

Adenoma de células basales de glándula parótida. Caso clínico y revisión de la literatura

Raúl González García ¹, Syong H. Nam Cha ², Mario F. Muñoz Guerra ¹, C. Gamallo Amat ²

(1) Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial

(2) Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Universitario La Princesa. Madrid

Correspondencia:

Dr. Raúl González García

C/ Los Yébenes nº 35, 8º C

28047 - Madrid

ESPAÑA

E-mail: raugg@mixmail.com

Recibido: 4-04-2005

Aceptado: 12-06-2005

Indexed in:

-Index Medicus / MEDLINE / PubMed
-EMBASE, Excerpta Medica
-Índice Médico Español
-IBECS

González-García R, Nam-Cha SH, Muñoz-Guerra MF, Gamallo-Amat C. Basal cell adenoma of the parotid gland. Case report and review of the literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2006;11:E206-9.

© Medicina Oral S. L. C.I.F. B 96689336 - ISSN 1698-6946

RESUMEN

El adenoma de células basales de las glándulas salivares es un tipo de adenoma monomorfo de aparición infrecuente. La localización más habitual es la superficie de la glándula parótida. Suele debutar clínicamente como una masa firme y desplazable de crecimiento lento. Histológicamente se observan células isomórficas formando nidos y trabéculas interanastomosadas, con una membrana basal prominente, separadas por un estroma laxo e hialino y ausencia de estroma mixoide o condroide. A diferencia del adenoma pleomorfo, tiende a la multicentricidad y su tasa de recurrencia después de la extirpación quirúrgica es alta. Debido a sus implicaciones pronósticas, el diagnóstico diferencial con el adenocarcinoma de células basales, el carcinoma adenoide quístico y el carcinoma de células escamosas basaloide es prioritario. Describimos un caso clínico de adenoma de células basales de la glándula parótida, realizamos una revisión de la literatura y discutimos el manejo diagnóstico y terapéutico de esta rara entidad.

Palabras clave: Adenoma de células basales, parótida, glándula salivar.

ABSTRACT

Basal cell adenoma of the salivary glands is an uncommon type of monomorphous adenoma. Its most frequent location is the parotid gland. It usually appears as a firm and mobile slow-growing mass. Histologically, isomorphic cells in nests and interlaced trabecules with a prominent basal membrane are observed. It is also characterized by the presence of a slack and hyaline stroma and the absence of myxoid or condroid stroma. In contrast to pleomorphic adenoma, it tends to be multiple and its recurrence rate after surgical excision is high. Due to prognostic implications, differential diagnosis with basal cell adenocarcinoma, adenoid cystic carcinoma and basaloid squamous cell carcinoma is mandatory. We describe a case of basal cell adenoma of the parotid gland. We also review the literature and discuss the diagnosis and management of this rare entity.

Key words: Basal cell adenoma, parotid, salivary gland.

INTRODUCCION

El adenoma de células basales (ACB) de las glándulas salivares es un tumor raro, reconocido como entidad independiente en la segunda edición de la clasificación de tumores glandulares salivares de la Organización Mundial de la Salud (OMS) (1). Es considerado como un tumor de baja malignidad con una tasa de recurrencia alta y, en general, con buen pronóstico. Su localización más frecuente es la glándula salivar parotídea, aunque otras son posibles, como el labio superior, mucosa bucal, labio inferior, paladar y septo nasal (2,3).

Representa el 54% de los adenomas monomorfos y el 1-3% de los tumores de las glándulas salivares mayores (4). Epidemiológicamente, estos tumores afectan con mayor frecuencia a pacientes entre la quinta y séptima décadas de la vida, en contra de lo observado en los tumores mixtos benignos. Para la mayoría de los autores existe una mayor prevalencia en mujeres, pero para otros esta es la misma en ambos sexos (5,6).

Histológicamente, se han descrito 4 patrones histológicos característicos: sólido, trabecular, tubular y membranoso. Es característica la presencia de una capa celular basaloide con patrón en empalizada y rodeada de sustancia hialina (7). La ausencia de células mioepiteliales, presentes en los tumores mixtos benignos y otras neoplasias glandulares salivares, ha sido referida como característica de esta neoplasia (8). Sin embargo, otros autores sugieren la participación de células mioepiteliales en base a la presencia de células estromales fusiformes S-100 positivas (9).

El diagnóstico diferencial con entidades de pronósticos tan diferentes como el adenoma pleomorfo y el carcinoma adenoide quístico, hace necesaria la consideración de esta entidad en el ámbito de las tumoraciones glandulares del área maxilofacial.

CASO CLINICO

Paciente mujer de 30 años, con antecedente personal de carcinoma de células basales de piel en región paranasal izquierda, acudió a nuestra consulta por presentar una tumoración de crecimiento progresivo en la región del ángulo mandibular derecho, de tres años de evolución. Aportaba un informe citopatológico procedente de dos punciones-aspiración con aguja fina (PAAF) efectuada en otro centro, con el resultado de frotis sugestivos de proliferación epitelial de baja agresividad citológica. Los hallazgos observados eran compatibles con un adenoma pleomorfo de glándula salivar, sin embargo la cantidad de estroma era mínima, y el patrón se desviaba de lo habitual en estos casos, por lo que no se pudieron descartar otros tumores, incluido el carcinoma. A la exploración presentaba un nódulo de 2 cm de diámetro en región yugulodigástrica derecha, desplazable sobre planos profundos y no adherida a la piel. No se objetivaron otras adenopatías ni tumoraciones a nivel cervicofacial.

Con la sospecha diagnóstica de tumor en lóbulo superficial y cola parotídea derecha, se realizó una tomografía computerizada (TC) cervicofacial con contraste, practicándose ventana de partes blandas y ventana de hueso.

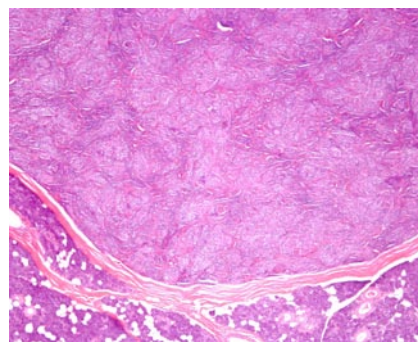


Fig. 1. Hematoxilina-eosina (2x). Se observa la tumoración separada del tejido glandular normal.

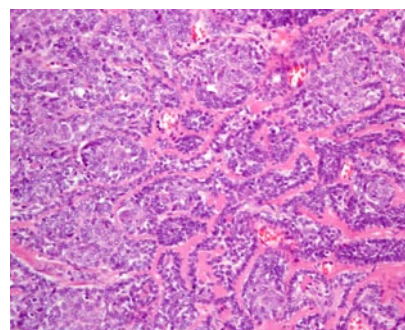


Fig. 2. Hematoxilina-eosina (20x). Se observan los nidos tumorales de células basófilas en la periferia, separados de estructuras tipo membrana basal de fuerte tinción eosinófila.

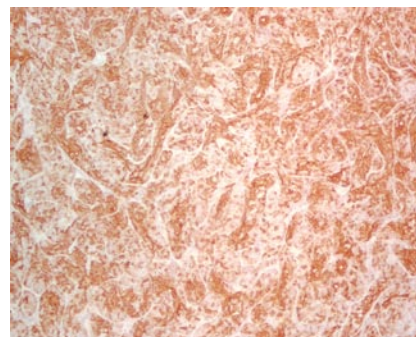


Fig. 3. Positividad para citoqueratina de alto peso molecular.

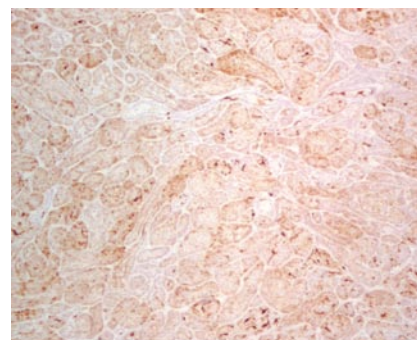


Fig. 4. Positividad focal para S-100.

A nivel del lóbulo superficial de la glándula parotídea derecha, en la cola de la parótida, se objetivó una imagen nodular, hipercaptante, de bordes bien definidos de aproximadamente 1,5 cm de diámetro que, debido a las características radiológicas y la lenta evolución en tres años, se interpretó como una lesión tumoral benigna, a considerar las etiologías de adenoma pleomorfo, tumor de Warthin u otros tumores de la glándula salivar de naturaleza benigna. Se observaron adenopatías de tamaño no significativo en sendas cadenas submandibulares, yugulodigástricas y en triángulos posteriores.

Con la sospecha clínico-radiológica de tumor benigno de glándula parótida derecha, se intervino quirúrgicamente bajo anestesia general e intubación orotraqueal, realizándose parotidectomía suprafacial a través de un abordaje de ritidectomía, con resección del lóbulo parotídeo superficial de 5 x 3 cm y aplicación de cierre con colgajo de SMAS. En el estudio anatomopatológico de la pieza se objetivó una tumoración bien delimitada de 18 mm de diámetro, de color blanquecino y superficie homogénea, en un extremo de la pieza. Al corte, se observó una tumoración bien delimitada, de textura homogénea, y características macroscópicas de normalidad para el resto de la glándula. Asimismo, se realizó biosia-exéresis de adenopatía de 2,5 x 1 cm de diámetro en la proximidad de la glándula parótida, que al corte presentó una textura homogénea, color blanquecino y consistencia elástica. En el examen microscópico se observó una lesión encapsulada constituida por nidos o trabéculas separadas por una membrana basal eosinófila y constituidas por células basalioides que se disponían a modo de empalizada periférica (fig.1,2). La celularidad en el estudio inmunohistoquímico fue positiva para citoqueratina de alto peso molecular y focalmente positiva para S-100 (fig.3,4). El diagnóstico anatomopatológico fue de adenoma de células basales de glándula parótida y ganglios linfáticos con hiperplasia folicular.

El postoperatorio inmediato no presentó complicaciones importantes, salvo ligera paresia a nivel de las ramas frontal y bucal del nervio facial, que experimentó mejoría progresiva en los días subsiguientes a la intervención.

DISCUSION

La mayoría (70-80%) de los tumores de glándula parótida que observamos en clínica son benignos y, dentro de estos, el adenoma pleomorfo es el más frecuente. En el conjunto de los adenomas, los monomorfos son muy infrecuentes. Se trata de todos los tumores benignos de glándulas salivares de origen epitelial que no son adenomas pleomorfos. Dentro de este grupo, tiene cabida el adenoma de células basales, que se subdivide a su vez en sólido, trabecular, tubular y membranoso. Habitualmente, este tumor encapsulado de crecimiento lento no sobrepasa los 3 cm de diámetro mayor, es firme, desplazable, no doloroso, se sitúa superficial al cuerpo glandular y tiene un color pardo claro (3). El diagnóstico de esta entidad precisa del análisis anatomopatológico. De modo generalizado se acepta la biopsia como el método más

preciso para obtener el diagnóstico, aunque algunos autores abogan por la PAAF si existe accesibilidad del tumor.

Histológicamente, el ACB se caracteriza por presentar un conjunto de células uniformes y regulares de tinción basalioides. Estas células tienen dos morfologías diferenciadas y están entremezcladas. Un grupo consiste en pequeñas células con escaso citoplasma de núcleos redondeados intensamente basófilos, que se localizan habitualmente en la periferia de los nidos o islas tumorales. El otro grupo lo constituyen células grandes de abundante citoplasma y núcleos pálidos, que se sitúan en el centro de los nidos tumorales. Una estructura tipo membrana basal rodea estos nidos tumorales, diferenciándolos netamente del tejido conjuntivo circundante (7). En conjunto, como ha sido descrito en textos clásicos, el tumor adopta un patrón ameloblastoide (10). Nuestro caso presentó características histológicas similares a las descritas en la literatura, con células basalioides dispuestas a modo de empalizada periférica, y células de núcleos pálidos en el centro de los nidos. Las estructuras tipo membrana basal que rodeaban los nidos celulares mostraron una intensa eosinofilia, que delimitaba claramente los grupos celulares de tinción basófila.

Los ACB de tipo sólido presentan células pequeñas que se organizan de modo compacto. En los subtipos trabecular y tubular, existe un importante grupo de células distribuidas en bandas estrechas o estructuras ductales, respectivamente, combinándose en ocasiones. El subtipo membranoso consta de células periféricas en empalizada y una membrana basal muy hialinizada. Algunos autores han referido la existencia de una asociación de esta variante con el cilindroma cutáneo, tricoepitelioma o espiradenoma ecrino del cuero cabelludo (10,11). Esta asociación se ha observado en un tercio de los casos. De igual manera, se ha contemplado esta variedad de ACB, con la asociación de tumor glandular y tumor cutáneo, como una enfermedad autosómica dominante, debido a la presencia de individuos afectados dentro de la misma familia (11-13).

El diagnóstico diferencial ha de establecerse de modo fundamental con algunas entidades de pronóstico desfavorable, como son el adenocarcinoma de células basales, el carcinoma adenoide quístico y el carcinoma de células escamosas basalioides. En el adenocarcinoma de células basales, a diferencia del ACB, se observa un crecimiento infiltrativo, un mayor número de figuras mitóticas (>4 mitosis/10 campos de gran aumento) y una tinción con Ki67 del 5% celular (14). En el carcinoma adenoide quístico son frecuentes los remolinos de células epiteliales, células oscuras periféricas distribuidas en empalizada y una estructura tipo membrana basal gruesa, junto con invasión parenquimatosa y perineural. Además, carece de vascularización a nivel de las áeras microquísticas, a diferencia del ACB, que presenta múltiples canales endoteliales. Algunos autores han propuesto la morfometría como método útil en el diagnóstico diferencial de ambas entidades (15). El carcinoma de células escamosas basalioides se caracteriza por presentar grupos celulares sólidos de distribución lobular, muy próximos a la mucosa superficial, en los que las células son pequeñas y

con escaso citoplasma, de núcleos hiper cromáticos sin nucleolo, y formando pequeños espacios quísticos rellenos de material mucinoso. En esta última entidad, no se observan las dos poblaciones de células basales características del ACB, existe una continuidad de las células tumorales con el epitelio de superficie y se observa displasia escamosa de este último, que no encontramos en el ACB (16-18). Resulta interesante el hecho de que el ACB posee unas características macroscópicas que pueden ayudar notablemente al diagnóstico diferencial. Los nidos celulares quedan netamente diferenciados del estroma interepitelial por una membrana basal intacta. Esta delimitación no se observa en el adenoma pleomorfo ni en el carcinoma adenoide quístico.

Además de con el adenoma pleomorfo, es importante tener en cuenta otras lesiones benignas en el diagnóstico diferencial, como son el mucocele, quiste sebáceo, lipoma y quiste nasolabial. La apariencia clínica del ACB puede simular un mucocele de localización en mucosa oral. Generalmente, estos tienen predilección por la mucosa del labio inferior en pacientes jóvenes, mientras que el ACB es más habitual en el labio superior de pacientes mayores (18).

En el diagnóstico histológico, es de gran ayuda el análisis inmunohistoquímico. En este sentido, la mayoría de los estudios abogan por la existencia de un único tipo celular epitelial en el ACB, aunque algunos autores (19) han referido la heterogeneidad de las poblaciones celulares presentes, como células epiteliales ductales y células mioepiteliales. Estos datos contravienen lo defendido por otros autores, según los cuales, la ausencia de células mioepiteliales, a diferencia de tumores como el adenoma pleomorfo, ha sido considerada como característica de esta neoplasia (8). De otro lado, se ha referido la tinción intensa de determinadas células del ACB con vimentina y HFF-35, marcadores importantes de células mioepiteliales tumorales. En el subtipo sólido de ACB, la mayoría de las células muestran positividad para KL-1 y negatividad para vimentina y HFF-35, indicando una escasa participación de células mioepiteliales. No ocurre así en los subtipos trabecular y ductal, en los que, para algunos autores (8), la presencia de células marcadas intensamente con S-100 sugiere una naturaleza mioepitelial. Sin embargo, y en relación a este hecho, mientras que para algunos autores (20) la proteína S-100 es un marcador específico de células mioepiteliales, para otros (19) esta se encuentra en las células neoplásicas del ACB, con independencia de su estirpe.

El tratamiento de elección del ACB es la excisión quirúrgica mediante parotidectomía suprafacial o total en los casos de afectación parotídea, y excisión extracapsular en los casos de afectación de glándulas salivares menores en la mucosa oral. En la variedad membranosa del ACB se ha propuesto la parotidectomía total en lugar de la parotidectomía suprafacial, debido a la mayor propensión a la multicentricidad, recurrencias múltiples y ocasional transformación maligna (16). Es fundamental no incidir la cápsula, para disminuir el riesgo de recurrencia que, en general, se observa raramente. La malignización del tumor ha sido referida únicamente en dos ocasiones (3,21). A pesar de este comportamiento

benigno, creemos necesario el seguimiento a largo plazo para detectar recurrencias de modo precoz.

REFERENCES

- Seifert G, Sobin LH. The World Health Organization's Histological Classification of Salivary Gland Tumors. *Cancer* 1992;70:379-85.
- Mintz GA, Abrams AM, Melrose RJ. Monomorphic adenomas of the major and minor salivary glands. Report of twenty-one cases and review of the literature. *Oral Surg* 1982;53:375-86.
- Bernacki EG, Batsakis JG, Johns ME. Basal cell adenoma. Distinctive tumor of salivary glands. *Arch Otolaryngol* 1974;99:84-8.
- Luna MA, Tortoledo ME, Allen M. Salivary terminal analogue tumors arising in lymph nodes. *Cancer* 1987;59:212-24.
- Chaudhry AP, Cutler LS, Satchidanand S, Labay G, Sunderraj M. Ultrastructure of monomorphic adenoma (ductal type) of the minor salivary glands. *Arch Otolaryngol* 1983;109:118-22.
- Fantasia JE, Neville BW. Basal cell adenomas of the minor salivary glands. A clinicopathologic study of seventeen new cases and review of the literature. *Oral Surg* 1980;50:433-40.
- Nagao K, Matsuzaki O, Saiga H, Sugano I, Shigematsu H, Kaneko T, et al. Histopathologic studies of basal cell adenoma of the parotid gland. *Cancer* 1982;50:736-45.
- Dardick I, Daley TD, Van Nostrand AWP. Basal cell adenoma with myoepithelial cell-derived stroma: a new major salivary gland tumor entity. *Head Neck Surg* 1986;8:256-67.
- Batsakis JG, Brannon RB. Dermal analogue tumors of major salivary glands. *J Laryngol Otol* 1981;95:155-64.
- Min BH, Miller AS, Leifer C, Putong PB. Basal cell adenoma of the parotid gland. *Arch Otolaryngol* 1974;99:88-93.
- Reingold IM, Keasbey LE, Graham JH. Multicentric dermal-type cylindromas of the parotid glands in a patient with floid turban tumor. *Cancer* 1977;40:1702-10.
- Ferrandiz C, Campo E, Baumann E. Terminal cylindromas (turban tumor) and eccrine spiradenomas in a patient with membranous basal cell adenoma of the parotid gland. *J Cutan Pathol* 1985;12:72-9.
- Batsakis JG. Pathology consultation. Dermal eccrine cylindroma. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1989;98:991-2.
- Nagao T, Sugano I, Ishida Y, Hasegawa M, Matsuzaki O, Konno A, et al. Basal cell adenocarcinoma of the salivary glands: comparison with basal cell adenoma through assessment of cell proliferation, apoptosis, and expression of p53 and bcl-2. *Cancer* 1998;82:439-47.
- de Vicente Rodríguez JC, López Arranz JS, Junquera Gutierrez LM, Álvarez Álvarez I, García-Pola Vallejo MJ. Adenoid cystic carcinoma and basal cell adenoma of the parotid gland: a compromised differential diagnosis. *Rev Eur Odontostomatol* 1991;3:333-6.
- Yu GY, Ubmüller J, Donath K. Membranous basal cell adenoma of the salivary gland: a clinicopathologic study of 12 cases. *Acta Otolaryngol (Stockh)* 1998;118:588-93.
- Banks ER, Frierson HF, Mills SE, George E, Zarbo RJ, Swanson PE. Basaloid squamous cell carcinoma of the head and neck. *Am J Surg Pathol* 1992;16:939-46.
- Zabaleta M, Mollá FJ, Salazar F, Erdozain E, Sánchez L. Monomorphic adenoma of basal cells in a minor salivary gland. *Acta Otorrinolaringol Esp* 1997;48:169-72.
- Ogawa I, Nijai H, Takata T, Miyauchi M, Ito H, Ijuhin N. The cellular composition of basal cell adenoma of the parotid gland: an immunohistochemical analysis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1990;70:619-26.
- Kahn HJ, Baumal R, Marks A, Dardick I, van Nostrand AWP. Myoepithelial cells in salivary gland tumors: an immunohistochemical study. *Arch Pathol Lab Med* 1985;109:190-5.
- Evans RW, Cruickshank AH. Epithelial tumors of the salivary glands. *Major Probl Pathol* 1970;1:1-299.