

ADENOMA PLEOMÓRFICO EN GLÁNDULAS SALIVARES MENORES: REPORTE DE TRES CASOS EN NIÑOS

FRANCISCO LEVI DUQUE SERNA *, RODRIGO FELIPE NARANJO RESTREPO *,
EFRAÍN ALVAREZ MARTÍNEZ *, WALTER AUGUSTO VALENCIA LONDOÑO **

RESUMEN: DUQUE S. FRANCISCO L., RODRIGO F. NARANJO R., EFRAÍN ALVAREZ M. Y WALTER A. VALENCIA L. Adenoma pleomórfico en glándulas salivares menores: Reporte de tres casos en niños. Rev Fac Odont Univ Ant, 10(1): 57-65, 1998.

Los tumores de glándulas salivares son escasos durante la primera y segunda décadas de la vida y cuando ocurren en estos grupos de edades, se presentan generalmente en la glándula parótida. Los tumores en las glándulas salivares menores son todavía más escasos, siendo el adenoma pleomórfico el más común. La mayoría de los autores definen el adenoma pleomórfico como una tumoración submucosa oval o redondeada, única, bien delimitada, no infiltrante, dura-elástica e indolora. La mucosa que lo cubre está intacta, sin embargo, puede ulcerarse secundariamente debido al crecimiento intrínseco del tumor o por trauma; su crecimiento es lento.

Cuando el adenoma pleomórfico se presenta en el paladar se debe hacer diagnóstico diferencial con otras patologías como son las de tipo infeccioso, los quistes y los tumores odontogénicos y no odontogénicos y finalmente, las lesiones pseudotumorales.

El tratamiento para el adenoma pleomórfico es la enucleación completa; la mayoría de los autores recomiendan la excisión local amplia extendiéndose al menos ½ cm por fuera del margen visible del tumor. Puede ser necesaria la fenestración del paladar blando para obtener los márgenes quirúrgicos requeridos.

En la literatura mundial solo se han reportado 8 casos de adenoma pleomórfico en el paladar en niños. Presentamos 3 casos de adenoma pleomórfico en glándulas salivares menores del paladar en pacientes de sexo masculino: uno en un niño de 8 años y dos casos en jóvenes de 15 años de edad.

Palabras claves: Adenoma pleomórfico; tumores en glándulas salivares; glándulas salivares menores; paladar; niños.

ABSTRACT: DUQUE S. FRANCISCO L., RODRIGO F. NARANJO R., EFRAÍN ALVAREZ M. AND WALTER A. VALENCIA L. Pleomorphic Adenoma in Minor Salivary Gland: Report of Three Cases in Children. Rev Fac Odont Univ Ant, 10(1): 57-65, 1998.

Salivary gland tumors are scarce during the first and second decades of life; when they appear in these age ranges, they are generally found in the parotid gland. Minor salivary gland tumors are even more scarce, being the pleomorphic adenoma the most common one. Most authors define the pleomorphic adenoma as an oval or round submucous tumoration, unique, well delimited, non-infiltrated, hard-elastic and painless. The covering mucous membrane remains undamaged; however secondary ulceration may occur, either due to intrinsic growth of the tumor or because of trauma; its growth is slow.

When the pleomorphic adenoma shows up in the palate, a differential diagnosis should be made along with other pathologies such as those of infectious type, the non-odontogenic cysts and tumors, the odontogenic cysts and tumors and finally, the pseudotumoral lesions.

Treatment for the pleomorphic adenoma is the total enucleation; Most authors suggest a wide local excision that extends at least ½ cm outside the visible margin of the tumor. Fenestration of the soft palate may be necessary in order to obtain the required surgical margins.

Only eight cases of palate pleomorphic adenoma in children have been reported in the world literature; here we present 3 cases of pleomorphic adenoma found in palate minor salivary glands of male sex patients: one in an 8 year old child and two in 15 year old youngsters.

Key words: Pleomorphic adenoma, salivary gland tumors; minor salivary gland; palate; children.

INTRODUCCIÓN:

Los tumores de glándulas salivares constituyen entre el 2% y el 6.5% de todas las neoplasias de cabeza y cuello, con una incidencia anual del 0.4 al 6.5 por cada 100.000 habitantes. (1) En su mayoría son benignos, de los cuales el 70% son adenomas pleomórficos. Del total de los adenomas pleomórficos el 7% se originan en las glándulas

salivares menores, principalmente del paladar. (2) El reporte de malignidad de los tumores de glándulas salivares es el siguiente: 10% para glándula parótida, 30% para glándula submaxilar; 10% en glándula sublingual y 50% para glándulas salivares menores. (3, 4) El 50% de los tumores de glándulas salivares palatinas son malignos. Otros autores reportan que sólo el 20% de los tumores de glándulas salivares menores son benignos. (3, 4, 5)

* Especialista en Estomatología y Cirugía Oral, Profesor Asistente, Facultad de Odontología, Universidad de Antioquia.

** Estudiante de Posgrado en Cirugía Oral y Maxilofacial, Facultad de Odontología, Universidad de Antioquia.

El adenoma pleomórfico ha sido reportado como el tumor benigno más frecuente, tanto en glándulas salivares mayores como en menores, con una incidencia de un 8% - 10%. (6, 7)

M. Anthony Pogrel (3) reporta una clasificación de los tumores de glándulas salivares en PALADAR de la siguiente manera:

1. TUMORES BENIGNOS:

- Adenoma de células basales
- Adenomas monomórficos inespecíficos

2. TUMORES LOCALMENTE AGRESIVOS:

Adenoma Pleomórfico. Aunque este tumor es considerado benigno, debido a su encapsulamiento incompleto, presenta tendencia a la recurrencia local después de una resección quirúrgica

3. TUMORES MALIGNOS:

- Carcinoma mucocépidermoide: Varía su comportamiento, desde un curso benigno hasta uno más agresivo con potencial de metástasis
- Carcinoma adenoideo quístico: Considerado siempre maligno, con gran potencial de metástasis e invasión perineural
- Adenocarcinoma polimorfo de bajo grado: Con bajo potencial de metástasis y de buen pronóstico
- Carcinoma de células acínicas: Es escaso en cavidad oral; cuando se presenta, el 40% ocurre en el paladar
- Adenocarcinoma indiferenciado: Es muy agresivo y tiene un alto potencial de metástasis

De los 22 tumores de glándulas salivares palatinas estudiadas en el departamento de cirugía oral y maxilofacial de la Universidad de California (San Francisco), por un período de 6 años (1983 - 1988), el 82% fueron reportados como malignos, (3) otros estudios reportan el 87%. (8, 9) El más común de los tumores malignos fue el carcinoma mucocépidermoide; en contraste con otros estudios que reportan el carcinoma adenoideo quístico. (10, 11)

CLÍNICA:

El adenoma pleomórfico no tiene factor etiológico conocido. (2) En cuanto a la distribución por SEXO, los tumores de glándulas salivares son ligeramente más comunes en mujeres que en hombres. (2, 4, 16) La excepción se presenta con el adenolinfoma que predomina en el sexo masculino, en personas mayores de 40 años de edad y predominantemente en la glándula parótida. (4)

EDAD: Es más frecuente entre la tercera y la quinta décadas de la vida; (4) sin embargo, otros estudios lo reportan entre la segunda y séptima,

con la mayor incidencia entre la cuarta y quinta. (2) Los tumores benignos y malignos en glándulas salivares son raros en niños (5, 13, 15), siendo el adenoma pleomórfico el más común: 66.6% - 90%. (5, 13) A pesar de que el adenoma pleomórfico es muy escaso antes de los 14 años de edad, Courten y cols. (13) en 1996 reportaron el caso de una niña de 10 años de edad que estudiaron durante 9 años posteriores a la cirugía y no encontraron recidiva. También se han reportado tumores malignos de glándulas salivares en la infancia, siendo los más comunes, el carcinoma de células acínicas y el carcinoma mucocépidermoide. (14)

La LOCALIZACIÓN más frecuente del adenoma pleomórfico es en la glándula parótida y la menos frecuente es en el paladar. (13, 15) Sin embargo, cuando se presenta en las glándulas salivares menores, se localiza preferentemente en el paladar, lengua, labios, mejilla, piso de boca y trigono retromolar. (2)

APARIENCIA CLÍNICA: La mayoría de los tumores de glándulas salivares en el paladar se presentan como un aumento de volumen, por lo general, recubierto por mucosa intacta y a veces inmóvil; puede presentar una apariencia azulosa y llegar a ulcerarse secundariamente debido al crecimiento intrínseco del tumor o a un trauma secundario. (3) La forma más común de presentación es una tumoración bien delimitada, de crecimiento progresivo, lento y bien tolerado por el paciente, quien consulta cuando el tumor ha alcanzado un tamaño considerable, por sangrado, por ulceración o por ambos, asociados a la masticación. (2, 16) Otros autores lo definen como una tumoración submucosa, oval o redondeada, única, bien delimitada, no infiltrante, dura - elástica e indolora, excepto si se afectan estructuras óseas o nerviosas. (2, 12) A la palpación el tumor tiene una consistencia dura - elástica que en algunas zonas puede ser blanda o fluctuante; estas zonas corresponden a cavidades llenas de líquido gelatinoso. Su superficie es lisa o regular, rodeada de una pseudocápsula fibrosa que puede presentar interrupciones. (2) Cuando se ulcera un adenoma pleomórfico, por lo general se presenta en su parte central, siendo la ulceración bien definida, lo que ayuda a diferenciarlo de un carcinoma espinocelular. (25) Esta lesión no invade hueso, pero sí pueden yacer sobre la superficie ósea depósitos tumorales. (3, 25)

HISTOLOGÍA:

El adenoma pleomórfico presenta una cápsula o pseudo-cápsula de naturaleza fibrosa que se forma ante la presión ejercida por el tumor sobre los tejidos vecinos. (2) Es un tumor mixto formado por dos componentes:

1. Células epiteliales y mioepiteliales
2. Estroma que puede ser fibroide, mixoide, condroide, vascular o mixocondroide. (17)

El adenoma pleomórfico presenta positividad para una serie de marcadores inmunohistoquímicos como: los de células epiteliales tipo EMA (antígeno epitelial de membrana) y CK (citoqueratina); los marcadores de células mioepiteliales como la actina y la vimentina; otros marcadores como la proteína S-100 y la GFAP (glial fibrillary acid protein). (2, 12)

Scully (18) cita a Carter quien discutió la histopatología de neoplasias benignas de glándulas salivares en el Simposio Internacional de Enfermedades de Glándulas Salivares, celebrado en Amsterdam en 1991. La OMS (19) con base en las conclusiones de este simposio presenta, en 1992, una nueva clasificación histológica de los tumores de las glándulas salivares, reconociendo 9 categorías de adenoma pleomórficos en la que incluye el tumor de Warthin:

1. Adenoma Pleomórfico
2. Mioepitelioma (adenoma epitelial)
3. Adenoma de células basales
4. Tumor de Warthin (adenolinfoma)
5. Oncocitoma
6. Adenoma canalicular
7. Adenoma sebáceo
8. Papiloma ductal (invertido, intraductal y sialoadenoma papiliforme)
9. Cistadenoma (mucinoso y papilar)

AYUDAS DIAGNÓSTICAS:

Las radiografías simples no son de mucha ayuda, se debe recurrir a la ecografía, a la tomografía axial computarizada (TAC) con medio de contraste o a la resonancia magnética (RM). El TAC es la ayuda diagnóstica que se debe elegir cuando se requiere saber si hay erosión, perforación o ambas en el hueso subyacente al tumor y si existe algún grado de compromiso en la cavidad nasal o en el seno maxilar. (3, 20)

La RM está indicada si el tumor está totalmente localizado en tejidos blandos, permitiendo conocer su grado de encapsulación. (3)

La toma de **biopsia** es controversial. Si la lesión es en una glándula salivar mayor se recomienda realizar una biopsia excisional; si es en una glándula salivar menor se toma biopsia incisional en el *centro de la lesión*. (20)

Algunos autores recomiendan la **aspiración** con una aguja fina en el centro de la lesión para no correr el riesgo de extenderla. (3) En contraste,

otros no recomiendan la punción ya que ésta facilitaría la implantación de células tumorales. (2) Con la sola aspiración se puede realizar el diagnóstico histológico del tumor en la mayoría de los casos (95%) lo que ayudaría a planificar la cirugía; (7, 18) con esta ayuda diagnóstica los falsos positivos son muy escasos (menos del 0.1%) empero, la rata de falsos negativos puede alcanzar hasta un 10%. (2)

DIAGNÓSTICO DIFERENCIAL:

El adenoma pleomórfico de glándulas salivares palatinas debe diferenciarse de otras lesiones como lo son las de tipo infeccioso, de los quistes y tumores no odontogénicos, de los quistes y tumores no odontogénicos, también de las lesiones pseudotumorales que puedan presentarse en el paladar o comprometerlo por extensión desde zonas vecinas. (2, 18)

TRATAMIENTO:

Una vez se establece el diagnóstico histopatológico y se conoce el tamaño y la extensión del tumor por TAC ó RM, el tratamiento definitivo deberá planearse para cada caso individual. Teniendo en cuenta si el tumor de glándula salivar es benigno, localmente agresivo o maligno, el tratamiento es el siguiente: (3)

A. TUMORES BENIGNOS:

Excisión local solamente, con un pronóstico excelente. No es necesario fenestrar el paladar ni remover hueso; una férula de protección podría ser conveniente (3).

B. TUMORES LOCALMENTE AGRESIVOS: - ADENOMA PLEOMÓRFICO-

Es muy importante el diagnóstico temprano y realizar un seguimiento cuidadoso para apreciar si hay recurrencia, la que puede presentarse varios años después de la lesión primaria (3). La mayoría de los autores recomiendan una excisión local amplia del tejido palatal blando que incluya la cápsula del tumor, con el fin de obtener un margen quirúrgico de seguridad, al menos, de 5 mm. (2, 3, 7, 13, 15, 16, 20, 21, 25) Si después de remover la lesión quedan márgenes adecuados, se puede realizar un cierre primario. (2, 3, 7, 13, 15, 16, 21, 25)

Cuando se presentan fístulas oronasales después de remover el tumor, se manejan con rotación de colgajos o con obturadores; (20) si el defecto quirúrgico es en el paladar blando se puede rotar un colgajo tipo "island" que contenga los vasos palatinos mayores contralaterales. El anterior es un procedimiento que alivió a los seis pacientes estudiados en la serie publicada por Worthington (21) en 1974. Si el defecto es mayor pueden

utilizarse otros colgajos mayores para su corrección. La fase de reconstrucción del defecto debería posponerse hasta que exista el diagnóstico histopatológico definitivo de todo el espécimen quirúrgico.

C. TUMORES MALIGNOS:

Las posibilidades de tratamiento para los tumores malignos de glándulas salivares en paladar varían según el tipo de tumor y el estado clínico, así:

1. Resección quirúrgica amplia con un margen de seguridad de 15 mm, siempre y cuando no exista metástasis. Se debe realizar la resección y fenestración del paladar duro y blando. (3)
2. Resección extensa que incluya a los huesos palatinos ya que el tumor puede invadirlos. (3)
3. Hemimaxilectomía, en casos de compromiso del seno maxilar y piso nasal. Esta es una técnica que puede realizarse tanto por vía extraoral, como por vía intraoral, semejante a la técnica de una osteotomía de "hemilefort I". (22)
4. Maxilectomía extensa en casos selectivos, según la extensión del tumor, con técnicas extraorales como la incisión de Weber Ferguson o con técnicas intraorales. (22)

La **RADIOTERAPIA COMPLEMENTARIA POS-OPERATORIA** se realiza según el tipo de tumor y los márgenes de seguridad realizados durante la cirugía. No se recomienda la radioterapia en el carcinoma mucoepidermoide de bajo grado, ni en el adenocarcinoma polimorfo de bajo grado; por el contrario, sí se recomienda la radioterapia en el carcinoma mucoepidermoide de alto grado, en todos los casos de carcinoma adenoideo quístico y en los adenocarcinomas indiferenciados (3).

La **RECONSTRUCCIÓN** del defecto palatino se debe hacer una vez se tenga el diagnóstico correcto del tumor y puede hacerse con un obturador y colgajos locales, o con colgajos a distancia desde la lengua, el músculo temporal y fascia, entre otros. (3)

La **QUIMIOTERAPIA**: Es poco útil en el tratamiento de tumores malignos de glándulas salivares; tan sólo algunos ofrecen una respuesta que varía entre un 0% - 70% dependiendo del tipo de tumor y del régimen quimioterapéutico. (18)

Se deben además, realizar exámenes médicos complementarios como placas de tórax y función hepática (sangre y TAC), teniendo presente que el tratamiento es multidisciplinario y que en algunos casos puede ser necesaria la radioterapia, la quimioterapia, o ambas.

PRONÓSTICO Y RECURRENCIA:

El adenoma pleomórfico de las glándulas salivares menores, con una larga evolución, puede malignizarse en forma ocasional y en mayor proporción que en las glándulas salivares mayores, en un porcentaje que varía del 2 al 10%. (18, 20) Se presume que en todos los adenomas pleomórficos podrían presentarse cambios malignos en un periodo de 60 años, (20) siendo el adenocarcinoma poco diferenciado, el carcinoma mucoepidermoide, el carcinoma adenoideo quístico y el carcinoma de células claras los tumores malignos a los que con mayor frecuencia se transforma. (23)

Según Fasoli, esta malignización está correlacionada con la presencia de un gran componente epitelial o con la existencia de áreas cilindromatosas activamente proliferantes. Otros autores relacionan la posibilidad de recidiva y la plurifocalidad de este tumor con la existencia de una *cápsula incompleta* lo que facilitaría la entrada de islotes epiteliales en los tejidos vecinos; ello daría lugar a un crecimiento no uniforme de la tumoración y a la vez justifica el porcentaje de un 5% a un 30% de recidiva posterior a la extirpación macroscópica completa, pero microscópica incompleta. (2)

La recurrencia del adenoma pleomórfico es de tipo infiltrativo y, se ve con mayor frecuencia en los tumores pequeños, si se comparan con los tumores de mayor tamaño. (21)

CASOS CLÍNICOS

CASO 1:

Paciente de 15 años de edad, sexo masculino, referido para evaluación y tratamiento de una masa en el paladar duro. El paciente relata que la lesión tiene tres años de evolución, de crecimiento lento, con dolor al masticar y sin dificultad para la respiración. Sin antecedentes médicos ni odontológicos de importancia.

Al examen físico el paciente se encuentra en buenas condiciones generales de salud, sin asimetrías físicas ni faciales y ausencia de adenopatías. En la región posterior del lado derecho del paladar duro se observa una lesión submucosa de forma redondeada, bien delimitada y de base sésil, con un diámetro de 35 milímetros y además, cubierta por mucosa eritematosa. En el centro de la lesión presenta una úlcera de 30 milímetros de diámetro. A la palpación es de consistencia blanda, depresible y ligeramente dolorosa. (FOTO 1)

Al examen microscópico, la biopsia incisional muestra una lesión tumoral benigna, constituida por proliferación de células epiteliales y mioepiteliales dispuestas en masas, cordones y

ocasionalmente delimitando estructuras ductales rodeadas por estroma fibroso vascularizado. No se encontró malignidad. *Papanicolaou*: Muestra un fondo hemorrágico con algunas células epiteliales sueltas o en grupos pequeños. El diagnóstico histopatológico fue entonces de un ADENOMA PLEOMÓRFICO.

La radiografía de Watters no muestra cambios en la densidad ósea del paladar ni imágenes osteolíticas.

Bajo anestesia general se realizó tanto la remoción de la lesión, dejando márgenes quirúrgicos de seguridad de 5 milímetros, como la rotación de un colgajo palatino del lado izquierdo que logró cubrir un 50% del defecto; además, se dejó una férula de acrílico rebasada con cemento quirúrgico por 14 días. El espécimen quirúrgico muestra al estudio histopatológico un tumor constituido por proliferación de células epiteliales basaloideas y células mioepiteliales dispuestas en grupos, nidos y cordones, entremezcladas con escaso estroma colágeno hialinizado. En algunas áreas forma quistes revestidos por epitelio escamoso; la lesión está revestida por epitelio plano estratificado con hiperqueratosis. El diagnóstico fue confirmado, ADENOMA PLEOMÓRFICO.

Dos semanas después de la cirugía se retiró la férula acrílica y se encontró la mucosa palatina con detritus y con zonas necróticas, se debridó adecuadamente y se indicaron medidas locales. En los controles posteriores se observó una cicatrización adecuada de toda la mucosa palatina.

CASO 2:

Paciente de 15 años de edad, sexo masculino y de raza negra, referido para evaluación y tratamiento de un aumento de volumen en el paladar. El paciente relata que la lesión tiene un año y medio de evolución, con sangrado espontáneo, disfagia y disnea leve.

Al examen físico el paciente se encuentra en buenas condiciones generales de salud, sin asimetrías físicas ni faciales, presentando adenopatías móviles y dolorosas de 5 milímetros de diámetro en cadenas ganglionares submaxilares bilateralmente. En el examen intraoral se encuentra una tumoración submucosa que compromete tanto el paladar duro como el paladar blando del lado derecho pasando la línea media; la lesión es ovoide, de 35 por 45 milímetros y con bordes bien definidos; ligeramente móvil; consistencia dura-elástica y levemente dolorosa a la palpación; no infiltrante en tejidos profundos; superficie lisa, regular, de color semejante al de la mucosa sana y con múltiples vasos sanguíneos cruzando su superficie. (FOTO 2)

El estudio histopatológico de la biopsia incisional reportó un ADENOMA PLEOMÓRFICO. Para establecer la localización exacta y la relación con las estructuras vecinas se ordenó un TAC del tercio medio de la cara, el cual presentó una masa de contornos bien definidos localizada a nivel del paladar blando, con una densidad ligeramente menor a la de los músculos masticatorios adyacentes, sin calcificaciones ni áreas quísticas. Las estructuras óseas adyacentes, el paladar duro y las apófisis pterigoides no presentan erosión ni moldeamiento. Los músculos pterigoideos interno y externo se muestran de aspecto normal y existía un plano declivaje entre éstos y la masa que respetaba los espacios parafaríngeos. Lesión con aspecto radiográfico benigno. (FOTO 3)

Bajo anestesia general se realizó la resección del tumor, conservándose la mucosa palatina, el periostio y el hueso subyacente. Macroscópicamente estaba bien encapsulada. Al examen microscópico el espécimen quirúrgico mostró un tumor compuesto de estroma fibrocondroide laxo con múltiples placas de células epiteliales anguladas que formaban eventualmente túbulos y focalmente presentaban diferenciación escamosa con formación de globos córneos pero sin anaplasia y una cápsula bien definida; se observa también un tejido tumoral desflechado y parte de glándula salivar normal. El diagnóstico histopatológico confirmó el diagnóstico de ADENOMA PLEOMÓRFICO, sin evidencia de malignidad.

El postoperatorio transcurrió sin complicación, la cicatrización de la mucosa fue adecuada. (FOTO 4)

CASO 3:

Paciente de 8 años de edad, referido por presentar un aumento de volumen en el paladar duro del lado derecho, de una evolución de 3 meses, asintomático, aunque relata una molestia leve durante la masticación. Al examen clínico se encuentra una masa de 30 x 40 x 20 milímetros, bien definida y localizada desde la superficie, zona distal del primer bicúspide superior derecho hasta la tuberosidad del maxilar; traspasa la línea media y está recubierta por mucosa de color y textura normal; a la palpación se presenta de consistencia blanda y adherida. No presenta adenopatías. (FOTO 5)

En los estudios radiográficos no se observa compromiso óseo de la lesión. El estudio histopatológico de la biopsia incisional reportó un ADENOMA PLEOMÓRFICO. Bajo anestesia general y con entubación nasotraqueal se realizó resección quirúrgica del tumor y se colocó un cemento quirúrgico sobre el área denudada, soportado por una férula de acrílico que se había confeccionado antes de la cirugía. Se observó una

cicatrización completa a los seis meses del procedimiento. El estudio histopatológico del espécimen quirúrgico confirmó el diagnóstico de ADENOMA PLEOMÓRFICO.

DISCUSIÓN:

En 1985 Eveson y Cawson (5) estudiaron en Gran Bretaña 2410 casos de tumores epiteliales primarios en glándulas salivares y encontraron que 336 de ellos (14%) estaban en las glándulas salivares menores (orofaringe). El porcentaje de tumores malignos o potencialmente malignos en las glándulas salivares menores es mayor (40%) que en las glándulas salivares mayores (18%). La localización y el porcentaje de distribución de los tumores de las glándulas salivares menores son: paladar (54%), labios (21%) y mucosa bucal (11%), siendo el adenoma pleomórfico el más común. En este estudio también se encontró cómo el tumor maligno más común era el carcinoma adenoideo quístico. En 24 casos (7.1% de la muestra) los carcinomas se originaron a partir de un adenoma pleomórfico; el 62.5% se presentó en el paladar, con un predominio en mujeres (en relación 2:1) y con un rango de edad entre los 32 y 79 años.

En 1996 Okura y cols. (12) reportan un caso de adenoma pleomórfico en la glándula sublingual en un varón de 75 años, que es poco frecuente. En 1954 el Instituto de Patología de las Fuerzas

Armadas estudió 13.749 tumores epiteliales primarios en glándulas salivares; de éstos, 6.880 eran adenomas pleomórficos y de ellos sólo 10 casos estaban en la glándula sublingual.

Los casos reportados por Duque, Naranjo, Martínez, se presentan en pacientes menores de 15 años de edad y aunque el adenoma pleomórfico se ha reportado a esta edad, no es lo más frecuente (Tabla 1). En 1969 Galich (24) reporta el caso de una niña de 12 años de edad quien presenta un adenoma pleomórfico ulcerado sobre el lado derecho del paladar duro y blando que se extendía hasta la fosa pterigoidea. En 1991 Fonseca y cols reportan dos casos de adenoma pleomórfico en el paladar blando en mujeres, uno de ellos en una niña de 8 años de edad. En 1992 Austin y Crockett reportan un caso en el paladar en una niña de 10 años de edad. Otro caso de adenoma pleomórfico asintomático localizado sobre el lado derecho del paladar duro en un niño de 8 años de edad, y fue presentado en 1995 por Noghreyan y cols., quienes después de excidir el tumor y hacer un seguimiento por 18 meses no encontraron recurrencia de la lesión (13). También Courten y cols. (13) en 1996 reportan el caso de una niña de 10 años de edad con un adenoma pleomórfico, siguieron por nueve años después de la cirugía y no encontraron recidiva. López y cols. (15) reportan un caso en un joven de 16 años de edad con esta patología y de crecimiento rápido.

TABLA 1: CASOS DE ADENOMA PLEOMÓRFICO EN PALADAR EN NIÑOS MENORES DE 15 AÑOS DE EDAD

AUTOR	AÑO	EDAD	SEXO	RAZA	SEGUIMIENTO (AÑOS)	RECURRENCIA
Byars et al.	1957	9 años	F	?	28	5 años, re-excudido
Byars et al.	1957	7 años	F	?	7	No
Galich.	1969	12 años	F	?	1.5	No
LacK & Upton	1988	10 años	M	?	5	Re-excudido en 3 semanas (margen +)
Fonseca et al.	1991	8 años	F	?	?	?
Austin & Crockett	1992	10 años	F	?	1	No
Noghreyan et al.	1995	8 años	F	?	1.5	No
Courten et al.	1996	10 años	F	Blanca	9	No
Nuestro caso (1)	1998	15 años	M	Blanca	1	No
Nuestro caso (2)	1998	15 años	M	Negra	1	No
Nuestro caso (3)	1998	8 años	M	Blanca	5	No

A pesar de los diferentes reportes de adenoma pleomórfico a temprana edad, se puede decir que la edad más frecuente es entre la tercera y la quinta décadas de la vida; (4) sin embargo, en otro estudio se ha encontrado que es entre la segunda y séptima décadas de la vida. (2)

El adenoma pleomórfico, cuando se presenta en las glándulas salivares menores, tiene predilección por el paladar blando y el tercio posterior del paladar duro, como en los tres casos reportados aquí, zona esta donde existe una mayor concentración de las glándulas salivares menores, seguido en orden de frecuencia por manifestación en el labio superior y en la mucosa yugal. (25) A su vez, estas glándulas salivares se disponen en mayor concentración en las partes laterales (vs. mediales) del paladar blando y duro (2). En nuestros casos las lesiones tienen una localización *lateral* en el paladar duro (caso 1); *medio-lateral* en el paladar blando y duro (caso 2) y *medio-lateral* en el paladar duro (caso 3).

En el caso reportado por Galich (24) en 1969, la paciente esperó 18 meses para consultar y cuando lo hizo fue por el dolor y el sangrado de la lesión. Algo similar ocurrió en nuestros dos primeros casos; el paciente del caso 1 esperó 36 meses para consultar y lo hizo cuando la lesión empezó a doler durante la masticación; el paciente del caso 2 esperó 18 meses y consultó cuando la lesión empezó a sangrar espontáneamente, a presentar dolor durante la masticación. Este tipo de lesión siempre es infravalorada por los pacientes y cuando consultan lo hacen al ver el gran tamaño por sangrado, por ulceración o por ambas asociadas con la masticación. (2, 16)

En el caso 1, la lesión se ulceró en el centro como sucede normalmente. La úlcera cuando se presenta en la parte central y es bien localizada, al diagnóstico diferencial con el carcinoma espinocelular. (25)

En el caso 1 se realizó una excisión local amplia de la lesión que incluía la cápsula del tumor y se fenestró el paladar blando que es lo recomendado por muchos autores. (2, 3, 7, 13, 15, 16, 21, 25) En el mismo acto quirúrgico se realizó un colgajo palatino rotado para cubrir en parte el defecto, semejante a los casos publicados por Worthington (21) en 1974.

En el caso 2 se realizó la excisión total del tumor, sin fenestrar el paladar ni remover hueso, que es lo usualmente recomendado para el tratamiento quirúrgico de tumores benignos. (3) Llama la atención el reporte histopatológico: "cápsula bien definida con flecos aislados que corresponden en parte a tejido tumoral desflecado y en parte a glándula salivar menor"; que deja la sensación de remoción incompleta de la lesión, a pesar de su

fácil enucleación y remoción macroscópica completa. Es mediante un adecuado seguimiento del caso como se podrá evidenciar o no la recurrencia. Algunos autores (7, 16) relacionan la recidiva y la plurifocalidad de este tumor con la existencia de una cápsula incompleta, lo que facilitaría la entrada de islotes epiteliales en los tejidos vecinos, que daría lugar a un crecimiento no uniforme de la tumoración y a la vez explicaría el porcentaje de recidiva del 5% al 30% tras la extirpación macroscópica completa, pero microscópica incompleta.

CONCLUSIÓN:

El adenoma pleomórfico es el tumor benigno más común en las glándulas salivares. Su aparición es rara en las dos primeras décadas de la vida, frecuente entre la tercera a la quinta década de vida, aunque algunos estudios la reportan entre la segunda y séptima décadas. La localización más frecuente del adenoma pleomórfico es la glándula parótida en un 70% - 85% de los casos, siendo menor su localización en el paladar; sin embargo, cuando se presenta en glándulas salivares menores, se localiza preferentemente en paladar, lengua, labios, mejilla, piso de boca y trígono retromolar.

Su presentación clínica más común es de una tumoración bien delimitada, de crecimiento progresivo pero lento, bien tolerado e infravalorado por el paciente, quien sólo consulta cuando el tumor ha alcanzado un tamaño considerable, por sangrado, por ulceración o por ambos, asociados a la masticación.

El adenoma pleomórfico de glándulas salivares palatinas debe diferenciarse de otras patologías como son: las lesiones infecciosas, los quistes y tumores odontogénicos y no odontogénicos y las lesiones pseudotumorales que puedan presentarse en el paladar o comprometerlo por extensión desde zonas vecinas.

La mayoría de los autores recomienda una excisión local amplia del tejido palatal, que incluya la cápsula del tumor, con el fin de obtener un margen de seguridad de 5 mm. Se ha relacionado la recidiva y la plurifocalidad de este tumor con la existencia de una cápsula incompleta, lo que facilitaría la entrada de islotes epiteliales en los tejidos vecinos; ello daría lugar a un crecimiento no uniforme de la tumoración y explicando a la vez el porcentaje de un 5% a un 30% de recidiva tras la extirpación macroscópica completa, pero microscópica incompleta. Presentamos tres casos de adenoma pleomórfico en pacientes de sexo masculino, uno en un niño de 8 años y dos casos en jóvenes de 15 años de edad quienes fueron exitosamente tratados.

BIBLIOGRAFÍA

1. Ellis G.L. and Auclair P.L., Atlas of Tumor Pathology, Tumors of the Salivary Glands. AFIP, 1996, Washington, D.C.
2. Faubel Serra M. y cols. Tumor mixto de glándula salivar menor: A propósito de dos casos. Acta de Otorrinolaringología & Cirugía de Cabeza y Cuello. 1988, 26: 47 - 49.
3. Pogrel M. Anthony. The Management of Salivary Gland Tumors of the Palate. J Oral Maxillofac Surg, 1994, 52: 454-459.
4. Waldron C.A. et al. Tumors of the Intraoral Minor Salivary Glands: A Demographic and Histologic Study of 426 Cases. Oral Surgery, 1988, 66: 323.
5. Eveson J. W. and Cawson R.A. Tumors of the Minor (Oropharyngeal) Salivary Glands: A Demographic Study of 336 Cases. J Oral Pathol, 1985, 14: 500 - 509.
6. Grewal D.S. et al. Pedunculated Pleomorphic Adenoma of the Base Manifesting with Dyspnea. J Laryngol Otol, 1984, 98: 425 - 427.
7. Vyas K. C. and Mathur S.P. Pleomorphic Salivary Adenoma of Cheek. J Laryngol Otol, 1984, 98: 421 - 423
8. Bardwil J.M. et al. Report of one Hundred Tumors of the Minor Salivary Glands. Am J Surgery, 1966, 112: 493 - 496.
9. Spiro R.H. Salivary Neoplasms. Overview of a 35 Year Old Experience with 2807 Patients. Head Neck Surgery, 1986, 8: 177-180.
10. Da-Quan M. and Guang-Yan Y. Tumors of the Minor Salivary Glands. Acta Otolaryngol, 1987, 103: 325-327.
11. Eveson J.W. and Cawson R.A. Salivary Gland Tumors: A Review of 2410 Cases with Particular Reference to Histological Types, Site, Age and Sex Distribution. J Pathol, 1985, 146: 51-60.
12. Okura Masaya, et al. Pleomorphic Adenoma of the Sublingual Gland: Report of a Case. J Oral Maxillofac Surg, 1996, 54: 363 - 366.
13. Courten A. et al. Pleomorphic Adenoma of the Palate in a Child: 9 Year Follow-up. Int J Oral and Maxillofac Surg, 1996, 25: 293 - 295.
14. Schuller D.E. and McCabe B.F. The Firm Salivary Mass in Children. Laryngoscope, 1977, 87: 1891-1894.
15. López Cedrún J.L. et al. Pleomorphic Adenoma of the Palate in Children: Report of a Case, Int. J Oral Maxillofac Surg, 1996, 25: 206-207.
16. Campos A. y cols. Adenoma pleomorfo de glándula salivar accesoria. Acta Otorrinolaring, 1995, 46: 331-334.
17. Fraile Rodrigo J.J. y col. Adenoma pleomorfo de tabique nasal. Revisión. Acta Otorrinolaring, 1993, 44: 239 - 241.
18. Scully C. Diseases of the Salivary Glands. Br Dent J, 1992: 358 - 359.
19. Seifert Gerhard and Sobin Leslie H. The World Health Organization's Histological Classification of Salivary Gland Tumors: A Commentary on the Second Edition, Cancer, 1992, 70: 379 - 385.
20. Pogrel M.A. Diagnosis and Surgical Management of Salivary Gland Tumors. Oral Maxillofac Surg Clinic Nor Am, 1997, 9: 353 - 373.
21. Worthington Philip. The Management of the Palatal Pleomorphic Adenoma, Br J Oral Surg, 1974, 12: 132-140.
22. Pogel M.A. Inferior Hemi-maxillectomy for Treatment of Palatal Tumors. J Oral Maxillofac Surg, 1988, 46: 85-87.
23. Klijanienko J. et al. Clear Cell Carcinoma Arising in Pleomorphic Adenoma of the Minor Salivary Gland J Laryngol Otol, 1989, 103: 789-791.
24. Galich R. Salivary Gland Neoplasms in Childhood. Arch Otolaryngol, 1969, 89: 100-104.
25. Olarte S. Federico y cols. Cirugía: Tomo II. Primera edición. Editorial Universidad de Antioquia, Medellín, 1983: 436-463.

FOTO 1:

Aspecto clínico de paciente de 15 años de edad que presenta una masa en el paladar duro; se presentó ulceración después de la toma de biopsia. En la radiografía no se observó compromiso óseo; el resultado del estudio histopatológico fue un ADENOMA PLEOMÓRFICO



FOTO 5:

Masa de 40 x 30 x 20 milímetros en paladar duro del lado derecho, recubierta de mucosa, de aspecto normal en un niño de 12 años. En los estudios radiográficos no presenta compromiso óseo. El estudio histopatológico confirmó el diagnóstico de ADENOMA PLEOMÓRFICO



FOTOS 2 - 3 - 4:

Aspecto clínico, tomográfico y posquirúrgico de ADENOMA PLEOMÓRFICO, en un joven de 15 años de edad, localizado en el paladar duro y blando. En el corte tomográfico no se observan erosiones en el paladar producidas por el tumor

