

Adenoma pleomórfico em paciente infantil

Pleomorphic Adenoma in a Child Patient

Janayna Gomes Paiva de Oliveira^I
Rosana Mara Giordano de Barros^{II}
Eduardo Giordano de Barros^{III}
João Carlos Castro Monteiro^{IV}
Clarissa Rocha Martinez^V

Recebido em 04/04/2008
Aprovado em 20/08/2008

RESUMO

O adenoma pleomórfico é o tumor benigno mais comum das glândulas salivares, mas raramente é encontrado em pacientes com idade inferior a 15 anos. A maioria desses tumores ocorre nas glândulas salivares maiores, principalmente em parótida, acometendo com maior frequência pacientes do sexo feminino, com idade variando entre 40 e 60 anos. Neste trabalho, é relatado um caso de adenoma pleomórfico em glândulas salivares menores do palato, em uma menina de 10 anos de idade, o que o torna significativamente raro. Foi realizada a excisão cirúrgica do tumor e feito um acompanhamento pós-operatório de 3 anos, em que não se verificou recidiva.

Descritores: Adenoma/cirurgia. Patologia Bucal. Neoplasias das Glândulas Salivares.

ABSTRACT

Pleomorphic adenomas are the most common benign tumors of the salivary glands, but they are rarely found in patients under 15 years of age. Most of these tumors are prevalent in the major salivary glands, mainly in the parotid. Their highest frequency is in females aged 40-60 years. This report presents the case of a pleomorphic adenoma in the minor salivary glands of the palate in a 10-year-old girl, which makes it significantly rare. The surgical excision of the tumor was performed and the patient was submitted to postoperative monitoring for 3 years, during which no signs of recurrence were verified.

Keywords: Adenoma/surgery. Pathology, Oral. Salivary Gland Neoplasms.

INTRODUÇÃO

O Adenoma pleomórfico é um neoplasma benigno das glândulas salivares maiores e menores, sendo o tumor mais comum dessas glândulas. É uma neoplasia mista, também conhecida por "tumor misto", pois histologicamente apresenta grande diversidade tecidual^I. Mesmo possuindo origem exclusiva do tecido epitelial, sua variedade de componentes lhe dá um

aspecto mesenquimal, decorrente do produto das secreções das suas próprias células tumorais, que podem ser ductais ou mioepiteliais. Tipicamente, as lesões apresentam-se circunscritas completa ou incompletamente por uma cápsula de tecido conjuntivo fibroso^{2,3}. Quando incompleta, a ausência de cápsula em algumas regiões permite ao tumor infiltrar-se no tecido glandular adjacente e sadio, o que caracteriza um fator para a recorrência desses tumores⁴.

^IResidente em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial do Hospital Universitário Maria Aparecida Pedrossian, da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul.

^{II}Professora Doutora em Patologia Bucal, da Faculdade de Odontologia Prof Albino Coimbra Filho, da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul.

^{III}Mestre e Cirurgião Bucomaxilofacial pela Universidade Federal de Uberlândia (MG).

^{IV}Cirurgião Bucomaxilofacial pelo Hospital Universitário Maria Aparecida Pedrossian da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul.

^VMestranda em Ciências da Saúde pelo Programa de Pós-Graduação em Saúde e Desenvolvimento na Região Centro-Oeste, da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul.

A glândula mais comumente afetada é a parótida, seguida das glândulas submandibular e salivares menores^{5,6}. Quando ocorre em glândulas salivares menores, esse tumor acomete especialmente as localizadas no palato^{1,3,7,8}. As glândulas salivares menores são afetadas em somente 8% dos casos, geralmente em palato duro e mole⁹.

Clinicamente os adenomas pleomórficos apresentam-se como tumores que possuem a superfície lisa, sendo assintomáticos, de crescimento lento, não se infiltrando nos tecidos adjacentes^{8,10,11}. Há poucos relatos de adenomas associados a alterações císticas, necroses isquêmicas ou hemorrágicas¹².

Quando o tumor acomete as glândulas salivares menores têm como sítios de predileção a seguinte ordem: os palatos duro e mole, lábios e mucosa jugal^{11,13}. Podem ocorrer em qualquer idade, raramente em crianças, sendo mais frequente em mulheres entre os 40 e 60 anos de idade^{4,7,14}.

São raros os tumores de glândulas salivares que acometem crianças com menos de 16 anos de idade, e esta frequência parece ser ainda menor em glândulas salivares menores, como as do palato^{4,15-17}.

Castro et al.¹⁸, ao revisarem 2.135 neoplasias de glândulas salivares, verificaram que somente 38 (1,7%) acometeram crianças, com idade igual ou inferior a 16 anos. A glândula parótida foi a mais acometida, seguida da submandibular e sublingual.

No estudo feito por Regezi et al.¹³, foram encontrados 150 tumores benignos de glândulas salivares menores, sendo que 119 (79%) foram diagnosticados como adenomas pleomórficos. A idade média de acometimento foi de 44,4 anos, e a área mais comum de localização foi o palato duro.

Fonseca et al.⁵ ao estudarem 759 casos de tumores de glândulas salivares, em um período de 30 anos, relataram apenas 24 (3,2%) em crianças e adolescentes com idade inferior a 18 anos. Desses, 16 (2,1%) foram diagnosticados como adenoma pleomórfico, sendo a idade média de acometimento 14,5 anos. Na primeira década de vida, apenas 1 paciente

(0,1%) foi acometido. Houve uma predominância do sexo feminino (68,8%). A glândula parótida foi a mais afetada (68,8%), seguida da submandibular (18,7%) e do palato mole (12,5%). O acompanhamento foi realizado em apenas 9 dos casos, e o tempo de observação variou de 1 a 13 anos após a primeira cirurgia. Em apenas 1 caso, houve recidiva.

Callender et al.⁶ estudaram 29 tumores de glândulas salivares e encontraram 8 pacientes com adenoma pleomórfico, sendo 4 meninas e 4 meninos, tendo idade entre 10 e 16 anos. Quanto à localização, 6 acometeram a parótida, 1, a glândula submandibular e 1, as glândulas salivares menores do palato. Todos foram submetidos a tratamento cirúrgico por exérese. Segundo Garcia-Perla et al.¹⁶, este é o tratamento recomendado tanto para crianças como para adultos.

Lima et al.¹⁴ analisaram 245 casos de neoplasias de glândulas salivares, sendo 187 de natureza benigna e 58 malignas. O adenoma pleomórfico foi o tumor mais identificado (168 casos), com predominância em mulheres, localização na parótida e média de idade 40,2 anos. Apenas 2 casos (1,2%) foram encontrados em crianças.

Embora o adenoma pleomórfico seja um tumor benigno de glândula salivar, a realização de exame histopatológico é de extrema importância, uma vez que suas características podem ser semelhantes às presentes em tumores malignos¹.

Neves et al.¹⁹, ao avaliarem 106 casos de adenoma pleomórfico em glândulas salivares maiores, encontraram grande variedade histopatológica, tendo como característica a ocorrência de diversos arranjos arquiteturais, estruturais e variações de celularidade, por vezes, em um mesmo tumor. Notou-se uma tendência dos elementos epiteliais/mioepiteliais se disporem em maior concentração na periferia do nódulo, logo abaixo da cápsula.

Lawall et al.¹ no relato de um caso clínico de adenoma pleomórfico em palato duro de uma paciente do gênero feminino com 33 anos de idade, observaram

histologicamente uma variedade na disposição das células epiteliais que se apresentaram tanto na forma de estruturas ductais quanto em lençóis, sempre entremeadas por estroma hialino.

O objetivo deste relato é o de alertar os cirurgiões-dentistas e a comunidade científica para a possibilidade do acometimento de pacientes infantis pelo adenoma pleomórfico em glândulas salivares menores. Raríssimos são os casos relatados pela literatura, sendo fundamental o diagnóstico precoce, a fim de se evitarem amplas ressecções cirúrgicas dessas lesões em pacientes nesta faixa etária.

RELATO DE CASO

Paciente do sexo feminino, melanoderma, com 10 anos de idade compareceu ao Estágio Diagnóstico Avançado Clínico Histopatológico das Doenças de Boca da Faculdade de Odontologia Professor Albino Coimbra Filho da Universidade Federal de Mato Grosso do Sul, encaminhada por uma unidade básica de saúde de Campo Grande (MS). Ao exame clínico intrabucal, verificou-se a presença de uma lesão nodular na mucosa do palato duro do lado direito e assintomática. A lesão apresentava-se bem definida, com mesma coloração da mucosa adjacente, firme à palpação, base sésil e tamanho aproximado de 2,5 cm em seu maior diâmetro (Figura 1). Inicialmente foi realizada a punção aspirativa da lesão, sendo negativo o resultado. Em seguida, foi realizada a biópsia incisiva para diagnóstico e planejamento cirúrgico. Ao exame histopatológico, em lâmina corada com hematoxilina e eosina (HE), microscópio com zoom óptico de 40x, observou-se um parênquima tumoral constituído de células epiteliais, dispostas em lençol ou cordões, com o estroma formado de quantidade variável de material condromixóide e, também, ilhotas isoladas com múltiplos ductos de células mioepiteliais (Figura 2), sendo o diagnóstico compatível com adenoma pleomórfico. A tomografia computadorizada da região foi solicitada, a fim de se constatar o tamanho preciso da lesão para posterior delimitação adequada das margens cirúrgicas, garan-

tando um bom prognóstico (Figura 3). A cirurgia para ressecção da massa tumoral foi planejada e realizada em ambiente ambulatorial com anestesia local (3,0 ml de cloridrato de mepivacaína a 2% com levonordefrina 1:20.000) tipo bloqueio regional dos nervos palatinos maiores direito e esquerdo e do nasopalatino. Após a incisão com margem de segurança ao redor de todo o tumor com lâmina de bisturi nº 15, foram efetuadas a divulsão e o descolamento do retalho mucoperiosteal, expondo-se a massa tumoral que se apresentava totalmente encapsulada, sem nenhuma evidência de invasão tecidual. Na periferia da lesão, o tecido fibroso era condizente com a cápsula que o envolvia totalmente, sem soluções de continuidade ou extravasamento do tecido neoplásico. Foram realizadas a ressecção da lesão (Figura 4) e a dissecação do nervo palatino maior do lado direito. Cera óssea foi utilizada para obstruir o forame palatino maior com finalidade hemostática. No pré-operatório, foi confeccionada uma placa de resina acrílica autopolimerizável por meio de moldagem prévia do palato e alívio no modelo de gesso na área correspondente à lesão. Ao término da cirurgia, sobre o palato da paciente, foi posicionada a placa acrílica com cimento cirúrgico, objetivando-se a proteção da área cruenta e um maior conforto para a paciente durante o processo cicatricial. Não houve recidiva em 3 anos de acompanhamento pós-operatório e não foi relatado perda de sensibilidade no local (Figura 5).

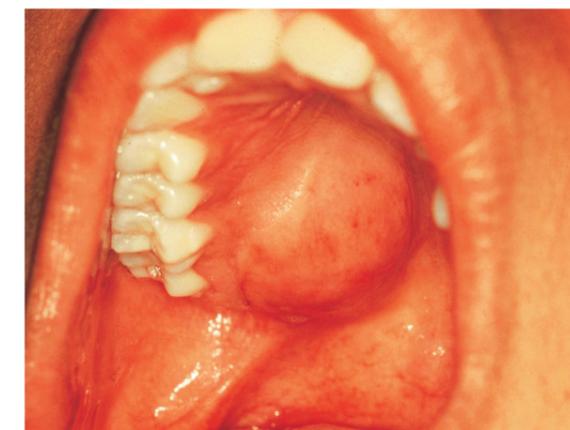


Figura 1 - Aumento volumétrico localizado na região posterior direita do palato duro.

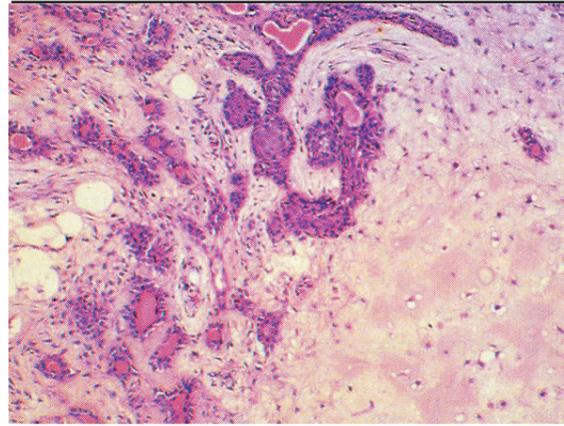


Figura 2 - Aspecto microscópico do adenoma pleomórfico, exibindo células epiteliais, dispostas em lençol ou cordões e estroma (HE - 40x)

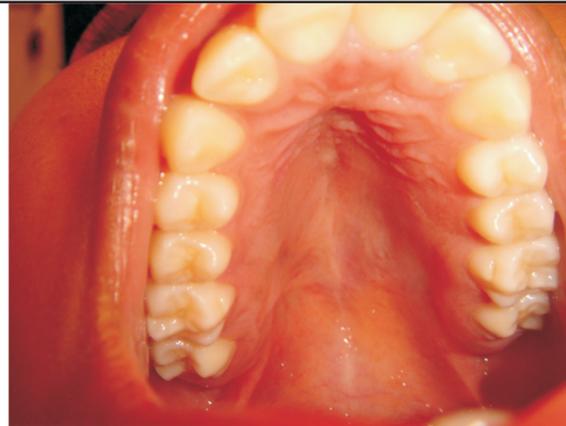


Figura 5 - Caso clínico final, com 3 anos de pós-operatório.

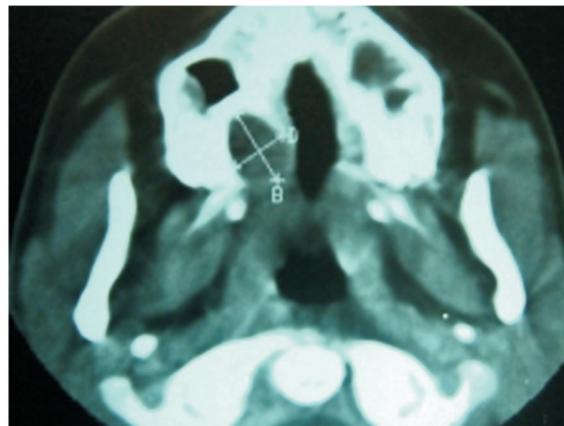


Figura 3 - Corte axial de Tomografia Computadorizada, na qual se evidencia uma lesão de formato oval, localizada em região posterior do lado direito de palato duro. Não há evidência de invasão da cavidade nasal ou do seio maxilar do mesmo lado



Figura 4 - Peça cirúrgica removida por biópsia excisional.

DISCUSSÃO

O tumor epitelial benigno das glândulas salivares mais comum, tanto em crianças como em adultos, é o adenoma pleomórfico que acomete, com maior frequência, a parótida e, raramente, as glândulas salivares menores do palato^{5,6,15}. Em crianças, cerca de 70 a 85% dos casos ocorrem na glândula parótida, enquanto que 5%, nas glândulas salivares menores^{5,6,10,20}.

É incomum o aparecimento do adenoma pleomórfico localizado no palato de crianças com idade abaixo de 14 anos^{7,8,21}. Neste trabalho, foi relatado um caso clínico incomum de adenoma pleomórfico em palato duro, em paciente infantil.

De acordo com os levantamentos, esses neoplasmas normalmente ocorrem mais em adolescentes do que em crianças, e há uma predominância maior de ocorrência no sexo feminino, com uma relação de 2:1. Essa prevalência também se verifica em adultos^{7,8,21}.

Os primeiros casos de adenoma pleomórfico foram relatados por Byars et al.¹⁰, que pesquisaram os tumores de glândulas salivares em pacientes com idade igual ou inferior a 18 anos, em um período de 30 anos. Eles observaram que de 470 casos de tumores de glândulas salivares, apenas 2 eram adenomas pleomórficos em palato, em pacientes do sexo feminino com idades de 7 e 9 anos. Foram realizadas

exérese das lesões, havendo recidiva em 1 caso após 5 anos de acompanhamento pós-operatório. Esses dados corroboram este trabalho, no qual a paciente pertencia ao gênero feminino, com idade de 10 anos.

Austin e Crockett²⁰ relataram um caso de adenoma pleomórfico em palato duro de uma menina de 10 anos de idade. A massa tumoral não apresentava ulceração, sendo assintomática e firme à palpação. A paciente foi submetida à ressonância magnética que revelou uma lesão bem circunscrita, sem evidências de lesão infiltrativa em cavidade nasal e seio maxilar. Após a biópsia excisional, não foi constatada recidiva durante 1 ano de acompanhamento pós-operatório. No presente caso, optou-se pela realização da tomografia computadorizada para delimitação do tamanho da lesão e posteriormente foi realizada biópsia excisional, não sendo constatada recidiva em 3 anos de acompanhamento pós-operatório.

De Courten et al.⁷ e Nogheryan et al.⁸ descreveram, em cada um de seus trabalhos, 1 caso de adenoma pleomórfico em paciente feminino com idade inferior a 10 anos, apresentando lesão nodular, de mesma coloração da mucosa adjacente, firme à palpação, assintomática e com localização no lado direito do palato duro. As tomografias computadorizadas foram solicitadas, constatando que não havia invasão no seio maxilar e cavidade nasal, tampouco comunicação com as raízes dos dentes subjacentes. Ambas as pacientes foram submetidas à biópsia excisional e não tendo sido constatada recidiva após 18 meses e 9 anos de acompanhamento pós-operatório, respectivamente. Essa mesma conduta foi adotada em relação à nossa paciente, apresentando resultados semelhantes.

Shaaban et al.²¹ não obtiveram o mesmo êxito, visto que, ao relatarem um caso de adenoma pleomórfico em palato duro de um menino de 9 anos de idade, também submetido à biópsia excisional, houve recidiva após 2 anos de acompanhamento pós-operatório.

Galich¹⁵ relatou 1 caso de adenoma pleomórfico acometendo as áreas de palato duro e mole de uma menina de 12 anos de idade. Durante o procedimento cirúrgico, encontrou uma extensão tumoral no interior da fossa pterigoide, sendo necessária uma ressecção parcial da maxila inferior e do osso do palato. Em nossa paciente, a massa tumoral apresentava-se bem circunscrita e encapsulada, não tendo sido constatada a invasão tecidual.

Segundo Silva et al.²², diante das lesões localizadas na região posterolateral do palato, o adenoma pleomórfico deve ser a primeira suspeita diagnóstica. Deve-se proceder à remoção da lesão juntamente com o periósteo subjacente e mucosa palatina. A natureza inserida dessa mucosa impede a realização de uma enucleação total da lesão por meio de dissecação extracapsular. Podem existir áreas na lesão em que a cápsula tumoral encontra-se delgada ou ausente, sendo, desse modo, expostas ou rompidas durante a tentativa de dissecação. No presente caso clínico, a lesão encontrava-se totalmente encapsulada e foi realizada a enucleação total da lesão sem rompimento da cápsula.

Um diagnóstico precoce é importante para se obter o tratamento apropriado e limitar a extensão do procedimento cirúrgico. Um criterioso acompanhamento é necessário para detectar recorrências, as quais podem aparecer anos após a ocorrência da primeira lesão^{1,7}. Recidiva pode ocorrer devido à permanência de resíduos da cápsula ou mesmo da própria lesão¹. Durante o acompanhamento pós-operatório de nossa paciente, não foram encontradas evidências de recidiva.

O tratamento dos adenomas pleomórficos em crianças deve ser o mesmo dos adultos, sendo destinado à remoção completa do tumor que geralmente coincide com a área da biópsia excisional, com remoção do periósteo ou do osso adjacente, caso haja envolvimento. As taxas de recorrência estão atribuídas às técnicas cirúrgicas inadequadas ou à ruptura da cápsula fibrosa do adenoma, deixando

células tumorais no sítio da lesão⁸. O tratamento utilizado no presente relato foi o mesmo indicado para pacientes adultos.

Acompanhamento de rotina pós-operatório é necessário devido ao risco de transformação maligna (2 a 3%), que ocorrem principalmente nos casos de recorrência tumoral⁹ ou em casos com longo tempo de evolução¹⁹.

CONSIDERAÇÕES FINAIS

O Adenoma pleomórfico das glândulas salivares menores localizadas no palato duro é uma entidade rara em pacientes pediátricos. O caso relatado é um dos poucos descritos com detalhe na literatura. O tratamento requer exérese da lesão, com o cuidado de não lesarmos a cápsula ou deixarmos parte da lesão no local. Acompanhamentos periódicos devem ser feitos para que nos certifiquemos de que não há sinais de recidiva.

REFERÊNCIAS

1. Lawall MA, Simonato LE, Ribeiro ACP, Crivelini MM, Moraes NP. Adenoma Pleomórfico: relato de caso clínico. Rev Odontol Univ São Paulo. 2007; 19(3):336-40.
2. Boros LF, Bordini J, Boros LF, Boros LH, Silva PA. Adenoma pleomórfico de glândula salivar menor do palato. Odontol Clin - Cient. 2004; 3(1):67-71.
3. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Patologia oral e maxilofacial. 2a ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan; 2004.
4. Forty MJ, Wake MJC. Pleomorphic salivary adenoma in an adolescent. British Dental J. 2000; 188(10):545-6.
5. Fonseca I, Martins AG, Soares J. Epithelial salivary gland tumors of children and adolescents in southern Portugal: a clinico-pathologic study of 24 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1991; 72:696-701.
6. Callender DL, Frankenthaler RA, Luna MA, Lee SS, Goepfert H. Salivary gland neoplasms in children. Arch

- Otolaryngol Head Neck Surg. 1992; 118:472-6.
7. De Courten A, Lombardi T, Samson J. Pleomorphic adenoma of the palate in a child: a year follow-up. Int J Oral Maxillofac Surg. 1996; 25(4):293-5.
8. Noghreya A, Gatot A, Maor E, Fliss DM. Palatal pleomorphic adenoma in a child. J Laryngol Otol. 1995; 109:343-5.
9. Patrocínio TG, Patrocínio JA, Patrocínio LG. Adenoma Pleomórfico nasal: ressecção via degloving médio-facial. Arq Int Otorrinolaringol. 2006; 10:154-8.
10. Byars LT, Ackerman LV, Peacock E. Tumors of salivary gland origin in children: a clinical pathologic appraisal of 24 cases. Ann Surg. 1957; 146:40-51.
11. Eveson JW, Cawson RA. Tumors of the minor salivary glands: a demography study of 336 cases. J Oral Pathol. 1985; 14:500-9.
12. Chen YK, Lin CC, Lai S, Chen CH, Wang WC, Lin YR, Hsue SS, Lin LM. Pleomorphic adenoma with extensive necrosis: report of two cases. Oral Diseases. 2004; 10(1):54-9.
13. Regezi JA, Lloyd RV, Zarbo RJ, McClatchev KD. Minor salivary gland tumors: a histologic and immunohistochemical study. Cancer. 1985; 55(1):108-15.
14. Lima SS, Soares AF, Amorim RFB, Freitas RA. Perfil epidemiológico das neoplasias de glândulas salivares: análise de 245 casos. Rev Bras Otorrinolaringol. 2005; 71(3): 335-40.
15. Galich R. Salivary gland neoplasm in childhood. Arch Otolaryngol. 1969; 89:100-4.
16. Garcia-Perla A, Muñoz-Ramos M, Infante-Cossio P, Mayorga-Jimenez F, Gutierrez-Perez JL, Garcia-Perla A. Pleomorphic adenoma of the parotid in childhood. J CranioMaxillofac Surg. 2002; 30(4):242-5.
17. Luna MA, Batsakis JG, El-Naggar AK. Pathology consultation: salivary gland tumors in children. Ann Otol Rhinol Laryngol. 1991; 100:869-71.
18. Castro EB, Huvos AG, Strong EW, Foote Jr FW. Tumors of the major salivary glands in children. Cancer. 1972; 29:312-7.
19. Neves JC, Abreu e Lima MC, Sobral APV. Estudo clinicopatológico de 106 adenomas pleomórficos de

- glândula salivar maior. J Bras Patol Med Lab. 2007; 43(5):347-54.
20. Austin JR, Crockett DM. Pleomorphic adenoma of palate in child. Head Neck. 1992; 14:58-61.
21. Shaaban H, Bruce J, Davenport PJ. Recurrent pleomorphic adenoma of the palate in a child. Br J Plast Surg. 2001; 54(3):245-7.
22. Silva DN, Guimarães KB, Ferraro-Bezerra M, Heitz C. Enucleação de adenoma pleomórfico: considerações terapêuticas e relato de caso. Rev Cir Traumatol Buco-Maxilo-Fac. 2007;7(4):25-30.

ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA:

Instituição de Ensino: Universidade Federal de Mato Grosso do Sul
 Dr. João Carlos Castro Monteiro
 SQN 206, bloco H apt 605 Brasília/DF
 70844-080
 E-mail: jccmdf@hotmail.com

