

Hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales en el paladar: un reporte de caso

Adenomatoid hyperplasia of salivary glands in palate: a case report

Hiperplasia adenomatoide de glândulas salivares em palato: relato de caso

Asterlis Buitrago-Osuna¹
Mónica Montilla-Jurado²
Claudia Patricia Peña-Vega³

Recibido: 15 de noviembre de 2020

Aprobado: 16 de julio de 2021

Publicado: 6 de septiembre de 2021

Cómo citar este artículo:

Buitrago-Osuna A, Montilla-Jurado M, Peña-Vega CP. Hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales en el paladar: un reporte de caso. Revista Nacional de Odontología. (2021); 17(1), 1-11.

doi: <https://doi.org/10.16925/2357-4607.2021.01.10>

Reporte de caso. <https://doi.org/10.16925/2357-4607.2021.01.10>

¹ Universidad Nacional de Colombia.

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-2306-4579>

Correo electrónico: asterhom@hotmail.com

² Universidad Nacional de Colombia.

ORCID: <https://orcid.org/>

³ Universidad Nacional de Colombia.

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-4532-3642>

Resumen

La hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales es una lesión benigna rara, la cual puede simular una neoplasia. Consiste en una hiperplasia e hipertrofia de acinos glandulares de las glándulas salivales menores, considerándose un hamartoma, que puede presentarse en diferentes localizaciones de la cavidad oral. No se ha asociado con ninguna condición sistémica o local particular. Este artículo presenta un caso de hiperplasia adenomatoide manejado en el Posgrado de Periodoncia de la Universidad Antonio Nariño, Bogotá, Colombia. Paciente de sexo masculino con 33 años, quien presenta una pápula de color rosado pálido en la bóveda palatina, asintomática con diagnóstico presuntivo de papiloma escamoso. Se realizó escisión quirúrgica, el resultado del estudio histopatológico fue hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales. En resumen, hasta la fecha se han publicado aproximadamente 85 casos a nivel mundial en la literatura científica. Sin embargo, es poco clara la etiología y la fisiopatología de esta lesión.

Palabras clave: hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales, glándulas salivales menores, patología de glándulas salivales.

Abstract

Adenomatoid salivary gland hyperplasia is a rare benign lesion, which can mimic a neoplasm. It is characterized by hyperplasia and hypertrophy of glandular acini of the minor salivary glands, being considered an hamartoma, which can be present in different locations of the oral cavity. It has not been associated with any particular local or systemic condition. This article presents a case of adenomatoid hyperplasia managed in the Postgraduate Programme in Periodontology at the Antonio Nariño University. Bogota Colombia. A 33-year-old male patient presented with a pale pink papule in the palatal vault, asymptomatic with a presumptive clinical diagnosis of squamous papilloma. Surgical excision was performed, the result of the histopathological study was adenomatoid hyperplasia of the salivary glands. In summary, to date approximately 85 cases have been published worldwide in the scientific literature, yet etiology and pathophysiology of this lesion remain unclear.

Key words: Adenomatoid hyperplasia of salivary glands, minor salivary glands salivary glands pathology.

Resumo

A hiperplasia adenomatoide das glândulas salivares é uma lesão benigna rara, que pode simular uma neoplasia. Consiste na hiperplasia e hipertrofia dos ácinos glandulares das glândulas salivares menores, considerado um hamartoma, que pode ocorrer em diferentes localizações da cavidade oral. Não foi associado a nenhuma condição sistêmica ou local específica. Este artigo apresenta um caso de hiperplasia adenomatoide tratada no curso de pós-graduação em Periodontia da Universidade Antonio Nariño, Bogotá, Colômbia. Paciente do sexo masculino, 33 anos, apresentou pápula rósea clara na abóbada palatina, assintomática com diagnóstico presuntivo de papiloma escamoso. Foi realizada excisão cirúrgica, o resultado do estudo histopatológico foi hiperplasia adenomatoide das glândulas salivares. Em resumo, aproximadamente 85 casos foram publicados em todo o mundo na literatura científica até o momento. No entanto, a etiologia e a fisiopatologia desta lesão não são claras.

Palavras-chave: hiperplasia adenomatoide das glândulas salivares, glândulas salivares menores, patologia das glândulas salivares.

1. Introducción

La hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales es una lesión benigna, que se presenta con hiperplasia de acinos e hipertrofia focal glandular con potencial de crecimiento limitado (1), generalmente no recurre posterior a su excisión (2). La causa de esta patología es desconocida y no se ha encontrado asociación con condiciones sistémicas determinadas. Se ha postulado que el trauma local, irritación crónica, uso de prótesis removible, efectos medicamentosos o el hábito de fumar podrían estar relacionados (3).

Hendrickv y Tyldesley describieron por primera vez esta condición en 1964 y 1967 respectivamente, pero hasta 1971 Giansanti, et al. (4) reportaron dos casos de inflamación palatina donde histológicamente no se reportó ninguna anormalidad más que una hiperplasia de las glándulas salivales mucosas menores locales palatinas. Arafat, et al. (5) describieron 10 casos en 1981, posteriormente 40 casos fueron reportados por Buchner, et al. (6) en 1991. La condición ha sido considerada como idiopática y no asociada con factores que causan sialadenosis o proliferación y agrandamiento de los acinos glandulares.

Se ha sugerido que aparece con mayor frecuencia en el sexo masculino, pero sin ninguna relación con la edad del paciente, cursa generalmente asintomática (2). Clínicamente la mucosa oral puede aparecer normal, eritematosa, violácea, vesicular o ulcerada y existe un reporte de queratosis estriada en la mucosa palatina similar a liquen plano (2). La mayor parte de los casos se han ubicado en la mucosa palatina, pero se han reportado otras ubicaciones como mucosa vestibular, mucosa labial y zona retromolar (7-9). Los hallazgos microscópicos de la hiperplasia adenomatoide se describen en la tabla 1.

Tabla 1. Hallazgos histológicos de la hiperplasia adenomatoide de glándulas salivares.

| Tejido/ Estructura | Hallazgos | *Frecuencia |
|---------------------------|---------------------------------------|-------------|
| Epitelio de revestimiento | Acantosis | ++ |
| | Hiperqueratosis | + |
| | Prolongación de clavos epiteliales | +++ |
| | Melanosis | + |
| Acinos glandulares | Proliferación de acinos (Hiperplasia) | +++ |
| | Hipertrofia | +++ |

(continúa)

(viene)

| Tejido/ Estructura | Hallazgos | *Frecuencia |
|--------------------|-------------------------|-------------|
| Ductos | Normales | ++ |
| | Dilatados | ++ |
| | Metaplasia escamosa | + |
| Tejido glandular | Normal | +++ |
| | Atrófico | ++ |
| | Fibrosis focal | ++ |
| | Fibrosis prominente | ++ |
| | Vasos sanguíneos | + |
| | Infiltrado inflamatorio | ++ |
| | Derrame mucoso | |

*+++ Siempre, ++ Con frecuencia, + Algunas veces

Fuente: elaboración propia.

2. Reporte de caso

Descripción clínica: Paciente de sexo masculino con 33 años de edad manejado en el Posgrado de Periodoncia de la Universidad Antonio Nariño Sede Bogotá en septiembre de 2019, sin antecedentes familiares ni personales. El paciente refirió no ser fumador, no utilizar dispositivos removibles, ni historia de trauma previo. Al realizar el examen físico se observó en la bóveda palatina derecha, zona posterior una lesión papular de color rosado pálido, circunscrita de aproximadamente 6mm de diámetro, consistencia firme, base sécil y asintomática. El diagnóstico clínico presuntivo fue papiloma escamoso.

Procedimiento quirúrgico: Se realizó biopsia excisional de la lesión previa asepsia y antisepsia, bajo anestesia local infiltrativa con lidocaína al 2 % y epinefrina 1:80.000, excisión quirúrgica, posterior hemostasia. El tejido se fijó en formol al 10 %, y se envió al Servicio de Patología Oral y Maxilofacial de la Facultad de Odontología de la Universidad Nacional de Colombia para estudio histopatológico.

Hallazgos patológicos

Macroscópicamente: se recibe un fragmento irregular de tejido el que mide 0.7cmX 0.5cmX 0.2cm color pardo, consistencia elástica se procesa todo el tejido en un bloque.

Microscópicamente: se realizaron múltiples cortes seriados con coloración de hematoxilina eosina, donde se observó una lesión representada por un aumento

en la cantidad de tejido glandular salival con predominio de acinos mucosos algunos hipertróficos, estructuras ductales y patrón lobular, separadas por septos fibrosos, con revestimiento aislado pequeño de epitelio escamoso estratificado acantósico con prolongación de clavos epiteliales.

Diagnóstico: hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales mucosas.

Tratamiento: el tratamiento de la lesión fue la escisión quirúrgica, seguimiento y evolución satisfactoria del paciente.



Figura 1. A y B. Localización y aspecto clínico de la lesión. Lesión papular de 0.6mm de diámetro, color rosado pálido, ubicada en la zona posterior de la bóveda palatina lado derecho

Fuente: elaboración propia.

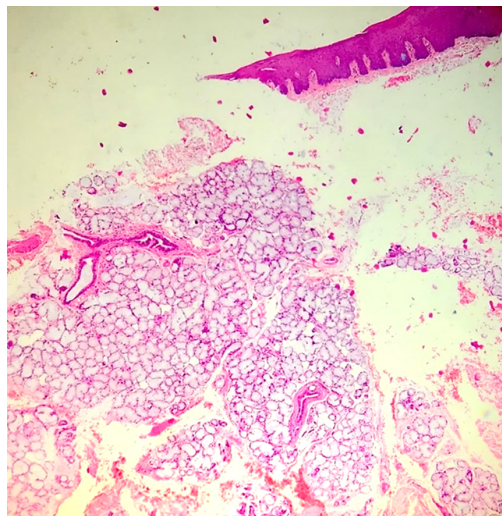


Figura 2. Vista Panorámica: Aumento 10X. Se observa fragmento de epitelio de revestimiento, escamoso estratificado acantósico con prolongación de clavos epiteliales. Estroma subepitelial fibrolaxo con proliferación de acinos mucosos y ductos de patrón lobular. (Coloración hematoxilina & eosina)

Fuente: elaboración propia.

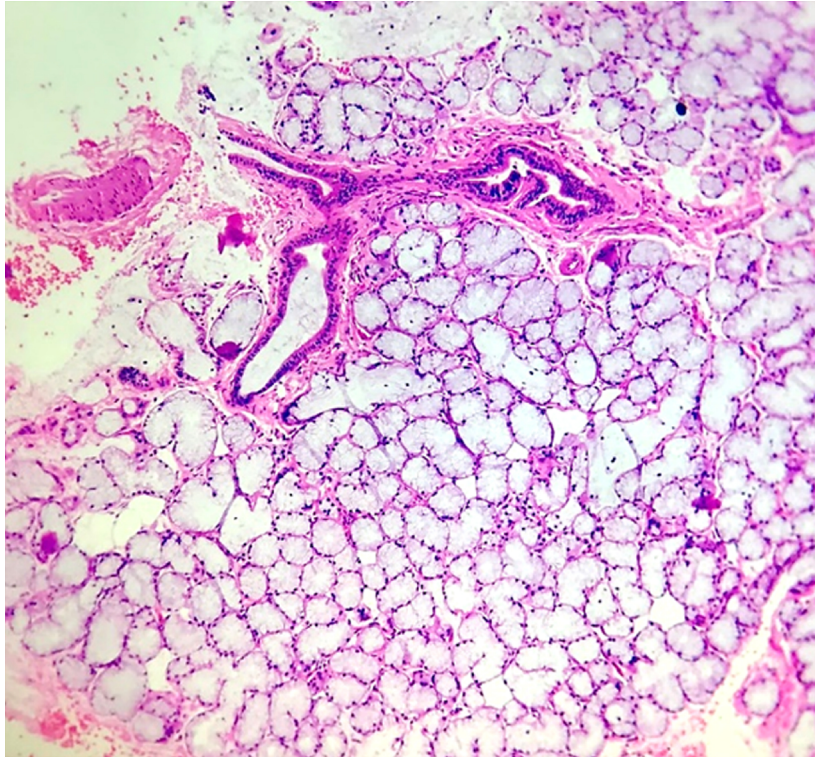


Figura 3. Aumento 40X: Proliferación de tejido glandular salival acinos mucosos, algunos hipertróficos de patrón lobular con estructuras ductales dilatadas. (Coloración hematoxilina & eosina)

Fuente: elaboración propia.

3. Discusión

La hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales es una lesión hiperplásica benigna, considerada como un hamartoma, de baja frecuencia en la cavidad oral. Se reportó por primera vez en 1971 (4) y hasta 2014 se habían reportado 82 casos en la literatura científica (8). A la fecha existen tres reportes adicionales de casos con diagnóstico confirmado. La tabla 2 muestra la lista de los reportes mencionados (3,10,11).

Tabla 2. Lista de reportes de casos de hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales publicados entre 2014 a la fecha en idioma inglés.

| Autor/año | # casos | Sexo | Edad | Síntomas | Antecedentes sistémicos | Localización | Diagnóstico presuntivo |
|---------------------|---------|------|----------|----------|-------------------------|--|-------------------------------|
| Dereci et al 2014 | 1 | M | 48 | No | No | Mucosa bucal izquierda | Neoplasia de glándula salivar |
| Gunhan et al 2017 | 11 | ND | ND | ND | | 1 retromolar 1 reborde 1 zona bucal 2 parótida 3 amígdalas 3 no especificados | |
| Srikanth et al 2019 | 2 | M | 64 70 | No | No | Paladar duro | Fibroma |

ND: no disponible.

Fuente: elaboración propia.

En 1991 la Organización mundial de la salud (WHO) clasificó las lesiones tumor-like de glándulas salivales incluyendo: sialodentitis, oncocitosis, sialometaplasia necrotizante, lesiones linfo-epiteliales benignas, quistes de los ductos salivares, sialodentitis esclerosante crónica de la glándula submandíbular e hiperplasia linfoide quística de la glándula submandíbular en pacientes VIH. Esta clasificación no incluyó la hiperplasia de las glándulas salivares mayores ni menores las cuales pueden simular un proceso neoplásico (12). Posteriormente, en 2019 Aframian, et al. (13) clasificaron las lesiones de glándulas salivales menores de acuerdo a sus características histológicas e inmunohistoquímicas incluyendo en su clasificación la hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales como una entidad de etiología indefinida (tabla 3).

Tabla 3. Patología de glándulas salivales menores Aframian, et al. (13).

| | | | | | |
|----------------------------------|------------------------------------|-------------------------------------|---|---|-----------------------|
| Patologías del desarrollo | Lesiones reactivas | Metabólicas | Condiciones inflamatorias e inmunológicas | Iatrogénicas | Etiología desconocida |
| Hemocromatosis neonatal | Mucoceles | Metabolismo alterado de los lípidos | Sialoadenitis alérgica | Reacción a cuerpo extraño del ácido hialurónico | Sarcoidosis |
| Síndrome de Van der Woude | Sialometaplasia necrotizante aguda | | Granulomatosis orofacial | | Queilitis Glandular |

(continúa)

(viene)

| | | |
|---|--------------------------------------|--|
| Polineuropatía amiloidótica familiar | Síndrome de Sjögren | Hiperplasia adenomatoide las glándulas salivales menores |
| | Enfermedad de injerto contra huésped | |
| | Enfermedad relacionada con IgG4 | |
| | Esclerodermia sistémica | |

Fuente: elaboración propia.

Dentro de sus características, se ha descrito que no tiene preferencia étnica, es más frecuente en hombres, el rango de edad varía entre los 26 -67 años con un promedio de 50.2 años (2), y en el 80 % de los casos se presenta en el paladar (blando y duro) (6), no obstante, puede localizarse también en labios (14), zona retromolar (9,15) y amígdalas (3). Los datos reportados son similares a los encontrados en el presente caso, donde el paciente fue de sexo masculino, con 33 años de edad y la lesión se localizó en la bóveda palatina. Las lesiones se han descrito como asintomáticas. Sin embargo, diversos autores (2,9,16) han mencionado la presencia de sintomatología dolorosa.

Hasta el momento no se ha determinado un agente causal de la aparición de la lesión, pero se han descrito que ciertas condiciones sistémicas como neuropatías, nefropatías, y endocrinopatías como la diabetes mellitus, alcoholismo, menopausia y síndrome de Sjögren podrían participar en su etiología. Además, el consumo de ciertos medicamentos se encuentra asociados a hiperplasia en las glándulas salivares mayores, tales como el brelilio, la nifedipina, el isoproterenol y antihipertensivos como la clonidina (12). Sin embargo, no se ha observado un impacto de estas condiciones en las glándulas salivares menores, por lo cual no se consideran como agente causal (4,5). Barret, et al. (2) describen que el trauma crónico podría ser un factor de riesgo, dado que en su estudio de 20 pacientes reportados; 10 utilizaban prótesis y 4 de estos adicionalmente eran fumadores. Buchner, et al. (6) encontraron que tan solo 3 de 40 pacientes presentaron una lesión asociada al uso de prótesis total. En el presente caso el paciente no utilizaba prótesis total ni era fumador.

Histopatológicamente la hiperplasia adenomatoide se ha descrito como una lesión compuesta por proliferación de abundantes acinos glandulares predominantemente mucosos y en menor proporción mixtos o serosos, algunos hipertróficos con

ductos glandulares con moderada dilatación y en ocasiones cambios metaplásicos, de patrón lobular revestidos por epitelio escamoso estratificado acantósico con prolongación de clavos epiteliales, en algunos casos hiperqueratosis y en pacientes fumadores melanosis. El tejido conectivo subyacente se compone de fibras colágenas, fibroblastos y vasos sanguíneos, eventualmente se observa infiltrado inflamatorio crónico mononuclear. Los lóbulos glandulares pueden aparecer atróficos delimitados por abundante fibrosis (2,10). Las coloraciones de histoquímica con Mucicarmin y PAS (Ácido peryodico de schiff) son positivas (12).

Los marcadores de inmunohistoquímica destacan las diferencias de tamaño de los acinos con positividad para CK7, las células mioepiteliales que rodean los acinos de todos los tamaños marcan para alfa actina de músculo liso (13). El tratamiento de elección para la hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales es la excisión quirúrgica y no tiene tendencia a recurrir (5). Manor, et al. (1), realizaron estudio citogenético en una lesión con diagnóstico de hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales, encontraron una traslocación $t(2;14)(q21;q22)$ que no había sido reportada previamente y que es relevante dado que la traslocación $t(2;14)$ ha sido asociada a tumores malignos, pero con puntos de quiebre diferentes al hallado en la lesión. Esta información es un punto de partida en su análisis genético, sin embargo, debe ser tomada con cautela dado que es el único reporte.

En el presente caso, el diagnóstico clínico presuntivo fue papiloma escamoso, no obstante, se descartó por sus características histológicas. El papiloma escamoso es reconocido por ser una lesión papilomatosa, con severa acantosis e hiperparaqueratosis, eventualmente con presencia de coilocitos y estroma subepitelial fibrovascularizado, descripción no compatible con las características de la muestra analizada (18). Por sus características clínicas la sialoadenitis ha sido descrita como un diagnóstico diferencial frecuente (2,5,6). Esta patología comprende un desorden inflamatorio causado por obstrucción de los conductos de las glándulas salivales por sialolitos o en algunos casos por agentes infecciosos como bacterias (*Staphylococcus aureus*) o virus como paramixovirus, citomegalovirus, coxackie virus, parainfluenza tipo I, II e influenza A. Cursa con dolor, inflamación y enrojecimiento, puede tener drenaje de pus y principalmente se presenta en la glándula parótida y submandibular. Su tratamiento, cuando es obstructiva es quirúrgico, si es de origen bacteriano, requiere antibióticos, mientras las infecciones virales son autolimitantes (17).

4. Conclusiones

La patología de glándulas salivales es considerada un área de alta complejidad debido a la variedad de entidades tanto inflamatorias como tumorales las cuales pueden representar un reto para su diagnóstico. La hiperplasia adenomatoide de glándulas salivales es una lesión de glándulas salivales menores considerada dentro del grupo enfermedades que simulan una entidad tumoral (Tumor-like), es importante el conocimiento a fondo de esta condición para diferenciarlo de lesiones tumorales e inflamatorias. su diagnóstico debe ser realizado por patólogos expertos en patología oral y maxilofacial y si se considera necesario apoyarse en otras herramientas diagnósticas tales como la histoquímica, la inmunohistoquímica y la patología molecular. Hasta el momento la literatura mundial ha publicado escasos reportes de casos, en Colombia este artículo representa el primer caso reportado, el cual condensa la información publicada desde 1971 a la fecha. Sin embargo, se hace necesario ampliar el espectro del estudio, de tal forma que canalice aspectos etiológicos, fisiopatológicos y genéticos.

Referencias

1. Manor E, Sinelnikov I, Brennan P, Bodner L. Chromosomal aberrations in adenomatoid hyperplasia of palatal minor salivary gland. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2013; 51:170-172.
2. Barret A, Speight P. Adenomatoid hyperplasia of oral minor salivary glands. *Oral surg Oral med Oral pathol Oral radiol Endod*. 1995; 79:482-7.
3. Srivathsa S. Adenomatoid hyperplasia of the palatal minor salivary glands. A forgotten diagnosis? *Int J Med Dent Case Rep*. 2017; 4:1-3.
4. Giansanti JS, Baker GO, Waldron CA. Intraoral mucinous minor salivary gland lesions presenting clinically as tumors. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1971; 32(6):918-22.
5. Arafat A, Brannon RB, Ellis GL. Adenomatoid hyperplasia of mucous salivary glands. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1981; 52(1):51-5.
6. Buchner A, Merrell PW, Carpenter WM, Leider AS. Adenomatoid hyperplasia of minor salivary glands. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1991; 71(5):583-7.

7. Altamirano E, Drut R. Hiperplasia adenomatosa de glándula salival menor con infiltración adiposa del estroma. *Patología*. 2011; 49(Supl.1): S54-S56.
8. Patussi C, Benez R, Zanferri F, Zanicotti R, Moacir L, Schussel J. Adenomatoid hyperplasia of minor salivary glands: a report of two cases. *Stomatos*. 2014; 20:38.
9. Chen Y.K, Lin C.C, Lin L.M, Yan Y.H. Adenomatoid hyperplasia in the mandibular retromolar area. Case report. *Australian Dental Journal*. 1999; 44(2): 135-136.
10. Dereci Ö, Cimen E. Adenomatoid hyperplasia the minor salivary glands on the buccal mucosa: a rare case report. *Int J Surg Case Rep*. 2014; 5:274–276.
11. Gunhan Ö, Kilink M, Kahraman D, Aksoy S, Cichel A and Celasun B. Parenchymal changes of salivary glands adjacent to a variety of salivary gland disorders. *Int J Clin Exp Pathol*. 2019; 12(4):1124-1133.
12. Tagawa S, Inui M, Mori A, Seki Y, Murata T, Tagawa T. Adenomatoid serous hyperplasia of sublingual gland: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 1996; 82(4):437-440. doi:10.1016/s1079-2104(96)80311-8
13. Aframian DJ, Keshet N, Nadler C, Zadik Y, Vered M. Minor salivary glands: Clinical, histological and immunohistochemical features of common and less common pathologies. *Acta Histochem*. 2019; 121(8):151451. doi: <https://doi.org/10.1016/j.acthis.2019.151451>
14. Sharma G, Sharma M and Vanaki S. Adenomatoid hyperplasia of lower lip. *Dent Res J (Isfahan)*. 2011; 8(4):226–228. doi: <https://doi.org/10.4103/1735-3327.86047>.
15. Brannon R, Houston G and Meader C. Adenomatoid hyperplasia of mucous salivary glands: a case involving the retromolar area. *Oral Surg*. 1985; 60:2.
16. Brown F, Houston G, Lubow R and Sagan M. Adenomatoid hyperplasia of mucous salivary glands. Report of two cases. *J Periodontol*. 1987; 58:2.
17. Ogle O. Salivary gland disease. *Dent Clin N Am*. 2020; 64:87-104. doi: <https://doi.org/10.1016/j.cdent.2019.08.007>.
18. Frigerio M, Martinelli-Klay C, Lombardy T. Clinical, histopathological and immunohistochemical study of oral squamous papillomas. *Acta Odontologica Scandinavica*. 2015; Early Online:1–8. doi: <https://doi.org/10.3109/00016357.2014.996186>