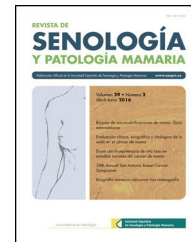




Revista de Senología y Patología Mamaria

www.elsevier.es/senologia



CASO CLÍNICO

Adenoma pleomorfo de la mama. A propósito de un caso



Ramón Gómez Contreras*, Alberto Ríos Agudo, Cintia Cifre Martínez, José Medrano González, Andrés García Vilanova Coma y Carlos Alberto Fuster Diana

Servicio Cirugía General y Aparato Digestivo, Unidad funcional de patología mamaria – Hospital General Universitario de Valencia, Valencia

Recibido el 23 de febrero de 2019; aceptado el 12 de marzo de 2020
Disponible en Internet el 18 de mayo de 2020

PALABRAS CLAVE

Neoplasia mamaria;
Adenoma;
Cirugía;
Glándula salivar

Resumen

Objetivo: El adenoma pleomorfo es un tumor con una gran heterogeneidad arquitectural y citológica, de ahí su denominación como tumor mixto. Compuesto característicamente por células epiteliales y mioepiteliales con estroma mesenquimal, presenta un comportamiento benigno, siendo su localización habitual las glándulas salivares. La mama es una localización muy infrecuente para este tipo de tumores.

Caso clínico: Presentamos el caso clínico de una paciente de 76 años sin antecedentes de patología mamaria, valorada en consultas externas de cirugía por una secreción unilateral de aspecto serosanguinolento desde la mama derecha, asociada a un nódulo de unos 2 cm de diámetro mayor. Tras completar su estudio, se decide exéresis de la tumoración, obteniendo como resultado en la anatomía patológica una tumoración heterogénea con predominio de células mioepiteliales; descripción compatible con un adenoma pleomorfo.

Discusión: El adenoma pleomorfo de la mama, es una tumoración epitelial benigna que tiene un patrón histológico similar al del tumor de las glándulas salivares. Los rasgos histológicos más importantes es la metaplasia ósea y mixocondroide, junto con presencia de calcificaciones, tejido epitelial (con o sin diferenciación glandular), y tejido mioepitelial; siendo esta gran variedad estructural lo que le caracteriza. Hay que realizar un diagnóstico diferencial con patología maligna a la cual asemeja. Se presenta de forma poco frecuente a nivel mamario y suele ser una lesión bien delimitada y solitaria, elástica y no adherida. Pese a su comportamiento benigno (no ha presentado en ninguno de los casos documentados metástasis a distancia) el tratamiento es quirúrgico, asegurando buenos márgenes de resección para evitar recidivas.

© 2020 SESPM. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: ragocon89@gmail.com (R. Gómez Contreras).

KEYWORDS

Breast neoplasm;
Adenoma;
Surgery;
Salivary gland

Pleomorphic adenoma of the breast. Apropos of a case**Abstract**

Objective: Pleomorphic adenoma shows wide architectural and cytological heterogeneity and is consequently classified as a mixed tumour. These benign adenomas are characteristically composed of epithelial and myoepithelial cells with mesenchymal stroma and are usually located in the salivary glands. Localisation in the breast is extremely infrequent for this type of tumour.

Case report: We report the case of a 76-year-old female patient with no prior history of breast disease who was assessed in the surgery outpatient clinic for unilateral serosanguinous secretion from the right breast associated with a nodule of approximately 2 cm in diameter. After workup, it was decided to extirpate the tumour. Histological findings indicated a heterogeneous tumour with a predominance of myoepithelial cells, compatible with pleomorphic adenoma.

Discussion: Pleomorphic adenoma of the breast is a benign epithelial tumour whose histological pattern is similar to that of pleomorphic adenoma of the salivary glands. The most important histological features are osseous and myxochondroid metaplasia, together with the presence of calcifications, epithelial tissue (with or without glandular differentiation) and myoepithelial tissue. This wide structural variety is what characterises these tumours. The differential diagnosis should be performed with malignant disease, which these adenomas frequently mimic. Pleomorphic adenomas are very infrequent in the breast and are usually well-demarcated, solitary, elastic and non-adherent tumours. Despite their benign behaviour (there have been no reported cases of distant metastases), treatment is surgical, with good resection margins to avoid recurrences.

© 2020 SESPM. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

El adenoma pleomorfo es un tumor con una gran heterogeneidad arquitectural y citológica, de ahí su denominación como tumor mixto. Compuesto característicamente por células epiteliales y mioepiteliales con estroma mesenquimal; presenta un comportamiento típicamente benigno^{1,2}, siendo su localización habitual las glándulas salivares, donde son el tumor que con más frecuencia las afecta (hasta un 80% de los tumores que afectan la glándula parótida).

La mama es una localización rara para este tipo de tumoración, que desde el primer caso descrito por Lecene en 1906, en la bibliografía solo se han documentado alrededor de 70 casos de adenomas pleomorfos. De forma excepcional presenta la afectación primaria de otras estructuras como senos paranasales, laringe, paladar, y septos nasales.

Este tipo de tumores presentan una inmunohistoquímica característica con una fuerte positividad para citoqueratinas (ck19/ck1) que revelan su importante componente epitelial, así como marcadores de células mioepiteliales como la actina. Además, presentan receptores estrogénicos en gran parte de los casos documentados² (fig. 1).

Pese a su carácter extraordinario, su aparición en la mama se explica por el origen embriológico común al resto de glándulas exocrinas corporales, que dependen de la capa ectodérmica del embrión³.

Caso clínico

Se presenta el caso de una paciente de 76 años con antecedentes personales de hipertensión arterial, diabetes

mellitus II, hipercolesterolemia e hipoplasia renal bilateral; sin antecedentes personales ni familiares de patología mamaria; que es remitida desde atención primaria a consultas externas por secreción mamaria derecha, serohemática, esporádica y autolimitada.

A la exploración inicial se objetivan mamas simétricas, con escaso componente glandular; presentando a nivel retroareolar de mama derecha, una tumoración de alrededor de 2 cm de diámetro, no adherida a planos, no dolorosa, que no retraía ni piel ni pezón, y que al presionarla se acompañaba de una secreción uniorificial y serosanguinolenta oscura desde pezón derecho.

El control mamográfico no evidenció hallazgos sugestivos de patología, con distribución no homogénea del tejido glandular, de predominio retroareolar. En la ecografía se observó a nivel retroareolar derecho, una lesión nodular isoecogénica, de unos 10 mm, de localización intracanalicular (BIRADS 3)(fig. 2).

El estudio citológico de la secreción mamaria aisló grupos de células glandulares sin atipia junto con macrófagos.

Con la sospecha clínica y por ecografía de papiloma intraductal, se intentó la realización de una galactografía, que no se pudo realizar por imposibilidad para canalizar el conducto lácteo.

Se propuso la exéresis de la tumoración, que se realizó de forma programada, por medio de una cuadrantectomía guiada por arpón a través de un acceso periareolar, no presentando complicaciones perioperatorias, pudiendo ser dada de alta la paciente de forma ambulatoria.

En los resultados definitivos de anatomía patológica se constató una lesión epitelial solitaria de comportamiento benigno, de 2 cm diámetro mayor. Microscópicamente con la

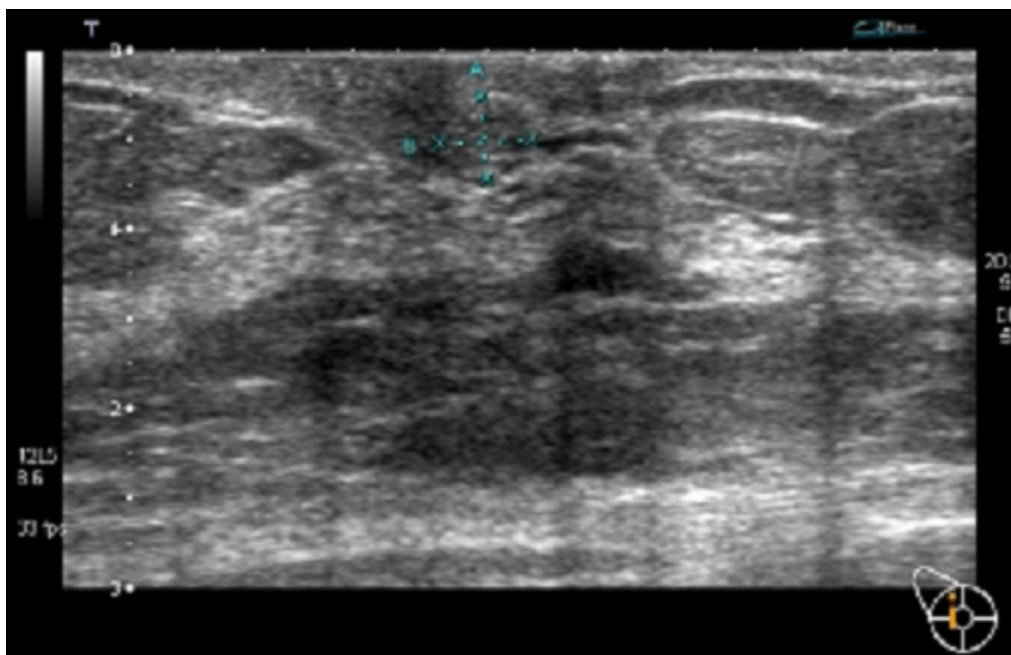


Figura 1 Diagnóstico histológico.

A: muestra con tinción de hematoxilina eosina en donde se aprecia matriz basófila, con lagunas semejantes a las ocupadas por los condrocitos, característica del tejido condral.

B-C: imágenes de la muestra en la que se determina por inmunohistoquímica marcadores mioepiteliales A (receptores AML) y epiteliales B (Ck1)

D: determinación inmunohistoquímica de receptores estrogénicos.

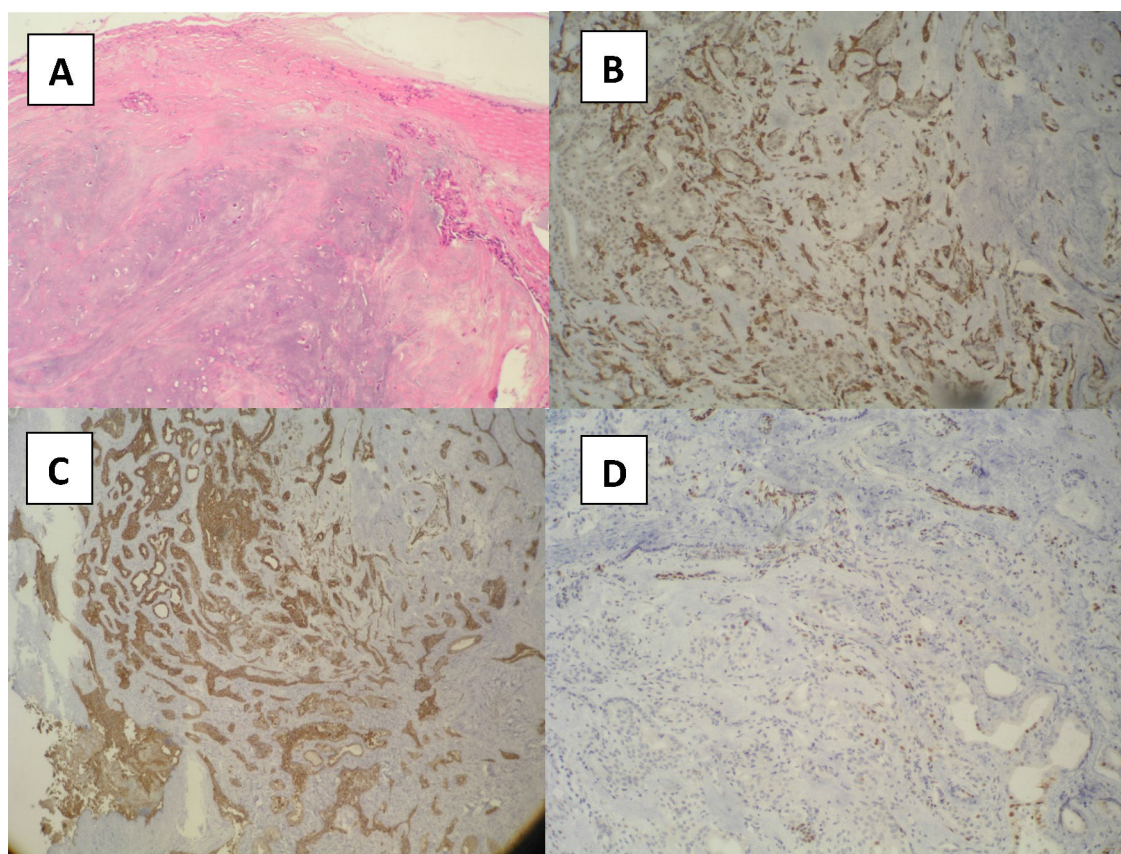


Figura 2 Imagen ecográfica. A nivel periareolar, se evidencia lesión redondeada, bien delimitada, intracanalicular, con diámetro de 1 cm.

tinción de hematoxilina-eosina, se objetivó estroma mixocondroide y oseó. El estudio inmunohistoquímico evidenció la expresión de citoqueratinas (AE1/AE3, CK5/6, CK7 y CK19) y marcadores de mioepitelio (actina de músculo liso). La tinción de receptores de estrógenos mostró positividad focal. Todos estos hallazgos nos permitieron realizar el diagnóstico de adenoma pleomorfo de la mama.

Actualmente está en seguimiento con control anual en ccee desde hace 3 años; presentando una buena evolución, no objetivando recidiva local y sin haber requerido de tratamiento postquirúrgico; con una exploración normal sin asociar telorrea desde la cirugía y una mamografía sin hallazgos patológicos (BIRADS 2).

Discusión

El adenoma pleomorfo es un tumor que afecta de forma excepcional a la glándula mamaria. Al igual que en el resto de localizaciones (donde se presenta más frecuentemente) presenta unos rasgos histológicos muy característicos como son la metaplasia ósea y condroide, junto con presencia de calcificaciones, tejido epitelial (con o sin diferenciación glandular), y tejido mioepitelial.

Su forma de presentación clínica característica es como una tumoración de consistencia elástica, bien definida, localizada preferentemente a nivel peri/retroareolar, lugar donde hay mayor densidad de células mioepiteliales.

Su histogénesis está en discusión, apareciendo según sugiere Rosen⁴, a partir de una transformación de células mioepiteliales, teoría que también apoya Díaz et al⁵, que presentan la serie mas larga recogida en la bibliografía con 10 casos, proponiendo un mioepitelioma como lesión inicial previa. Otros autores, por su parte, describen una fuerte asociación entre los casos descritos en la literatura con papilomas intraductales; apareciendo tras estudio postquirúrgico en pacientes previamente diagnosticadas^{1,6}, siendo ésta la sospecha inicial en nuestro caso.

El diagnóstico diferencial (dd) debe realizarse tanto con patología benigna por su comportamiento típicamente indolente y sintomatología (papiloma intraductal¹, fibroadenoma).; así como con patología maligna; además de por su presentación clínica⁷, por su composición histológica. Este dd debería hacerse principalmente con: carcinomas metaplásicos, caracterizados por una pobre diferenciación, presencia de atipias y componente infiltrativo; con el carcinoma mucinoso⁸, que presenta abundante tejido mixoide en el estroma, junto con las características comunes de malignidad (infiltración local, atipias, necrosis, ...); o con el adenoepitelioma maligno. Por su origen mioepitelial y su presencia característica en las glándulas salivares, el carcinoma adenoide quístico (CAQ), ha de tenerse especialmente en cuenta en el dd y representa un reto diagnóstico. Al igual que el adenoma pleomorfo su origen deriva de una proliferación de las células epiteliales y mioepiteliales, con una mayor tendencia a la formación de pseudoquistes y presencia de patrón cribiforme. El CAQ suele tener buen pronóstico en la mama, a diferencia de su comportamiento agresivo en las glándulas salivales^{9,10}.

A nivel de glándulas salivares, el adenoma pleomorfo es ampliamente conocido presentando un comportamiento característicamente benigno; sin embargo a nivel de la mama la escasa cantidad de casos documentados no permite establecer un patrón evolutivo característico y el riesgo de malignización que presenta está en debate, existiendo casos en los que se sugiere un posible desarrollo hacia carcinoma¹¹. La biopsia tanto con aguja fina (PAAF), como con aguja gruesa (BAG), se ha mostrado poco útil para el diagnóstico prequirúrgico¹².

Su tratamiento es quirúrgico, ya que el diagnóstico definitivo se consigue por medio de una biopsia; asegurando unos márgenes libres de tumoración⁶. No está indicada la cirugía radical, siendo las resecciones insuficientes y las localizaciones multicéntricas las causas de recidivas postquirúrgicas³

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Rakha EA, Badve S, Eusebi V, Reis-Filho JS, Fox SB, Dabbs DJ, et al. Breast lesions of uncertain malignant nature and limited metastatic potential: proposals to improve their recognition and clinical management. *Histopathology*. 2016;68:45–56.
2. Torres Gómez FJ, Torres Olivera FJ. Adenoma pleomórfico de la mama Presentación de un caso. *Rev Esp Patol*. 2007;40:247–9.
3. Foschini MP, Reis-Filho JS, Eusebi V, Lakhani SR. Salivary gland like tumours of the breast: Surgical and molecular pathology. *J Clin Pathol*. 2003;56:497–506.
4. Rosen PP. *Myoepithelial neoplasms*. 3rd ed. Philadelphia. PA: Lippincott Williams & Wilkins;; 2009. p. 150–9.
5. Diaz NM, McDivitt RW, Wick MR. Pleomorphic adenoma of the breast: Clinicopathologic and immunohistochemical study of 10 cases. *Hum Pathol*. 1991;22:1206–14.
6. Arne Soreide J, Anda O, Eriksen L, Holter J, Kjellevoid K. Pleomorphic adenoma of the human breast with local recurrence. *Cancer*. 1988;61:997–1001.
7. Van der Walt JD, Rohlova B. Pleomorphic adenoma of the human breast; A report of benign tumour closely mimicking a carcinoma clinically. *Clin Oncol*. 1982;8:361–5.
8. Djakovic A, Engel JB, Geisinger E, Honig A, Tschammler A, Dietl J. Pleomorphic adenoma of the breast initial misdiagnosed as metaplastic carcinoma in preoperative stereotactic biopsy: a case report and reiew of the literature. *Eur J Gynaecol Oncol*. 2011;32:427–30.
9. Thomas DN, Asarian A, Xiao P. Adenoid cystic carcinoma of the breast. *J Surg Case Rep*. 2019;2019, rjy355.
10. Canyilmaz E, Uslu GH, Memiş Y, Bahat Z, Yildiz K, Yoney A. Adenoid cystic carcinoma of the breast: A case report and literature review. *Oncol Lett*. 2014;7:1599–601, doi:10.3892/ol.2014.1945.
11. Hayes M, Lesack D, Girardet C, Del Vecchio M, Eusebi V. Carcinoma ex pleomorphic adenoma of the breast Report of three cases suggesting a relationship to metaplastic carcinoma of matrix producing type. *Virchows Arch*. 2005;446:142–9.
12. Tajima S, Koda K, Ishii Y, Hasegawa S, Yokoyama H. A case of matrix-producing metaplastic carcinoma of the breast exhibiting similarities to pleomorphic adenoma on fine-needle aspiration cytology. *Int J Clin Exp Pathol*. 2015;8:15333–7.