

Adenoma pleomorfo mimetizando lipoma oral

Adenoma pleomórfico que mimetiza el lipoma oral

Pleomorphic adenoma mimicking oral lipoma

Janaina Lessa Moraes dos Santos¹ , Rani Iani Costa Gonçalo¹ , José Wittor Macedo Santos¹ , Marcelo Leite Machado Silveira¹ , Lélia Maria Guedes Queiroz¹  

¹Universidade Federal do Rio Grande do Norte, Departamento de Odontologia, Programa de Pós-graduação em Ciências Odontológicas. Natal, Brasil.



Como citar: Moraes dos Santos JL, Costa Gonçalo RI, Macedo Santos JW, Machado Silveira ML, Guedes Queiroz LM. Adenoma pleomorfo mimetizando lipoma oral. Rev Cubana Estomatol. 2021;58(1):e3304

RESUMO

Introdução: O adenoma pleomorfo é a neoplasia benigna de glândula salivar mais comum, podendo acometer glândulas salivares maiores e menores. Essa neoplasia ocorre em uma ampla faixa etária, e se caracteriza por uma ampla variabilidade clínico-patológica e por altas taxas de recorrência. **Objetivo:** Relatar um caso de um adenoma pleomorfo, com enfoque nos aspectos clínico-patológicos, diagnóstico diferencial e manejo clínico. **Relato de caso:** Paciente do sexo masculino, 72 anos, exibiu lesão nodular, bem delimitada, localizada em fundo de sulco maxilar esquerdo, com tempo de evolução de quatro anos. A biópsia excisional foi realizada, e as hipóteses diagnósticas de hiperplasia linfóide, adenoma pleomorfo e lipoma foram consideradas, sendo esta última reforçada pelo fato de ter flutuado em formol. Sob análise microscópica, observou-se uma proliferação de células epiteliais e mioepiteliais em meio a um estroma variável. Com isso, o diagnóstico histopatológico de adenoma pleomorfo foi emitido. **Conclusão:** O presente estudo enaltece a importância da realização de análise histopatológica criteriosa para exclusão de outras hipóteses diagnósticas e neoplasias malignas. Dessa forma, a partir da associação dos achados clínicos e microscópicos, é possível obter um diagnóstico correto, guiando, conseqüentemente, na adoção de uma conduta terapêutica adequada.

Palavras-chave: adenoma pleomorfo; medicina bucal; glândulas salivares menores.

ABSTRACT

Introduction: Pleomorphic adenoma is the most common benign salivary gland neoplasm. It may affect major and minor salivary glands. It presents at a broad age range and is characterized by great clinical and pathological variability and high recurrence rates. **Objective:** Describe a case of pleomorphic adenoma, with emphasis on clinical and pathological aspects, differential diagnosis and clinical management. **Case report:** A male 72-year-old patient presents with a well-defined nodular lesion in the lower section of the left maxillary groove with a time of evolution of four years. Excisional biopsy was performed. The diagnostic hypotheses considered were lymphoid hyperplasia, pleomorphic adenoma and lipoma, with greater attention to the latter, due to the fact that it floated in formaldehyde. Microscopic examination revealed proliferation of epithelial and myoepithelial cells amidst a variable stroma. Thus, a histopathological diagnosis of pleomorphic adenoma was issued. **Conclusion:** The present study highlights the importance of careful histopathological examination to rule out other diagnostic hypotheses and malignant neoplasms. Next, clinical and microscopic findings will lead to an accurate diagnosis indispensable to adopt an appropriate therapeutic approach.

Keywords: pleomorphic adenoma; oral medicine; minor salivary glands.

RESUMEN

Introducción: El adenoma pleomórfico es la neoplasia benigna de glándulas salivales más común, que puede afectar a las glándulas salivales mayores y menores. Esta neoplasia se presenta en un amplio grupo de edad y se caracteriza por una amplia variabilidad clínica y patológica y altas tasas de recurrencia. **Objetivo:** Describir un caso de adenoma pleomórfico, con énfasis en aspectos clínicos y patológicos, diagnóstico diferencial y manejo clínico. **Caso clínico:** Paciente masculino, de 72 años, que presentó una lesión nodular bien definida ubicada en la parte inferior del surco maxilar izquierdo, con un tiempo de evolución de cuatro años. Se realizó una biopsia escisional. Se consideraron las hipótesis diagnósticas de hiperplasia linfoide, adenoma pleomórfico y lipoma, con mayor atención este último por el hecho de que flotaba en formaldehído. Bajo análisis microscópico, se observó una proliferación de células epiteliales y mioepiteliales en medio de un estroma variable. Por lo tanto, se emitió el diagnóstico histopatológico de adenoma pleomorfo. **Conclusión:** El presente estudio destaca la importancia de llevar a cabo un cuidadoso análisis histopatológico para excluir otras hipótesis diagnósticas y neoplasias malignas. Luego, con base en la asociación de hallazgos clínicos y microscópicos, es posible obtener un diagnóstico correcto, imprescindible en la adopción de un enfoque terapéutico apropiado.

Palabras clave: adenoma pleomórfico; medicina oral; glándulas salivales menores.

INTRODUÇÃO

As glândulas salivares são locais incomuns de acometimento de lesões, compreendendo de 2% a 6% dos tumores da região de cabeça e pescoço. Apesar da baixa prevalência, tem-se uma ampla diversidade de lesões, fazendo com que atualmente a Organização Mundial de Saúde (OMS) reconheça cerca de 30 subtipos de tumores de glândulas salivares,^(1,2,3) os quais apresentam significativas variações geográfica e racial na incidência, localização anatômica e tipo histológico.⁽⁴⁾

O adenoma pleomorfo é a neoplasia benigna mais comum de glândula salivar, e a mais comum de glândula parótida. Apresenta uma prevalência maior no sexo feminino, podendo ocorrer entre a 5ª e a 7ª décadas de vida, sendo raro em crianças e adolescentes.⁽⁵⁾ O palato é a localização intraoral mais comum, seguido pelo lábio superior e mucosa jugal. Apresenta-se como uma massa nodular, geralmente indolor, de crescimento lento, superfície lisa, com alguns casos apresentando superfície ulcerada.^(6,7)

Histologicamente, observa-se uma proliferação neoplásica de células epiteliais, (também chamadas de células luminais ou ductais) e mioepiteliais (ou não-luminais), em meio a um estroma que pode mostrar uma variedade de padrões, desde colageneizado, frouxo, hialinizado, a condroide. Devido essa variabilidade de estroma, as lesões podem mostrar características semelhantes a outras neoplasias de glândulas salivares e, assim, dificultar o diagnóstico.^(5,7,8) Algumas lesões podem

apresentar um componente cístico maior, o que clinicamente pode apresentar uma coloração mais azulada, assemelhando-se a uma mucocele ou a um carcinoma mucoepidermoide.⁽⁷⁾

Embora o adenoma pleomorfo seja classificado como um tumor benigno, sua recorrência, após tratamento inicial pode ser significativo, variando de 0,4 % a 45 %. Esse índice de recorrência gera uma preocupação, pois estudos vêm mostrando uma associação entre o risco de transformação maligna em um carcinoma ex-adenoma pleomorfo e a alta taxa de recidiva.^(9,10)

Diante do exposto, o objetivo deste trabalho é relatar um caso clínico de adenoma pleomorfo, com enfoque em suas características clínico-patológicas, diagnóstico diferencial e manejo clínico.

RELATO DE CASO

Paciente do sexo masculino, 71 anos de idade, compareceu ao serviço de Cirurgia Buco-Maxilo-Facial da Universidade Federal do Rio Grande do Norte (Natal, Rio Grande do Norte, Brasil) com a queixa principal de “tem uma bola aqui na boca”, a qual provocava um aumento de volume extraoral (Fig. 1A). Ao exame físico intraoral não era visível alteração de aumento de volume ou alteração de cor em mucosa, porém, à palpação notou-se a presença de uma lesão nodular, bem delimitada, de aproximadamente 3 cm, localizada em região de fundo de vestibulo maxilar esquerdo, na região dos dentes 25, 26 e 27. Com um tempo de evolução de cerca de 4 anos, a lesão exibia coloração normal da mucosa, superfície lisa e regular, consistência borrachoide, inserção do tipo séssil, leve mobilidade e, à compressão, o paciente relatava sintomatologia dolorosa.

Ao exame radiográfico, nenhuma alteração digna de nota foi observada. Foi solicitado, então, exame de ultrassonografia, a partir do qual se verificou a presença de nódulo hipoeicoico, heterogêneo e bem delimitado, apresentando dimensões de 2,1 cm x 1,9 cm em região adjacente ao pilar zigomático-maxilar esquerdo, limitada a tecidos moles, sem envolvimento ósseo (Fig.1B). A partir dos achados clínicos e imaginológicos, as hipóteses diagnósticas de lipoma, adenoma pleomorfo e hiperplasia linfoide foram consideradas.

A biópsia excisional foi realizada em ambiente ambulatorial, sob anestesia local, por meio de incisão intraoral em mucosa sobrejacente à lesão e divulsão dos tecidos para sua exposição. Durante o procedimento, a lesão mostrou-se de coloração amarelada, com aspecto encapsulado e sendo facilmente enucleada (Fig. 1C). Após exérese, o espécime mostrou-se flutuante quando imerso em recipiente contendo formol a 10 %, reforçando a hipótese clínica primária de lipoma.



Fig. 1 - Aspecto clínico, imaginológico e trans-cirúrgico da lesão. **A.** Discreto aumento de volume extraoral do lado esquerdo. **B.** Ultrassonografia na qual se evidencia nódulo hipoeicoico, heterogêneo e bem delimitado. **C.** Aspecto do espécime durante biópsia excisional, o qual se apresenta como uma lesão nodular encapsulada, de coloração amarelada, localizada em fundo de vestibulo maxilar esquerdo.

Contudo, ao exame histopatológico observou-se a presença de uma neoplasia benigna de glândula salivar, caracterizada pela proliferação de células epiteliais, formando múltiplas estruturas ductais, e mioepiteliais em meio a um estroma variável. As células mioepiteliais apresentavam aspectos variados, ora de forma arredondada, ora plasmocitoide ou estrelada. Células claras também foram evidenciadas em meio à lesão. O estroma de tecido conjuntivo mostrava-se variado, exibindo os tipos fibroso, hialino, condroide e mixoide. A partir desses achados, o diagnóstico histopatológico de adenoma pleomorfo foi emitido (Fig. 2). Após 1 ano, o paciente se encontra em acompanhamento, sem quaisquer sinais ou sintomas de recidiva da lesão (Fig. 3).

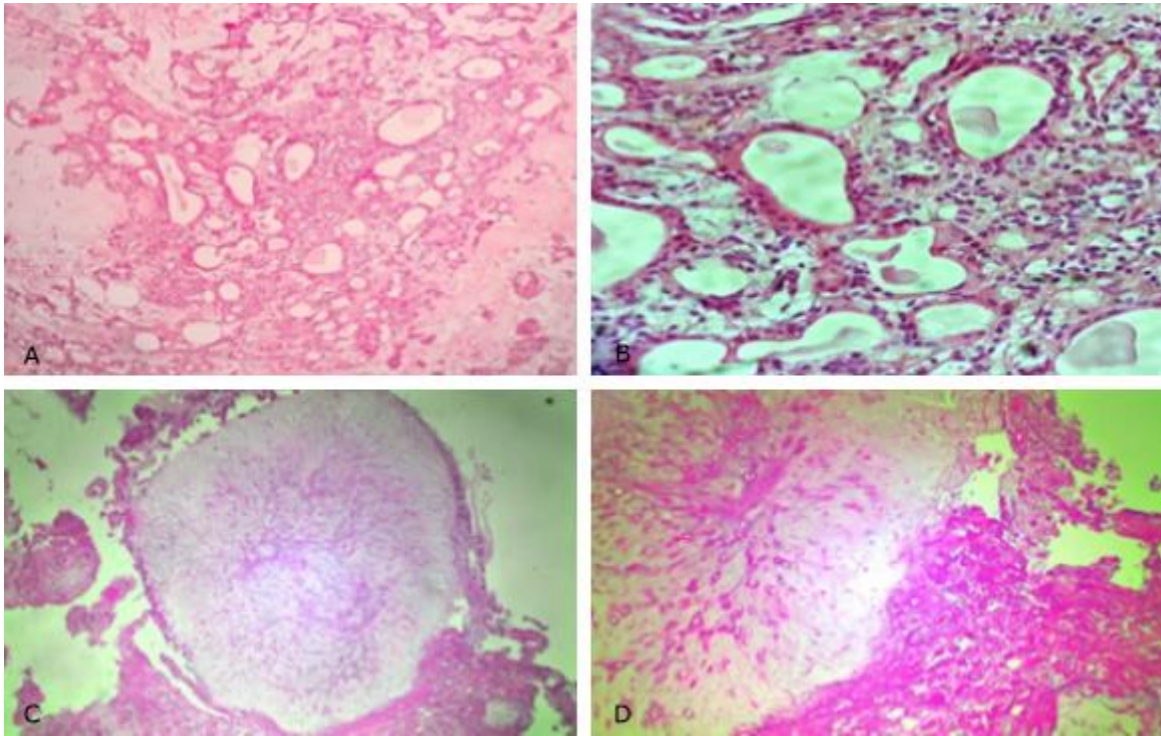


Fig. 2 - Características histopatológicas. **A.** Neoplasia benigna de origem glandular salivar caracterizada pela proliferação de células epiteliais e mioepiteliais, com formação de múltiplas estruturas ductiformes, em meio a um estroma ora fibroso, ora mixoide. **B.** Estruturas ductais revestidas por células epiteliais eosinófilicas e, em permeio, observam-se células mioepiteliais (citoplasma mais claro), em meio a um estroma fibroso. **C.** e **D.** Área do estroma da lesão com aspecto condroide.



Fig. 3 - Aspecto clínico intraoral após 1 ano da realização da excisão cirúrgica.

DISCUSSÃO

Diversas lesões, das mais variadas etiologias e aspectos clinico-patológicos, podem acometer a região de cabeça e pescoço. O adenoma pleomorfo é a neoplasia de glândula salivar mais prevalente e apresenta uma elevada taxa de recorrência. ^(4, 11) Por isso, estudos e relatos de casos que ressaltem os aspectos clínicos, histopatológicos e terapêuticos dessa neoplasia são de grande relevância clínica, possibilitando, assim, diagnóstico e manejo clínico adequados.

O adenoma pleomorfo acomete indivíduos de uma ampla faixa etária, com pico de incidência entre a segunda e a terceira décadas de vida. ⁽⁵⁾ A parótida é o sítio extraoral mais acometido, enquanto que, intraoralmente, o palato é mais comumente afetado, consistindo, nesses casos, em um aumento de volume indolor. ⁽⁴⁾ No presente caso, o aspecto clínico, a localização incomum e a presença de dor à palpação reforçam o fato de que o adenoma pleomorfo pode apresentar-se clinicamente de forma variada, mediante alguns fatores, tais como localização da lesão, raça e localização geográfica. Além disso, evidencia-se que os aspectos clínicos e cirúrgicos são, na maioria das vezes, insuficientes para o diagnóstico eficaz de determinada lesão. Como exposto, o fato de o espécime excisado ter flutuado em formol reforçou a hipótese diagnóstica de lipoma. Isso mostra que o diagnóstico clínico por vezes pode ser desafiador, uma vez que as características

clínico-cirúrgicas podem se sobrepor a sinais clínicos de outras lesões que afetam o complexo maxilofacial.⁽⁶⁾ No caso clínico em questão, a biópsia excisional foi realizada e o espécime obtido foi enviado para análise anatomopatológica, procedimento este essencial para uma melhor acurácia diagnóstica, guiando, assim, a adoção de um tratamento mais eficaz.

Dentre as peculiaridades do adenoma pleomorfo cita-se a ampla variedade de padrões histológicos que podem ser evidenciados em um mesmo tumor.⁽⁵⁾ Essa complexidade morfogênica é atribuída à diferenciação das células tumorais em tecido fibroso, hialinizado, mixoide, condroide e até ósseo,⁽⁷⁾ havendo possibilidade de confusão na interpretação histológica, principalmente em pequenos espécimes provenientes de biópsias incisionais.⁽¹²⁾ Adicionalmente, essa neoplasia compartilha algumas características que são comuns em outros tumores de glândulas salivares, benignos e malignos,⁽¹³⁾ fazendo-se necessária uma avaliação cuidadosa, de modo a descartar a possibilidade de outras neoplasias mais agressivas.⁽¹⁴⁾ Ressalta-se, então, a importância de conhecer de forma detalhada os diversos padrões morfológicos do adenoma pleomorfo para que, em associação com os achados clínicos, seja possível a obtenção de um diagnóstico preciso. No caso em questão, o espécime apresentava diversos tipos de estroma, dentre eles o fibroso, mixoide, hialino e cartilaginoso, conferindo a heterogeneidade característica do adenoma pleomorfo.

Entretanto, em algumas situações, especialmente em pequenas biópsias ou em casos desafiadores nos quais a histologia e a imuno-histoquímica por si sós não são suficientes, pode-se lançar mão de algumas técnicas que auxiliem no diagnóstico adequado. Dentre elas, incluem a hibridização de fluorescência in situ e a reação em cadeia da polimerase. Por outro lado, a utilização de anticorpos primários para a identificação de produtos gênicos aberrantes específicos do adenoma pleomorfo é bastante útil, como PLAG1 e HMGA2.^(7,15)

De modo geral, o prognóstico geralmente é bom. Entretanto, alterações metaplásicas ou displásicas podem estar presentes. O carcinoma ex-adenoma pleomorfo, por exemplo, é uma neoplasia maligna que surge a partir de um adenoma pleomorfo primário ou recorrente, por vezes tratados inadequadamente. A natureza da cápsula, conhecida por emitir extensões microscópicas do tipo pseudópode nos tecidos circundantes, favorece o surgimento de recorrências. Dessa forma, o tratamento mais adequado para o adenoma pleomorfo consiste na excisão cirúrgica completa, de modo a evitar o rompimento capsular. A enucleação inadequada ou a ruptura da cápsula tumoral durante a excisão também pode predispor ao desenvolvimento de recorrências locais.^(5,6,7) Por conseguinte, embora classificado como um tumor benigno, a incidência de recorrência após o tratamento é significativo e varia amplamente devido a diferenças na técnica cirúrgica.^(10, 16) No presente estudo, o paciente foi submetido à excisão cirúrgica da lesão, a qual foi bem sucedida, sendo a mesma removida completamente. O paciente encontra-se em acompanhamento há um ano, com ausência de recidivas.

Assim, a partir da obtenção de uma maior acurácia diagnóstica, torna-se possível a adoção de medidas terapêuticas adequadas e personalizadas para cada situação, diminuindo, assim, as taxas de recorrência e o risco de transformação maligna. Por isso, mesmo diante de uma conduta terapêutica adequada, o acompanhamento a longo prazo de pacientes diagnosticados com adenoma pleomorfo é indispensável. portanto o conhecimento da diversidade de células, arquitetura e características morfológicas presentes no tumor é muito essencial para o diagnóstico correto.

REFERÊNCIAS

1. Reinheimer A, Vieira DS, Cordeiro MM, Rivero ER. Retrospective study of 124 cases of salivary gland tumors and literature review. *J Clin Exp Dent.* 2019;11(11):e1025-32. DOI: <https://doi.org/10.4317/jced.55685>
2. Mahomed Y, Meer S. Primary Epithelial Minor Salivary Gland Tumors in South Africa: A 20-Year Review. *Head Neck Pathol.* 2019;14:715-23. DOI: <https://doi.org/10.1007/s12105-019-01111-4>
3. El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, Takata T, Slootweg PJ. WHO Classification of Head and Neck Tumours. 4th ed. Lyon: IARC Press; 2017.
4. Liao WC, Chih-Cha C, Ma H, Hsu CY. Salivary Gland Tumors: A Clinicopathologic Analysis from Taipei Veterans General Hospital. *Ann Plast Surg.* 2020;84(15):S26-S33. DOI: <https://doi.org/10.1097/SAP.0000000000002178>
5. Pérez-de-Oliveira ME, Leonel ACLDS, de Castro JFL, Carvalho EJA, Vargas PA, Perez DEDC. Histopathological Findings of Intraoral Pleomorphic Adenomas: A Retrospective Study of a Case Series. *Int J Surg Pathol.* 2019;27(7):729-35. DOI: <https://doi.org/10.1177/1066896919854181>
6. Bhatia JSS. Pleomorphic Adenoma of Upper Lip: A Rare Case Presentation. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2019;71(Suppl 1):755-8. DOI: <https://doi.org/10.1007/s12070-018-1537-7>
7. Nourwali I, Dar-Odeh N. Pleomorphic Adenoma in the Lower Lip: A Case Report and a Review. *Eur J Dent.* 2019;13(4):649-53. DOI: <https://doi.org/10.1055/s-0039-1700363>
8. Raman S, Sherlin HJ. Utility of smooth muscle actin and CD117 as reliable markers in the diagnosis of salivary gland neoplasms. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2019;23(2):218-23. DOI: https://doi.org/10.4103/jomfp.JOMFP_225_18
9. Soares AB, de Araújo VC, Juliano PB, Altemani A. Angiogenic and lymphangiogenic microvessel density in recurrent pleomorphic adenoma. *J Oral Pathol Med.* 2009;38(8):623-9. DOI: <https://doi.org/10.1111/j.1600-0714.2009.00794.x>
10. Soares AB, Demasi APD, Altemani A, de Araújo VC. Increased mucin 1 expression in recurrence and malignant transformation of salivary gland pleomorphic adenoma. *Histopathology.* 2011;58(3):377-82. DOI: <https://doi.org/10.1111/j.1365-2559.2011.03758.x>
11. Wang YL, Zhu YX, Chen TZ, Wang Y, Sun GH, Zhang L, et al. Clinicopathologic study of 1176 salivary gland tumors in a Chinese population: experience of one cancer center 1997-2007. *Acta Otolaryngol.* 2012;132(8):879-86. DOI: <https://doi.org/10.3109/00016489.2012.662715>
12. Speight PM, Barrett AW. Salivary gland tumours. *Oral Dis.* 2002;8(5):229-40. DOI: <https://doi.org/10.1034/j.1601-0825.2002.02870.x>
13. Pires FR, Pringle GA, de Almeida OP, Chen SY. Intra-oral minor salivary gland tumors: a clinicopathological study of 546 cases. *Oral Oncol.* 2007;43:463-70. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.oraloncology.2006.04.008>

14. Nonitha S, Yogesh TL, Nandaprasad S, Maheshwari BU, Mahalakshmi IP, Veerabasavaiah BT. Histomorphological comparison of pleomorphic adenoma in major and minor salivary glands of oral cavity: A comparative study. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2019;23(3):356. DOI:

https://doi.org/10.4103/jomfp.JOMFP_91_19

15. Katabi N, Xu B, Jungbluth AA, Zhang L, Shao SY, Lane J, et al. PLAG1 immunohistochemistry is a sensitive

marker for pleomorphic adenoma: a comparative study with PLAG1 genetic abnormalities. *Histopathology.* 2018;72(2):285-93. DOI:

<https://doi.org/10.1111/his.13341>

16. Chen AM, Garcia J, Bucci MK, Quivey JM, Eisele DW. Recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland: long-term outcome of patients treated with radiation therapy. *Int J Radiat Oncol Biol Phys.* 2006;66:1031-5. DOI:

<https://doi.org/10.1016/j.ijrobp.2006.06.036>

CONFLITO DE INTERESSE

Os autores declaram não haver qualquer conflito de interesse.

CONTRIBUIÇÃO DOS AUTORES

Janaina Lessa de Moraes dos Santos: contribuiu na escrita do manuscrito, como também na idealização do artigo.

Rani Iani Costa Gonçalo: contribuiu na escrita do manuscrito (discussão) e na edição do manuscrito.

José Wittor Macedo Santos: contribuiu na escrita do manuscrito e nas etapas clínicas do presente caso.

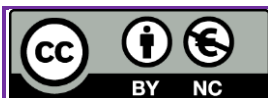
Marcelo Leite Machado da Silveira: contribuiu supervisionando as etapas clínicas do caso, bem como na escrita da seção do relato de caso.

Lélia Maria Guedes Queiroz: responsável pela orientação do presente artigo. Todos os autores revisaram o manuscrito, e autorizam sua submissão na Revista Cubana de Estomatologia.

Recibido: 07/04/2019

Aceptado: 17/07/2020

Publicado: 26/11/2020



Este artículo de *Revista Cubana de Estomatología* está bajo una licencia Creative Commons Atribución-No Comercial 4.0. Esta licencia permite el uso, distribución y reproducción del artículo en cualquier medio, siempre y cuando se otorgue el crédito correspondiente al autor del artículo y al medio en que se publica, en este caso, *Revista Cubana de Estomatología*.