

Adenoma pleomórfico de glándula lagrimal

Pleomorphic adenoma of the lacrimal gland

Fernando Candanedo-González,¹ Leslie Camacho-Rebollar,¹ Candelaria Cordova-Uscanga,¹ Miguel Salazar-Morales,^{1,2} Isabel Alvarado-Cabrero,¹ Luis Mora Hernández.³

▷ RESUMEN

Introducción: El adenoma pleomórfico es la neoplasia más común de glándula salival mayor. Sin embargo, aunque menos frecuente puede afectar a la glándula lagrimal. La sospecha clínica preoperatoria es importante para su adecuado tratamiento.

Objetivo: Analizar las características clinicopatológicas de una serie de casos consecutivos de adenoma pleomórfico de glándula lagrimal.

Material y métodos: Se incluyeron pacientes con adenoma pleomórfico de glándula lagrimal, estudiados entre 1995-2004.

Resultados: Se identificaron ocho pacientes, cuatro hombres y cuatro mujeres, con edad promedio de 44 años. El signo clínico más frecuente fue proptosis e incremento en la presión intraocular. La presión promedio del lado afectado fue de 16 mmHg vs 13 mmHg del lado no afectado. El tamaño promedio de los tumores fue de 2.6 cm. Todos los tumores presentaron características histopatológicas benignas. Sin embargo, dos pacientes presentaron actividad tumoral en el límite quirúrgico, en la resección inicial, favoreciendo que uno de los pacientes desarrollara recurrencia locorregional, en tres ocasiones.

Conclusiones: El adenoma pleomórfico de glándula lagrimal puede manifestarse con incremento de la

▷ ABSTRACT

Introduction: Although pleomorphic adenoma is the most common neoplasm of major salivary glands, less commonly it can also affect the lacrimal gland. Accurate clinical diagnosis of benign mixed tumors of the lacrimal gland is important for the proper therapeutic management.

Objective: To analyze the clinicopathological features of a series of consecutive cases of pleomorphic adenoma of the lacrimal gland.

Material and methods: Patients with pleomorphic adenoma of the lacrimal gland, studied between 1995-2004.

Results: We identified eight patients that underwent primary surgery for lacrimal gland pleomorphic adenoma. Four men and four women were found with a mean age 44 years. The most common clinical sign were proptosis and increased intraocular pressure. The average pressure on the affected side was 16 mmHg vs 13 mmHg on the unaffected one. The average size of tumors was 2.6 cm. All tumors showed benign histopathological features. However, two patients had tumor activity in surgical margin in the initial resection, favoring development of loco-regional recurrence in one of the patients.

Conclusions: Pleomorphic adenoma of the lacrimal gland may present with increased intraocular pressure and decreased visual acuity. These disturbances disappear completely after surgical excision. Therefore, long-term follow-up of patients is necessary.

1 Departamento de Patología, Hospital de Oncología, Centro Médico Nacional Siglo XXI, IMSS. México D.F., México.

2 Residente de Patología. Hospital General "Dr. Manuel Gea González", SSA. México D.F., México.

3 Departamento de Radiología, Hospital de Oncología, Centro Médico Nacional Siglo XXI, IMSS. México D.F., México.

Correspondencia: Dr. Fernando Candanedo González. Departamento de Patología, Hospital de Oncología, Centro Médico Nacional Siglo XXI, IMSS. Av. Cuauhtémoc 330, Colonia Doctores. C.P. 06720. México D.F., México. Teléfono: 5627 6900, extensión 22733. Fax: (5) 5513 5395. Correo electrónico: fcandanedo@hotmail.com

presión intraocular y disminución en la agudeza visual. Estos trastornos desaparecen por completo después de su extirpación quirúrgica. Es necesario por lo tanto el seguimiento de los pacientes a largo plazo.

Palabras clave: Adenoma pleomórfico, glándula lagrimal, presión intraocular, México.

Keywords: pleomorphic adenoma, lacrimal gland, intraocular pressure level, Mexico.

▷ INTRODUCCIÓN

La glándula lagrimal se encuentra conformada por dos lóbulos, el lóbulo orbitario de mayor tamaño y el palpebral localizado más superficial, los cuales se encuentran separados por una aponeurosis. Los tumores originados en la glándula lagrimal son relativamente raros, representan 5% a 7.5% de todos los tumores intraorbitarios, se dividen en epiteliales y no epiteliales.¹⁻³ El adenoma pleomórfico (tumor mixto benigno) comprende 25% de todos los tumores de la glándula lagrimal.^{1,2} Afecta con mayor frecuencia al lóbulo orbitario y en raras ocasiones, se origina en el lóbulo palpebral.^{2,3} Se presenta entre la tercera y séptima décadas de la vida y se manifiesta con aumento de volumen de lento crecimiento, poco doloroso, de larga evolución.

Debido a que la biopsia incisional o resección incompleta ofrecen mayor riesgo de recurrencia y posible transformación maligna, el tratamiento de elección es la resección en bloque del tumor.^{4,5} Por lo tanto, la sospecha clínica preoperatoria es importante para su adecuado tratamiento. En México no existen estudios que analicen las características de pacientes con este tipo de tumor. El objetivo fue analizar las características clínico-patológicas de ocho pacientes con adenoma pleomórfico de glándula lagrimal, de una institución de tercer nivel.

▷ MATERIAL Y MÉTODOS

Se revisó una base de datos del Hospital de Oncología, de la cual se obtuvieron los nombres y registros de todos los pacientes con diagnóstico de adenoma pleomórfico de la glándula lagrimal, que fueron estudiados y quienes recibieron tratamiento quirúrgico entre 1995 a 2004. La edad, género, duración de los síntomas, procedimiento quirúrgico, tiempo de sobrevida libre de recurrencia, tamaño, localización, fueron obtenidos de los expedientes clínicos. En todos los pacientes se realizó biopsia

excisional del tumor mediante orbitotomía anterolateral. Se descartó actividad tumoral en algún otro sitio, mediante la exploración física y estudios de imagen en todos los pacientes. Se obtuvieron cortes histológicos teñidos con hematoxilina y eosina de todos los casos del archivo de patología quirúrgica, los cuales fueron reevaluados por un patólogo con experiencia en patología de la glándula lagrimal. Por definición, el adenoma pleomórfico es un tumor que presenta mezcla de componentes epitelial y mesenquimatoso condromixoide.³

▷ RESULTADOS

Se identificaron en total ocho pacientes con adenoma pleomórfico, de los cuales cuatro fueron hombres y cuatro mujeres. La edad promedio del grupo fue de 44 años (intervalo de 29 a 72 años). La edad promedio para los hombres fue de 48 años (intervalo de 29 a 67 años), y de 50 años para las mujeres (intervalo de 40-72 años). El tiempo de evolución previo al diagnóstico varió entre 12 a 108 meses. El síntoma principal en todos los pacientes fue proptosis con desviación lenta y progresiva del globo ocular, acompañado de epífora constante y diplopía. En la exploración física se observó exoftalmos secundario a la presencia de masa en la órbita. En la exploración oftalmológica, la presión intraocular promedio del sitio de afección por el tumor fue de 16 mmHg (14-18 mmHg) vs 13 mmHg (12-14 mmHg) en el ojo contralateral no afectado, respectivamente. El seguimiento promedio fue de 65 meses (intervalo de 2 a 169 meses). La **Tabla 1** resume las principales características clínicas de todos los pacientes. A todos los sujetos se les realizó tomografía axial computarizada (TAC), que confirmó la presencia de tumor en fosa lagrimal externa y extraconal. El tumor condicionaba proptosis ocular, así como compresión muscular, sin involución intrazonal del nervio óptico (**Figura 1**). A siete pacientes (87.5%) se les sometió a orbitotomía anterolateral, con escisión del tumor en el

Tabla 1.

Características clínicas de ocho pacientes con adenoma pleomórfico de glándula lagrimal.

Signos y síntomas	n=8	%
Proptosis	8/8	100
Disminución de la agudeza visual	4/8	50
Diplopía	3/8	38
Dolor	2/8	25
Sensación de cuerpo extraño	2/8	25
Fotofobia	1/8	13
Epífora	1/8	13

Hospital de Oncología. El tiempo promedio de seguimiento fue de 65 meses (intervalo 2 a 169 meses). Sólo uno de los pacientes fue operado inicialmente fuera del Hospital de Oncología, este fue el único (13%) que presentó lesión en límites al momento de la primera cirugía y desarrollo recurrencia en tres ocasiones, se encuentra actualmente con actividad tumoral locorregional. Un paciente refirió antecedente de trauma y enfermedad de Graves, solapando esta última la presencia de la neoplasia, ocasionando un retrasando en el diagnóstico y tratamiento quirúrgico. Todos los tumores presentaron características histopatológicas benignas.

Figura 2.

Adenoma pleomórfico de glándula lagrimal. Estructuras ductales revestidas por células epiteliales y células mioepiteliales.

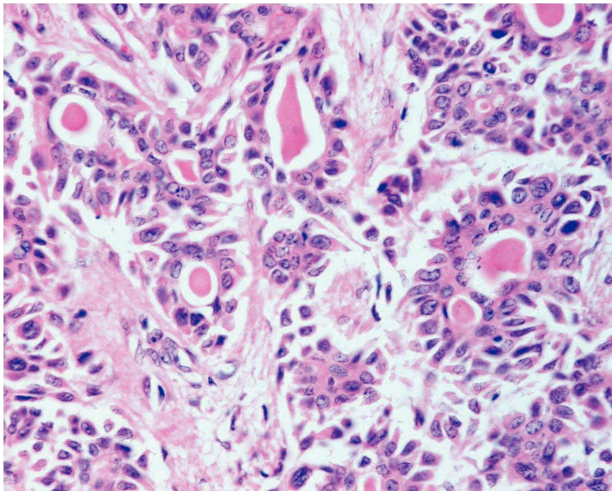
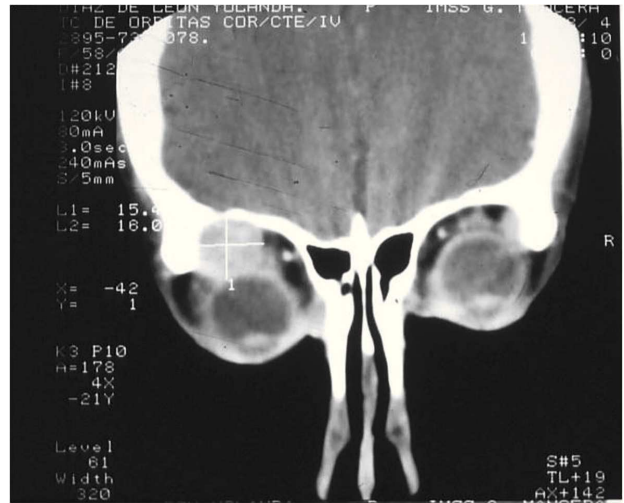


Figura 1.

Adenoma pleomórfico de glándula lagrimal. TAC que muestra masa sólida, radiopaca con alta densidad, bien delimitada en la región superolateral intraorbitaria izquierda.



HALLAZGOS HISTOPATOLÓGICOS

El tamaño promedio de los tumores fue de 2.6 cm (intervalo de 1.2 a 3.4 cm). Los tumores fueron ovoides, encapsulados, bien delimitados y se encontraron envueltos parcialmente por glándula residual. La superficie fue

Figura 3.

Adenoma pleomórfico de glándula lagrimal. Estructuras ductales inmersas en estroma mixoide.

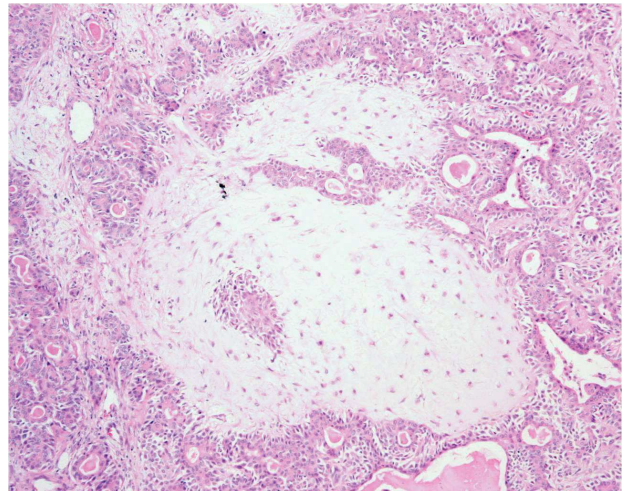
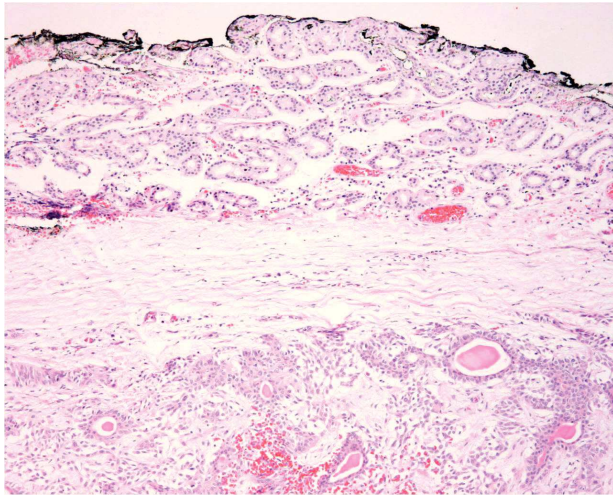


Figura 4.

Adenoma pleomórfico de glándula lagrimal. A bajo aumento se observa tumor encapsulado envuelto por glándula residual.



sólida en todos los casos de color gris blanquecino. En el examen histológico, la apariencia era altamente variable con una mezcla de elementos epiteliales y mesenquimales en todos los casos. Las células epiteliales poligonales se disponían formando estructuras ductales (**Figura 2**), láminas, pequeños grupos o trabéculas. Alternando se observaron células mioepiteliales de apariencia fusiforme. El estroma mostraba un componente condromixoide o hialino (**Figura 3**). Los tumores se encontraron delimitados por una pseudocápsula de espesor irregular, y en la periferia se identificó parénquima lagrimal residual comprimido (**Figura 4**).

▷ DISCUSIÓN

El adenoma pleomórfico es el tumor de glándula salival más común, representa el 60% de todas neoplasias de glándula salival.⁶ La incidencia anual es de 2.4-3.05 por 100 000 habitantes.⁷ La glándula parótida y el paladar son los lugares principalmente involucrados. También puede afectar, glándula submaxilar, mucosa oral, labio superior, tráquea y pulmones, con menor frecuencia.⁸ Los tumores de la glándula lagrimal representan 5% a 7.5% de las neoplasias de la órbita. El adenoma pleomórfico comprende 25% de todos los tumores de la glándula lagrimal.^{1,2} Afectan a hombres y mujeres en igual proporción, entre los seis a 73 años de edad.^{1-5,9}

Las características histológicas del adenoma pleomórfico de la glándula lagrimal son idénticas a las encontradas en las glándulas salivales. Aunque existen controversias con respecto a su manejo, es importante no realizar biopsia incisional, ya que esto aumenta la probabilidad de recurrencias. En este sentido, Rose y colaboradores¹⁰ sugieren que para reducir el riesgo de recurrencia y transformación maligna, los adenomas pleomórficos de la glándula lagrimal deben extraerse completamente sin biopsia previa. En nuestro estudio, se realizó biopsia excisional al 87% de los pacientes. Sólo un paciente fue operado inicialmente fuera de nuestra Institución, este fue el único que presentó lesión en límites al momento de la primera cirugía, desarrollando recurrencia en tres ocasiones.

Para planear el tipo de tratamiento es importante hacer un diagnóstico preoperatorio correcto teniendo en cuenta el cuadro clínico, el cual debe apoyarse en la historia clínica, exploración física y hallazgos radiológicos. Si el paciente refiere aumento de volumen de lento crecimiento durante un periodo de uno o dos años, y por TAC la lesión es sólida y bien circunscrita, es probable que se trate de un adenoma pleomórfico.¹ Por tanto, la realización TAC especialmente con cortes coronales resulta de la gran ayuda, permitiendo estudiar la extensión real de la lesión y la relación de la neoplasia con las estructuras circundantes.¹¹

En la región orbitaria, los huesos del cráneo tienden a restringir el crecimiento de la neoplasia provocando el desplazamiento del ojo con cambios en la presión intraocular y en la agudeza visual. Yamada y colaboradores¹¹ fueron los primeros en informar el caso de un hombre de 46 años con adenoma pleomórfico de glándula lagrimal, asociado a incremento en la presión intraocular. Este es un fenómeno poco frecuente. En nuestra serie todos los pacientes presentaron exoftalmos secundario a la presencia de una masa intraorbitaria, pero sólo el 50% de los pacientes presentó disminución en la agudeza visual. En la exploración oftalmológica de nuestros pacientes, la presión intraocular promedio del sitio de afección por el tumor fue de 16 mmHg. Sin embargo, la presión intraocular puede aumentar hasta 65 mmHg.¹²

En conclusión, el adenoma pleomórfico de glándula lagrimal se puede asociar con incremento en la presión intraocular y disminución en la agudeza visual. Estos trastornos desaparecen después de la extirpación. Enfermedades asociadas pueden enmascarar y retrasar el diagnóstico. Es recomendable realizar biopsia excisional con márgenes libres de lesión, para disminuir el riesgo de recurrencia y la transformación maligna.

REFERENCIAS

1. Perzin KH, Jakobiec FA, Livolsi VA, et al. Lacrimal gland malignant mixed tumors (carcinomas arising in benign mixed tumors). A clinico-pathologic study. *Cancer* 1980;45:2593-2606.
2. Marshall AF, White DR, Shockley WW. Pleomorphic adenoma in the palpebral lobe of the lacrimal gland. *Otolaryngology Head Neck Surg* 2005;132:141-143.
3. Tsunoda S, Yabuno T, Sakaki T, et al. Pleomorphic adenoma of the lacrimal gland manifesting as exophthalmos in adolescence. Case report. *Neurol Med Chir* 1994;34:814-816.
4. Porter N, Sandhu A, O'Connell TB, et al. Pleomorphic adenoma of the palpebral lobe of the lacrimal gland. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2007;136:328-329.
5. Sadick H, Riedel F, Naim R, et al. Benign mixed tumor of the lacrimal gland. Clinical diagnosis surgical management. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec* 2003;65:295.
6. Spiro JD, Soo KC, Spiro RH. Nonsquamous cell malignant neoplasms of the nasal cavities and paranasal sinuses. *Head Neck* 1995;17:114-118.
7. Pinkston JA, Cole O. Incidence rates of salivary gland tumors: results from a population-based study. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1999;120:834-840.
8. Candanedo González F, del Rosario Tamayo B, et al. Lesiones originadas en las glándulas peribronquiales de pulmón. Análisis clínico morfológico de dos casos. *Patología (Méx)* 2002;40:133-138.
9. Jakobiec FA, Zimmerman LE. Symposium on ophthalmic surgical pathology. *Hum Pathol* 1982;13:98-112.
10. Rose GE, Wright JE. Pleomorphic adenoma of the lacrimal gland. *Br J Ophthalmol* 1992;76:395-400.
11. McNab AA, Satchi K. Recurrent lacrimal gland pleomorphic adenoma: clinical and computed tomography features. *Ophthalmology* 2011;118:2088-2092.
12. Yamada T, Kato T, Hayasaka S, et al. Benign pleomorphic adenoma arising from the palpebral lobe the lacrimal gland associated with elevated intraocular pressure. *Ophthalmologica* 1999;213:269-272.