo médico legal.
- El asesoramiento especializado ante el conflicto.
- La cobertura económica de una aseguradora.

Nuestras publicaciones

Manual Operativo para la Gestión del Riesgo Odontológico-Legal

Contiene:

- Normas de Procedimiento
- Modelos de Consentimientos informados
- Guía de evaluación



Tucumán 1668, 3º piso (C1050AAH) - C.A.B.A. - Tel.: (011) 4371-9856 (rotativas) - lamutual@lamutual.org.ar