

Reporte de caso

Medwave 2015 Jul;15(6):e6192 doi: 10.5867/medwave.2015.06.6192

Adenoma pleomorfo sobre heterotopía salival: reporte de caso y revisión de la literatura

Pleomorphic adenoma on heterotopic salivary inclusion: case report and literature review

Autores: Cristian Papuzinski Aguayo[1,2], Rodrigo Selamé Glena[1], Jaime Bermeo Sanchez[1,2], Carlo Lozano Burgos[1,2]

Filiación:

[1] Hospital Carlos Van Buren, Valparaíso, Chile

[2] Facultad de Medicina, Universidad de Valparaíso, Valparaíso, Chile

E-mail: cpapuzinski@gmail.com

Citación: Papuzinski Aguayo C, Selamé Glena R, Bermeo Sanchez J, Lozano Burgos C. Pleomorphic adenoma on heterotopic salivary inclusion: case report and literature review. *Medwave* 2015 Jul;15(6):e6192 doi: 10.5867/medwave.2015.06.6192

Fecha de envío: 2/6/2015

Fecha de aceptación: 17/7/2015

Fecha de publicación: 23/7/2015

Origen: no solicitado

Tipo de revisión: con revisión por dos pares revisores externos, a doble ciego

Palabras clave: heterotopic salivary inclusion, pleomorphic adenoma, cervical mass

Resumen

La presencia de tejido salival fuera de las glándulas salivales se denomina heterotopía salival. Es poco frecuente, pero puede ser asiento de todo el espectro de patologías de las glándulas salivales. Se presenta un caso poco común de un adenoma pleomorfo en la región superior del cuello, desarrollado sobre una inclusión de tejido salival en un linfonodo, de manera independiente a las glándulas salivales. Se revisa la dificultad del diagnóstico diferencial dentro de las masas cervicales, su embriogénesis, manifestación clínica y tratamiento.

Abstract

Heterotopic salivary gland tissue is the presence of salivary tissue outside of the salivary glands. It is an uncommon condition but it can be the source of the full spectrum of salivary gland diseases. We present a rare case of pleomorphic adenoma developing from heterotopic salivary gland tissue in an upper neck lymph node not related to the major salivary glands. This article reviews the difficulty of the differential diagnosis with other cervical masses, embryogenesis, clinical manifestations and treatment of this condition.

Introducción

El tejido salival heterotópico, descrito por primera vez en 1789 por Hunczovsky, corresponde a la presencia de tejido salival fuera de las glándulas salivales [1]. Puede encontrarse en varias zonas del organismo, tales como linfonodos, hipófisis, conducto auditivo externo, mastoides, región cervical en general, entre otras. En el cuello se encuentra preferentemente a lo largo del borde anterior del músculo esternocleidomastoideo. Su localización en el tercio superior del cuello es poco frecuente [1]. Al igual que

el tejido normotópico, la heterotopía salival es susceptible de asentar patología tumoral de glándulas salivales [1].

La embriogénesis de la heterotopía salival no está totalmente aclarada, existiendo tres hipótesis generales. La primera sería la persistencia y desarrollo anormal de estructuras vestigiales, la segunda la diferenciación anormal de tejidos locales, mientras que la tercera hipótesis habla de la dislocación de una porción de un órgano rudimentario definitivo durante su migración y

desarrollo [2]. La heteropía salival del tercio superior del cuello se debería al atrapamiento de tejido salival en linfonodos paraparotídeos [1]. El espectro histológico de patologías tumorales dependientes de la heterotopía salival es similar al de las glándulas normotópicas, siendo benignos cerca del 80% de los tumores [1],[3]. En un reporte retrospectivo de 24 casos en una revisión de 25 años, se describe el tumor de Whartin como el más frecuente, seguido por el adenoma pleomorfo en lo que respecta a las neoplasias benignas [3].

Las heterotopías salivales pueden manifestarse como masas, quistes o fístulas, generalmente durante la edad adulta [2]. Debido a la baja frecuencia de esta patología, el diagnóstico diferencial con otras masas cervicales es arduo. Un dilema diagnóstico de particular dificultad es diferenciar tumores primarios de la heterotopía versus metástasis de otros tumores [2]. El manejo de la patología dependiente de las heterotopías salivales debe basarse en un examen clínico prolijo, punción aspirativa con aguja fina e imagenología para estudiar glándulas salivales y cuello. Este estudio permite plantear la exéresis de la lesión,

parotidectomía, disección cervical y/o radioterapia según corresponda [3].

En este artículo se presenta un caso poco frecuente de adenoma pleomorfo de una heterotopía salival cervical alta, revisando su diagnóstico dentro de las posibilidades de las masas cervicales y su manejo.

Caso clínico

Paciente de sexo femenino de 76 años que en noviembre de 2013, en estudio por síndrome vertiginoso, presenta aumento de volumen cervical izquierdo alto, pesquisado al examen físico.

La paciente cuenta con antecedentes de hipertensión arterial, insuficiencia cardíaca, diabetes mellitus tipo 2, hipotiroidismo y gonartrosis, todas las patologías compensadas y en control. En su historia clínica destaca que en el año 1958 presentó un adenoma pleomorfo de parótida izquierda, operado y reoperado por recidiva, más radioterapia posterior, con resolución completa del cuadro (Figura 1).

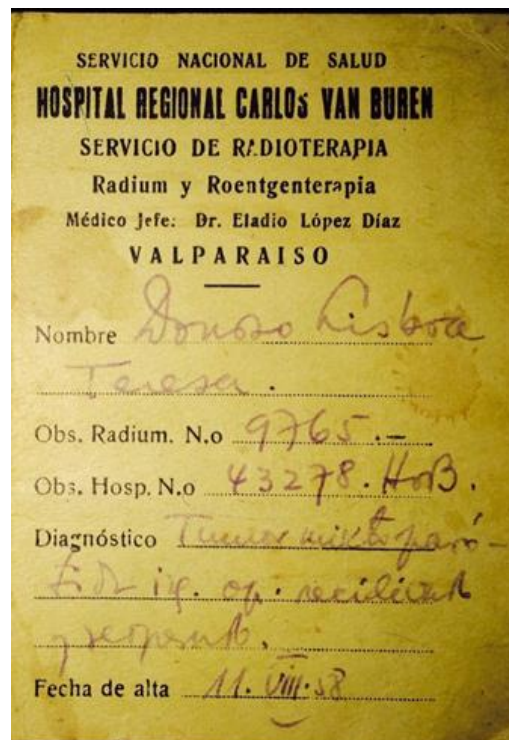


Figura 1. Carné de alta del antiguo Servicio de Radioterapia del Hospital Carlos van Buren en el año 1958.

En 2007, en control por cirugía maxilofacial, se detecta lesión nodular ulcerada en paladar duro de cerca de un mes de evolución, cuya biopsia incisional informa un adenocarcinoma polimorfo de bajo grado. Se decide la resección tumoral con plastía, la que se realiza en junio de 2007 por el equipo del Servicio de Otorrinolaringología. La biopsia diferida reveló un carcinoma mucoepidermoide de bajo grado, con bordes de sección libres de lesión. Durante

el seguimiento, en el año 2013, se pesquisa un aumento de volumen cervical izquierdo alto (Figura 2). Se decide iniciar el estudio del aumento de volumen cervical con una punción aspirativa con aguja fina, informando población celular neoplásica benigna compatible con origen en un adenoma pleomorfo. La paciente no asiste a reiterados controles posteriores.



Figura 2. Aumento de volumen cervical izquierdo en nivel II.

En septiembre de 2014 vuelve a controles, donde se aprecia persistencia del aumento de volumen cervical izquierdo en nivel II, subcutáneo, único, tamaño cercano a dos centímetros, consistencia indurada, no doloroso. Al ser una neoplasia de aspecto morfológico benigno, se sugiere su origen en tejido heterotópico de glándulas salivales

(Figuras 3, 4 y 5). Se indica exéresis de la lesión, realizándose la resección completa de la adenopatía cervical izquierda, única, superficial, sin incidentes. La biopsia diferida informa un adenoma pleomorfo, indicando que impresiona como adenoma pleomorfo primario de un linfonodo sobre una heterotopía de glándula salival.

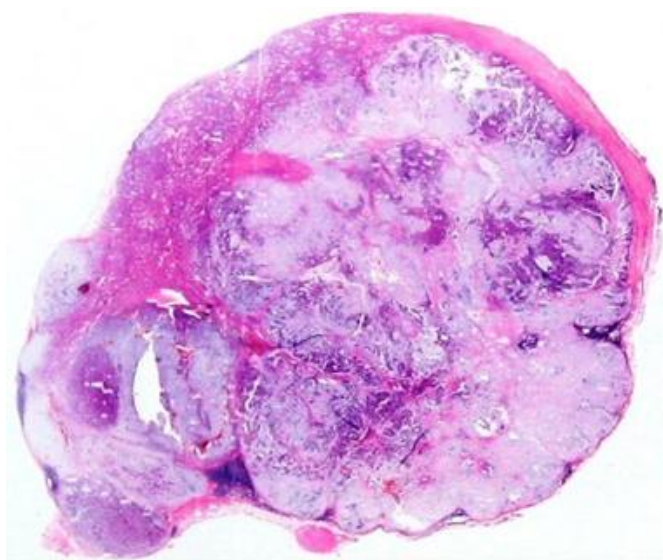


Figura 3. Hematoxilina-Eosina de 1x a 100x. Adenoma pleomorfo ocupando el parénquima de un linfonodo.

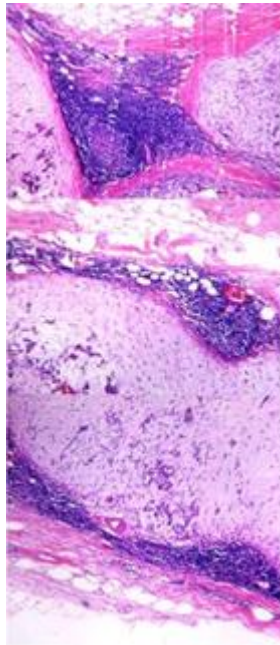


Figura 4. Se destacan remanentes de un linfonodo que incluyen un folículo linfoide y la cápsula.

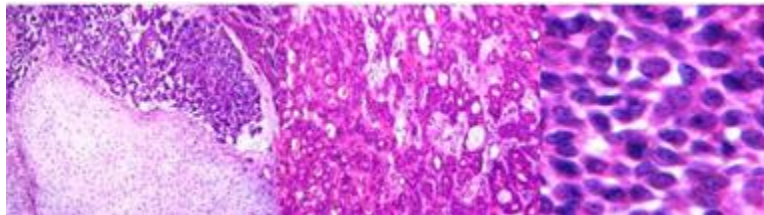


Figura 5. Se resalta el componente estromal de tipo mixocondroide de la neoplasia y las células epiteliales dispuestas en sábanas o formando túbulos, con uniformidad nuclear, sin pleomorfismo ni figuras mitóticas

Sobre la cicatriz de la resección aparece un nódulo blando, por lo que se decide completar estudio con imágenes y nueva punción aspirativa con aguja fina. Se realiza una tomografía computarizada cervical en noviembre de 2014, sin encontrar alteraciones. La punción aspirativa del nódulo blando en relación a la cicatriz reciente, informa población celular benigna constituida por macrófagos y células estromales, sin células neoplásicas.

Se presenta en el Comité de Oncología y Otorrinolaringología, donde se define control y seguimiento estricto. La paciente se mantiene sin signos de recidiva en controles reiterados.

Discusión

El tejido salival heterotópico es poco frecuente en linfonodos cervicales, pero al estar presente puede asentar cualquier patología asociada a las glándulas salivales [1]. Las formas benignas son las más comunes, localizadas en el tercio superior del cuello y generalmente en adultos [2].

Por esta razón, es difícil efectuar el diagnóstico diferencial dentro del espectro de cuadros clínicos que se presentan con masas cervicales.

El adenoma pleomorfo es una neoplasia benigna frecuente en las glándulas salivales mayores, especialmente en la parótida. En la literatura ya existen casos descritos, tanto de adenoma pleomorfo dentro de heterotopías salivales como de carcinoma ex adenoma pleomorfo [1],[2],[4]. Los tumores malignos de glándulas salivales en la región cervical son raros, pero significan un dilema diagnóstico [3]. La probabilidad de que correspondan a metástasis obliga a hacer una exhaustiva búsqueda de tumores primarios, antes de considerarse como originarios de la heterotopía salival [1].

En este caso en particular, se considera poco probable la opción de que la masa cervical presentada corresponda a una metástasis o recurrencia del tumor primario de parótida tratado en 1958, dadas las características histológicas [5]. Siguiendo literatura disponible, se estima

que el tumor nace del tejido heterotópico en el linfonodo, por las siguientes razones:

- a) El tumor impresiona como lesión primaria sin signos de malignidad.
- b) La histología demuestra que el tumor está confinado al tejido linfoide y no se extiende a los tejidos subyacentes.
- c) El tejido linfoide que rodea al tumor tiene las características esenciales de los linfonodos.
- d) No existen figuras mitóticas.
- e) La búsqueda exhaustiva con imágenes del tumor primario no encontró ninguna lesión sugerente [3],[5],[6].
- f) Ausencia de cambios en los controles posteriores a la exéresis.

En el diagnóstico de este tipo de tumores, en general la sospecha se inicia con un examen físico que evidencia una masa cervical. La imagenología y punción aspirativa con aguja fina ayudarán a precisar el diagnóstico, pero solamente podrá ser confirmado con la biopsia de la pieza quirúrgica [1],[3],[4],[7],[8],[9],[10].

El tratamiento de las lesiones benignas consiste en la excisión simple y seguimiento estricto, lo que no ha demostrado recurrencias [1],[3],[5],[7]. Antiguamente el tratamiento del adenoma pleomorfo podía incluir radioterapia luego de la excisión, como fue el caso de la recidiva de esta paciente en 1958. Esta técnica ha sido dejada de lado, considerando la exéresis completa como el tratamiento definitivo.

Conclusión

En este artículo se presentó un caso poco frecuente de adenoma pleomorfo sobre una heterotopía de glándulas salivales, en un linfonodo del nivel II del cuello. La baja frecuencia de cuadros similares dificulta la sospecha dentro de las posibilidades diagnósticas de las patologías que se presentan con masas cervicales, por lo que no se deben olvidar. Para lograr un adecuado diagnóstico, se requiere de una elevada sospecha clínica, exámenes de imagen y estudios con punción aspirativa con aguja fina y biopsia.

Notas

Conflictos de intereses

Los autores han completado el formulario de conflictos de intereses del ICMJE y declaran no tener conflictos de intereses asociados a la materia del artículo. Los formularios pueden ser solicitados al autor responsable o a la dirección editorial de la *Revista*.

Aspectos éticos

La revista tiene constancia del consentimiento escrito otorgado por la paciente para la presentación de la información contenida en artículo.

Referencias

1. Tay HL, Howitt RJ. Heterotopic pleomorphic adenoma in the neck. *J Laryngol Otol.* 1995 May;109(5):445-8. | [PubMed](#) |
2. Daniel E, McGuiert WF Sr. Neck masses secondary to heterotopic salivary gland tissue: a 25-year experience. *Am J Otolaryngol.* 2005 Mar-Apr;26(2):96-100. | [PubMed](#) |
3. Daniel E, McGuiert WF Sr. Neck masses secondary to heterotopic salivary gland tissue: a 25-year experience. *Am J Otolaryngol.* 2005 Mar-Apr;26(2):96-100. | [PubMed](#) |
4. Ismi O, Vayisoğlu Y, Arpacı RB, Eti C, Pütürgeli T, Gorur K, et al. Carcinoma ex pleomorphic adenoma originating from ectopic salivary gland in the neck region: case report. *Gland Surg* 2015;(Ahead of print). | [Link](#) |
5. Shinohara M1, Ikebe T, Nakamura S, Takenoshita Y, Oka M, Mori M.. Multiple pleomorphic adenomas arising in the parotid gland and submandibular lymph nodes *Br J Oral Maxillofac Surg.* 1996 Dec;34(6):515-9. | [PubMed](#) |
6. Galvan GN, de Leon MD, Instrella RA, See NS. Pleomorphic adenoma arising from heterotopic salivary gland tumor in a supraclavicular lymph node. *Philippine J Otolaryngol Head and Neck Surg.* 2008;23(2):35-7. | [Link](#) |
7. Ferlito A, Baldan M, Andretta M, Blandamura S, Pesavento G, Piazza M. Implantation of parotid pleomorphic adenoma in the upper neck. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec.* 1991;53(3):165-76. | [PubMed](#) |
8. Evans MG, Rubin SZ. Pleomorphic adenoma arising in a salivary rest in childhood. *J Pediatr Surg.* 1991 Nov;26(11):1314-5. | [PubMed](#) |
9. Surana R, Moloney R, Fitzgerald RJ. Tumours of heterotopic salivary tissue in the upper cervical region in children. *Surg Oncol.* 1993;2(2):133-6. | [PubMed](#) |
10. Seifert G. [Primary salivary gland tumors in lymph nodes of the parotid gland. Report of 3 cases and review of the literature]. *Pathologie.* 1997 Mar;18(2):141-6. | [PubMed](#) |

Correspondencia a:
Servicio de Otorrinolaringología,
Hospital Carlos Van Buren
Blas Cuevas N° 964
Subida El Litre
Valparaíso
Chile



Esta obra de Medwave está bajo una licencia Creative Commons Atribución-No Comercial 3.0 Unported. Esta licencia permite el uso, distribución y reproducción del artículo en cualquier medio, siempre y cuando se otorgue el crédito correspondiente al autor del artículo y al medio en que se publica, en este caso, Medwave.