

Adenoma pleomorfo palatino - Reporte de casos

Pleomorphic adenoma in palate - Case reports

Alan Polanco¹ Fernanda Villalobos¹ Rodrigo Allende¹ Liberto Figueroa²

¹ Hospital Clínico Metropolitano el Carmen Maipú, Santiago, Chile.

² Cirujano Maxilofacial, Hospital Clínico Metropolitano el Carmen Maipú, Santiago, Chile.

¹Residente de urgencias bucomaxilofacial, Facultad de Medicina Clínica Alemana - Universidad del Desarrollo, Santiago de Chile.

²Asignatura de cirugía y traumatología bucomaxilofacial, Facultad de Medicina Clínica Alemana - Universidad del Desarrollo, Santiago de Chile.

Correspondence

E-mail: alan.polanco.95@gmail.com

ORCID: 0000-0002-3883-7733

POLANCO A, VILLALOBOS F, ALLENDE R, FIGUEROA L. Adenoma Pleomorfo Palatino – Reporte de Casos. *Craniofac Res.* 2023; 2(1):1-7.

RESUMEN: El adenoma pleomorfo es la neoplasia benigna más frecuente de las glándulas salivales y habitualmente se manifiesta como masas indoloras de consistencia firme y de crecimiento lento, ubicadas en relación a la glándula parótida y glándulas salivales menores ubicadas en el paladar. El diagnóstico se establece mediante análisis histopatológico y su tratamiento consiste en la escisión quirúrgica con márgenes de seguridad debido a posibles recidivas o transformaciones malignas de la entidad. En el presente estudio proponemos actualizar los conocimientos sobre esta patología mediante un reporte de 3 casos de adenoma pleomorfo de ubicación palatina con similitudes características clínicas, histológicas y radiográficas, las cuales fueron tratadas mediante escisión quirúrgica con márgenes de seguridad e instalación de contención palatina.

PALABRAS CLAVE: Adenoma pleomorfo, tumor salival mixto, adenoma, reporte de caso, paladar, tumor benigno.

INTRODUCCIÓN

Los tumores de glándulas salivales (TGS) son poco frecuentes, constituyen aproximadamente el 3% de los tumores de cabeza y cuello, y menos del 1% de todos los tumores en general (Mengi *et al.*, 2020). Alrededor del 80% de este tipo de tumores son benignos. Por otra parte, los tumores malignos son poco frecuentes y constituyen el 5% de los cánceres de cabeza y cuello (Lee *et al.*, 2008). La mayoría de los TGS se localizan en glándula parótida, glándula submandibular, y glándulas salivares menores y menos del 1% en la glándula sublingual. En términos generales, el grado de malignidad de la lesión es proporcional al tamaño de la glándula afectada. Mientras más pequeña es la glándula, mayor probabilidad de que el tumor sea maligno. (Lee *et al.*, 2008).

El adenoma pleomorfo es el TGS benigno más frecuente. Presenta una mayor incidencia en mujeres respecto a los hombres (1.5:1) y puede manifestarse a cualquier edad. Sin embargo, se presenta con mayor frecuencia entre la cuarta y quinta década de vida (Seifert y Soblin, 1992; Ochicha *et al.*, 2009; Mengi *et al.*, 2020). Respecto a su ubicación en el territorio maxilofacial, afecta principalmente a la glándula parótida seguido de las glándulas salivales menores ubicadas en la región del paladar (Reinheimer *et al.*, 2019; Cunha *et al.*, 2021). Se han reportado casos de adenoma pleomorfo en ubicaciones inusuales como glándula lagrimal, conducto auditivo externo, entre otras regiones, sin embargo, su frecuencia es escasa (Harrison *et al.*, 2018; Beckmann *et al.*, 2020). En términos generales la en-

tividad se manifiesta clínicamente mediante un aumento de volumen en la zona afectada de consistencia firme y superficie lisa, menor a 5 centímetros de diámetro, asintomática. En la mayoría de los casos la mucosa adyacente a la lesión no presenta alteraciones, aunque se han reportado casos con presencia de erosión o ulceración con o sin sangrado espontáneo. (Wu *et al.*, 2016; Patigaroo *et al.*, 2014). Debido a que los TGS son lesiones de tejido blando, la resonancia nuclear magnética es el examen radiológico ideal para evaluar extensión y relación con estructuras adyacentes, donde se pueda apreciar señales de baja intensidad ponderadas en T1 y señales de intensidad baja pero levemente mayores en imágenes ponderadas en T2 (Lida *et al.*, 2020; Kajiyama *et al.*, 2019; Lindeboom *et al.*, 2021). Respecto al análisis histopatológico de la lesión, en la mayoría de los casos se pesquisa un infiltrado de células inflamatorias y residentes mioepiteliales plasmocitoides, fusiformes, células claras, entre otras, además de la presencia de componentes epiteliales como conductos glandulares y un estroma variable tipo condroide, mixoide, osteoide o hialino (Satpathy *et al.*, 2014; Nonitha *et al.*, 2019; Yousra y Saliha, 2021). En algunos casos, se visualiza la presencia de perlas de queratina (Wu *et al.*, 2016). El tratamiento “gold standard” de los adenomas pleomorfos consiste en la escisión quirúrgica completa. (Wu *et al.*, 2016). Si la entidad no es tratada o se genera recidiva por una escisión incompleta de la misma, podría adoptar rasgos de malignización (Khanna *et al.*, 2019; Ismı *et al.*, 2015)

REPORTE DE CASOS

Caso 1

Paciente sexo femenino de 13 años y 10 meses de edad, epiléptica controlada, acude clínica universitaria de odontología de la Universidad Diego Portales debido a aumento de volumen ubicado en el paladar de 6 meses de evolución aproximadamente, asintomático. Al examen físico extraoral no se evidencian alteraciones. A la evaluación intraoral se pesquisa aumento de volumen de 1 cm de diámetro aproximadamente, localizado en el tercio posterior del paladar duro, forma redondeada, color rosa coral, de consistencia firme, circunscrito, superficie lisa, base sésil y asintomático. (Fig. 1). No se pesqu岸an alteraciones en mucosas de revestimiento, lengua, encía y dientes.

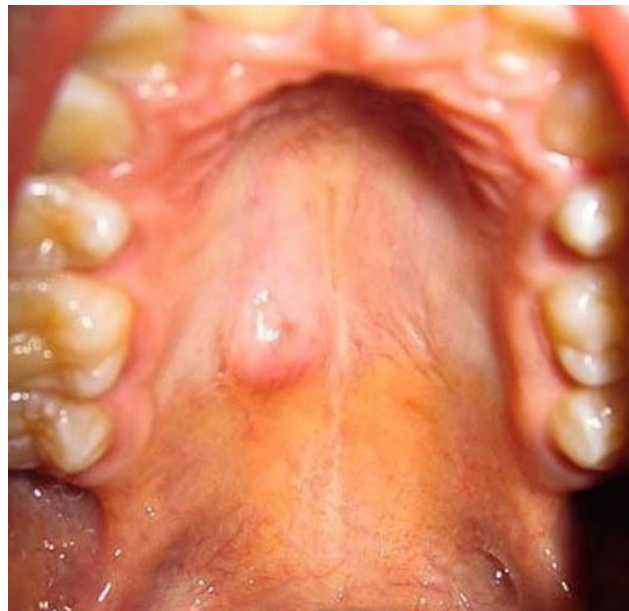


Fig. 1. Aumento de volumen de 1cm de aproximadamente, ubicado en línea media de paladar duro con límite en paladar blando en relación a primer molar superior derecho, de consistencia firme, superficie lisa y asintomático. Mucosa que recubre la lesión de aspecto normal.

En relación a las características clínicas de la paciente se consideró adenoma pleomorfo como hipótesis diagnóstica. En primera instancia se realiza biopsia incisional bajo anestesia local para determinar el diagnóstico y tratamiento definitivo (Fig. 2a). En la muestra histopatológica se observa tejido conectivo con abundante infiltrado de células inflamatorias, células mioepiteliales plasmocitoides, elementos epiteliales que corresponden a acinos glandulares y un estroma tipo mixoide. (Fig. 2b y c) No se pesquisa cápsula y tampoco malignidad de la lesión.

Mediante el análisis histológico se confirma el diagnóstico de adenoma pleomorfo. Se programa intervención quirúrgica a la paciente para realizar tratamiento definitivo el cual consiste en escisión quirúrgica completa de la lesión con margen de seguridad mediante bajo sedación endovenosa y anestesia local (Fig. 3a y 3b). La lesión se ubica en el piso de las fosas nasales y presentaba un diámetro total de 16 mm de largo x 8 mm de ancho. Una vez finalizada la escisión quirúrgica se decide realizar cierre de la lesión por segunda intención e instalación de placa de contención palatina para realizar hemostasia, la cual fue confeccionada previa intervención. Paciente se retira del pabe-

llón en óptimas condiciones y sin complicaciones. Se realiza prescripción de antibioterapia y analgesia además de indicaciones de cuidado general y controles periódicos. A la

semana posterior a la intervención, se puede apreciar una progresión de cicatrización adecuada de la herida sin procesos infecciosos asociados. (Fig. 3c)

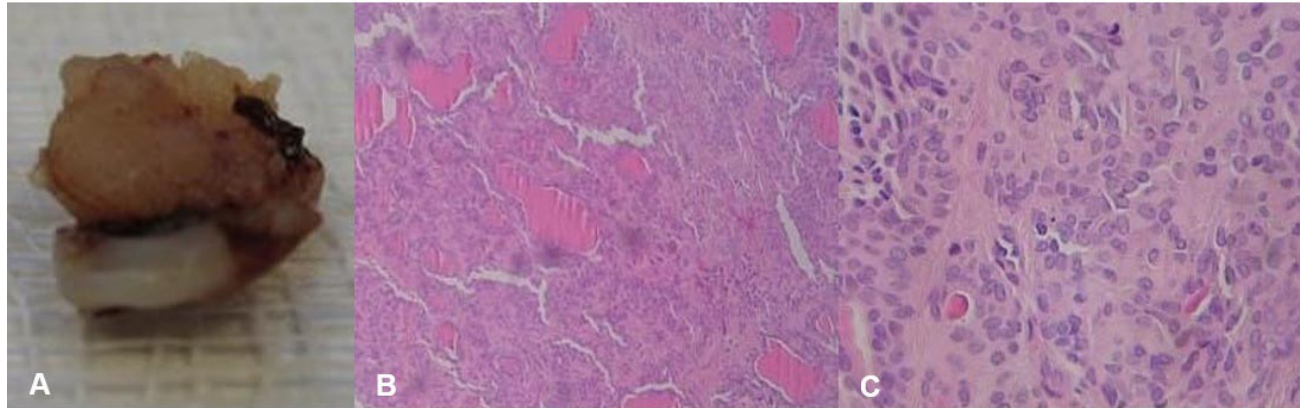


Fig. 2. A) Tejido obtenido mediante biopsia incisional para estudio histopatológico. Imagen, B) Corte macroscópico de la lesión donde se observa tejido conectivo con abundante infiltrado de células inflamatorias con ausencia de cápsula adyacente, C) Se observa un estroma tipo mixoide con presencia de ductos glandulares rodeadas de células mioepiteliales.



Fig. 3. A) vista inferior de la lesión extirpada con márgenes de seguridad, la cual presenta diámetros de 16 mm de largo x 8mm de ancho, B) Vista superior de la pieza quirúrgica, C) Control 7 días post quirúrgico con reparación de la herida en progreso en ausencia de procesos infecciosos.

Caso 2

Paciente sexo femenino de 60 años acude a la clínica de la asignatura de cirugía maxilofacial de la Universidad del Desarrollo, debido a aumento de volumen ubicado en zona de paladar con data de varios años, de crecimiento lento e indoloro. El paciente relata antecedentes de diabetes mellitus e hipertensión arterial controlada, además de episodio de infarto cardiaco agudo ocurrido en tiempo indeterminado. Al examen clínico intraoral se observa aumento de volumen

evidente de 2cm de diámetro localizado en paladar duro adyacente a línea media y a 1 cm del segundo premolar superior izquierdo, primer molar superior izquierdo y reborde alveolar de segundo molar superior izquierdo; presentaba forma ovalada, color rosa coral, de consistencia firme, vascularizado, circunscrito, superficie lisa y brillante, márgenes bien definidos, base sésil y asintomático. (Fig. 4a). Además, se observa ausencia de segundos molares supe-

riores y primeros premolares superiores, lengua de aspecto saburral e inflamación gingival generalizada. Debido al tamaño y extensión de la lesión se solicita resonancia magnética donde se observa la dimensión real de la lesión sin compromiso de paladar blando y estructuras adyacentes. (Fig. 4b).

Se realizó la biopsia incisional bajo anestesia local para determinar las características histopatológicas de la lesión (Fig. 4c). Debido a los parámetros observados en el

examen histopatológico, la entidad fue compatible con adenoma pleomorfo, por lo que se realizó el retiro integral de la lesión con márgenes de seguridad bajo sedación endovenosa y anestesia local en pabellón de cirugía ambulatoria (Fig. 5a y 5b). Una vez finalizada la escisión se decide manejar la herida mediante cierre por segunda intención y placa de contención palatina. 30 días después de la cirugía se puede apreciar una cicatrización completa de la lesión sin evidencia de recidiva (Fig. 5c).

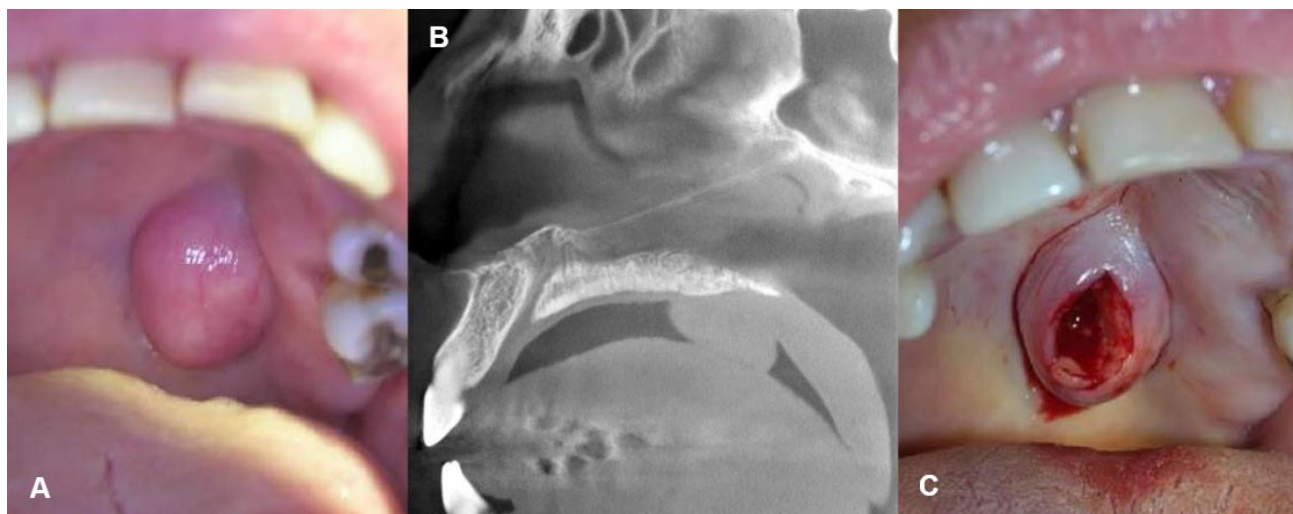


Fig. 4. A) Aumento de volumen de 2cm de diámetro aproximadamente ubicado en relación a segundo premolar superior, primer molar superior y reborde alveolar de segundo molar superior. La mucosa que lo cubre es de aspecto normal, B) Lesión de aspecto hiperdenso ubicado adyacente a región posterior de paladar duro, de 2 cm de diámetro y forma ovalada, sin compromiso de estructuras anatómicas adyacentes, C) Cirugía con Biopsia de carácter incisional para estudio de la lesión.

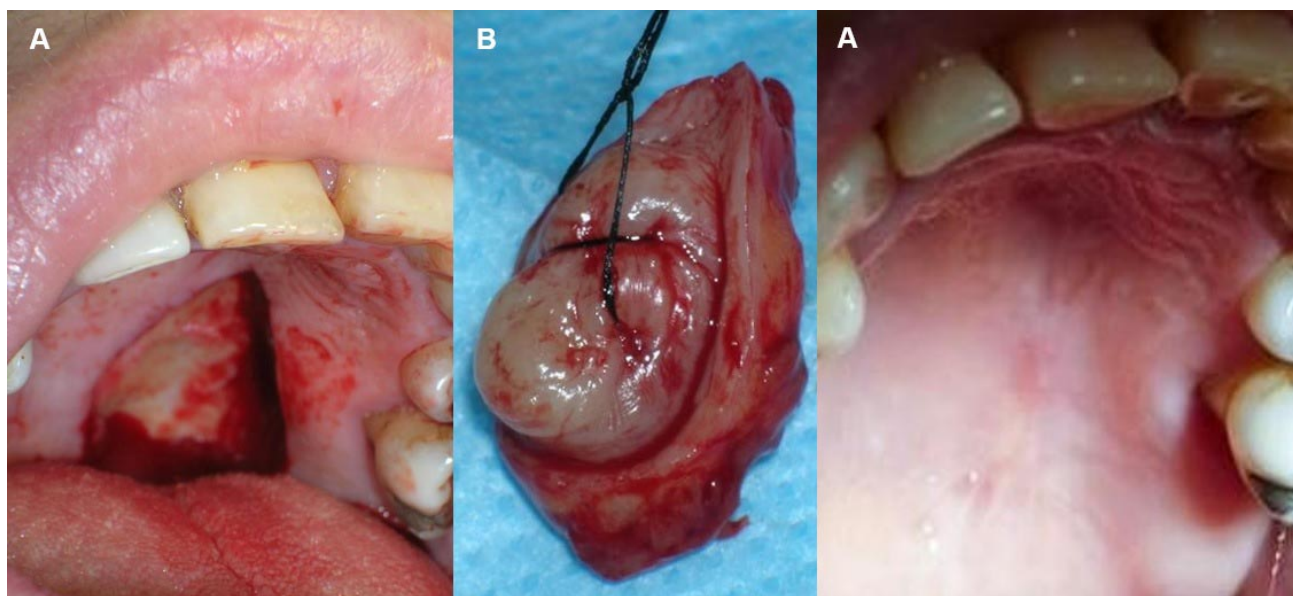


Fig. 5. A) Condición clínica luego del retiro de la lesión, B) Lesión extirpada de 2cm de diámetro, C) Control 1 año posterior a la cirugía. Se puede apreciar una cicatrización completa de la lesión con una mucosa de aspecto normal y ausencia de recidiva.

Caso 3

Paciente sexo femenino de 62 años de edad, sin patologías ni alergias referidas, acude a servicio de cirugía del Ejército con hipótesis diagnóstica de torus en paladar duro debido a aumento de volumen ubicado en el paladar, asintomático. Al examen físico extraoral no se evidencian alteraciones. A la evaluación intraoral se pesquisa aumento de volumen de 1 cm de diámetro aproximadamente, localizado en la línea media del paladar duro a la altura de primeros premolares, forma redondeada, color rosa coral, de consistencia firme, circunscrito, superficie lisa, base sésil y asintomático (Fig. 6). Adyacente a la lesión se observan pequeñas áreas eritematosas, de 1 mm de diámetro, asintomáticas.

En relación con las características clínicas de la lesión se decide realizar biopsia incisional bajo anestesia local, la cual mediante un estudio histopatológico confirma el diagnóstico definitivo de adenoma pleomorfo. De la misma manera, en pabellón de cirugía ambulatoria bajo sedación endovenosa y anestesia local, se realiza escisión completa de la lesión con márgenes de seguridad (Fig. 7a y b). Se realiza cierre de herida por segunda intención e instalación de contención palatina. 30 días después de la cirugía se observa cicatrización de herida en progreso con cierre completo y ausencia de recidiva o procesos infecciosos (Fig. 7c). En este paciente se utilizó una placa

palatina con el objetivo de mejorar el proceso de cicatrización post quirúrgico.

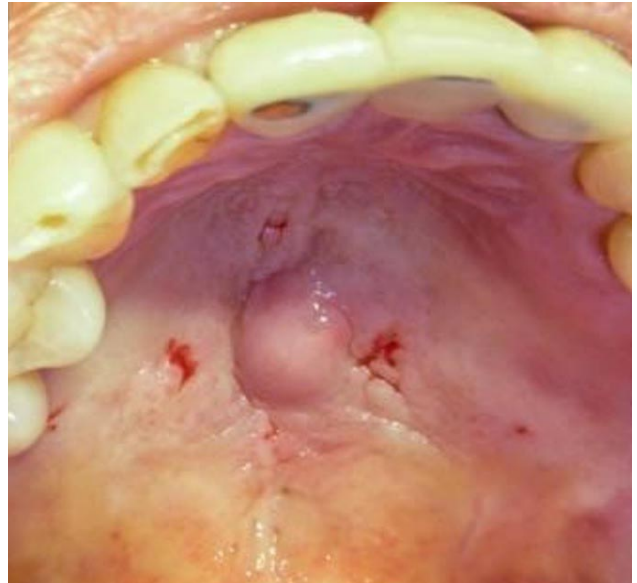


Fig. 6. Aumento de volumen de 1 cm de aproximadamente, ubicado en línea media de paladar duro a la altura de premolares. Nótese la presencia de áreas eritematosas de 1 mm de diámetro adyacentes a la lesión.

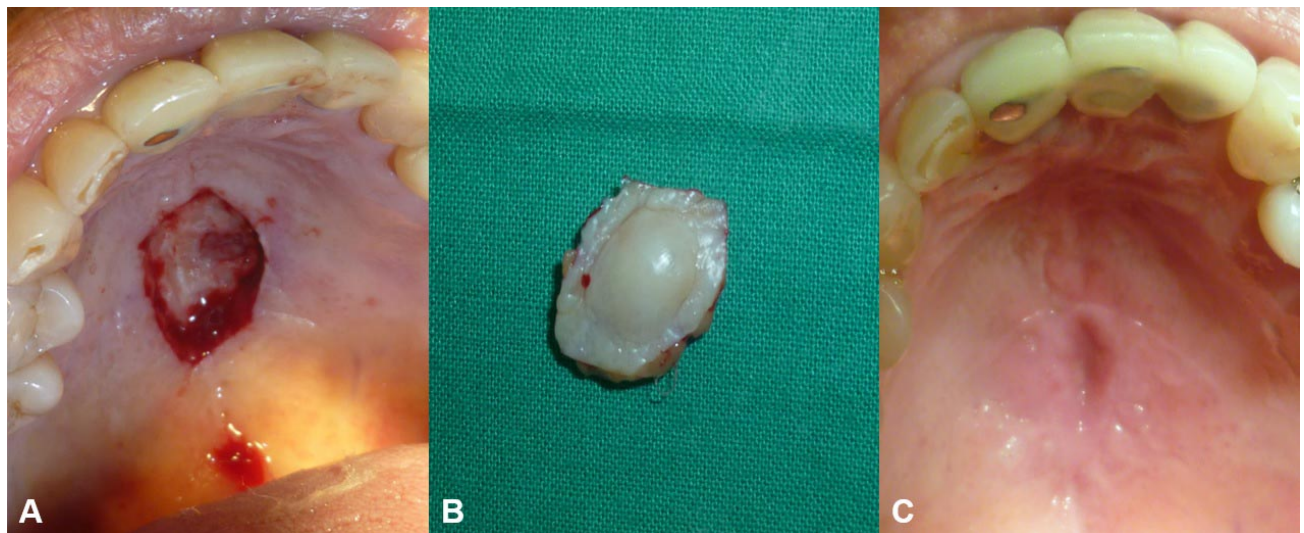


Fig. 7. A) Condición clínica luego del retiro de la lesión, B) Lesión extirpada de 1cm de diámetro con márgenes de seguridad, C) Control 1 mes posterior a la cirugía. Se observa cicatrización en buenas condiciones con mucosa de aspecto normal y ausencia de recidiva.

DISCUSIÓN

Los tumores de glándulas salivales presentan una prevalencia del 3% de todos los tumores en el territorio maxilofacial, de los cuales, el 80% de ellos es de carácter benigno (Lee *et al.*, 2008). Entre los TGS, el adenoma pleomorfo es el tumor benigno más prevalente y afecta principalmente a la glándula parótida y glándulas salivales menores ubicadas en el paladar (Cunha *et al.*, 2021). Generalmente la lesión se manifiesta con un aumento de volumen de dimensión variable, consistencia firme y asintomática (Yousra y Saliha, 2021; Lindeboom *et al.*, 2021). Rara vez la lesión compromete estructuras anatómicas adyacentes. Los exámenes radiológicos más utilizados para evaluar su extensión y compromiso de estructuras anatómicas adyacentes tanto para tejidos duros y tejidos blandos son la tomografía computarizada de haz cónico y la resonancia nuclear magnética. En los casos de gran tamaño generalmente se podría observar erosión del paladar duro y/o desplazamiento de estructuras adyacentes (Patigaroo *et al.*, 2014; Chaturvedi *et al.*, 2018). El examen histopatológico presenta una alta variabilidad respecto a su estroma y elementos epiteliales involucrados, así como la presencia o ausencia de una cápsula adyacente al conectivo. Debido a su alta variabilidad en ocasiones presenta similitud con las variantes malignas de adenoma pleomorfo (Hernandez-Prera *et al.*, 2021; Gnepp *et al.*, 2005; Bradley, 2005; Seethala & Stenman, 2017).

Los casos de adenoma pleomorfos documentados en el siguiente artículo se presentan en diferentes edades, sin embargo, las características clínicas, histológicas y radiológicas son similares entre ellas. Clínicamente las lesiones se manifestaron mediante un aumento de volumen de crecimiento lento localizado en paladar duro de consistencia firme y superficie lisa, entre 1-2cm de diámetro y asintomático, lo que se correlaciona con la mayoría de las lesiones documentadas en la literatura. Mediante la evaluación clínica se consideraron diagnósticos diferenciales como quistes odontogénicos y no odontogénicos, abscesos palatinos, tumores de glándulas salivales y tumores de tejidos blando como neurofibroma, fibroma, lipoma y neurilemoma o schwannoma. Para analizar la extensión de las lesiones y su relación con estructuras vecinas se solicita resonancia nuclear magnética en todos los casos, donde se ob-

serva una imagen hipodensa en tejido blando adyacente a paladar duro sin compromiso del mismo. Mediante una biopsia incisional se observa al corte histológico infiltrado de células inflamatorias y mioepiteliales en un estroma tipo mixoide sin cápsula adyacente en todas las entidades, confirmando el diagnóstico de adenoma pleomorfo. Respecto al tratamiento, se han documentado casos tratados mediante enucleación, escisión quirúrgica completa y en casos avanzados, maxilectomía parcial (Patigaroo *et al.*, 2014). El tratamiento realizado en los 3 casos documentados fue la escisión quirúrgica completa con márgenes de seguridad debido a posibles recidivas que generalmente se acompañan con rasgos de malignidad (Knight y Ratnasingham, 2015), además, se instalaron contenciones palatinas en todos los casos con el objetivo de obtener una adecuada cicatrización. Aunque si bien las lesiones histológicamente no presentaban características malignas, Se han reportado casos que la escisión quirúrgica de lesiones benignas sin márgenes de seguridad genera recidiva de adenoma pleomorfo acompañado de metástasis (Bae *et al.*, 2013), por lo que en nuestros casos se realizaron márgenes de seguridad para reducir riesgos de recidiva y complicaciones.

CONCLUSIÓN

El adenoma pleomorfo ubicado en el paladar es una entidad benigna de crecimiento lento. Su diagnóstico se realiza en base a parámetros clínicos, radiográficos e histopatológicos y su tratamiento consiste en la erradicación completa de la entidad con márgenes de seguridad para evitar recidivas de la misma.

Conflictos de intereses

No existen conflictos de intereses en la publicación de este trabajo.

No existen fuentes de financiación públicas o privadas en la realización del presente estudio.

Los pacientes fueron debidamente informados sobre la información utilizada.

POLANCO A, VILLALOBOS F, ALLENDE R, FIGUEROA L. Pleomorphic Adenoma in palate - Case reports. *Craniofac Res.* 2023; 2(1):1-7.

ABSTRACT: Pleomorphic adenoma is the most frequent benign neoplasm of the salivary glands and usually manifests as painless masses of firm consistency and slow growth, located in relation to the parotid gland and minor salivary glands located in the palate. The diagnosis is established by histopathological analysis and its treatment consists of surgical excision with safety margins due to possible recurrence or malignant transformation of the entity. In the present study we propose to update the knowledge about this pathology by reporting 3 cases of pleomorphic adenoma of palatal location with similar clinical, histologic and radiographic features, which were treated by surgical excision with safety margins and installation of palatal containment.

KEY WORDS: Pleomorphic adenoma, mixed salivary tumor, adenoma, case report, palate, benign tumor.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Bae CH, Kim YD, Song SY. Benign pleomorphic adenoma of the soft palate metastasizing to the sphenoid sinus. *Clin Exp Otorhinolaryngol.* 2010;3(3):172-175. doi:10.3342/ceo.2010.3.3.172
- Beckmann S, Dettmer MS, Caversaccio MD, Giger R, Anschuetz L. Pleomorphic Adenoma of External Auditory Canal: Case Report of First Endoscopic Resection and Literature Review. *Medicina (Kaunas).* 2020;56(5):248. doi:10.3390/medicina56050248.
- Bradley PJ. 'Metastasizing pleomorphic salivary adenoma' should now be considered a low-grade malignancy with a lethal potential. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* 2005;13(2):123-126. doi:10.1097/01.moo.0000153450.87288.2^a
- Chaturvedi M, Jaidev A, Thaddanee R, Khilnani AK. Large Pleomorphic Adenoma of Hard Palate. *Ann Maxillofac Surg.* 2018;8(1):124-126. doi:10.4103/ams.ams_47_14
- Cunha JLS, Hernandez-Guerrero JC, de Almeida OP, Soares CD, Mosqueda-Taylor A. Salivary Gland Tumors: A Retrospective Study of 164 Cases from a Single Private Practice Service in Mexico and Literature Review. *Head Neck Pathol.* 2021;15(2):523-531. doi:10.1007/s12105-020-01231-2
- Thompson L. World Health Organization classification of tumours: pathology and genetics of head and neck tumours. *Ear Nose Throat J.* 2006;85(2):74.
- Harrison W, Pittman P, Cummings T. Pleomorphic adenoma of the lacrimal gland: A review with updates on malignant transformation and molecular genetics. *Saudi J Ophthalmol.* 2018;32(1):13-16. doi:10.1016/j.sjopt.2018.02.014
- Hernandez-Prera JC, Skálová A, Franchi A, *et al.* Pleomorphic adenoma: the great mimicker of malignancy. *Histopathology.* 2021;79(3):279-290. doi:10.1111/his.14322
- Ismi O, Vayisog̃lu Y, Arpacı RB, *et al.* Carcinoma ex pleomorphic adenoma originating from ectopic salivary gland in the neck region: case report. *Gland Surg.* 2015;4(6):567-571. doi:10.3978/j.issn.2227-684X.2015.01.03
- Kajiyama A, Edo H, Inoue N, Yokouchi Y, Gomi T. Magnetic Resonance Imaging and Histopathology in a Case of Pleomorphic Adenoma of a Minor Salivary Gland in the Nasal Cavity. *Am J Case Rep.* 2019;20:679-684. doi:10.12659/AJCR.915491
- Khanna D, Chaubal T, Bapat R, Abdulla AM, Philip ST, Arora S. Carcinoma ex pleomorphic adenoma: a case report and review of literature. *Afr Health Sci.* 2019;19(4):3253-3263. doi:10.4314/ahs.v19i4.50
- Knight J, Ratnasingham K. Metastasizing pleomorphic adenoma: Systematic review. *Int J Surg.* 2015;19:137-145. doi:10.1016/j.ijsu.2015.04.084
- Lee YY, Wong KT, King AD, Ahuja AT. Imaging of salivary gland tumours. *Eur J Radiol.* 2008;66(3):419-436. doi:10.1016/j.ejrad.2008.01.027
- Iida Y, Serizawa M, Mukaigawa T, *et al.* Molecular profile of a pleomorphic adenoma of the hard palate: A case report. *Medicine (Baltimore).* 2020;99(29):e21207. doi:10.1097/MD.00000000000021207
- Lindeboom JA, Ho JTF, Donner N, Schreuder WH. Pediatric Pleomorphic Adenoma of the Palate. *Case Rep Dent.* 2021;2021:9938672. doi:10.1155/2021/9938672
- Mengi E, Kara CO, Tumkaya F, Ardic FN, Topuz B, Bir F. Salivary gland tumors: A 15-year experience of a university hospital in Turkey. *North Clin Istanb.* 2020;7(4):366-371. doi:10.14744/nci.2020.57767
- Nonitha S, Yogesh TL, Nandaprasad S, Maheshwari BU, Mahalakshmi IP, Veerabasavaiah BT. Histomorphological comparison of pleomorphic adenoma in major and minor salivary glands of oral cavity: A comparative study. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2019;23(3):356-362. doi:10.4103/jomfp.JOMFP_91_19.
- Ochicha O, Malami S, Mohammed A, Atanda A. A histopathologic study of salivary gland tumors in Kano, northern Nigeria. *Indian J Pathol Microbiol.* 2009;52(4):473-476. doi:10.4103/0377-4929.56121
- Patigaroo SA, Patigaroo FA, Ashraf J, *et al.* Pleomorphic adenoma of hard palate: an experience. *J Maxillofac Oral Surg.* 2014;13(1):36-41. doi:10.1007/s12663-012-0448-5.
- Reinheimer A, Vieira DS, Cordeiro MM, Rivero ER. Retrospective study of 124 cases of salivary gland tumors and literature review. *J Clin Exp Dent.* 2019;11(11):e1025-e1032. doi:10.4317/jced.55685
- Satpathy Y, Spadigam AE, Dhupar A, Syed S. Epithelial and stromal patterns of pleomorphic adenoma of minor salivary glands: A histopathological and histochemical study. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2014;18(3):379-385. doi:10.4103/0973-029X.151319
- Seethala RR, Stenman G. Update from the 4th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours: Tumors of the Salivary Gland. *Head Neck Pathol.* 2017;11(1):55-67. doi:10.1007/s12105-017-0795-0
- Seifert G, Sobin LH. The World Health Organization's Histological Classification of Salivary Gland Tumors. A commentary on the second edition. *Cancer.* 1992;70(2):379-385. doi:10.1002/1097-0142(19920715)70:2<379::aid-cnrcr2820700202>3.0.co;2-c
- Wu YC, Wang YP, Cheng SJ, Chen HM, Sun A, Chang JY. Clinicopathological study of 74 palatal pleomorphic adenomas. *J Formos Med Assoc.* 2016;115(1):25-30. doi:10.1016/j.jfma.2015.09.008
- Yousra Z, Salih C. Pleomorphic adenoma of hard palate: a case report. *Pan Afr Med J.* 2021;38:146. doi:10.11604/pamj.2021.38.146.26508