

# Adenoma pleomorfo en heterotopia salival de epiglotis: a propósito de un caso

Pleomorphic adenoma in heterotopic salivary tissue of the epiglottis: a case report

## RESUMEN

La heterotopia salival es la presencia de tejido salival fuera de las glándulas salivales. Se han encontrado en varias áreas del organismo, aunque su localización en la vía aérea superior es muy infrecuente y pueden malignizar en algunos casos.

Presentamos el caso de una paciente mujer de 60 años con disnea progresiva y disfagia de dos meses de evolución. A la exploración se observa una neoformación en epiglotis que ocluye parcialmente la luz glótica. Tras la exéresis de la tumoración el resultado anatomopatológico fue tumor mixto / adenoma pleomorfo.

## PALABRAS CLAVE:

Adenoma pleomorfo, heterotopia.

## SUMMARY

Salivary heterotopia is the presence of salivary tissue outside the salivary glands. They have been found in several areas of the body, although its location in the upper airway is very rare and can become malignant in some cases.

We report the case of a 60 year-old woman with progressive dyspnea and dysphagia. The examination revealed a tumor in epiglottis. After excision of the tumor pathologic result was mixed tumor / pleomorphic adenoma.

## KEY WORDS:

Pleomorphic adenoma, heterotopia.

## Introducción

La heterotopia salival es la presencia de tejido salival fuera de las glándulas salivales; aunque numerosos autores la identifican con el concepto de tejido salival ectópico, difiere en que en éste el tejido salival normal se ha desplazado a otro lugar. Se ha encontrado en varias áreas del organismo, pero es poco frecuente en la región cervical superior.

Hemos creído interesante presentar este caso por su rareza y para señalar la importancia del diagnóstico y tratamiento precoces para evitar la obstrucción de la vía aérea y una posible malignización del tumor.

## Caso Clínico

Presentamos el caso de una mujer de 60 años de edad sin antecedentes médicos de interés ni hábitos tóxicos. Acude a urgencias por presentar disnea progresiva y disfagia de dos meses de evolución, sin otra clínica asociada. La exploración general y otorrinolaringológica es normal, excepto una neoformación en epiglotis. La lesión presentaba bordes lisos, aspecto lobulado, diámetro mayor de 1 cm y características exofíticas, con obstrucción parcial de la luz glótica.

La tomografía axial computerizada (TAC) realizada demostró la presencia de la tumoración supraglótica, dependiente de borde libre de epiglotis, exofítica, de 24 mm de diámetro, bien definida. No se observaban adenopatías cervicales patológicas (Figs. 1A, 1B y 1C).

La paciente fue programada para exéresis de la lesión mediante microcirugía endolaríngea. La intervención y el postoperatorio cursaron sin complicaciones. El tamaño tumoral era de 3x2.6x1.7 cm (Fig. 2). El patrón histológico alternaba áreas estromales mixocondriales con otras, dominantes, epitelio-mioepiteliales, y mostraba un patrón

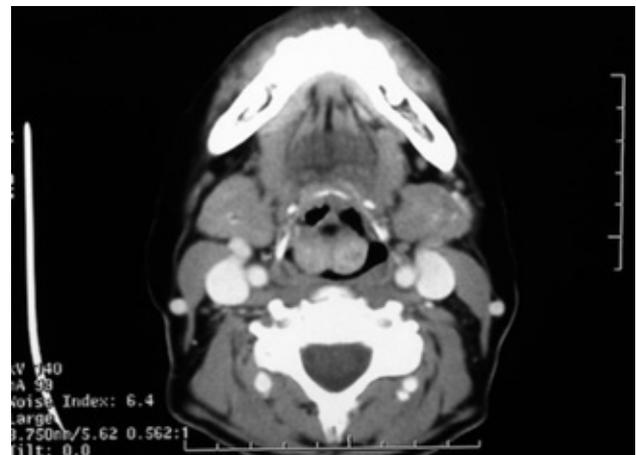


Figura 1A: TAC cervical: corte axial.

de crecimiento expansivo, no encapsulado. El diagnóstico definitivo fue adenoma pleomorfo/tumor mixto.

La paciente siguió revisiones periódicas por parte de ORL, siendo dada de alta a los 6 meses, con recuperación completa.

## Discusión

Los tumores de glándulas salivales constituyen el 3 a 6% de los tumores de cabeza y cuello en adultos. El adenoma pleomorfo representa el 80-90% de las neoplasias benignas<sup>1</sup>. Aparece en la cuarta década de la vida y presenta un crecimiento lento, lo que conlleva un diagnóstico tardío en muchos casos.

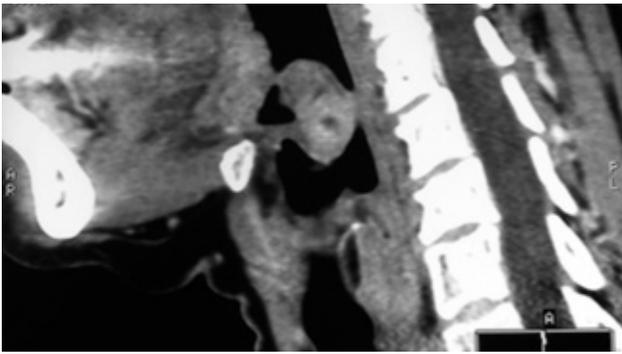


Figura 1B: TAC cervical: corte sagital.



Figura 1C: TAC cervical: corte coronal.



Figura 2: Imagen macroscópica del tumor.

Es un tumor bien delimitado con una pseudocápsula y múltiples nódulos sobresaliendo de la masa principal como focos pseudopódicos que explican la recidiva cuando el tumor es enucleado. Los tumores recidivados tienen una gran tendencia a ser multinodulares. El polimorfismo histológico de esta lesión hizo pensar a Minsén que tenía constitución epitelial y conjuntiva, por lo que, en 1874, acuñó el nombre de tumor mixto. Tiene elementos epiteliales y células mioepiteliales de cuya acción secretora derivan estructuras hialinas, mixoides y pseudocartilaginosas, con focos calcificados, interpretados erróneamente como derivados conjuntivos. Para evitar esta confusión, es preferible llamarlo adenoma pleomorfo, aunque es más usual la denominación de tumor mixto. El 80% de los adenomas pleomorfos se desarrollan en la glándula parótida, y el 20% restante se reparte entre las glándulas submaxilares y accesorias<sup>2</sup>.

La heterotopia salival (HS), también denominada tejido salival aberrante, coristoma o hamartoma, es la presencia de tejido salival en cualquier otro lugar que no sean las glándulas salivales<sup>3</sup>; aunque numerosos autores la identifican con el concepto de tejido salival ectópico<sup>4,6</sup>, difiere en que en éste el tejido salival normal se ha desplazado a otro lugar. Es poco frecuente en la región cervical superior, incluso mayor en el tercio superior cervical que en el inferior<sup>2</sup>.

Desde que se señalara la existencia de HS por Hunczovsky en 1789 hasta ahora, se han encontrado en numerosas zonas del organismo. En el cuello, tiene predilección por la región inferior, a lo largo del borde anterior del esternocleidomastoideo (ECM), menos frecuente es el hallazgo en el tercio superior y excepcional en el tercio medio del cuello<sup>2</sup>.

La aparición de esta afección tiene que ver con el desarrollo embrionario y difiere según el lugar anatómico. Willis en 1968 propuso tres hipótesis generales: a) persistencia y desarrollo anormales de estructuras vestigiales; b) la diferenciación anormal de tejidos locales (heteroplasias), y c) la dislocación de una porción de un órgano rudimentario definitivo durante su movimiento y desarrollo. En el tercio superior cervical se debería al atrapamiento de tejido salival en ganglios parapatóides durante el desarrollo embrionario, del mismo modo que hay tejido ganglionar atrapado en la glándula parótida. En el tercio inferior, la HS sería secundaria a heteroplasias desarrolladas a partir y dentro de restos embrionarios del seno precervical de His<sup>7</sup>.

Las HS cervicales se manifiestan como una masa, quiste o fístula generalmente en la edad adulta. El diagnóstico definitivo lo da el estudio histológico, y son orientativas la clínica y la valoración por la imagen. El tratamiento debe ser quirúrgico y sin gran demora para evitar su malignización<sup>8</sup>.

## Conclusiones

Los adenomas pleomorfos son tumores benignos de glándulas salivales, y su migración a otros tejidos es poco frecuente. En heterotopias salivales supraglóticas es necesaria su exéresis por su riesgo de obstrucción gótica y por su riesgo de malignización.

## Bibliografía

1. López Davis A, Martín Granizo R. Cirugía oral y maxilofacial. SECOM. Panamericana 3o edición, Elsevier. 40:489-514.
2. Moráis Pérez D, Dalmau Galofre J, Bernat Gili A. Pleomorphic adenoma in heterotopic cervical salivary glands. En: Sacristán T, Álvarez-Vicent JJ, Bartual J, Antolí-Candela F, editores. Head and Neck Surgery Otorhinolaryngology. Amsterdam, Berkeley, Milano: Kugler & Ghedini; 1990. p.2697-700.
3. Batsakis J. Accessory parotid gland. Ann Otol Rhinol Laryngol. 1988;97: 434-5.
4. Ludmer B, Joachims HZ, Ben-Arie J, Eliachar I. Adenocarcinoma in heterotopic salivary tissue. Arch Otolaryngol. 1981;107:547-8.
5. Ferlito A, Bertino G, Rinaldo A, Mannara GM, Devaney KO. A review of heterotopia and associated salivary gland neoplasms of the head and neck. J Laryngol Otol. 1999;113:299-303.
6. Clarós P, Turcanu D, Clarós JR, Clarós A, Vila Torres J. Adenoma pleomorfo en tejido salival ectópico en el niño. Acta Otorrinolaringol Esp. 2000;51: 543-7.
7. Marcos Ordóñez M, García Lagarto E, Santos Pérez J, Moráis Pérez D. Carcinoma sobre adenoma pleomorfo en heterotopia salival cervical. Manejo de un caso y revisión de la literatura. Acta Otorrinolaringol Esp. 2007;58(8):371-4.
8. Daniel E, McGuirt WF. Neck masses secondary to heterotopic salivary gland tissue: a 25-year experience. Am J Otolaryngol. 2005;26:96-100.

## Correspondencia

Dra. M. Llano Espinosa  
 Zoel García Galdeano, 11 - 3º Dcha.  
 50004 Zaragoza  
 E-mail: mllano@salud.aragon.es