

Cistoadenoma papilar linfomatoso (Warthin-like) de glándulas salivales menores

Laura Párraga-Linares ¹, Jose-Manuel Aguirre-Urizar ², Leonardo Berini-Aytés ³, Cosme Gay-Escoda ⁴

¹ Odontóloga. Residente del Máster de Cirugía Bucal e Implantología Bucofacial. Facultad de Odontología de la Universidad de Barcelona

² Médico-Estomatólogo. Especialista en Anatomía Patológica. Catedrático de Medicina Bucal. Facultad de Medicina y Odontología de la Universidad del País Vasco

³ Médico-Estomatólogo. Especialista en Cirugía Maxilofacial. Profesor Titular de Patología Quirúrgica Bucal y Maxilofacial. Profesor del Máster de Cirugía Bucal e Implantología Bucofacial. Facultad de Odontología de la Universidad de Barcelona. Investigador del Instituto UB-IDIBELL

⁴ Médico-Estomatólogo. Especialista en Cirugía Maxilofacial. Catedrático de Patología Quirúrgica Bucal y Maxilofacial. Director del Máster de Cirugía Bucal e Implantología Bucofacial. Facultad de Odontología de la Universidad de Barcelona. Investigador coordinador del Instituto UB-IDIBELL. Jefe del Servicio de Cirugía Bucal, Implantología Bucofacial y Cirugía Maxilofacial del Centro Médico Teknon. Barcelona

Correspondencia:

Centro Médico Teknon

Instituto de investigación

UB-IDIBELL

C/Vilana, 12.

08022. Barcelona

cgay@ub.edu

Recibido: 21/11/2008

Aceptado: 20/05/2009

Párraga-Linares L, Aguirre-Urizar JM, Berini-Aytés L, Gay-Escoda C. Cistoadenoma papilar linfomatoso (Warthin-like) de glándulas salivales menores. Med Oral Patol Oral Cir Bucal. 2010;15(Ed. esp.):23-6.

© Medicina Oral S. L. C.I.F. B 96689336 - ISSN 1698-4447 *

Indexed in:

- Science Citation Index Expanded
- Journal Citation Reports
- Index Medicus, MEDLINE, PubMed
- Excerpta Medica, Embase, SCOPUS,
- Índice Médico Español
- DIALNET
- LATINDEX

Originally cited as: Párraga-Linares L, Aguirre-Urizar JM, Berini-Aytés L, Gay-Escoda C. Papillary cystoadenoma lymphomatosum (Warthin-like) of minor salivary glands. Med Oral Patol Oral Cir Bucal. 2009 Nov 1;14 (11):e597-600.

Full article in ENGLISH:

URL: <http://www.medicinaoral.com/medoralfree01/v14i11/medoralv14i11p597.pdf>

Resumen

El cistoadenoma papilar linfomatoso es una neoplasia salival benigna que se localiza preferentemente en la glándula parótida (tumor de Warthin), siendo extremadamente rara su presentación en otras glándulas salivales mayores o menores. Clínicamente se presenta como una tumoración de evolución lenta y fluctuante a la palpación debido a su morfología quística. El tratamiento de elección es la exéresis completa con un buen margen de seguridad.

Presentamos el caso de una paciente mujer de 73 años de edad que presentaba una lesión tumoral, asintomática, de 8 años de evolución, en la parte posterior derecha del paladar duro. Se realizó la exéresis-biopsia, que fue informada como cistoadenoma papilar linfomatoso. En la visita de control efectuada a las 3 semanas se observó que la lesión había recidivado por lo que se procedió a la reintervención con láser de CO₂, ejecutando una extirpación que incluía el periostio para asegurar la exéresis completa del tumor. A los 10 meses no se observó ninguna recidiva.

En este artículo se incluye una revisión de esta patología y se discuten sus principales aspectos clinicopatológicos y terapéuticos.

Palabras clave: Cistoadenoma papilar linfomatoso, tumor de glándula parótida, tumor de glándulas salivales menores, tumor de Warthin.

Introducción

El cistoadenoma papilar linfomatoso (CPL) fue descrito en el año 1929 por Warthin, recibiendo desde entonces el nombre de tumor de Warthin (TW) cuando se sitúa en la glándula parótida. Se trata de una neoplasia salival benigna que se localiza preferentemente en la parótida, siendo extremadamente rara su presentación en otras glándulas salivales mayores o menores. Constituye una entidad clínicopatológica bien definida, con un clásico doble componente histológico, epitelial oncocítico y linfoide estromal (1). Se cree que esta lesión deriva de elementos ductales atrapados en los ganglios linfáticos parotídeos que han crecido en su interior, sugiriéndose que la proliferación adenomatosa quística desencadenaría una respuesta linfoide reactiva secundaria en el estroma (2-4). El TW es la segunda neoplasia benigna más frecuente de las glándulas salivales después del adenoma pleomorfo, representando entre el 10% y el 15% del total (3,4). Más del 80% de los casos se localizan en el lóbulo superficial de la glándula parótida en estrecha relación con los ganglios linfáticos. Clínicamente se presenta como una tumoración de crecimiento lento y fluctuante a la palpación debido a su estructura quística, y cerca del 10% de los casos son bilaterales. El tratamiento de elección del TW es la exéresis quirúrgica con márgenes de seguridad, que incluye el estudio histológico intraoperatorio que siempre será confirmado con los análisis anatomopatológicos posteriores (1,3,5).

Se han descrito casos malignos de esta neoplasia, tanto a partir del componente epitelial como del linfoide, así como la aparición de una leucemia o de una metástasis de melanoma en el componente linfoide del tumor (6,7).

El propósito de este artículo es presentar un caso clínico de cistoadenoma papilar linfomatoso (Warthin like) en una localización muy infrecuente y analizar y discutir las principales características clínicopatológicas de esta lesión.

Caso clínico

Se trata de una paciente mujer de 73 años de edad, raza caucásica, alérgica a la penicilina y con antecedentes patológicos de hipertensión arterial, depresión e hipercolesterolemia por lo que es tratada farmacológicamente con Simvastatina (Tarbis®, Belmac, Zaragoza, España) 20 mg/1 comprimido al día, Lormetazepan (Noctamid®, Shering, Lyz-Lez-Lannoy, Francia) 2 mg/ 1 comprimido al día, Captopril (Cinfa®, Cinfa, Pamplona, España) 25 mg/ ½ comprimido al día, Domperidona (Montilium®, Dr.Esteve, Barcelona, España) 10 mg/ 1 comprimido al día, Clorhidrato de sertralina (Besitran®, Pfizer, Barcelona, España) 50 mg/ 1 comprimido al día y Omeprazol (Cuve®, Cuvefarma, Córdoba, España) 20 mg/ 1 comprimido al día. No refería hábitos tóxicos y había sido intervenida quirúrgicamente de un quiste sebáceo facial y de dos cesáreas.

La paciente acudió al Servicio de Cirugía Bucal de la Clínica Odontológica de la Universidad de Barcelona por presentar una lesión tumoral asintomática de 8 años de evolución, en la parte posterior derecha del paladar duro (Figura 1). La pa-



Fig. 1. Tumoración palatina inicial de aspecto nodular y eritematoso.

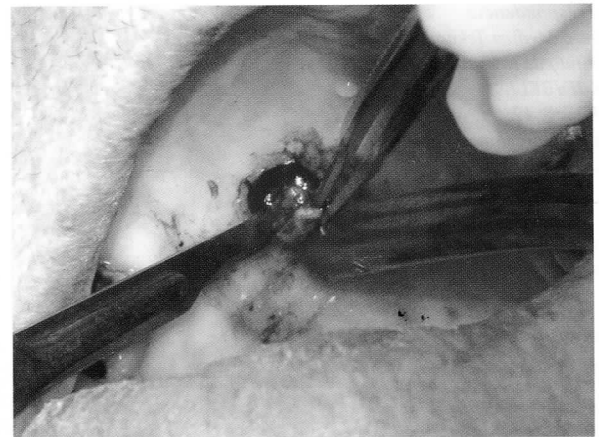


Fig. 2. Tratamiento de la lesión. Biopsia excisional con bisturí frío bajo anestesia local infiltrativa.



Fig. 3. Reintervención quirúrgica. Exéresis de la lesión con láser de CO₂.

ciente era portadora de prótesis parciales removibles superior e inferior desde hacia 20 años. Tras referir molestias por el trauma producido por la prótesis sobre la lesión, 3 meses antes le habían ajustado la prótesis confeccionándole una nueva liberando el paladar. Al persistir la tumoración fue remitida a nuestro Servicio para su diagnóstico y tratamiento.

A la exploración observamos una lesión tumoral eritematosa, de 6 mm de diámetro, multinodular en su superficie, no ulcerada e indolora. Se hizo una exploración dentaria y radiológica intraoral y descartamos un posible origen odontogénico. Se solicitó una tomografía computadorizada que no mostró alteraciones óseas en la región donde estaba situada la lesión.

Con todos estos datos se llegó al diagnóstico de presunción de neoplasia salival benigna (adenoma pleomorfo). Se realizó la biopsia excisional de la lesión bajo anestesia local mediante bisturí frío (Figura 2), eliminando toda la tumoración con márgenes de seguridad pero sin incluir el periostio. Colocamos un punto de sutura en X que sujetaba un apósito de colágeno texturado Lyostyp® (Braun Aesculap AG, Tuttlingen, Alemania) para favorecer la hemostasia. La herida cicatrizó por segunda intención y no hubo complicaciones intraoperatorias ni postoperatorias.

El estudio histopatológico reveló que se trataba de un cistoadenoma papilar linfomatoso (Warthin-like) con espacios quísticos revestidos por una proliferación epitelial papilar con células cilíndricas eosinófilas dispuestas en una doble hilera. En el eje de las proyecciones papilares se observa una variable cantidad de tejido linfoide con linfocitos maduros.

En el control a las 3 semanas se observó que la lesión había recidivado, apreciándose de nuevo una lesión tumoral eritematosa de 5 mm de diámetro, asintomática, y de idénticas características clínicas que la inicial, por lo que se decidió la reintervención quirúrgica. En esta ocasión se utilizó el láser de CO₂ extirpando la lesión e incluyendo el periostio para asegurar una exéresis completa (Figura 3). El resultado anatomopatológico de esta segunda biopsia volvió a ser de CPL. Al mes se observó que la herida quirúrgica había cicatrizado sin complicaciones.

El protocolo de seguimiento comprende controles periódicos cada 6 meses el primer año y posteriormente cada año. Actualmente después de 10 meses de seguimiento, no existe evidencia de recidiva de la lesión.

Discusión

El CPL es un tumor casi exclusivo de la glándula parótida siendo muy rara y controvertida su aparición en otras glándulas salivales (3). Su posible origen es discutido por varios autores (2-4,8), entre ellos Thompson y Bryant (8), consideran que se trata de una verdadera proliferación neoplásica de los conductos de las glándulas salivales, y por el contrario, otros autores (3) opinan que se trata de un proceso reactivo o metaplásico.

El primer caso de CPL localizado en glándulas salivales menores fue descrito en 1954, y desde entonces se han publi-

cado muy pocos casos en la literatura (1,5,9). En la revisión publicada por Eveson y Cawson (3) en 1986 sobre 278 casos de TW, sólo 2 se presentaron en la glándula submaxilar, siendo la localización más frecuente la glándula parótida con el 99,2% de los casos. Toida y cols. (10) en un estudio clinicopatológico de 82 casos de tumores de glándulas salivales menores no encontraron ningún caso de CPL. De igual modo, Jaber (11) en una serie de 75 casos de tumores de glándulas salivales menores, encontró 26 localizados en el paladar duro (34,6%) pero ningún caso correspondió a un CPL. También Yih y cols. (12) publicaron un estudio retrospectivo de 213 casos de tumores de glándulas salivales menores, con 91 casos (42,72%) localizados en el paladar de los que ninguno fue un CPL. En ambos estudios (11,12) el adenoma pleomorfo fue el tumor benigno más frecuente y el carcinoma mucoepidermoide el tumor maligno diagnosticado con mayor frecuencia.

El TW aparece en adultos, presentando la mayor incidencia entre los 58 y los 70 años de edad (3,5). Respecto al sexo, para algunos autores la proporción entre hombres y mujer es similar, 1,6:1 (3), aunque en este aspecto existe gran controversia porque otros autores (2,5) encuentran un predominio del sexo masculino frente al femenino con una proporción de 5:1.

La localización más frecuente del CPL es la glándula parótida, aunque se han descrito algunos casos en mucosa yugal (1), la glándula submaxilar (3), labios y paladar (1,5). En las grandes series (3), el 99,2% de los TW se localizaban en la glándula parótida y sólo el 0,8% en la glándula submaxilar.

La Organización Mundial de la Salud clasifica al TW dentro de los tumores epiteliales benignos. Macroscópicamente el TW se presenta como una masa ovoide o esferoidea, con una cápsula fibrosa densa y mostrando múltiples compartimentos quísticos, llenos de un material viscoso, amarillo o pardo. No obstante, Eveson y Cawson (3) encontraron un 77% de casos con la cápsula incompleta, un 8% completa y un 16% de tumores en los que no había evidencia de cápsula.

Microscópicamente es un tumor bien delimitado y típicamente quístico y papilar, con un revestimiento epitelial adenoide columnar eosinófilo oncocítico dispuesto en dos capas que descansa sobre un estroma linfoide. La microscopía electrónica confirma la acumulación masiva de mitocondrias en el citoplasma de las células epiteliales oxifílas, así como la presencia en ellas de estructuras cristaloides. La inmunohistoquímica ha demostrado que la mayor parte de estos linfocitos son del tipo B, el 50% contienen IgG, el 33% IgA y el resto IgM, IgD e IgE (13) En relación con las cantidades relativas de los componentes epitelial y linfoide se han diferenciado varios subtipos del TW, lo que ha permitido señalar una evolución en la progresión tumoral en base al aumento del componente linfoide (2).

Algunos autores (2) consideran el TW como una proliferación epitelial adenomatosa que promueve una reacción linfoidea secundaria mediada por fenómenos inmunológicos intratumorales.

Se han descrito algunos casos malignos, tanto en relación con el componente epitelial como con el linfoideo, así como la aparición de una leucemia o de metástasis en este componente (6). Skalova y cols. (7) presentaron un caso de carcinoma de células escamosas a partir de un CPL localizado en la glándula parótida en una mujer de 80 años de edad.

Clínicamente el TW suele mostrarse como una tumoración de lenta evolución, habiéndose publicado casos con hasta 20 años de evolución (3). Nuestro caso con una evolución de 8 años estaría dentro de estos parámetros evolutivos. La palpación tumoral suele ser fluctuante dada su constitución quística y el tamaño puede variar desde pocos milímetros a centímetros. Así en la serie de Eveson y Cawson (3), el 56% de los tumores medían entre 1 y 3 cm., el 40% de 4 a 6 cm. y sólo uno excedió los 10 cm. de diámetro.

El diagnóstico diferencial de esta neoplasia debe realizarse preferentemente con el adenoma pleomorfo y el cistoadenoma (14). El diagnóstico anatomopatológico es generalmente fácil, pero y también debe diferenciarse del adenoma canalicular, del sialoadenoma, así como de un quiste branquial cuando afecta a la glándula parótida.

La gammagrafía con el radioisótopo pertecnato de Tecnecio 99m suele ser útil en el diagnóstico de las neoplasias parotídeas, ya que el TW capta el isótopo y se comporta como un nódulo caliente.

El tratamiento de elección de estos tumores es la extirpación local con un buen margen de seguridad para evitar posibles recidivas. Es importante tener presente el hecho de que cuando se localizan en la glándula parótida de un 5 a un 10% pueden ser bilaterales y de un 10 a un 15% multicéntricos. En la serie publicada de Eveson y Cawson (3), 30 fueron bilaterales (5%) y 3 casos (1%) recidivaron, al año y a los 3 y 7 años respectivamente.

Podemos concluir que el CPL es un tumor salival benigno muy infrecuente en las glándulas salivales menores. El tratamiento de elección es la extirpación quirúrgica con márgenes de seguridad para evitar su recidiva y/o la posible malignización de este tumor. La posibilidad de recidiva en las neoplasias salivales obliga a programar controles periódicos cada 6 meses durante 10 años al menos.

Bibliografía

1. Fantasia JE, Miller AS. Papillary cystadenoma lymphomatosum arising in minor salivary glands. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1981;52:411-6.
2. Aguirre JM, Echebarria MA, Martínez-Conde R, Rodríguez C, Burgos JJ, Rivera JM. Warthin tumor. A new hypothesis concerning its development. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1998;85:60-3.
3. Eveson JW, Cawson RA. Warthin's tumor (cystadenolymphoma) of salivary glands. A clinicopathologic investigation of 278 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1986;61:256-62.
4. Seifert G, Bull HG, Donath K. Histologic subclassification of the cystadenolymphoma of the parotid gland. Analysis of 275 cases. *Virchows Arch A Patho Anat Histol.* 1980;388:13-38.
5. Baden E, Pierce M, Selman AJ, Roberts TW, Doyle JL. Intraoral papillary cystadenoma lymphomatosum. *J Oral Surg.* 1976;34:533-41.
6. Dardick I, Claude A, Parks WR, Hoppe D, Stinson J, Burns BF, et al. Warthin's tumor: an ultrastructural and immunohistochemical study of basilar epithelium. *Ultrastruct Pathol.* 1988;12:419-32.

7. Skálová A, Michal M, Nathanský Z. Epidermoid carcinoma arising in Warthin's tumour: a case study. *J Oral Pathol Med.* 1994;23:330-3.
8. Thompson AS, Bryant HC Jr. Histogenesis of papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin's tumor) of the parotid salivary gland. *Am J Pathol.* 1950;26:807-49.
9. Hendrick JW. Papillary cystadenoma lymphomatosum of the palate. Report of a case. *Arch Otolaryngol.* 1964;79:15-7.
10. Toida M, Shimokawa K, Makita H, Kato K, Kobayashi A, Kusunoki Y, et al. Intraoral minor salivary gland tumors: a clinicopathological study of 82 cases. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2005;34:528-32.
11. Jaber MA. Intraoral minor salivary gland tumors: a review of 75 cases in a Libyan population. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2006;35:150-4.
12. Yih WY, Kratochvil FJ, Stewart JC. Intraoral minor salivary gland neoplasms: review of 213 cases. *J Oral Maxillofac Surg.* 2005;63:805-10.
13. Korsrud FR, Brandtzaeg P. Immunohistochemical characterization of cellular immunoglobulins and epithelial marker antigens in Warthin's tumor. *Hum Pathol.* 1984;15:361-7.
14. Gallego L, Junquera L, Fresno MF, De Vicente JC. Papillary cystadenoma and cystadenocarcinoma of salivary glands: two unusual entities. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2008;13:E460-3.