

Revista Clínica de Periodoncia, Implantología y Rehabilitación Oral

Cistoadenoma de glándula salival menor en paladar: Reporte de dos casos y revisión de la literatura. Cystadenoma of the minor salivary gland on the palate: Report of two cases and review of the literature

Journal:	<i>International Journal of Interdisciplinary Dentistry</i>
Manuscript ID	REVISTA-2020-0130.R2
Manuscript Type:	Clinical Reports
Date Submitted by the Author:	02-Jan-2021
Complete List of Authors:	Sabelle-Herrera, Nicole; Universidad de Chile Facultad de Odontología, Escuela de Pregrado. Vergara-Gárate, Valentina; Universidad de Chile Facultad de Odontología, Departamento Cirugía y Traumatología bucal y maxilo facial espinoza, Iris; Facultad de Odontología, Universidad de Chile, Patología y Medicina Oral Pinares, Jorge; Universidad de Chile Facultad de Odontología, Departamento de Patología y Medicina Oral; Bravo, Rodrigo; Universidad de Chile Facultad de Odontología, Cirugía y Traumatología Bucal y Máxilo Facial; Hospital San José, Servicio de Salud Metropolitano Norte, Maxilofacial Maturana-Ramírez, Andrea; Facultad de Odontología de la Universidad de Chile, Patología y Medicina Oral; Hospital San José, Servicio de Salud Metropolitano Norte, Patología Oral y Máxilo Facial, CDT Dental/Servicio de Anatomía Patológica
Keywords:	neoplasia de glándulas salivales, cistoadenoma, paladar

SCHOLARONE™
Manuscripts

1
2
3 **Resumen:** El cistoadenoma es un tumor epitelial benigno de baja frecuencia en
4 glándulas salivales, que habitualmente se presenta como una masa de
5 crecimiento lento. En glándulas salivales menores se localiza habitualmente en
6 labio, paladar y mucosa yugal, cuyo diagnóstico diferencial representa un desafío
7 desde el punto de vista clínico. El propósito de este reporte es presentar 2 casos
8 de cistoadenoma en paladar, con énfasis en sus características clínicas y
9 diagnóstico diferencial.
10
11
12
13
14
15
16
17

18 **Palabras Claves:** neoplasia de glándulas salivales, paladar, cistoadenoma,
19 reporte de caso
20
21
22
23
24
25
26
27
28
29
30
31
32
33
34
35
36
37
38
39
40
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60

Introducción: El cistoadenoma es un tumor benigno de origen epitelial, de baja frecuencia y de crecimiento lento. Afecta con mayor frecuencia ovarios y páncreas; en la región de cabeza y cuello representa entre el 2 y 4,7% de todos los tumores de glándulas salivares. En parótida corresponde al 40-50% de los casos. En glándulas salivales menores, los lugares más comúnmente afectados son labio, mucosa yugal y paladar, este último representando sólo el 7% de los casos^(1,2,3). El cistoadenoma se presenta principalmente en adultos, leve predilección en mujeres⁽⁴⁾. Clínicamente, se observa como un nódulo, asintomático, cubierto por mucosa de aspecto normal, sin características distintivas. Sin embargo, en algunos casos puede exhibir una coloración azulada, de aspecto similar a mucocèle o a una lesión vascular⁽²⁾.

Su patrón histológico normalmente es de un crecimiento multiquístico, aunque un 20% puede ser unilocular. Los quistes se encuentran separados por un delgado tejido conjuntivo fibroso. El lumen usualmente presenta proyecciones papilares de epitelio cuboidal y/o cilíndrico. A menudo puede presentar diferenciación oncocítica. Los tumores no presentan atipia, mitosis o patrón de crecimiento invasivo⁽¹⁾. El tratamiento consiste en cirugía con resección completa de la lesión, a fin de evitar recurrencias ⁽³⁾.

Dada la baja frecuencia del cistoadenoma y sus indistintas características clínicas, el objetivo del presente reporte es mostrar dos casos de cistoadenoma en mucosa palatina, con especial énfasis en sus características clínicas y diagnóstico diferencial.

Reporte de Caso 1: Paciente de sexo femenino, 69 años, consulta por un aumento de volumen asintomático en paladar, de 10 años de evolución. La paciente presentaba hipertensión arterial e hipotiroidismo en tratamiento. Además,

1
2
3 era desdentada total superior y portadora de prótesis removible. Al examen
4
5 intraoral, presentaba tumoración de forma ovalada en paladar duro, de 12x7 mm,
6
7 cubierto por mucosa normal, superficie lisa, límites definidos, base sésil y
8
9 consistencia renitente (Figura 1). Se realizó biopsia con hipótesis clínica de
10
11 adenoma pleomorfo.
12

13
14 Al examen microscópico se presenta una muestra de mucosa oral compuesta por
15
16 un epitelio plano pluriestratificado paraqueratinizado, en cuyo corion destaca una
17
18 proliferación epitelial de estructura glandular, circunscrita por una fina capa de
19
20 fibras colágenas. Las células epiteliales presentaban un crecimiento con patrón
21
22 multiquístico, proliferación papilar intraluminal y estructuras tipo ducto. Las células
23
24 que tapizaban internamente las cavidades quísticas, presentaban morfología
25
26 oncocítica, otras cúbicas o cilíndricas ciliadas, con abundante infiltrado inflamatorio
27
28 crónico linfoplasmocitario. No se observaron atipias ni mitosis. Márgenes de la
29
30 lesión estaban comprometidos. El diagnóstico histopatológico fue cistoadenoma
31
32 de glándula salival menor (Figura 2).
33
34

35
36 Debido al compromiso del borde quirúrgico, se realizó una segunda intervención y
37
38 se envió nuevamente a análisis histopatológico confirmando el diagnóstico previo,
39
40 esta vez, sin márgenes comprometidos. La paciente se ha mantenido en controles
41
42 periódicos, inicialmente cada 3 meses, luego cada 6 meses y por último 1 vez al
43
44 año para evaluar en caso de que exista alguna recidiva.
45
46

47
48 **Reporte de Caso 2:** Paciente sexo femenino, 62 años, derivada por un aumento
49
50 de volumen en paladar a patología oral. Fumadora de 6-8 cigarrillos diarios,
51
52 presentaba hipertensión arterial en tratamiento, angioliipoma renal operado, así
53
54 como también depresión. En tratamiento farmacológico con losartán, litio y
55
56 paroxetina.
57
58
59
60

1
2
3 Al examen intraoral era desdentada total superior y parcial inferior, con múltiples
4 lesiones cariosas y portadora de prótesis. A nivel palatino presentaba nódulo en
5 límite de paladar duro-blando hacia la derecha, próximo a línea media,
6 redondeado, azul, superficie lisa, fluctuante, 5 mm de diámetro, indoloro, con un
7 tiempo de evolución desconocido (Figura 3). Se realizó ecografía de paladar por
8 sospecha de malformación vascular, que concluye lesión de aspecto quístico en el
9 sector posterior derecho de paladar duro, con contenido denso (Figura 4).

10
11
12 Se realizó biopsia excisional. Al examen microscópico se observó muestra
13 formada por epitelio de mucosa oral, en cuyo conjuntivo destaca múltiples
14 cavidades quísticas y una cavidad central de mayor tamaño bordeada por epitelio
15 cúbico y cilíndrico, en sectores pseudoestratificados, ciliado, con esbozos de
16 proyecciones papilares hacia el lumen y células con diferenciación apocrina. Se
17 observan, próximas a esta cavidad, otros sectores con cavidades quísticas de
18 similares características, pero de menor diámetro, y acinos de glándulas salivales
19 mucosas de aspecto normal. Los márgenes se encuentran comprometidos y no se
20 observa cápsula. El diagnóstico histopatológico fue de neoplasia de glándula
21 salival sugerente de cistoadenoma (Figura 5).

22
23 En una segunda intervención se realizó exéresis completa de la lesión, con
24 diagnóstico histopatológico de neoplasia residual en proceso fibroso cicatricial.
25 Clínicamente ha presentado una evolución favorable, con controles periódicos
26 durante 1 año y luego paciente no acude a control.

27
28 **Discusión:** El cistoadenoma en glándulas salivales menores es poco frecuente,
29 corresponde entre 0,7- 8,1% de los tumores de glándulas salivales⁽⁵⁾. En el
30 presente artículo presentamos dos casos de cistoadenoma, ambos con
31 localización palatina. Se ha descrito una frecuencia de cistoadenoma de un 65%

1
2
3 en glándulas salivales mayores y un 35% en glándulas salivales menores⁽⁶⁻⁸⁾. Sólo
4 el 7% se presenta en paladar⁽²⁾. En este tipo de lesiones es fundamental la toma
5 de biopsia, ya que la presentación maligna de tumores de glándulas salivales
6 menores puede verse desde un 35% a un 80% en paladar⁽⁹⁾.
7
8
9

10
11 Algunos reportes plantean un rango de edad que varía desde los 12 a los 89 años,
12 con un promedio de edad a los 50 años, y predominio en mujeres. En ambos
13 casos expuestos en este reporte coinciden en el género femenino, sin embargo,
14 excedían la edad promedio reportada^(1,5).
15
16
17

18 Clínicamente se presenta en glándulas salivales menores como un nódulo de
19 superficie lisa, frecuentemente con apariencia quística, de crecimiento lento e
20 indoloro, usualmente menor a 1 cm diámetro^(1,5).
21
22
23

24 Dentro de los diagnósticos clínicos diferenciales más habituales podemos
25 mencionar al mucocele, absceso submucoso, linfomas extranodales,
26 schwannoma, neurofibroma y tumores de glándulas salivales benignos como el
27 adenoma pleomorfo^(8,10).
28
29
30

31 Las presentaciones clínicas reportadas en la literatura comparten con nuestros
32 casos la apariencia nodular y superficie lisa. Respecto a la consistencia, existe
33 variabilidad en nuestros casos, el primero tenía una consistencia firme, lo que llevó
34 a plantear la hipótesis de adenoma pleomorfo, mientras que el segundo caso
35 presentaba consistencia fluctuante y coloración azulada, simulando una
36 malformación vascular o un carcinoma mucoepidermoide⁽¹¹⁾. En dichos casos,
37 muchas veces la ecotomografía aporta valiosa información diagnóstica, dada sus
38 bien conocidas ventajas⁽¹²⁾, especialmente en el estudio de lesiones pequeñas y
39 superficiales con transductor lineal de alta frecuencia, en donde otros métodos de
40 diagnóstico por imágenes presentan grandes limitaciones, especialmente en
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60

1
2
3 cuanto a artefactos, resolución espacial y de contraste⁽¹³⁾. En el caso 2 se solicitó
4 un estudio por ultrasonografía, para descartar una posible lesión vascular y
5
6 permitió orientarnos hacia un tumor de glándula salival.
7
8

9
10 A nivel histopatológico, el cistoadenoma se caracteriza por un crecimiento
11
12 benigno, multiquístico y papilar prominente, bien circunscrito o encapsulado^(3,5,6).
13
14 Puede presentar epitelio cuboidal, plano, columnar y raramente escamoso. Son
15
16 comunes los cambios oncocíticos o mucinosos en el epitelio y ocasionalmente
17
18 pueden ser predominantes. Algunos autores proponen que en estos casos el
19
20 tumor debería ser nombrado como cistoadenoma oncocítico o mucinoso. En
21
22 ocasiones el diagnóstico diferencial histopatológico es complejo, discriminando en
23
24 la identificación de infiltrado en el parénquima de la glándula salival o alrededor del
25
26 tejido conectivo con epitelio quístico o sólido⁽⁸⁾. En ambos casos presentados no
27
28 se observaron atipias celulares o mitosis, ni tendencia a infiltración local de células
29
30 en nidos rodeando el estroma. La apariencia clínica del segundo caso, se explica
31
32 a través de la histopatología encontrada, con la presencia de una gran cavidad
33
34 quística, que justifica su consistencia fluctuante y color azulado.
35
36
37

38
39 Entre los diagnósticos diferenciales histológicos están el quiste de retención
40
41 mucosa o ectasia ductal, pero que a diferencia del cistoadenoma, solo está
42
43 formado por una cavidad quística⁽⁵⁾; el Tumor de Warthin, también conocido como
44
45 Cistoadenoma papilar linfomatoso, pero que a diferencia del cistoadenoma,
46
47 contiene abundantes folículos linfoides asociados al epitelio tumoral⁽¹⁾. Respecto a
48
49 las variantes malignas, deben ser distinguidos del cistadenocarcinoma mucinoso
50
51 y el carcinoma mucoepidermoide de bajo grado⁽⁵⁾.
52
53

54
55 La cirugía es el tratamiento por excelencia para el cistoadenoma y la mayoría de
56
57 los casos se tratan con una excisión quirúrgica simple, pero con la profundidad
58
59
60

1
2
3 suficiente para llegar hasta el tejido glandular, asegurándose de eliminar toda la
4
5 lesión. La recurrencia en el sitio quirúrgico se ha reportado en algunas ocasiones,
6
7 pero en general se considera que es debido a la extirpación parcial de la lesión ⁽¹⁴⁾.
8
9

10 En los casos mencionados, las lesiones tenían en el primer caso una cápsula
11
12 delgada y en el segundo ausencia de cápsula, lo que dificultó la extirpación, ya
13
14 que ambas biopsias presentaron compromiso del borde quirúrgico. Por esto, es
15
16 importante la comunicación entre anatómo patólogo y cirujano, y mantener un
17
18 seguimiento exhaustivo de estos pacientes dependiendo de la localización del
19
20 tumor y su tamaño.
21
22

23 **Conclusión:** Los tumores en paladar deben siempre considerar entre sus
24
25 hipótesis diagnósticas neoplasias de glándulas salivales, benignas o malignas, por
26
27 lo que realizar estudios imagenológicos y biopsia es fundamental. Además es
28
29 importante que exista una buena comunicación entre el equipo tratante. Anatómo
30
31 patólogo, cirujano y radiólogo deben trabajar en conjunto para llegar a un correcto
32
33 diagnóstico y tratamiento exitoso. El cistoadenoma es poco frecuente en esta
34
35 localización, corresponde a una neoplasia benigna y se deben mantener controles
36
37 por riesgo de recidiva.
38
39
40
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60

RELEVANCIA CLÍNICA.

Este es un tumor epitelial benigno de muy baja frecuencia, que en los casos analizados se presenta en una misma ubicación, pero con una presentación clínica muy distinta. Por lo que parece esencial que los tumores en paladar deben siempre considerar entre sus hipótesis diagnósticas neoplasias de glándulas salivales, benignas o malignas, por lo que realizar estudios imagenológicos y biopsia es fundamental.

CONFLICTO DE INTERESES

Los autores de este artículo no tienen intereses en competencia.

FUENTES DE FINANCIAMIENTO

Los autores de este artículo no recibieron financiación para este artículo.

APROBACIÓN ÉTICA

No aplica.

CONSENTIMIENTO DE LOS PACIENTES

Se obtuvieron los consentimientos.

1
2
3 **Abstract:** Cystadenoma is a low-frequency benign epithelial tumor of the salivary
4 glands, which usually presents as a slow-growing mass. In minor salivary glands it
5 is usually located in the lip, palate and buccal mucosa, whose differential diagnosis
6 represents a challenge from the clinical point of view. The purpose of this report is
7 to present 2 cases of palate cystadenoma, with emphasis on its clinical
8 characteristics and differential diagnosis.
9
10
11
12
13
14
15
16
17
18
19
20
21
22

23 **KEY WORDS:** salivary gland neoplasm, palate, cystadenoma, case report.
24
25
26
27
28
29
30
31
32
33
34
35
36
37
38
39
40
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS.

1. El-Naggar A.K., Chan J.K.C., Grandis J.R., Takata T., Slootweg P.J. (Eds). WHO Classification of Head and Neck Tumours. 4th Edition. IARC: Lyon, 2017.
2. Barnes L, Everson JW (Eds). World Health Organization Clasification of Tumors, Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours, 3a ed. IARC/WHO Press, Lyon, Geneva, 2005.
3. Tjioe KC, de Lima HG, Thompson LD, Lara VS, Damante JH, de Oliveira-Santos C. Papillary Cystadenoma of Minor Salivary Glands: Report of 11 Cases and Review of the English Literature. *Head Neck Pathol.* 2015;9(3):354-359.
4. Peel R, Seethala R. Pathology of the salivary glands. In: Myers E, Ferris R. *Salivary gland disorders* (pp 33-104). Springer Heidelberg, Germany. Second edition, 2007.
5. Auclair PL, Ellis GL and Gnepp DR. Other benign epithelial neoplasms. In: *Surgical Pathology of the Salivary Glands*. WB Saunders Company, Philadelphia, PA, 2008.
6. Guccion JG, Redman RS, Calhoun NR, Saini N. Papillary cystadenoma of the palate: a case report and ultrastructural study. *J Oral Maxillofac Surg.* 1997;55(7):759-764.
7. Kacker A, de Serres LM. Congenital cystadenoma of the tongue in a neonate case report with review of literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2001;60(1):83-86.
8. Lim CS, Ngu I, Collins AP, McKellar GM. Papillary cystadenoma of a minor salivary gland: report of a case involving cytological analysis and review of

- 1
2
3 the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.*
4
5 2008;105(1):e28-e33.
6
7
8 9. Jansisyanont P, Blanchaert RH Jr, Ord RA. Intraoral minor salivary gland
9
10 neoplasm: a single institution experience of 80 cases. *Int J Oral Maxillofac*
11
12 *Surg.* 2002;31(3):257-261.
13
14
15 10. Gallego L, Junquera L, Fresno MF, de Vicente JC. Papillary cystadenoma
16
17 and cystadenocarcinoma of salivary glands: two unusual entities. *Med Oral*
18
19 *Patol Oral Cir Bucal.* 2008;13(7):E460-E463.
20
21
22 11. De Castro Avellaner M.E., Figueiredo R., Berini Aytés L., Gay Escoda C..
23
24 Cistoadenoma de glándulas salivales menores: Presentación de dos casos
25
26 y revisión de la literatura. *Av Odontoestomatol.* 2011; 27(3): 129-136.
27
28
29 12. Oeppen RS, Gibson D, Brennan PA. An update on the use of ultrasound
30
31 imaging in oral and maxillofacial surgery. *Br J Oral Maxillofac Surg.*
32
33 2010;48(6):412-418.
34
35
36 13. Sugawara C, Takahashi A, Kawano F, Kudo Y, Ishimaru N, Miyamoto Y.
37
38 Intraoral ultrasonography of tongue mass lesions. *Dentomaxillofac Radiol.*
39
40 2016;45:20150362.
41
42
43 14. Cianchetti M, Sandow PS, Scarborough LD, et al. Radiation therapy for
44
45 minor salivary gland carcinoma. *Laryngoscope.* 2009;119:1334-1338.
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60

LEYENDA DE FIGURAS.

Figura 1. Tumor ovalado, de 12x7 mm, cubierto por mucosa normal, superficie lisa, límites definidos, base sésil y consistencia renitente.

Figura 2. Microfotografías del caso 1. A). Proliferación epitelial de estructura glandular con patrón quístico, aumento original 4x. B). Proliferación epitelial papilar con crecimiento intraluminal e infiltrado inflamatorio crónico linfoplasmocitario (tinción H-E) aumento original 10x. C). Células con morfología oncocítica, otras cúbicas o cilíndricas ciliadas (tinción H-E) aumento original 40x. D). Crecimiento epitelial con conformación de microductos intraepiteliales y contenido eosinófilo en su interior. (tinción H-E) aumento original 40x. E). Azul Alcian: se observa formación de ductos con secreción de mucina y un infiltrado celular inflamatorio con predominio de plasmocitos aumento original 10x. F). Tinción con inmunohistoquímica anti Ki-67: proliferación celular escasa en células epiteliales neoplásicas aumento original 10x.

Figura 3. Nódulo en límite paladar duro-blando, lado derecho, próximo a línea media, redondeado, azul, superficie lisa, fluctuante, de 5 mm de diámetro, indoloro, con tiempo de evolución desconocido.

Figura 4. Ecografía paladar duro. Lesión hipoecogénica de aspecto quístico en el sector posterior derecho de paladar duro, con contenido denso.

Figura 5. Microfotografías del caso 2. A). Muestra formada por epitelio de mucosa oral, en cuyo conjuntivo se observa una cavidad quística con proyección papilares intraluminales (tinción H-E) aumento original 4x. B). Múltiples cavidades quísticas junto a acinos de glándulas salivales menores (tinción H-E) aumento original 10x. C). Cavidades quísticas delimitadas por un epitelio biestratificado, con zonas de células cúbicas y cilíndrico, en sectores ciliado (tinción H-E) aumento original 40x. D). Cavidad quística con esbozos de proyecciones papilares hacia el lumen y células con diferenciación apocrina aumento original 40x. E). Proyecciones papilares intraluminales (tinción Azul Alcian) aumento original 10x. F). Zona de engrosamiento con células mucosas en superficie (tinción Azul Alcian) aumento original 40x.

1
2
3
4
5
6
7
8
9
10
11
12
13
14
15
16
17
18
19
20
21
22
23
24
25
26
27
28
29
30
31
32
33
34
35
36
37
38
39
40
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60



Figura 1. Tumor ovalado, de 12x7 mm, cubierto por mucosa normal, superficie lisa, límites definidos, base sésil y consistencia renitente.

21x14mm (300 x 300 DPI)

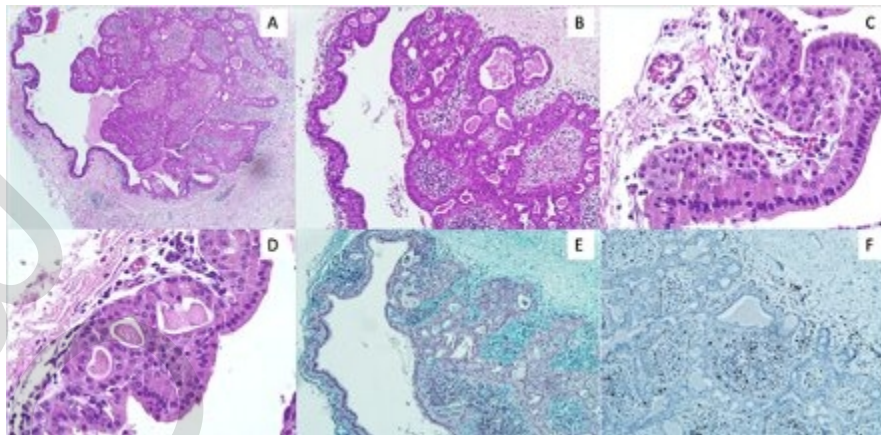


Figura 2. Microfotografías del caso 1. A). Proliferación epitelial de estructura glandular con patrón quístico, aumento original 4x. B). Proliferación epitelial papilar con crecimiento intraluminal e infiltrado inflamatorio crónico linfoplasmocitario (tinción H-E) aumento original 10x. C). Células con morfología oncótica, otras cúbicas o cilíndricas ciliadas (tinción H-E) aumento original 40x. D). Crecimiento epitelial con conformación de microductos intraepiteliales y contenido eosinófilo en su interior. (tinción H-E) aumento original 40x. E). Azul Alcian: se observa formación de ductos con secreción de mucina y un infiltrado celular inflamatorio con predominio de plasmocitos aumento original 10x. F). Tinción con inmunohistoquímica anti Ki-67: proliferación celular escasa en células epiteliales neoplásicas aumento original 10x.

37x18mm (300 x 300 DPI)

1
2
3
4
5
6
7
8
9
10
11
12
13
14
15
16
17
18
19
20
21
22
23
24
25
26
27
28
29
30
31
32
33
34
35
36
37
38
39
40
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60

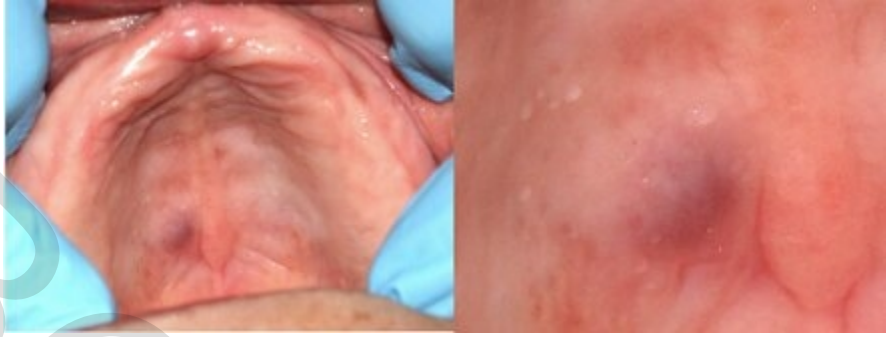


Figura 3. Nódulo en límite paladar duro-blando, lado derecho, próximo a línea media, redondeado, azul, superficie lisa, fluctuante, de 5 mm de diámetro, indoloro, con tiempo de evolución desconocido.

37x14mm (300 x 300 DPI)

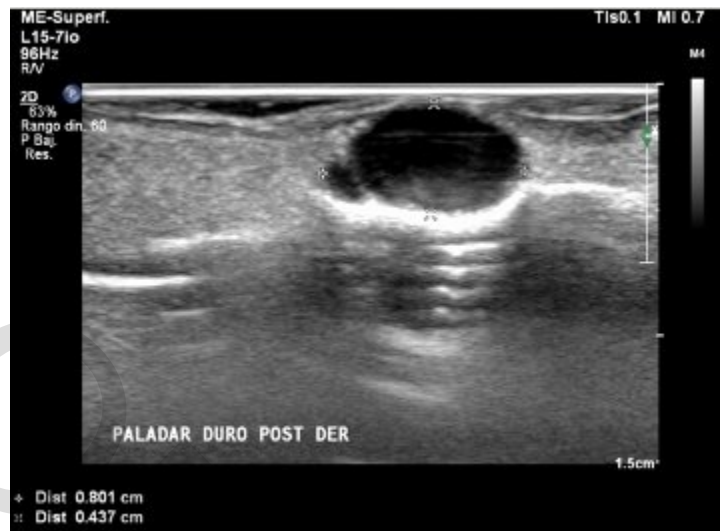


Figura 4. Ecografía paladar duro. Lesión hipoecogénica de aspecto quístico en el sector posterior derecho de paladar duro, con contenido denso.

30x22mm (300 x 300 DPI)

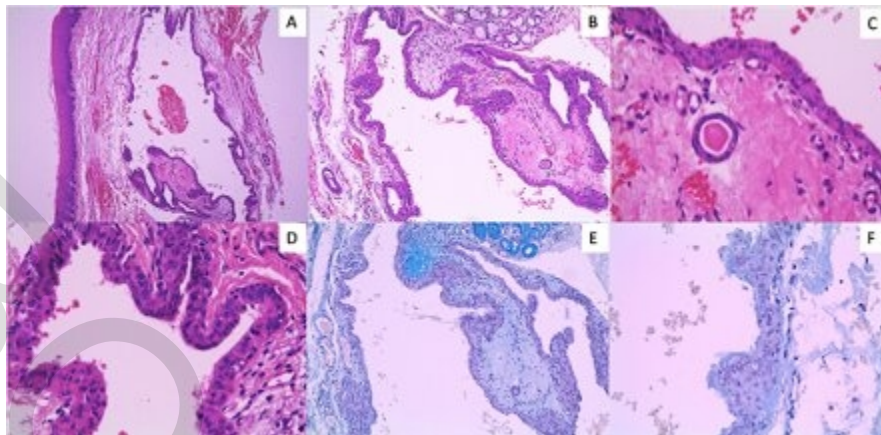


Figura 5. Microfotografías del caso 2. A). Muestra formada por epitelio de mucosa oral, en cuyo conjunto se observa una cavidad quística con proyección papilares intraluminales (tinción H-E) aumento original 4x. B). Múltiples cavidades quísticas junto a acinos de glándulas salivales menores (tinción H-E) aumento original 10x. C). Cavidades quísticas delimitadas por un epitelio biestratificado, con zonas de células cúbicas y cilíndrico, en sectores ciliado (tinción H-E) aumento original 40x. D). Cavidad quística con esbozos de proyecciones papilares hacia el lumen y células con diferenciación apocrina aumento original 40x. E). Proyecciones papilares intraluminales (tinción Azul Alcian) aumento original 10x. F). Zona de engrosamiento con células mucosas en superficie (tinción Azul Alcian) aumento original 40x.

37x18mm (300 x 300 DPI)