

Adenoma canalicular multifocal del labio superior: reporte de un caso y revisión de la literatura

María Claudia Abaúnza-Chagín¹, Nacira Turbay-Juvinao², Elga Johanna Vargas-Carreño³, Carlos Enrique Amador⁴

RESUMEN

El adenoma canalicular (AC) es una neoplasia epitelial benigna infrecuente de las glándulas salivales menores localizada principalmente en el labio superior. Se manifiesta como un nódulo menor de 3 centímetros, indoloro, no ulcerado y de crecimiento lento. El diagnóstico diferencial se debe hacer con otros tumores de las glándulas salivales como adenoma de células basales, adenoma pleomórfico y carcinoma adenoide quístico.

Se presenta el caso de una paciente con antecedente de adenoma canalicular en el labio superior extirpado 13 años antes, que consultó en junio de 2015 por una lesión de 8 mm de diámetro en la misma localización. En septiembre del mismo año se resecó la lesión, incluyendo la glándula salival accesoria adyacente. El estudio histopatológico confirmó nuevamente el diagnóstico de AC y mostró multifocalidad del tumor en la glándula salival accesoria.

PALABRAS CLAVE

Adenoma; Glándulas Salivales; Glándulas Salivales Menores; Neoplasias de la Boca

¹ Jefa del Área de Patología y Profesora asociada, Facultad de Medicina, Universidad de la Sabana, Chía, Colombia.

² Patóloga oncóloga, Laboratorio de Patología y Citología Nacira Turbay J., y Asociados, Bogotá, Colombia.

³ Profesora asistente, Área de Patología, Facultad de Medicina, Universidad de la Sabana, Chía, Colombia.

⁴ Cirujano oral y maxilofacial. Clínica Reina Sofía, Colsánitas, Bogotá, Colombia.

Correspondencia: María Claudia Abaúnza Chagín; maria.abaunza@unisabana.edu.co

Recibido: marzo 9 de 2016

Aceptado: abril 13 de 2016

Cómo citar: Abaúnza-Chagín MC, Turbay-Juvinao N, Vargas-Carreño EJ, Amador CE. Adenoma canalicular multifocal del labio superior: reporte de un caso y revisión de la literatura. *Iatreia*. 2017 Abr-Jun;30(2):187-193. DOI 10.17533/udea.iatreia.v30n2a07.

SUMMARY

Multifocal canalicular adenoma of the upper lip: a case report and literature review

Canalicular adenoma is an unusual benign epithelial neoplasm of the minor salivary glands located primarily on the upper lip. It appears as a slow-growing node, less than 3 cm in diameter, painless, and non-ulcerated. Differential diagnosis should be made with other tumors of the salivary glands such as basal cell adenoma, pleomorphic adenoma and adenoid cystic carcinoma.

We report the case of a female with a history of canalicular adenoma (CA) on the upper lip, removed 13 years before, who consulted on June 2015 because of a mass, 8 mm in diameter with the same location as the previous lesion. On September 2015, the lesion and the accessory salivary gland were removed. Histopathological study found the same diagnosis as before (CA), and revealed multifocality of the neoplasm in the accessory salivary gland.

KEY WORDS

Adenoma; Mouth Neoplasms; Salivary Gland Neoplasms; Salivary Glands Minor

RESUMO

Adenoma canalicular multifocal do lábio superior: reporte de um caso e revisão da literatura

O adenoma canalicular (AC) é uma neoplasia epitelial benigna infrequente das glândulas salivais menores localizada principalmente no lábio superior. Se manifesta como um nódulo menor de 3 centímetros, indolor, não ulcerado e de crescimento lento. O diagnóstico diferencial se deve fazer com outros tumores das glândulas salivais como são: adenoma de células basais, adenoma pleomórfico y carcinoma adenoide cístico.

Se apresenta o caso de uma paciente com antecedente de adenoma canalicular no lábio superior extirpado 13 anos antes, que consultou em junho de 2015 por uma lesão de 8 mm de diâmetro na mesma localização. Em setembro do mesmo ano se ressecou a lesão, incluindo a glândula salivar acessória

adjacente. O estudo histopatológico confirmou novamente o diagnóstico de AC e mostrou multifocalidade do tumor na glândula salivar acessória.

PALABRAS CHAVE

Adenoma; Glândulas Salivais; Glândulas Salivais Menores; Neoplasias da Boca

INTRODUCCIÓN

Los tumores de glándulas salivales constituyen del 2 % al 6,5 % de todas las neoplasias de cabeza y cuello. El 80 % son de origen epitelial y el 75 % son benignos; el más frecuente es el adenoma pleomórfico (1). Existen otros tipos de adenoma, entre ellos el canalicular, término acuñado en 1953 por Bauer y colaboradores (2), retomado en 1983 por Gardner y colaboradores (3) y finalmente incluido en la clasificación de la Organización Mundial de la Salud del año 2005 (4).

A continuación describimos un caso de adenoma canalicular (AC) multifocal con antecedente de un tumor similar en la misma localización resecaado 13 años antes.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Mujer de 58 años que consultó en junio de 2015 por presentar un nódulo elástico de 8 mm de diámetro y 10 meses de evolución en el labio superior. Tiene el antecedente de una lesión de características similares en la misma localización resecaada 13 años antes, que fue diagnosticada como compatible con AC de células basales de glándula salival menor.

Se extirpó completamente la lesión actual junto con una glándula salival accesoria adyacente. Se obtuvieron dos fragmentos de tejido: el primero de 0,8 x 0,8 x 0,6 cm, pardo con superficie externa lisa y consistencia firme; el segundo, de 0,4 x 0,3 x 0,3 cm, pardo claro de consistencia blanda. El estudio histopatológico de la lesión mostró un nódulo tumoral encapsulado constituido por células columnares dispuestas en cordones de una o dos hileras, que se interconectaban en algunas zonas para formar estructuras tubulares semejantes a ductos. Algunos de estos estaban dilatados formando pseudoquistes ocupados por material

eosinófilo y ocasionales histiocitos espumosos. En medio del componente epitelial, se reconoció un estroma de tejido conectivo laxo mixoide ricamente vascularizado. No se observaron pleomorfismo, necrosis ni mitosis atípicas (figura 1). Los estudios de inmunohistoquímica mostraron en las células tumorales positividad fuerte y difusa con los marcadores pancitoqueratina (AE1-AE3), S100, CEAp y vimentina; positividad focal con el antígeno de membrana epitelial (EMA, por su sigla en inglés) y proteína ácida glial fibrilar (GFAP, por su sigla en inglés). El índice de proliferación celular con Ki67 no superó el 2 % y los marcadores para células mioepiteliales, calponina y p63 fueron negativos (figura 2). Con estos hallazgos se hizo el diagnóstico de AC de glándula salival menor.

El segundo fragmento correspondió a una glándula salival menor constituida por lóbulos de acinos mucosos y el sistema usual de ductos. Se identificaron tres focos incipientes de una lesión tumoral nodular no encapsulada; el mayor de 1,1 mm, de características morfológicas similares a las del tumor ya descrito. Los estudios de inmunohistoquímica mostraron en los focos de células tumorales positividad fuerte y difusa con los marcadores pancitoqueratina (AE1-AE3) y S100. Fueron negativos para células mioepiteliales, los marcadores calponina y p63. Estos hallazgos se interpretaron como focos incipientes de AC que sugirieron multifocalidad de esta neoplasia (figura 3). En el seguimiento de 5 meses no se ha observado recurrencia de la lesión.

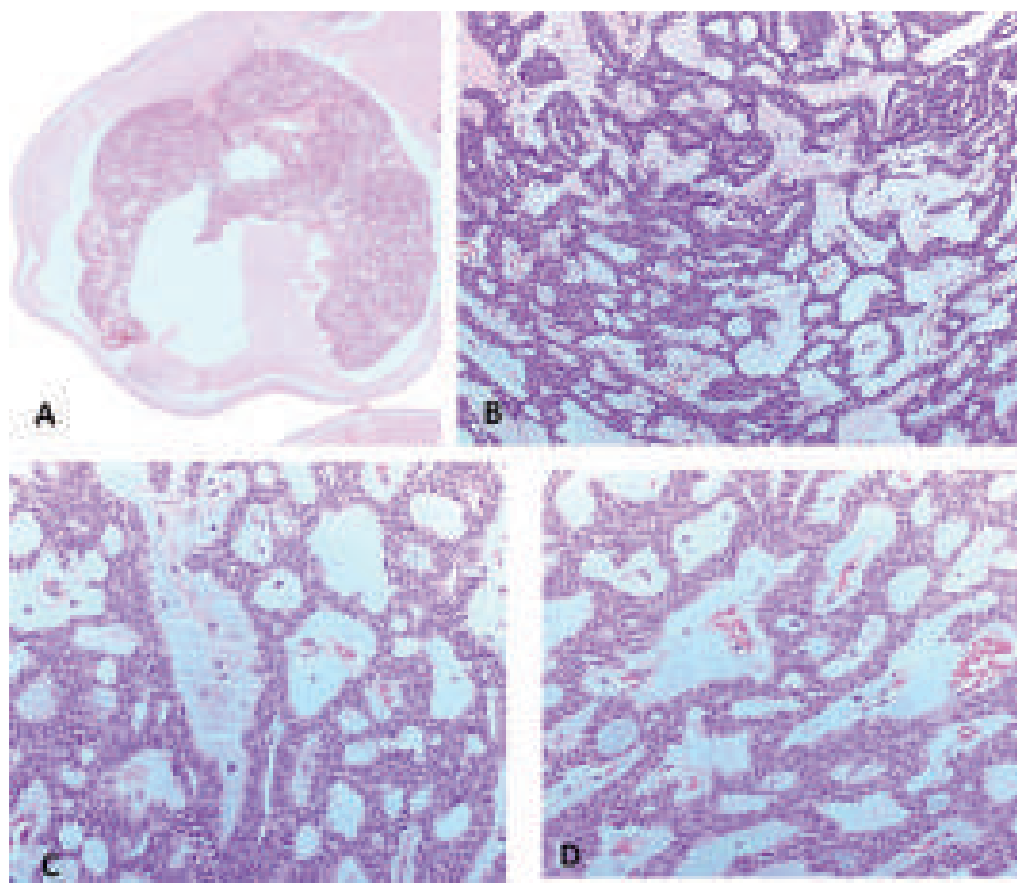


Figura 1. Adenoma canalicular. A. Nódulo circunscrito y encapsulado (HE, 2,5X). B. Se observan cordones de doble fila de células columnares o cúbicas con patrón alternante (HE, 20X). C. Los cordones que están en contacto estrecho se separan para formar estructuras similares a ductos (HE, 40X). D. Estroma laxo mixoide ricamente vascularizado, (HE, 40X)

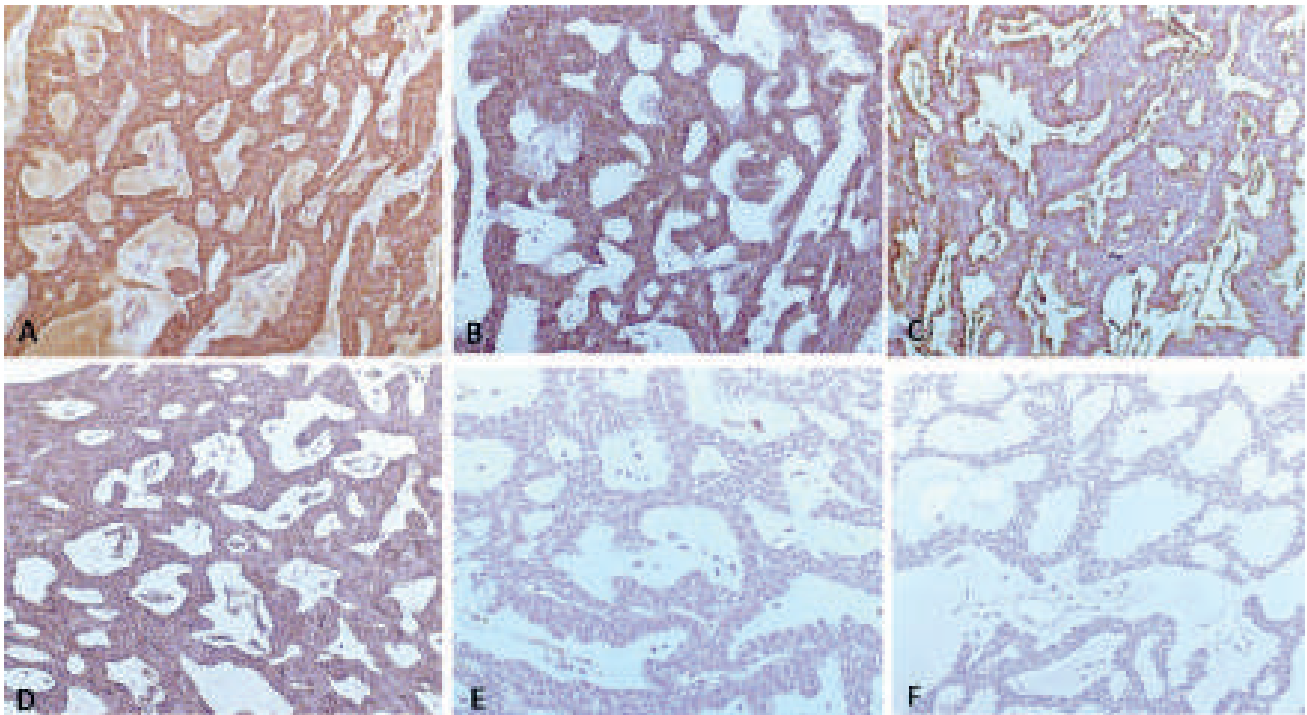


Figura 2. Marcadores de inmunohistoquímica. A. Positividad nuclear y citoplasmática para S100 (40X). B. Positividad citoplasmática fuerte y difusa con AE1-AE3 (40X). C. Positividad citoplasmática en *degradé* con vimentina (40X). D. Positividad citoplasmática con CEA (40X). E. Calponina negativa (40X). F. Ki67 menor del 2 % (40X)

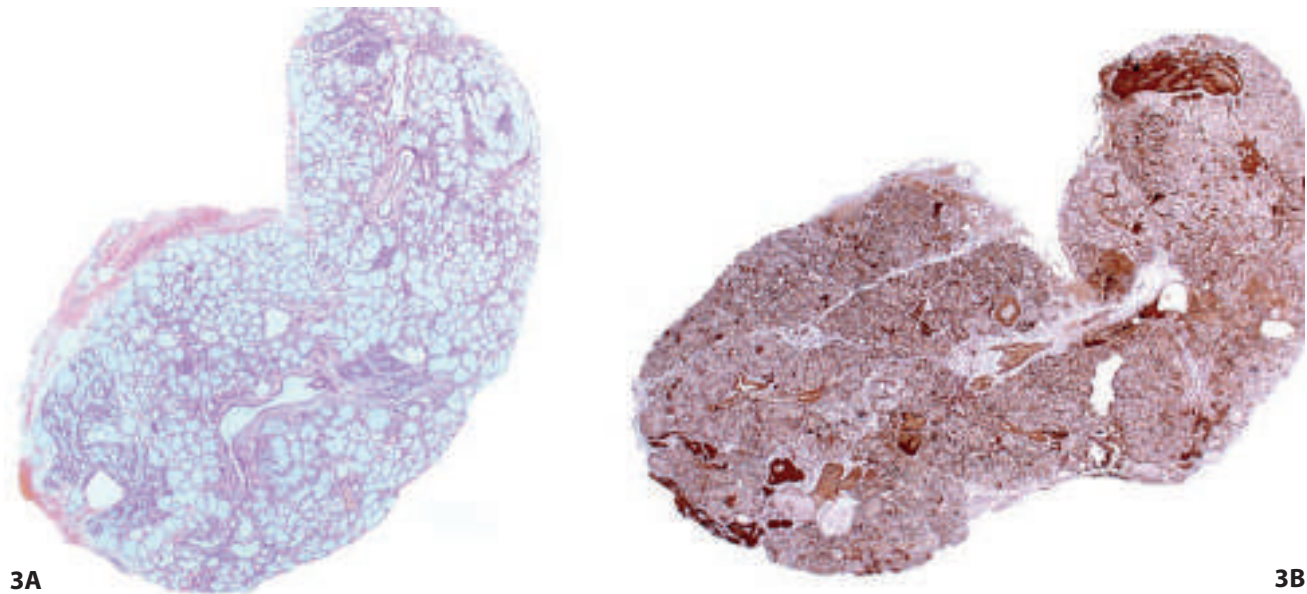


Figura 3. Glándula salival accesorio. A. Se observan tres focos incipientes de adenoma canalicular (HE 2,5X). B. Estos focos son positivos para S100 (2,5X)

DISCUSIÓN

El AC es una neoplasia epitelial benigna infrecuente (1 % de las neoplasias de glándulas salivales), que se origina casi exclusivamente en las glándulas salivales menores. Se localiza en la cavidad oral con predilección por el labio superior (70 % a 90 % de los casos) y rara vez en otros sitios, como el paladar y la parótida (1,3,5-9). Suele presentarse en adultos mayores de 50 años con máxima incidencia en la séptima década. Es más común en mujeres que en hombres (relación 2:1) (5,7). Estos tumores se manifiestan como nódulos submucosos, indoloros, no ulcerados de crecimiento lento, que miden de 0,5 a 3 cm (1,5,7). Rara vez son multifocales (1,3,7,10) y de acuerdo con Thompson y colaboradores, esto se presenta en el 9 % de los casos (5).

HALLAZGOS MORFOLÓGICOS

Macroscópicamente se observan como nódulos circunscritos y usualmente encapsulados. En la histopatología, se observan cordones de doble fila de células columnares o cúbicas con patrón alternante descrito como "collar de perlas" (*beading*): los cordones se disponen paralelamente en contacto estrecho y posteriormente se separan formando estructuras similares a ductos que dan origen al término "canalicular" de este tumor (1,3,4,5-9,11-14). Estas estructuras similares a ductos, pueden dilatarse y llegar a conformar quistes con formaciones papilares (1,5,11). Se pueden observar mórulas de células epiteliales intraluminales e histiocitos espumosos (5).

Las células tumorales son monótonas con bordes indistinguibles, núcleos ovales o redondos y sin evidencia de mitosis (1,4,5,7). Un hallazgo histológico importante es la ausencia de células mioepiteliales (5). El estroma es mixoide, edematoso, hipocelular y ricamente vascularizado por vénulas y capilares congestivos (1,3-7). Nódulos multifocales no encapsulados de características histológicas similares se localizan adyacentes a la masa principal; este hallazgo es más evidente en la microscopía que en la clínica (1,7,15,16).

INMUNOHISTOQUÍMICA

Este tumor es positivo para pancitoqueratinas (AE1-AE3), S100, SOX 10 y vimentina. La GFAP puede ser

positiva en un patrón aislado y lineal en la interfaz del tumor con el tejido conectivo (1,5,17-19). La expresión del EMA es variable (1,4-6,14,18) y el índice de proliferación celular con Ki67 es menor del 2 % (18). Los marcadores utilizados para la demostración de células mioepiteliales: calponina, actina del músculo liso, miosina de cadena pesada y p63 son negativos (1,5,18).

HISTOGÉNESIS

Para algunos autores el AC se origina de las células luminales de los ductos intercalares (5), mientras que para otros, los hallazgos ultraestructurales y de inmunohistoquímica sugieren que se origina de una célula intermedia con características de ducto intercalar y estriado (20).

DIAGNÓSTICO DIFERENCIAL

Los diagnósticos diferenciales más importantes son los siguientes: adenoma de células basales, carcinoma adenoide quístico y adenoma pleomórfico (1). El 70 % de los adenomas de células basales se presentan en la glándula parótida y el 20 % en el labio superior (1). La variante tubular, compuesta por pequeñas estructuras similares a ductos constituidos por células columnares uniformes sin evidencia de mitosis atípicas puede recordar la morfología del AC; sin embargo, los marcadores mioepiteliales son con frecuencia positivos en los adenomas basales tubulares y negativos en el AC (1,5).

El adenoma pleomórfico presenta una matriz mixocondroide y posee células mioepiteliales positivas para p63, calponina, actina del músculo liso y miosina de cadena pesada (5,18). Otra diferencia con el AC es que la GFAP no presenta patrón lineal sino positividad fuerte y difusa en las células tumorales (17).

El carcinoma adenoide quístico muestra un patrón bifásico infiltrativo con invasión perineural, células mioepiteliales identificables por inmunohistoquímica, estroma pobremente vascularizado, mitosis frecuentes y Ki67 mayor del 20 % (5,13,18).

TRATAMIENTO

El tratamiento del AC es quirúrgico con resección local. El pronóstico es excelente (4,9) y no se produce recurrencia después de la escisión completa (19).

CONCLUSIÓN

Los AC de glándula salival son neoplasias benignas infrecuentes con multifocalidad menor del 10 %. En nuestro caso, la presencia de múltiples focos tumorales en la glándula salival accesoria extirpada, como se observa en la figura 3, plantearía la posibilidad de desarrollar otros AC en la misma localización.

CONFLICTOS DE INTERESES

Ninguno que declarar.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Wenig BM. Neoplasms of the Salivary Glands. In: Atlas of head and neck pathology. 3ª ed. Philadelphia: Elsevier; 2016. p. 861-96.
2. Bauer WH, Bauer JD. Classification of glandular tumors of salivary glands; study of one-hundred forty-three cases. *AMA Arch Pathol.* 1953 Apr;55(4):328-46.
3. Yüce S, Uysal İÖ, Doğan M, Ersin T, Müderris S. Canalicular adenoma of the palate. *J Craniofac Surg.* 2012 Sep;23(5):e396-8. DOI 10.1097/SCS.0b013e31825ab388.
4. Ferreiro JA. Canalicular adenoma. In: World Health Organization, International Agency for Research on Cancer. Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours. World Health Organization Classification of Tumours. Barnes L, editor. Lyon: IARC Press; 2005. p. 267.
5. Thompson LD, Bauer JL, Chiosea S, McHugh JB, Seethala RR, Miettinen M, et al. Canalicular adenoma: a clinicopathologic and immunohistochemical analysis of 67 cases with a review of the literature. *Head Neck Pathol.* 2015 Jun;9(2):181-95. DOI 10.1007/s12105-014-0560-6.
6. Pereira MC, Pereira AA, Hanemann JA. Immunohistochemical profile of canalicular adenoma of the upper lip: a case report. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2007 Jan;12(1):E1-3.
7. Penner CR, Thompson L. Canalicular adenoma. *Ear Nose Throat J.* 2005 Mar;84(3):132.
8. Philpott CM, Kendall C, Murty GE. Canalicular adenoma of the parotid gland. *J Laryngol Otol.* 2005 Jan;119(1):59-60.
9. Weiss S. Tumors and diseases of the salivary glands. Clinical advisor. 2011 Oct; 32-41.
10. Yoon AJ, Beller DE, Woo VL, Pulse CL, Park A, Zegarelli DJ. Bilateral canalicular adenomas of the upper lip. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2006 Sep;102(3):341-3.
11. Mansueto G, Falletti J, De Cecio R, Papa F, De Rosa G. Synchronous bilateral multifocal canalicular adenoma: a case report of an unusual finding. *Clin Exp Dermatol.* 2009 Dec;34(8):e587-9. DOI 10.1111/j.1365-2230.2009.03258.x.
12. Sivoilella S, Valente M, De Biagi M, Mazzoleni S, Stellini E. Canalicular adenoma immunoprofile: a case report. *Gerodontology.* 2013 Dec;31(4):320-4. DOI 10.1111/ger.12039.
13. Matsuzaka K, Murakami S, Shimono M, Inoue T. Canalicular adenoma arising in the upper lip: review of the pathological findings. *Bull Tokyo Dent Coll.* 2004 Nov;45(4):229-33.
14. Bansal AK, Bindal R, Kapoor C, Vaidya S, Singh HP. Current concepts in diagnosis of unusual salivary gland tumors. *Dent Res J (Isfahan).* 2012 Dec;9(Suppl 1):S9-S19.
15. Samar ME, Avila RE, Fonseca IB, Anderson W, Fonseca GM, Cantín M. Multifocal canalicular adenoma of the minor labial salivary glands. *Int J Clin Exp Pathol.* 2014 Oct;7(11):8205-10.
16. Oliveira-Santos C, Freitas-Faria P, Damante JH, Consolaro A. Asymptomatic nodules of the upper lip: report of a canalicular adenoma with immunoprofile presentation. *Gerodontology.* 2012 Jun;29(2):e1121-4. DOI 10.1111/j.1741-2358.2010.00388.x.
17. Curran AE, Allen CM, Beck FM, Damm DD, Murrah VA. Distinctive pattern of glial fibrillary acidic protein immunoreactivity useful in distinguishing fragmented pleomorphic adenoma, canalicular adenoma and polymorphous low grade adenocarcinoma of minor salivary glands. *Head Neck Pathol.* 2007 Sep;1(1):27-32. DOI 10.1007/s12105-007-0003-8.

18. Kaur A, Thakur A, Singh H, Singh A, Kaur B, Kaur B, et al. Immunoprofile of commonly encountered salivary gland neoplasms: a brief review. *J Adv Med Dent Scie Res.* 2015 Jun;3(2):54-62.
19. Chan JKC, Cheuk W. Tumors of the salivary gland. In: Fletcher CDM. *Diagnostic Histopathology of Tumors.* 4th ed. Philadelphia: Elsevier Saunders; 2013. p. 277-348.
20. Huebner TA, Almubarak H, Drachenberg CB, Papadimitriou JC. Canalicular adenoma-search for the cell of origin: ultrastructural and immunohistochemical analysis of 7 cases and review of the literature. *Ultrastruct Pathol.* 2014 Apr;38(2):74-82. DOI 10.3109/01913123.2013.833564.

