

Adenoma pleomorfo originado en pared lateral nasal: Reporte de un caso clínico

Pleomorphic adenoma of lateral nasal wall: A case report

Agustín Abarca S¹, Daniela Peñaloza R¹, Alfredo Urrutia F¹, Miguel Cancino C¹.

RESUMEN

El adenoma pleomorfo constituye la neoplasia benigna más frecuente de las glándulas salivales mayores, y puede también presentarse en otros sitios con mucha menor frecuencia como orofaringe, hipofaringe y nasofaringe. El adenoma pleomorfo intranasal es muy infrecuente y los casos descritos en la literatura local se refieren a tumores septales. Se presenta un caso clínico de una paciente que consulta por obstrucción nasal unilateral a derecha asociado a, epistaxis y epífora ipsilateral con estudio imagenológico y biopsia que sugiere adenoma pleomorfo de la pared lateral nasal. Se realiza revisión bibliográfica al respecto.

Palabras clave: Adenoma pleomorfo, pared lateral nasal.

ABSTRACT

The pleomorphic adenoma is the most frequent benign neoplasm of the major salivary glands. It can also present itself in other places with much less frequency such as oropharynx, hypopharynx and nasopharynx. The intranasal pleomorphic adenoma is very unusual and the cases described in the local literature address septal tumors. A clinical case is presented of a patient who consulted for unilateral right nasal obstruction associated with epistaxis and ipsilateral epiphora with imaging study and biopsy suggesting pleomorphic adenoma of the lateral nasal wall. A bibliographic review is made in this regard.

Key words: Pleomorphic adenoma, lateral nasal wall

¹ Departamento de Otorrinolaringología, Hospital Barros Luco Trudeau, Santiago, Chile.

Los autores declaran no tener conflictos de interés.

Recibido el 1 de enero, 2019. Aceptado el 1 de abril, 2019.

INTRODUCCIÓN

Los tumores de glándulas salivales corresponden a menos del 1% de todas las neoplasias y entre el 3% y 6% de los tumores de cabeza y cuello¹. De ellos, 80% corresponde a neoplasias benignas dentro de las cuales el adenoma pleomorfo es la neoplasia más frecuente (75%), localizándose más del 80% de los casos en la glándula parótida, 15% en glándula submandibular y menos del 5% a 10% en glándula sublingual y glándulas salivales menores¹⁻⁵. Su localización en otros sitios es rara y más aún en cavidad nasal, donde las publicaciones al respecto señalan que el 80% se origina en el *septum* nasal y sólo el 20% dependen de la pared lateral/cornete inferior⁶⁻⁸. En la literatura nacional se encuentra la publicación de Osorio y cols en 2010² en la que presenta un caso clínico de adenoma pleomorfo de *septum* nasal al igual que Mercado y cols en 2011 que reportan 2 casos originados en *septum* nasal³. Presentamos a continuación un caso clínico de adenoma pleomorfo nasal originado en la pared lateral nasal y cornete inferior, y una revisión de la literatura al respecto.

CASO CLÍNICO

Paciente de sexo femenino, de 61 años de edad que consulta en noviembre de 2017 en el Policlínico de Otorrinolaringología del Hospital Barros Luco Trudeau por cuadro de 8 meses de evolución caracterizado por obstrucción nasal unilateral de fosa nasal derecha, epistaxis recurrente ipsilateral y epífora ocasional de ojo derecho. A la inspección se observa aumento de volumen de partes blandas del ala nasal derecha y a la rinoscopia anterior (Figura 1) destaca tumor bien delimitado, de coloración rojizo pálido, que se insinúa a vestíbulo nasal de fosa derecha, obstruyéndola de forma completa.

Se realiza nasofibroscopia evidenciando masa proveniente de pared lateral nasal y cabeza de cornete inferior, que se extiende hacia vestíbulo y comprime y desplaza *septum* nasal con plano de clivaje. Resto de estructuras de vía aérea digestiva superior sin alteraciones. Se realiza estudio imagenológico con tomografía computarizada (TC) de cavidades paranasales (CPN) (Figura 2) y resonancia magnética (RM) de CPN en los que se informa una lesión tumoral del aspecto anterior del piso de



Figura 1. Se observa tumor en fosa nasal derecha de contornos lisos, obstructivo.



Figura 2. Tomografía computarizada de cavidades paranasales, sin contraste, corte axial. Se observa masa en la fosa nasal derecha, bien delimitada, dependiendo de pared lateral nasal.

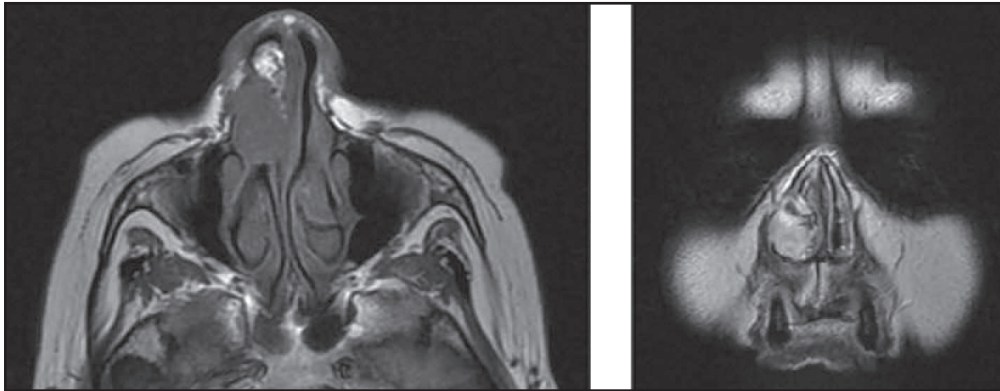


Figura 3. Resonancia magnética de cavidades paranasales. (a), panel izquierdo: Resonancia magnética corte axial, T1. Se observa masa en fosa nasal dependiente de pared lateral nasal de baja señal. (b), panel derecho: RM corte coronal, T2, se observa masa bien delimitada, dependiente de pared lateral en fosa nasal derecha, con señal de alta intensidad.

la cavidad nasal derecha extendido a la fosa nasal ipsilateral, de baja señal en T1 (Figura 3a), alta señal en T2 (Figura 3b), con realce heterogéneo tras la administración de gadolinio endovenoso que determina remodelación del aspecto anterior del cornete inferior, desplaza levemente el tabique nasal y produce remodelación del proceso nasal del hueso maxilar derecho, sin evidencia de destrucción ósea. El informe imagenológico describe que mide 2,3 x 1,9 x 1,8 cm. Se realiza biopsia incisional en policlínico de aspecto anterior de tumor con biopsia diferida que informa adenoma pleomorfo.

Con diagnóstico prequirúrgico de adenoma pleomorfo de fosa nasal derecha se realiza exploración endoscópica bajo anestesia general. Se realiza incisión, con bisturí, céfalo-caudal y anterior a tumor en pared lateral, disección por plano subperióstico, liberándolo de su inserción lateral y turbinectomía parcial de cornete inferior derecho extrayendo pieza en bloque. Biopsia diferida confirma diagnóstico de adenoma pleomorfo nasal con bordes negativos para enfermedad (Figura 4). Paciente en el posoperatorio mediato destaca fosa nasal sin evidencias de persistencia tumoral y no se presenta recidiva a 12 meses de seguimiento.

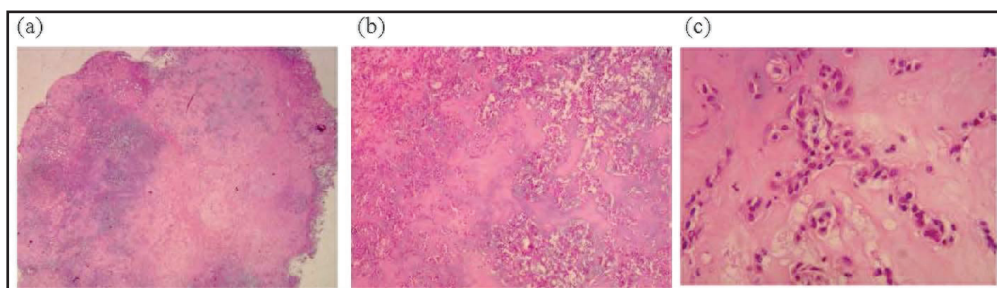


Figura 4. Serie de imágenes del estudio histopatológico realizado con tinción hematoxilina eosina con visión panorámica de la muestra (4a) y cortes que muestran componente mixto del tumor evidenciando componente celular y estromal en distintos aumentos (4b) y (4c).

DISCUSIÓN

El adenoma pleomorfo es el tumor más frecuente de glándulas salivales. Su localización más frecuente es en glándulas salivales mayores, principalmente en la glándula parótida, su origen en glándulas salivales menores es poco frecuente por lo que suele no estar en la primera línea de diagnósticos diferenciales de pacientes con tumor nasal. En el tracto respiratorio superior el sitio de origen más frecuente es paladar, seguido por labios, cavidad nasal, lengua, orofaringe y nasofaringe^{1,2,9}.

El primer caso de adenoma pleomorfo en la cavidad nasal fue publicado por Denker en 1929⁵. Spiro en 1973⁹ caracteriza los tumores de glándulas salivales menores y desde entonces en la literatura mundial han descrito casos aislados de presentación de adenoma pleomorfo en fosa nasal siendo la ubicación más frecuente el *septum* nasal 80% y de forma excepcional la pared lateral nasal 20%⁶⁻⁸. Existen 2 grandes series de adenoma pleomorfo de cavidad nasal, la primera de Compagno y Wong en 1977⁷ en la cual describieron las características de un grupo de 40 pacientes, 23 mujeres y 17 hombres, con diagnóstico de adenoma pleomorfo nasal diagnosticados y tratados entre 1949 y 1974 con una edad promedio de 42 años y con localización preferentemente a nivel del *septum* nasal en el 62% de los casos. La segunda gran serie es publicada en 1990 por el grupo de Suzuki y cols¹⁰ en la que evaluaron una serie de 41 pacientes con una edad promedio de 45 años y con leve predominancia femenina (1:1,18), en esta serie, la preferencia por el *septum* nasal es aún más extrema con 91% de

los casos originados en esta localización. En el año 2016 Vento y cols¹¹ publicaron 10 casos de adenoma pleomorfo en cavidad nasal en Finlandia (con una edad promedio de 44 años) encontrando 60% de origen en el *septum* nasal.

La presentación clínica se caracteriza en general por una masa intranasal indolora que genera obstrucción nasal (71%) la mayoría de las veces unilateral que con menor frecuencia puede presentar epistaxis (56%)^{7,12,13}, deformación de la pirámide nasal y epifora^{8,12-14}. El tamaño del tumor descrito en la literatura es variable pudiendo ir desde los 5 mm hasta los 7 cm^{2,7,12} e incluso hay reportes de mayores dimensiones llegando hasta 10 cm^{8,15}. La edad de presentación puede ir desde la niñez a la adultez observándose una mayor concentración de casos entre la tercera y sexta década de la vida^{1,2,5,7,9,11} con ligero predominio en mujeres^{1,6,7,10,11,16}.

Macroscópicamente el adenoma pleomorfo se describe como un tumor redondo, bien delimitado o lobular, de color rosado grisáceo con superficie lisa y consistencia suave⁷. Histológicamente se trata de un tumor mixto que contiene elementos celulares con células epiteliales y mioepiteliales y un componente estromal que puede ser de características mixoides, hialino o condroide y está rodeado por una cápsula fibrosa. En el caso del adenoma pleomorfo de origen nasal se ha visto que presenta mayor componente mioepitelial que estromal y en algunas ocasiones está organizado en pequeños ácinos^{2,7,17}.

Radiológicamente los hallazgos descritos en la tomografía computarizada son de una imagen

de masa de tejido blando, bien definida, lobulada y lisa en la cavidad nasal con remodelación ósea suave de los huesos que la rodean indicando un curso indolente. Pueden verse calcificaciones intratumorales. La aplicación de contraste revela una lesión heterogénea. En la resonancia magnética se observan lesiones heterogéneas con señal de intensidad baja a intermedia en T1 e intensidad alta a intermedia en T2¹⁸.

En cuanto al tratamiento de adenomas pleomorfos de cavidad nasal se describe la resección local con márgenes libres con abordaje endoscópico o abierto dependiendo de las características de la lesión como tamaño, ubicación y extensión^{2,3,12,14}. La resección endoscópica tiene la ventaja de no dejar cicatriz, menor sangrado^{2,3,8,12} disminuyendo también los días de hospitalización¹³. Dependiendo de la localización (septal o pared lateral) se puede considerar realizar rinotomía lateral, rinoplastía, “degloving” medio facial, cirugía transpalatina, entre otras¹⁴. Algunos autores defienden el uso de radioterapia posoperatoria en pacientes con evidencias de enfermedad residual¹³ sin embargo, esto es muy controversial en cavidad nasal.

La recidiva observada es menor al 10% en el caso de ubicación en el *septum* nasal *versus* aproximadamente 50% en caso de glándula parótida¹². Suzuki describe una tasa de recurrencia del 2,4% de sus casos (1 paciente) posterior a la resección quirúrgica¹⁰, mientras que Compagno y Wong describen recurrencia sólo en 3 de sus pacientes (7,5% con un promedio de 7,5 años de seguimiento)⁷. Cuando los adenomas pleomorfos tienen mayor componente o predominio estromal, principalmente mixoide, se ha visto que la tasa de recidiva es mayor¹³, esto podría explicarse dado

que el contenido “gelatinoso” del componente mixoide podría derramarse en el campo quirúrgico durante la resección.

En cuanto a la transformación maligna adenoma pleomorfo en general se reporta en 1,5% a 23% de los casos y se describe que ésta aumenta según el tiempo de evolución de la enfermedad ya que la carcinogénesis se produce en varias etapas a través de los cambios genómicos que dan lugar a la pérdida de funciones de supresores tumorales, activación de oncogenes y la fusión de genes con potencial maligno¹⁹. En cuanto al adenoma pleomorfo nasal, Suzuki describe 2,4% de malignización, mientras en otras series alcanza el 6% y se observa predominantemente en mujeres^{10,17}, sin embargo, no se especifica a cuanto tiempo de seguimiento ni diferencias exactas de distribución por sexo.

CONCLUSIÓN

De acuerdo a lo presentado en nuestro caso clínico y la revisión de literatura realizada, el adenoma pleomorfo intranasal es muy poco frecuente, sin embargo, es relevante tenerlo presente como diagnóstico diferencial de tumor nasal y sospechar su origen en la pared lateral cuando a los síntomas habituales se agrega epífora por compromiso obstructivo del conducto nasolagrimal como ocurrió en nuestro caso, ya que el diagnóstico temprano ofrece buenas oportunidades de tratamiento con bajas tasas de recidiva. Es necesaria una publicación de análisis de casos con seguimiento adecuado que determinar una mejor tasa de recidiva y malignización de este tipo de tumores.

BIBLIOGRAFÍA

1. CAMPOLO GONZÁLEZ A, RAMÍREZ SKINNER H, VARGAS DÍAZ A, LEÓN RAMÍREZ A, GOÑI ESPILDORA I, SOLAR GONZÁLEZ A. Perfil epidemiológico de neoplasias epiteliales de glándulas salivales. *Revista Médica de Chile* 2018; 146: 1159-66.
2. OSORIO J, RAHAL M, CANTERO D, CASTILLO J. Adenoma pleomorfo del tabique nasal: caso clínico. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello* 2010; 70: 231-6.
3. MERCADO J, MERCADO V, FERNANDEZ I, VALLEJOS H. Adenoma pleomorfo del septum nasal, dos casos clínicos y revisión del tema. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello* 2011; 71: 65-70.
4. SPIRO RH. Salivary neoplasms: overview of a 35-year experience with 2,807 patients. *Head and Neck Surgery* 1986; 8: 177-84.
5. CELEDON C, OJEDA JP, AGURTO M, OLAVARRÍA C, PAREDES A, NIKLISCHEK E. Tumores de glándulas salivales. Experiencia de 20 años. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello* 2002; 62: 255-64.

6. WENIG BL, SCIUBBA JJ, COHEN A, ABRAMSON AL. Pleomorphic adenoma of the nasal septum. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery* 1985; 93: 432-6.
7. COMPAGNO J, WONG RT. Intranasal mixed tumors (Pleomorphic Adenomas). A clinicopathologic study of 40 cases. *American Journal of Clinical Pathology* 1977; 68: 213-8.
8. EROL B, SELÇUK ÖT, GÜRSES C, OSMA Ü, KÖRO LU M, SÜREN D. Pleomorphic adenoma originates from inferior nasal turbinate causing epiphora. *Clinical Imaging* 2013; 37: 747-9.
9. SPIRO RH, KOSS LG, HADJU SI, STRONG EW. Tumors of minor salivary origin. A clinicopathologic study of 492 cases. *Cancer* 1973; 31: 117-29.
10. SUZUKI K, MORIBE K, BABA S. Abstract: A rare case of pleomorphic adenoma of lateral wall of nasal cavity, with special reference of statistical observation of pleomorphic adenoma of nasal cavity In Japan. *Nippon Jibiinkoka Gakkai Kaiho* 1990; 5: 740-5.
11. VENTO SI, NUMMINEN J, KINNUNEN I, RAUTIAINEN M, TARKKANEN J, HAGSTRÖM J, MÄKITIE AA. Pleomorphic adenoma in the nasal cavity: A clinicopathological study of ten cases in Finland. *European Archives of Otorhinolaryngology* 2016; 273: 3741-5.
12. ALVAREZ-MONTERO OL, GARCIA DE PEDRO F, COELLO CASARIEGO G, PEREZ-ORTIN M, DOMINGO-CARRASCO C, GIMENO-ARANGUEZ M. Adenoma pleomorfo de fosa nasal. *O.R.L Aragon* 2012; 15: 27-9.
13. GANA P AND MASTERSON L. Pleomorphic adenoma of the nasal septum: a case report. *Journal of Medical Case Reports* 2008; 2: 349-51.
14. ULKUMEN B, KAPLAN Y, DOGRU N. Pleomorphic adenoma of lateral nasal wall presenting with epiphora. *Journal of Pakistan Medical Association* 2013; 63: 390-2.
15. BAGLAM T, DURUCU C, CEVIK C, BAKIR K, OZ A, KANLIKAMA M. Giant Pleomorphic Adenoma of the Nasal Septum. *Indian Journal Otolaryngology, Head and Neck Surgery* 2011; 63: 393-5.
16. BARON S, KOKA V, EL CHATER P, CUCHEROUSSET J, PAOLI C. Pleomorphic adenoma of the nasal septum. *European Annals of Otorhinolaryngology, Head and Neck diseases* 2014; 131: 139-41.
17. SCIANDRA D, DISPENZA F, PORCASI R, KULAMARVA G, SARANITI C. Pleomorphic adenoma of the lateral nasal wall: case report. *Acta Otorhinolaryngologica Italica* 2008; 28: 150-3.
18. TATEKAWA H, SHIMONO T, OHSAWA M, DOISHITA S, SAKAMOTO S, MIKI Y. Imaging Features of benign mass lesions in the nasal cavity and paranasal sinuses according to the 2017 WHO classification. *Jpn J Radiol* 2018; 36: 361-81.
19. MARIANO FV, GIOVANETTI K, SACCOMANI LF, DEL NEGRO A, KOWALSKI LP, KREPISCHI AC, ALTEMANI A. Carcinoma ex-pleomorphic adenoma derived from recurrent pleomorphic adenoma shows important difference by array CGH compared to recurrent pleomorphic adenoma without malignant transformation. *Braz J Otorhinolaryngol* 2016; 82: 687-94.