

Adenoma Pleomórfico em glândula submandibular: relato de caso e uma revisão dos achados atuais

Pleomorphic adenoma in the submandibular gland: a case report and review of current findings

Rayanne Izabel Maciel de Sousa ^I | Manuela Gouvêa Campelo dos Santos ^{II} | James Maxwell de Souza Oliveira ^{III} | Valmir Braga de Aquino Mendonça ^{III} | Pollianna Muniz Alves ^{IV} | Jozinete Vieira Pereira ^{IV}

RESUMO

Introdução: O adenoma pleomórfico é o tumor benigno de origem glandular mais freqüente na cavidade oral. Representa cerca de 70 a 90% dos tumores das glândulas salivares maiores, mais raramente na glândula submandibular. **Objetivo:** relatar um caso clínico de adenoma pleomórfico localizado na glândula submandibular, tratado através de excisão cirúrgica. **Relato de Caso:** o presente artigo descreve um caso relativamente incomum em uma paciente do sexo feminino, 22 anos de idade, com queixa de dor e dificuldade para falar e um aumento de volume na região cervical com duração de aproximadamente 2 anos, sem história prévia de trauma, infecção ou procedimento cirúrgico na região. Foi realizada exérese do tumor, cuja análise histopatológica diagnosticou adenoma pleomórfico. A paciente foi preservada pelo período de cinco anos, sem indícios de recidivas.

Descritores: Neoplasia benigna; adenoma pleomórfico; cirurgia.

ABSTRACT

Introduction: Pleomorphic adenoma is a benign tumor of glandular origin most frequently in the oral cavity. This represents approximately 70-90% of tumors of the salivary glands, more rarely in the submandibular gland. **Objective:** To report a case of pleomorphic adenoma located in the submandibular gland, treated by surgical excision. **Case Report:** This article describes a relatively unusual in a female patient, 22 years old, complaining of pain and difficulty speaking and a swelling in the neck with a duration of approximately two years, no history trauma, or surgical procedure infection in the region. We performed excision of the tumor, whose histopathology analysis diagnosed pleomorphic adenoma. The patient was accompanied for a period of five years without evidence of recurrence.

Descriptors: benign neoplasm; pleomorphic adenoma; surgery.

I. Cirurgiã- dentista. Graduanda do curso de odontologia UEPB/Bolsista PIBIC.

II. Cirurgiã- dentista. Mestranda do Programa de Pós-graduação em Odontologia da UEPB.

III. Cirurgião- dentista. Especialista em buco-maxilo-facial.

IV. Cirurgiã- dentista. Professoras do Programa de Pós-graduação em Odontologia da UEPB.

INTRODUÇÃO

Os tumores de glândulas salivares constituem um importante grupo de lesões dentro do universo da patologia bucal, destacando-se entre as neoplasias que acometem a região de cabeça e pescoço, não só pela diversidade morfológica apresentada, que usualmente suscita dificuldades de diagnóstico e classificação, como também pela variedade do comportamento biológico, além do seu razoável grau de frequência, sendo o Adenoma Pleomórfico a neoplasia benigna mais comum das glândulas salivares.¹

O Adenoma Pleomórfico, também conhecido como tumor misto, geralmente acomete adultos entre a 3ª e 5ª décadas e cerca de 60% dos casos são relatados no sexo feminino², acometendo tanto glândulas salivares menores quanto maiores, em que a glândula parótida é a mais acometida, sendo bem menos frequente sua incidência na glândula submandibular³. Quando essa lesão afeta glândulas salivares menores, o local de acometimento mais frequente é a região de palato duro, seguida do lábio superior, língua, assoalho de boca e região retromolar. Inúmeras teorias surgiram visando explicar a histogênese desse tumor, sendo que atualmente estão centralizadas na célula mioepitelial e na célula de reserva do ducto intercalado.^{2,5}

As características histológicas mostram a grande heterogeneidade desse tumor, com proliferação celular de número variável, sendo, portanto, considerado um verdadeiro tumor misto, apresentando características mioepiteliais, estruturas ductiformes e um estroma de tecido condróide, mixóide, hialino, adiposo e/ou ósseo, possuindo cápsula conjuntiva fibrosa de espessura e integridade variáveis. Por causa dessa variação, muitos padrões diferentes podem ser vistos em diferentes áreas do mesmo tumor, motivando o seu nome, pleomórfico (do grego, significando muitas formas).⁴

Clinicamente, apresenta-se como uma massa indolor, persistente de crescimento lento e na maio-

ria dos casos, não provoca ulceração da mucosa subjacente.⁵ Geralmente tem dimensões de 2 a 3 centímetros, mas podem atingir grandes volumes. Pode ocorrer, ocasionalmente, aumento rápido de volume, indício presuntivo de transformação maligna.⁶ A degeneração maligna é uma potencial complicação, resultando em um carcinoma ex-adenoma pleomórfico, com relatos variando de 5% a 23% dos casos. O tratamento de eleição para o Adenoma Pleomórfico é a excisão cirúrgica. Uma ressecção inadequada pode levar à recidiva local.⁷

O objetivo deste trabalho é relatar um caso de Adenoma Pleomórfico localizado na glândula submandibular o qual causava assimetria facial na paciente, devido a sua grande extensão e discutir por meio de revisão de literatura os achados atuais no tocante ao diagnóstico e terapêutica desta neoplasia.

RELATO DE CASO

Paciente, do sexo feminino, com 22 anos de idade, melanoderma, procurou o Serviço especializado odontológico em Hospital de referência, queixando-se de dor, dificuldade para falar e um aumento de volume na região cervical próximo a linha média. Durante a anamnese, relatou a presença do aumento de volume em torno de dois anos, sem história prévia de trauma, infecção ou procedimento cirúrgico na região. A paciente também negou história de tabagismo e consumo de álcool.

Ao exame físico extra oral, observou-se a presença de uma tumefação firme, fixa e indolor na região cervical e submandibular esquerda, com pontos avermelhados próximos a área tumefeita (Figura 1A). No exame intra oral, não foi verificado nenhum sinal clínico evidente de tumefação, ulceração ou supuração.

Foram solicitados exames imaginológicos, como radiografia panorâmica, oclusal e ultrassonografia da região cervical esquerda (Figura 1B).

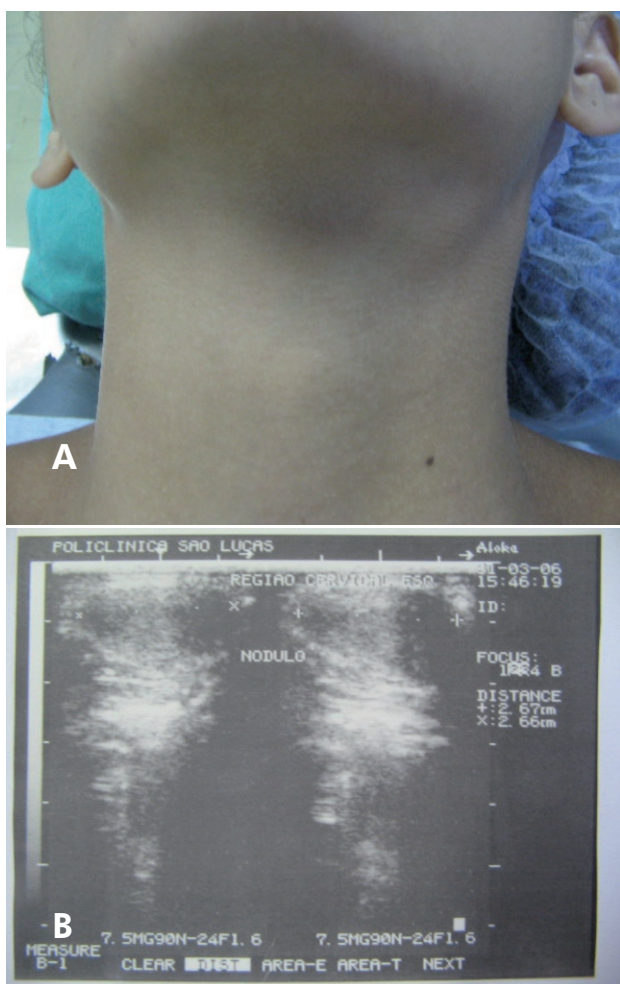


Figura 1 - A) Vista frontal pré-operatória onde se observa tumefação na região cervical submandibular. B) USG da região cervical evidenciando-se área hiperecótica nodular.

Foi realizada uma biópsia incisional obtendo o diagnóstico histopatológico de adenoma pleomórfico, e, portanto, sugerindo a realização da remoção total da lesão. Antes de realizar a cirurgia total foram solicitados à paciente, exames laboratoriais pré-cirúrgicos de rotina incluindo hemograma, coagulograma, glicemia, TS, TTT e TTP. Após verificar que os resultados encontravam-se dentro dos padrões de normalidade, foi programada a cirurgia para exérese da lesão, onde a paciente foi submetida à anestesia geral. Realizou-se uma aplicação de anestésico local com vasoconstrictor, com o intuito de auxiliar na hemostasia local. Uma incisão linear foi realizada na região e a pele foi divulsionada por dissecação, com o objetivo de promover um melhor relaxamento tecidual e assim expor a glândula

envolvida que foi cuidadosamente separada dos tecidos circunvizinhos e então realizada a ressecção do ducto da glândula submandibular para envio da peça ao exame histopatológico (Figura 2).

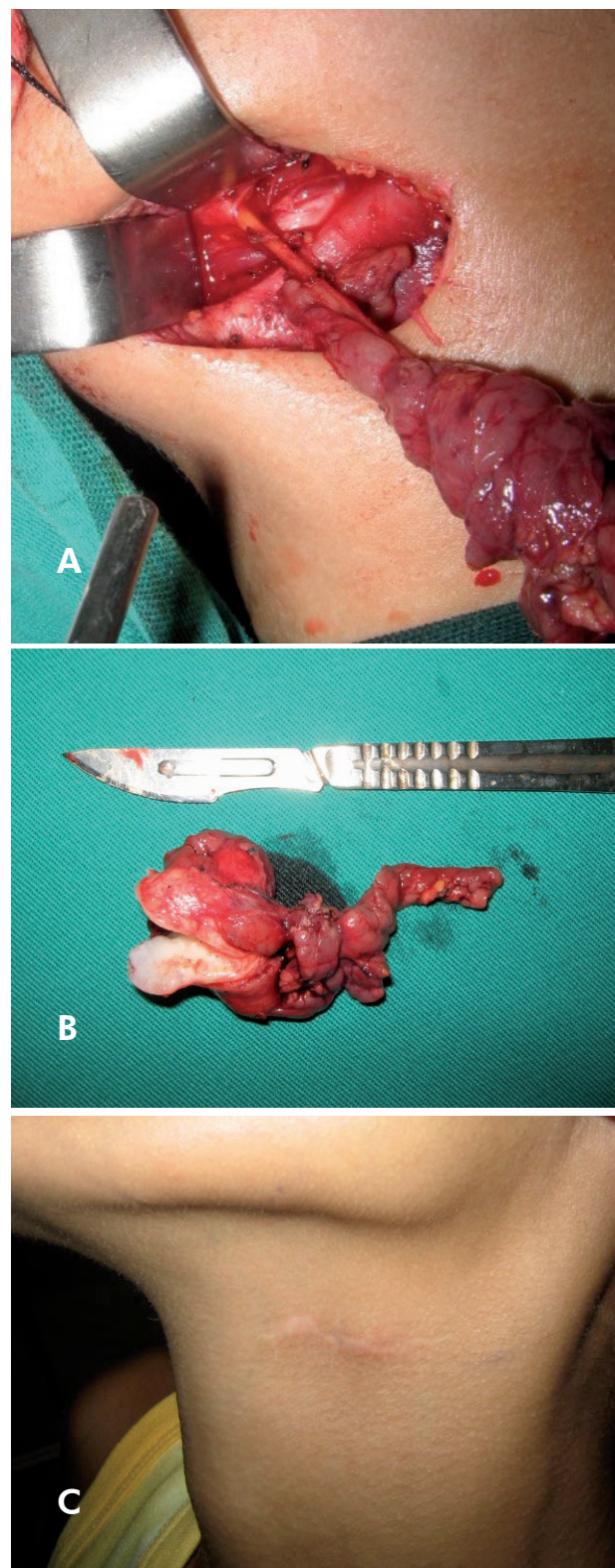


Figura 2 - A) Trans-operatório exibindo a retirada total da lesão. B) Aspecto macroscópico da peça cirúrgica. C) Aspecto do Pós-operatório com 60 dias de prosvaço.

Depois de realizar a remoção da lesão, foi feita a sutura para o fechamento dérmico, com um dreno, visando permitir a saída de fluidos e foi instituído antibioticoterapia profilática (amoxicilina, 500mg, 8h/8h, durante sete dias), um analgésico no caso de dor (paracetamol, 750mg) bem como um antiinflamatório (ibuprofeno, 500mg, de 8h/8h). A remoção da sutura foi feita 10 dias após a cirurgia e a paciente foi acompanhada durante 60 dias, sendo orientada a necessidade de preservação por um período de pelo menos cinco anos.

O laudo do exame histopatológico revelou a presença de uma neoplasia de origem glandular exibindo a proliferação de conspícuas estruturas ductiformes, algumas com material mucóide no interior do lúmen, em permeio a um estroma mixomatoso, sendo também uma neoplasia bem encapsulada, confirmando assim o diagnóstico de adenoma pleomórfico.

Ao corte pode-se observar a população celular densa, formada por células epiteliais dispostas em lençol, cordões e ilhotas isoladas (Figura 3A). Pode-se observar em algumas áreas, que as células formavam múltiplos ductos, mostrando na sua periferia células menores e achatadas que lembram as mioepiteliais (Figura 3B). No estroma evidencia-se uma quantidade variável de material condroide, por onde entremeavam as células epiteliais (Figura 3C). Não se observou quaisquer sinais de displasia ou alterações que indicassem malignidade.

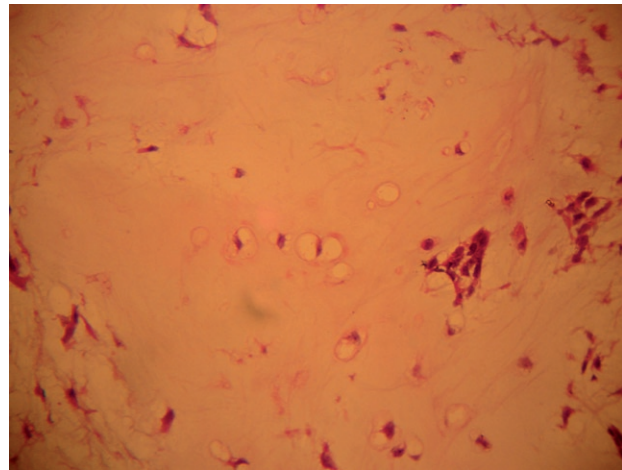
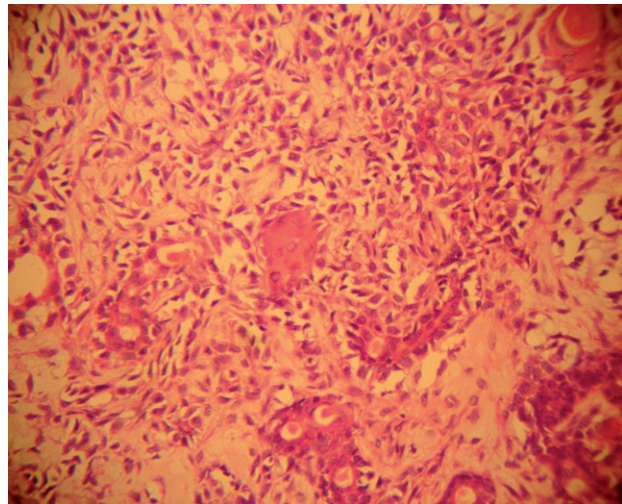
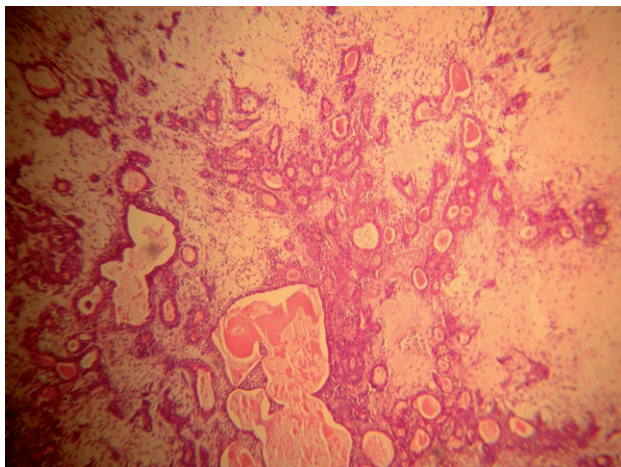


Figura 3 - A) Fotomicrografia exibindo células epiteliais e mioepiteliais formando estruturas ductiformes, dispostas também em ilhas, lençóis e cordões (HE/40X). B) Estruturas ductiformes compostas por células epiteliais e mioepiteliais em sua periferia, bem como proliferação de células mioepiteliais (HE/100X) C) Maior aumento exibindo estroma com material condroide (HE/400X).

DISCUSSÃO

O Adenoma Pleomórfico é o tumor benigno mais comum das glândulas salivares⁸. Na maioria dos casos, estes tumores surgem nas glândulas salivares maiores, acometendo principalmente a parótida, seguida da submandibular, representando cerca de 53% a 77% dos tumores de parótida, 44% a 68% dos tumores da glândula submandibular e 33% a 43% dos tumores de glândula salivar menor.
1,3,10

Em função do Adenoma Pleomórfico apresentar-se como uma lesão de crescimento lento e indolor, pode haver um intervalo prolongado

entre o surgimento dos primeiros sinais e sintomas até o diagnóstico definitivo e seu tratamento ¹⁰. Esse fato ocorreu no caso clínico relatado em que a paciente só procurou o serviço especializado odontológico após um longo período de evolução de dois anos.

No tocante ao tratamento dessa neoplasia, o conhecimento do comportamento biológico do tumor é fator primordial e determinante para a escolha da terapêutica correta ⁴. Um dos aspectos mais característicos do adenoma pleomórfico é a diversidade no que se refere ao padrão histopatológico ⁶. O arranjo das células epiteliais em folhetos e cordões é o padrão característico desses tumores que independem da localização, em glândulas salivares maiores ou menores ¹⁰. Os aspectos da histopatologia do presente estudo mostraram uma variedade na disposição das células epiteliais, que se apresentavam na forma de estruturas ductais, algumas com material mucóide no interior do lúmen, em permeio a um estroma mixomatoso, sendo bem encapsulada. A ausência de mitoses atípicas ou outros indícios de malignidade permite a conclusão de que o tumor encontrado é benigno.

A conduta terapêutica mais utilizada para o Adenoma Pleomórfico consiste na excisão cirúrgica com margem de segurança, uma vez que a recidiva pode ocorrer devido à permanência de resíduos da cápsula ou mesmo da própria lesão, o que pode aumentar também a possibilidade de transformação maligna do tumor, para um carcinoma ex-adenoma pleomórfico ⁷. Quando estes tumores se tornam malignos tem um comportamento agressivo gerando uma taxa de mortalidade em 5 anos de até 50% ^{2,6}. O fator determinante para recidiva não é o período de evolução da lesão em que o tratamento cirúrgico é realizado, a taxa de recorrência do tumor varia de acordo com a técnica cirúrgica utilizada ⁴. O tratamento proposto no caso aqui relatado buscou a remoção total da glândula submandibular, conforme é citado na literatura como terapia para

um tratamento mais apropriado e seguro. ^{1,7}

Por invadir, na grande maioria das vezes apenas os tecidos moles, dificilmente há uma indicação para remoção do tecido ósseo. A ultrassonografia e os exames por imagens são de grande importância para a localização e demarcação exata da lesão ⁹, como demonstrada no caso aqui relatado.

O acompanhamento dos casos de Adenoma Pleomórfico é de grande valia, e a preservação deve ser de cinco anos ⁸, corroborando o caso aqui relatado na qual a paciente apresenta-se sob acompanhamento há cerca de cinco anos e não foram observadas quaisquer alterações clínicas relacionadas a uma possível recidiva.

CONSIDERAÇÕES FINAIS

Após revisão dos conceitos atuais, pode-se dizer que uma avaliação minuciosa da queixa do paciente, um exame físico bem executado e os exames complementares por imagem e microscópicos são fundamentais para o diagnóstico e assim possibilitar um planejamento do tratamento adequado, visto que essa neoplasia pode apresentar características semelhantes às presentes em tumores malignos, com exceção de atipias celulares. Verificou-se que a tratamento da glândula salivar deve ser executado com a remoção do tumor associado à remoção da glândula, pois embora o Adenoma Pleomórfico seja um tumor benigno, existe a possibilidade de transformação maligna para carcinoma ex-adenoma pleomórfico, em casos com história de recidiva e longo tempo de evolução.

Vale ressaltar também a importância da participação de uma equipe multidisciplinar para um diagnóstico precoce do tumor e um tratamento menos invasivo e com melhor prognóstico para o paciente, envolvendo médicos, estomatologista, cirurgião buco-maxilo-facial, patologista oral e radiologista.

REFERÊNCIAS

1. Rao PK, Shetty SR, Hegde D. Ectopic pleomorphic adenoma. *North American Journal of Medical sciences*. 2012, apr;4 (1):190-192.
2. Mubeen BW, Vijayalakshmi KR, Patl AR, Giralddi GB, Singh C. Beningn pleomorphic adenoma of minor salivary gland of palate. *J Dent oral Hyg*. 2011; 3(6): 82-88.
3. Carvalho B, Ballin AC, Santos AKC, Ballin CH, Ballin CR, Mocelin M. Apresentação atípica do adenoma pleomórfico. *ACTA ORL/Técnicas em Otorrinolaringologia*. 2011; 29(1):20-22.
4. Freitas R. *Tratado de Cirurgia e traumatologia Bucomaxilofacial*. Editora Santos, 2006.
5. Su A, Apple SA, Moatamed NA. Pleomorphic adenoma of the vulva, clinical reminder of a rare occurrence. *Rare tumors*. 2012; 4(16): 53-55.
6. Demasi AP, Furuse C, Soares AB, Altemani A, Araújo VC. Peroxiredoxin I, platelet-derived growth factor A, and platelet-derived growth factor receptor alpha are overexpressed in carcinoma ex pleomorphic adenoma: association with malignant transformation. *Hum Pathol*. 2009, mar; 40(3) :390-397.
7. Kim JW et al. Carcinoma ex Pleomorphic Adenoma of the Salivary Glands: Distinct Clinicopathologic Features and Immunoprofiles Between Subgroups According to Cellular Differentiation. *Korean Med Sci*. 2011, 26(10): 1277-1285.
8. Debnath SC; Saikia AK; Debnath A. Pleomorphic Adenoma of the Palate. *J. Maxillofac. Oral Surg*. 2010, 9(4):420-423.
9. Ribeiro-Rotta RF, Cruz ML, Paiva RR, Mendonça EF, Spini TH, Mendonça AR.. O papel da ressonância magnética no diagnóstico do adenoma pleomórfico: revisão da literatura e relato de casos. *Rev. Bras. Otorrinolaringol*. 2003, oct ; 69(5): 699-707.
10. Morais MLS, Azevedo PH, Carvalho CH, Me-deiros L, Lajus T, Costa, AL. Clinicopathological study of salivary gland tumors: an assessment of 303 patients. *Cad. Saúde Pública, Rio de Janeiro*. 2011, maio; 27(5): 1035-1040.

ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA:

Pollianna Muniz Alves
R. Celestino Martins Costa, 147, Catolé,
CEP 58410-156, Campina Grande/PB
Telefone: (83) 3337-3790
email: polliannaalves@ig.com.br