

**CASO CLINICO**

ISSN: 1315 2823

Abordaje transcervical para adenoma pleomorfo gigante en glándula submandibular izquierda. Reporte de caso**Transcervical approach for giant pleomorfo adenoma in left submandibular gland. Case report**Rodríguez Mairim¹, Barrios Eduardo², Castro Bairon³, Linares Manuel⁴, Solano Nicolás⁵

¹Cirujana Bucal. Universidad del Zulia. ²Médico Cirujano especialista en Cirugía General. Adjunto del Servicio de cirugía general Hospital Universitario de Maracaibo. ³Cirujano Oncólogo, Jefe del Servicio de cirugía de cabeza y cuello Hospital Universitario de Maracaibo. ⁴Residente de 2do año de postgrado de Cirugía Bucal de la Universidad del Zulia. ⁵Cirujano Bucal y Maxilofacial, Jefe del servicio Cirugía Bucal y Maxilofacial del Hospital Universitario de Maracaibo.
mairimrodriguez5@gmail.com

Recibido: 11/08/2016
Aceptado: 05/11/2016**Resumen**

Los tumores de las glándulas salivales constituyen alrededor del 0,4%- 13,5% casos por 100.000 habitantes de las neoplasias de cabeza y cuello, siendo la parótida la más afectada en el 85%. En la siguiente investigación se determinan características clínicas, imagenológicas y el manejo quirúrgico de una lesión de gran tamaño en la glándula submandibular izquierda, con diagnóstico de adenoma pleomorfo. Se trata de paciente femenina de 45 años de edad que acudió al Servicio de Cirugía Oncológica del Hospital Universitario de Maracaibo, presentando inicio de la enfermedad actual 16 meses previos a su consulta caracterizado por aumento de volumen en región cervical izquierda de 9x7x6cm sin evidencia de signos de flogosis, asintomática, sin tratamiento previo. Se realizó biopsia excisional bajo anestesia general mediante abordaje transcervical realizando resección de la lesión y exéresis de la glándula submandibular izquierda. El abordaje quirúrgico debe incluir la resección de la glándula submandibular por adenoma pleomorfo benigno ya que es el tratamiento de primera línea, evitando la recidiva y malignización de estas tumoraciones. La terapéutica siempre presentará sus ventajas y desventajas vinculadas con el abordaje que dependerá del tamaño de la lesión, siendo el abordaje extraoral el que brinda mejores resultados operatorios y postoperatorios en lesiones de gran tamaño.

Palabras clave: glándula submandibular, cicatriz, biopsia

Summary

Tumors of the salivary glands make up about 0.4% - 13.5% cases per 100,000 inhabitants of head and neck neoplasms, with the parotid most affected in 85%. In the following investigation, clinical features, imaging and surgical management of a large lesion in the left submandibular gland, with diagnosis of pleomorphic adenoma, are determined. This is a 45-year-old female patient who came to the Oncologic Surgery Service of the University Hospital of Maracaibo, presenting the onset of the current disease 16 months prior to her appointment, characterized by an increase in volume in the left cervical region of 9x7x6cm without evidence of signs of flogosis, asymptomatic, without previous treatment. An excisional biopsy was performed under general anesthesia using a transcervical approach, performing resection of the lesion and excision of the left submandibular gland. The surgical approach should include resection of the submandibular gland by benign pleomorphic adenoma as it is the first-line treatment, avoiding the recurrence and malignization of these tumors. Therapeutics will always present its advantages and disadvantages related to the approach that will depend on the size of the lesion, being the extraoral approach that provides better postoperative and operative results in large lesions.

Key words: submandibular glands, scar, biopsy.

Introducción

Los tumores de las glándulas salivales constituyen alrededor del 5% de las neoplasias de cabeza y cuello. Actualmente en el libro de la OMS publicado en el 2012 estableció que varían desde el 0,4%- 13,5% casos por 100.000 habitantes.

La glándula parótida, es la más afectada casi en un 85%, mientras que las glándulas submaxilar y salivales menores (principalmente paladar) representan aproximadamente el 7%¹. Estas tumoraciones pueden derivar del epitelio salival (parenquimatosos) o del estroma conjuntivo (mesenquimales). Afectando 1-3 individuos por cada 100.000, presentando su mayor frecuencia entre la cuarta y sexta década de la vida, la prevalencia es más alta en mujeres en una relación de 2 a 1.²

El tumor de glándulas salivales más común es el Adenoma Pleomorfo Benigno (APB) o Tumor Mixto Benigno³, representando del 33-77% de los tumores de glándulas parótida, el 44-68% de los tumores de las glándulas submandibulares y del 38-43% en las glándulas salivales menores, afectando en orden de frecuencia la unión del paladar duro y blando, labios, lengua, carrillo y piso de boca; raramente detectable en las glándulas sublinguales⁴. La histogénesis de esta lesión, se produce a partir de la proliferación de células ductales y mioepiteliales, desempeñando un rol importante en la apariencia y composición de los tumores mixtos; macroscópicamente se observan como una masa elástica ovoide de superficie suave, espesor de cápsula variable y de crecimiento lento; extendiéndose desde pocos milímetros a varios centímetros, pudiendo alcanzar proporciones gigantes dentro de una glándula salival mayor^{3,5}.

El término "Pleomorfo" hace referencia a la amplia variabilidad de diferenciación parenquimatosa y estromal mostrada por las células tumorales. Descrito por Minsén (1874) y posteriormente por Broca como un tumor mixto por creer que era de origen doble, epitelial y conectivo. El APB es conocido con diversos nombres: Enclavoma, Branquioma, Endotelioma, Encondroma, Tumor Mixto y Tumor Mixto Benigno, este último sugerido por Willis permanece en vigencia; fue otorgado al

observar un patrón histológico poco usual que lo caracteriza exhibiendo tejido epitelial entremezclado con diferentes tejidos de origen mesenquimal.⁶⁻⁸

Reporte de caso

Se presenta el caso de paciente de 45 años de edad que acude al servicio de cirugía oncológica del Hospital Universitario de Maracaibo, presentando aumento de volumen en región cervical izquierda, asintomática, sin tratamiento previo de aproximadamente 1 año de evolución. A la anamnesis la paciente niega antecedentes médicos de importancia. Al examen físico se evidencia paciente con obesidad mórbida, afebril, hemodinámicamente estable, hidratada, con buena coloración de piel y mucosas.

A la valoración extraoral estomatológica, se observa aumento de volumen en región cervical izquierda de 9x7x6cms bien delimitada, poco móvil, de base sésil, superficie lisa, indurada, adherida a planos profundos, sin adenopatías palpables, sin relación con movimientos deglutorios, sin evidenciarse signos de flogosis.



Fig. 1. Fotografía extraoral donde se observa aumento de volumen en la región cervical izquierda.

En el examen intraoral, se evidencia edentulismo parcial sin presencia de aumento de volumen, cambios de coloración, ulceraciones o signos indicativos de hallazgos tumorales. Se ordenó una TC de cara y cuello donde se observa imagen isodensa en relación con la glándula submandibular izquierda, con discreto desplazamiento de la vía aérea que no involucra el paquete vasculonervioso del cuello.



Fig. 2. Tomografía computarizada de cara y cuello, donde se observa imagen isodensa de bordes bien definidos en relación con la glándula submandibular izquierda, con discreto desplazamiento de la vía aérea que no involucra el paquete vasculonervioso del cuello.

Se indica la realización de una biopsia excisional bajo anestesia general mediante incisión transversal a través del cuello con incisión vertical, disecándose el plano cutáneo con hoja de bisturí No 15, para continuar el procedimiento con electrofulguración del tejido celular subcutáneo, músculo platisma, aponeurosis cervical superficial y ligadura de vasos cervicales superficiales. Se aborda la celda submandibular protegiendo el paquete vasculonervioso facial, realizando exéresis de la lesión y glándula submandibular izquierda mediante disección roma con pinzas de mosquito y tijera de metzenbaum, ligadura del conducto de Wharton, control de hemostasia, colocación de dren de Jackson-Pratt. Síntesis de tejidos blandos

por planos afrontando la aponeurosis cervical superficial con vicryl 3-0, rafia de musculo platisma con vicryl 3-0, tejido celular subcutáneo con simple 2-0 y plano cutáneo con nylon 3-0, concluyendo el acto quirúrgico con cura de la herida. Se solicitó estudios histopatológicos del espécimen obtenido, reportando Adenoma Pleomorfo Benigno de glándula submandibular izquierda.



Fig. 3. Fotografía intraoperatoria del abordaje quirúrgico transcervical, donde se observa la tumoración que ocupa la zona I de cuello, protegiendo el paquete vasculonervioso facial, realizando exéresis de la lesión y glándula submandibular izquierda mediante disección con pinzas de mosquito y tijera de metzenbaum.

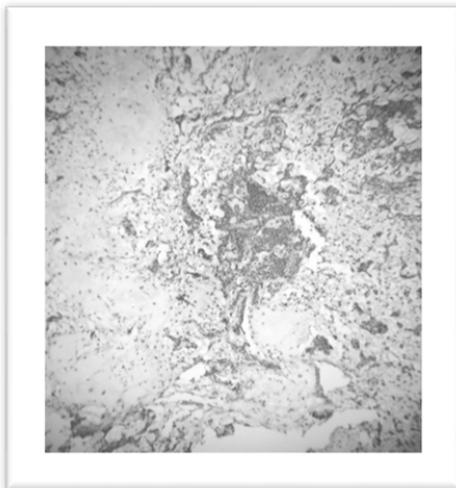


Fig. 4. Corte histológico. Estroma mixoide con proliferación de células epiteliales y mioepiteliales organizadas en acumulo de forma y tamaño variado e individualmente.

Discusión

El APB es un tumor que generalmente crece en el lóbulo superficial de la glándula parótida, menos común en el lóbulo profundo parotídeo y glándula submandibular cuyo crecimiento y tamaño son criterios para la selección de su abordaje terapéutico, el tratamiento de primera elección para esta tumoración es la excisión quirúrgica, sin embargo se ha descrito que en algunos casos la resección se acompaña de radioterapia como tratamiento coadyuvante para erradicar márgenes positivos del tumor y en APB de gran tamaño que sean inoperables por su ubicación.⁹

Las glándulas salivales constituyen uno de los órganos con mayor variedad de expresión histopatológica, debido a la presencia de células en los conductos epiteliales. Debido a esta gran diversidad y a la ausencia de un criterio unánime, han surgido numerosas clasificaciones según los autores y las escuelas, lo cual puede llevar incluso a una actitud terapéutica errónea por parte del cirujano.^{18,19}

Estudios han reportado un tamaño variado de esta tumoración comprendido desde 1- 10 cm de diámetro, en región parotídea y submandibular¹⁰, no obstante, Perumal et al.⁴ reportaron un caso de APB submandibular con dimensiones de 16 x 15 x 12 cm. En el caso presentado se trató de una lesión tumoral localizada en el triángulo submandibular izquierdo de 9x7x6 cms asociada a la glándula submandibular con diagnóstico histopatológico de Adenoma Pleomorfo Benigno en una paciente de 45 años de edad.

Arribas I¹¹, Tsung L¹² y Lee JC¹³ han descrito que la toma de decisiones sobre el abordaje quirúrgico dependerá del tamaño del tumor y las estructuras anatómicas involucradas en el crecimiento de este, en lesiones pequeñas el abordaje ideal será el intraoral y en las de gran tamaño el abordaje extraoral. Sin embargo, este

último permite realizar una adecuada exéresis de la glándula y reduciendo la posibilidad de nuevas apariciones a largo plazo y la malignización de las recidivas característica de esta entidad¹⁴; por lo que se ha recomendado la exéresis del tumor con un margen libre de 1cm de tejido circundante⁹. Autores como Ojeda et al. sugieren que la submaxilectomía por vía cervical es el abordaje de elección puesto que por vía oral la exposición del campo operatorio es menos amplia y se pueden producir iatrogenias de los nervio lingual e hipogloso.²²

Hong et al.¹⁵, reportaron mediante una revisión de 12 pacientes con APB de la glándula submandibular extirpado con abordaje intraoral que el 50% de los pacientes presentaron parestesia del nervio lingual que se resolvió a los pocos días, además de limitación temporal y parcial del movimiento de la lengua y piso de la boca debido a la inflamación de la misma que se resolvió a las 2 semanas.

Estudios han reportado los beneficios y desventajas del empleo de la técnica cervical versus el abordaje intraoral en el tratamiento quirúrgico de APB como acceso a la glándula submaxilar y exéresis de la misma. La ventaja del abordaje intraoral es la eliminación de la cicatriz cervical y el riesgo de lesión de la rama marginal de la porción extraparotídea del nervio facial, presentando desventajas como visión reducida por el estrecho campo quirúrgico, tiempo de cirugía prolongado debido a la mayor dificultad técnica y la posibilidad de lesión del nervio lingual por lo que la curva de aprendizaje de esta técnica condicionará la reducción del tiempo quirúrgico^{16,17}. Una estricta hemostasia del lecho quirúrgico de estos pacientes con la colocación de un drenaje es fundamental para evitar la presencia de hematomas en la región. En este caso, se utilizó la colocación de un dren aspirativo tipo Jackson-pratt en la región submandibular izquierda fijado a la piel con sutura seda 3/0 y retirado al tercer día postoperatorio.

Con respecto al pronóstico diversos autores concluyen que el mismo será excelente si la resección es adecuada. La radioterapia se reservara para las recidivas y casos inoperables²⁰. Se ha descrito la posibilidad de transformación maligna (2-9%) generalmente a adenocarcinoma o carcinoma indiferenciado, aumentando el riesgo con la duración del tumor y con la edad del paciente.²¹

Conclusiones

El abordaje transcervical es el más recomendado en lesiones de gran tamaño ya que permite un campo quirúrgico amplio para la adecuada exéresis del tumor y de la glándula submandibular disminuyendo el porcentaje de recurrencia, y mediante la disección adecuada de tejidos e identificación correcta de las estructuras anatómicas minimiza considerablemente morbilidades postoperatorias.

Referencias

1. Becerril P, Bravo G, Prado-Calleros H, Castillo B, Pombo A. Histología de tumores de glándulas submandibulares. Experiencia de 10 años. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2011;62(6):432-35
2. Goulart MC, Freitas P, Goulart GR, Oliveira AM, Carlos R, Soares CT, Lara VS. Pleomorphic adenoma with extensive squamous metaplasia and keratin cyst formations in minor salivary gland: a case report. *J Appl Oral Sci.* 2011; 19(2):182-8.
3. Gupta M, Chaudhary N, Gupta M. Giant presentation of pleomorphic adenoma in major salivary gland. *BMJ Case Reports* 2011; doi:10.1136/bcr.04.2011.4098
4. Perumal C, Meyer M, Mohamed A. A giant pleomorphic adenoma of submandibular

- salivary gland: A case report. *Craniomaxillofac Trauma Reconstr* 2012;5:185–8.
5. Soares AB, Araújo VC, Juliano PB, Altemani A. Angiogenic and lymphangiogenic microvessel density in recurrent pleomorphic adenoma. *J Oral Pathol Med*. 2009; 38:623-9.
 6. Ito FA, Jorge J, Vargas PA, Lopes MA. Histopathological findings of pleomorphic adenomas of the salivary glands. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2009;14(2):E57–E61.
 7. Ledezma MC, Garcés OM, Gómez MLR, Fernández LR, Medina NJ. Adenoma pleomorfo. *Asociación Dental Mexicana*. 2002; 59 (2): 58-62.
 8. Pérez V., Arias T. Adenoma pleomorfo gigante en glándulas salivales mayores. *Hospital Parirenyatwa. Zimbabwe. Reporte de un caso. Rev haban cienc med v.8 n.2 Ciudad de la Habana abr-jun 2009. Versión online ISSN 1729-519X*
 9. Alvarran G, Felzani R. Adenoma pleomórfico en paladar en un paciente joven. Reporte de caso. *Acta Odontológica Venezolana. Volumen 52 N°3/2014*.
 10. Patil P, Burde k, Naikmasur V, Thorawat A. Pleomorphic adenoma of submandibular gland: A case report with review of literature. *Dent Res J* 2014; 11(3): 411–414.
 11. Arribas I, Gómez G, Martínez F, Serrano A, Sánchez R, Álvarez M. Abordaje intraoral de la glándula submaxilar. Presentación de un abordaje estético poco utilizado. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac* 2015;37 (1):1–6
 12. Chang YN, Kao CH, Lin YS, Lee JC. Comparison of the intraoral and transcervical approach in submandibular gland excision. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2013; 270:669–74.
 13. Yang TL, Ko JY, Lou PJ, Wang CP, Hsiao TY. Gland-preserving robotic surgery for benign submandibular gland tumours: a comparison between robotic and open techniques. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2014;52 (5):420-4.
 14. Beahm DD, Peleaz L, Nuss DW, Schaitkin B, Sedlmayr JC, Rivera-Serrano CM, Zanation AM, Walvekar RR. Surgical approaches to the submandibular gland: a review of literature. *Int J Surg*. 2009; 7(6):503-9.
 15. Hong KH, Yang YS. Intraoral approach for the treatment of submandibular salivary gland mixed tumors. *Oral Oncol* 2008;44:491–5
 16. De Virgilio A, Park YM, Kim WS, Lee SY, Seol JH, Kim SH. Robotic sialoadenectomy of the submandibular gland via a modified face-lift approach. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2012; 41:1325–9.
 17. Min R, Zun Z, Siyi L, Wenjun Y, Jian S, Chenping Z. Gland-preserving surgery can effectively preserve gland function without increased recurrence in treatment of benign submandibular gland tumour. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2013;51 (7):615-9.
 18. Johns ME, Wachls NE. Tumores de las glándulas salivales. En: Paparella MH. *Otorrinolaringología. Cabeza y Cuello*. 3ra ed. Vol 3. Buenos Aires: Editorial Médica Panamericana; 1994. p.2451-83.
 19. Rice DH. Salivary gland diseases. Malignant salivary gland neoplasms. *Otolaryngol Clin North Am* 1999;32(5):875-86.
 20. Perez A, y cols- Treatment of pleomorphic adenoma. *Principles of practice of radiation oncology JB Lippincolt company. Philadelphia* 1987; 521.
 21. Vernetta P, Garcia F, Ramirez J. Adenoma pleomorfo gigante de glandula salivar menor. Extirpacion a través de un abordaje transoral. *Rev Esp Cir Oral y Maxilofac* 2008;30,3(mayo-junio):201-204.
 22. Ojeda L, Rengel F, Salazar S. Tumores benignos de las glándulas submaxilares. *Rev. Ac. Ec. ORL* 2005; (4)1.