



Cistadenoma papilar linfomatoso ectopico. Presentación de un Caso

Ligia Pérez Castro^{1}, Orlando Yoris Pérez², Luís Sarmiento Salas³,
Bayron Castro⁴ y Campo Elías Pérez¹*

¹Cátedra de Patología Estomatológica. Facultad de Odontología.

*²Pregrado Facultad de Odontología. ³Cátedra de Cirugía Bucal. Facultad de Odontología.
Universidad del Zulia. ⁴Servicio de Oncología. Hospital Universitario.
Maracaibo, Venezuela.*

Resumen

El Cistadenoma papilar linfomatoso es una neoplasia benigna de glándulas salivales. Su localización principal es en glándula parótida, sin embargo, ha sido reportado ocasionalmente en la submandibular y en glándulas salivales menores; excepcionalmente fuera de estas. El nódulo linfático yugulo digastrico se localiza en la región superior lateral del cuello, debajo del músculo digastrico sin contacto alguno con la parótida, recibe drenaje de senos paranasales, base de lengua, supraglotis, rinofaringe, orofaringe e hipofaringe. El propósito de este trabajo es reportar el caso de un paciente masculino de 52 años quien acude a consulta por presentar tumoración asintomática en región submandibular izquierda, con tres años de evolución. A través del examen clínico se detectó masa bien circunscrita, firme a la palpación. Imagenologicamente se evidenció el ganglio yugulo digastrico superior izquierdo agrandado, representado por una imagen hipodensa de aproximadamente 3cm. La biopsia excisional reveló cavidades quísticas, revestidas por dos capas de células oncocíticas con discretas proyecciones papilares, en un estroma con abundante tejido linfoide, formando en algunas áreas centros germinativos, características que permitieron llegar al diagnóstico de cistadenoma papilar linfomatoso.

Palabras clave: Neoplasia, benigna, glándula salival, cistadenoma.

* Autor para correspondencia: Telf. 0261-7573769. E-mail: ligiaperezcastro@cantv.net

Ectopic Papillary Cystadenoma Lymphomatosum. A Case Report

Abstract

Papillary Cystadenoma lymphomatosum is a benign salivary gland neoplasia. Its main location is parotid gland. However, it has been reported in submandibular and minor salivary glands; exceptionally out of these. The jugulo digastric lymph node is located at the lateral superior aspect of the neck, below the digastric muscle; it is not in relation with the parotid gland. It gets drainage from paranasal sinuses, base of the tongue, supraglottis, rhinopharynx, oropharynx and hypopharynx. The purpose of this paper is to report a 52 year old, male, with an asymptomatic tumour at the left submandibular area. Three years history. Through clinical examination, well circumscribed, firm and painless mass was detected. Magnetic resonance showed an enlarged jugulo digastric lymph node, at the left area, represented by a 3cm of its greatest dimension, hypodense nodule. The excisional biopsy showed cystic cavities, lined by two layers of oncocytic cells with papillary projections, in a lymphoid rich stroma, with some germinal centers. These microscopic features led to the diagnosis of papillary cystadenoma lymphomatosum.

Key words: Neoplasia, benign, salivary gland, cystadenoma.

Introducción

El Cistadenoma papilar linfomatoso (CPL), conocido también como tumor de Warthin, es una neoplasia benigna, considerada como, la segunda más común en glándulas salivales¹⁻³.

Su etiología no ha sido identificada, algunos investigadores hablan de una asociación al virus papiloma humano, otros especulan que el tabaco desencadena su formación, apuntando que los fumadores tienen un riesgo mayor a desarrollarlo que los no fumadores¹.

Su patogénesis no está bien determinada, se manejan dos hipótesis. Tradicionalmente, se ha considerado que se forma a partir de tejido glandular salival, atrapado en los ganglios linfáticos parotídeos; aunque actualmente se atribuye su origen a la proliferación de las células epiteliales del revestimiento de los conductos de estas glándulas, asociado a formación secundaria de tejido linfóide^{1, 2}.

Tiene predilección por pacientes del sexo masculino, de raza blanca, entre la sexta y séptima década de la vida. Afecta principalmente la glándula parótida, ubicándose con preferencia en el polo inferior, de su lóbulo superficial, observándose cerca del ángulo de la mandíbula, sin embargo, hay casos reportados en glándula submandibular y en glándulas salivales menores del paladar, de los labios, las amígdala, la laringe y el seno maxilar¹⁻⁴.

Se manifiesta clínicamente como una masa de crecimiento lento, bien circunscrita, firme o fluctuante, la cual generalmente es asintomática, aunque en ocasiones el paciente manifiesta dolor¹⁻⁴.

Imagenológicamente se observa como una imagen hipodensa, bien circunscrita, única o múltiple de tamaño variable, rodeada por una capsula³.

Histopatológicamente se caracteriza por múltiples cavidades quísticas, donde se proyectan formaciones papilares, constituidas

por, células oncocíticas cilíndricas, que miran hacia el lumen de los espacios quísticos, apoyadas sobre células oncocíticas también, pero de forma cuboidal. Estos elementos epiteliales se encuentran en un estroma donde se identifica abundante tejido linfoide, que en ocasiones puede mostrar formación de centros germinativos. Pudiese estar presente, focos de metaplasia escamosa, células mucosas y glándulas sebáceas. Su contraparte maligna denominada carcinoma ex cistadenoma papilar linfomatoso, rara vez, ha sido reportada ^{4, 5}.

El tratamiento de elección para esta neoplasia, es su escisión quirúrgica, debido a su usual localización en el lóbulo superficial de la parotida, algunos cirujanos realizan solo una resección local, mientras que otros prefieren la lobectomía superficial ^{1,2,3}.

Se ha reportado recurrencias entre el 6% y 12% de estos tumores, sin embargo, debido a que el puede ser multicentrico, no se ha podido determinar el porcentaje real de recurrencia ¹⁻⁴.

El ganglio yugulo digastrico superior o amigdalino, pertenece al grupo de los ganglios cervicales profundos superiores. Se sitúa por debajo del vientre posterior del músculo digastrico. Se torna fácilmente palpable cuando hay procesos inflamatorios o neoplásicos en las amígdalas palatinas, senos paranasales, base de lengua, supraglotis, rinofaringe, orofaringe e hipofaringe.

El objetivo de este reporte es el de dar a conocer, previo consentimiento del paciente, un caso de cistadenoma papilar linfomatoso ubicado en un ganglio yugulo digastrico superior, lo cual, se considera una localización bastante rara para esta neoplasia benigna de glándula salival, situación que fue confundida con una linfadenopatía reactiva o metastásica y enfatizar la importancia del estudio histopatológico de todos los tejidos eliminados del área bucal y maxilo facial, en pro del beneficio de los pacientes en general.

Reporte de caso

Un paciente masculino de 52 años de edad, acude a la consulta de Oncología de adultos del Hospital Universitario de Maracaibo, debido a un aumento marcado de volumen en la región submandibular izquierda (Figura 1). Según manifestó el paciente la lesión estaba creciendo lentamente, era indolora y la había notado por tres años.



Figura 1. Tumor bien delimitado firme, fijo en región submandibular izquierda.

Al examen clínico la tumoración era parcialmente bien circunscrita, firme a la palpación y fija. Intrabucalmente no se identificaron focos infecciosos en los tejidos duros o blandos.

En la tomografía computarizada, se observó una imagen con apariencia de masa, localizada en la región del ganglio yugulo digastrico superior, de aproximadamente 4 cm. diámetro en su mayor dimensión, con un aspecto hipodenso, de bordes bien delimitados (Figura 2).

A pesar del tiempo de evolución manifestado por el paciente se consideró como diagnóstico diferencial una linfadenopatía reactiva, sin descartar que se tratara de una metástasis, principalmente de nasofaringe o sus alrededores.

El paciente fue remitido al servicio de Otorrinolaringología donde le fue practicado

un examen clínico integral, además de una nasolaringoscopia, descartándose la presencia de neoplasia en las zonas anatómicas examinadas. Así mismo, una tomografía computarizada de cabeza fue realizada para detectar la posible presencia de otra lesión en esa zona.

El paciente negó cualquier situación, antecedente o hábito que tuviese relación con su enfermedad para ese momento.

Se ordenaron los exámenes correspondientes para la realización del procedimiento quirúrgico. La rutina preoperatorio se encontró dentro de los límites normales.

Bajo anestesia general la lesión fue eliminada completamente en un solo tiempo y enviada en su totalidad para su estudio histopatológico.

Macroscópicamente correspondió a un nódulo de 4 x 3 x 2 cm. Al corte superficie par-do clara, sólida con áreas quísticas vacías. Se incluyen secciones de diferentes áreas para su estudio.

Microscópicamente las secciones mostraron un nódulo rodeado por una capsula bien formada, de tejido conectivo fibroso. Dentro del mismo se identifica cavidades quísticas revestidas por células columnares, oncóticas, con citoplasma eosinofílico granular y núcleo vesicular centrado, las cuales descansan sobre células oncóticas cúbicas, con las mismas características ya descritas (Figuras 3 y 4). En algunas áreas este componente celular penetra en forma de papilas discretas, hacia las cavidades quísticas. Todos estos elementos se encuentran en un estroma constituido por abundante tejido linfóide, en el que se evidencia formación de centros germinativos (Figura 5).

Basándose en estas características microscópicas se diagnosticó un Cistadenoma Papilar Linfomatoso o Tumor de Warthin.

El proceso postoperatorio fue completamente satisfactorio, ocurrió una correcta cic-



Figura 2. Imagen bien delimitada hipodensa bien delimitada en región yugolodigastrica.



Figura 3. Cavidades quísticas, revestidas por células oncóticas.

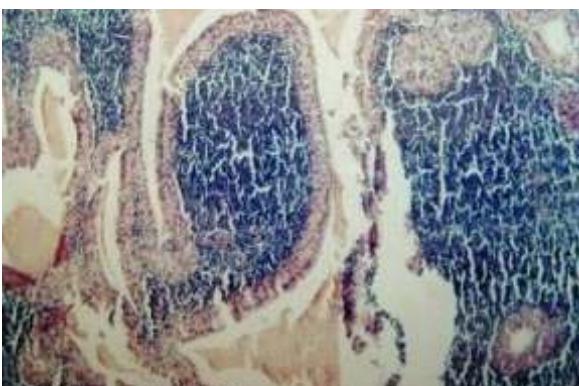


Figura 4. Notese las dos capas de células oncóticas.



Figura 5. Componente linfoide, con centro germinal.

trización. Dos años más tarde el paciente se encontró sin indicios de recidiva.

Discusión

El *cystadenoma papilar linfomatoso* (CPL), siendo benigno, es la segunda neoplasia más común en glándulas salivales. Tiene una marcada predilección por la glándula parótida y los ganglios intraparotídeos y paraparotídeos. Sin embargo, ha sido reportada, aunque con poca frecuencia, en glándula submandibular y glándulas salivales menores ¹⁻⁵.

Tradicionalmente se ha conseguido con mayor frecuencia en el sexo masculino ¹⁻³, asociado al hábito de fumar, lo cual coincide parcialmente con nuestro caso, ya que el paciente pertenece a este sexo, pero no es fumador, sin embargo, Yoo y col ⁶ reportaron un incremento en la aparición de este tumor en pacientes del sexo femenino, probablemente por la popularidad del hábito de fumar entre las mujeres, estos autores ⁶ en un estudio retrospectivo de 40 años en el hospital Johns Hopkins determinaron un incremento consecutivo de este tumor en el sexo femenino, a través de las cuatro décadas, al igual que consiguió historia de hábito tabaquico en el 88% de los hombres y 89% de las mujeres.

Generalmente es único, sin embargo, algunos autores ⁷⁻⁹ han descrito casos donde se presenta múltiple y/o acompañado de otros tumores, como Lefor y col. ⁷ quienes reportaron en una paciente de 67 años, con ambas parótidas agrandadas, ocho tumores de Warthin en cada glándula y en la parótida derecha además se identificó un adenoma pleomorfo benigno.

Seifert ⁸ en 1997, reportó un caso de carcinoma mucoepidermoide bilateral formado en dos tumores de Warthin preexistentes.

Low ⁹ escribió un artículo donde reporta un caso de CPL en nasofaringe y en parótida simultáneamente.

Chae y col. ¹⁰ en su publicación describen un caso de tumor de Warthin multicentrico en nódulos linfáticos intraparotídeos y paraparotídeos, donde al realizar biopsia por punción diagnosticaron carcinoma metastático. Al eliminar quirúrgicamente la glándula y los ganglios cervicales y estudiarlos microscópicamente todas las lesiones fueron diagnosticadas como CPL multicentrico, las células epiteliales observadas en el material obtenido a través de la biopsia por punción correspondió a metaplasia escamosa, característica que puede ser observada en el CPL.

Park y col. ¹¹ reportaron dos casos de linfoma no-Hodgkin y CPL, simultáneos en un ganglio linfático periparotídeo.

Su localización extraparotídea es poco frecuente como lo señalan Patterson y col. ¹² y Wang y col. ¹³ en sus artículos, donde un CPL, fue diagnosticado en cada caso ubicado en un nódulo yugulo digástrico, coincidiendo con el caso aquí reportado.

A pesar que su localización tradicional es en glándulas salivales principalmente en glándula parótida, en este caso se muestra una localización inusual del *cistadenoma papilar linfomatoso*. Inicialmente se piensa en una linfadenopatía, reactiva o metastásica, y no se

consideró la presencia de un tumor de glándula salival. Por esta razón, no siempre que se observe un ganglio linfático agrandado, hay que pensar solo, en una linfadenopatía reactiva, aunque sea lo más común, o en una lesión maligna primaria de la zona o metastásica. Debe hacerse un exhaustivo examen clínico, imagenológico y por supuesto el estudio histopatológico, para llegar a un diagnóstico definitivo específico. No debe realizarse única-

mente el diagnóstico con biopsia por punción, ya que puede ser confundido con un carcinoma, por la posible presencia de metaplasia escamosa.

Basándonos en esta revisión bibliográfica determinamos que este es el tercer caso en la literatura donde esta neoplasia se localiza en un nódulo linfático yugulo digástrico o amigdalino.

Referencias

1. Neville, Brad; Damm, Douglas; Allen, Carl; Bouquot, Jerry. *Oral & Maxilofacial Pathology*. Second Edition. Philadelphia. W.B. Saunders Company. 2002.
2. Regezi, Joseph; Sciubba, James. *Oral Pathology. Clinical Pathologic Correlations*. Third Edition. Philadelphia. W.B. Saunders Company. 1999.
3. Wenig, B. *Atlas of Head and Neck Pathology*. Philadelphia. Saunders Company. 1993. p. 29-34.
4. Ellis, Gary; Auclair, Paul; Gnepp, Douglas. *Surgical Pathology of the Salivary Glands*. Philadelphia. W.B. Saunders Company. 1991.
5. Dardick, Irving. *Salivary Gland Tumor Pathology*. New York. Igaky-Shoin Medical Publishers, Inc. 1996.
6. Yoo GH, Eisele DW; Askin FB; Driben JS; Johns ME. Warthin's tumor: a 40 year experience at The Johns Hopkins Hospital. *Laryngoscope*. 1994. Jul; 104 (7):799-803.
7. Lefor, A; Ord, R; Multiple synchronous bilateral Warthin's tumor of the parotid glands with pleomorphic adenoma. *Oral surg, Oral med, Oral Pathol* 1993; 76:319-24.
8. Seifert, G. Bilateral Mucoepidermoid Carcinoma arising in bilateral pre-existing Warthin's tumours of the parotid gland. *Oral oncology*. 1997; Feb; 33(4):284-287.
9. Low WK, Ng Sb. Synchronous parotid and nasopharyngeal Warthin's tumors: first report of a case. *Ear Nose Throat J* 2002 Dec;81(12):839-41.
10. Chae SE; John JH; Shin HS; Choi JJ; Kim YB. Unilateral, multicentric Warthin's tumor mimicking a tumor metastatic to a lymph node. A case report. *Acta Cytol* 2004. Mar-Apr; 48(2):229-33.
11. Park CK; Manning JT; Batifora H; Medeiros LJ. Follicle center lymphoma and Warthin tumor involving the same anatomic site. Report of two cases and review of the literature. *Am J Clin Pathol*. 2000. Jan;113(1):113-9.
12. Patterson JW; Wright ED; Camden S. Extraparotid Warthin's tumor. *J Am Acad Dermatol*. 1999. Mar; 40(3):468-70.
13. Wang MC; Tsai TL; Chen PC; Liu CY; Chu PY. Extraparotid Warthin's tumor presented as a neck mass. *J Chin Med Assoc*. 2003. Dec; 66(12):752-4.