

# ADENOMA PLEOMÓRFICO EM GLÂNDULA SALIVAR SUBMANDIBULAR – RELATO DE CASO

Pleomorphic Adenoma of the Submandibular Salivary gland – a case report

Jamil Elias Dib\*

Mário Serra Ferreira\*\*

Matheus Branco Elias Dib\*\*\*

Leonardo Vilela Costa\*\*\*\*

Marcos Mota\*\*\*\*\*

## RESUMO

Este artigo apresenta um caso de Adenoma pleomórfico situado na glândula submandibular. O tratamento cirúrgico foi realizado em ambiente hospitalar, sob anestesia geral, removendo totalmente a lesão e a glândula acometida pela neoplasia.

## UNITERMOS

Adenoma pleomórfico, Glândulas salivares, Tumor misto.

## INTRODUÇÃO

Adenoma pleomórfico ou tumor misto é o tumor de glândula salivar mais comum. A idade aproximada para sua ocorrência é 45 anos, com leve prevalência para o sexo feminino.

Os adenomas são, geralmente, massas indolores, de crescimento lento, acometendo, o maior número de casos, em seqüência, as glândulas parótidas, salivares menores e submandibulares.

O tratamento envolve a total excisão cirúrgica com uma margem de segurança de tecido normal. Se o tratamento for incorreto, a taxa de recidiva é maior, aumentando a possibilidade de transformação maligna do tumor.

Este trabalho apresenta um relato de caso clínico cirúrgico e uma revisão de literatura sobre o tema.

## REVISÃO DE LITERATURA

Adenoma pleomórfico é uma neoplasia benigna, de origem epitelial, constituída por células que apresentam diferenciação epitelial e mesenquimal (Prado & Salim<sup>13</sup>, 2004).

Freitas<sup>6</sup> (2006), cita que o tumor se origina de ductos salivares e células mioepiteliais, sendo considerado um verdadeiro tumor misto. Por causa desta derivação, histologicamente, muitos padrões diferentes podem ocorrer. Estas características podem ser vistas em diferentes áreas do mesmo tumor, motivando o seu nome, pleomórfico (do grego, significando muitas formas).

O Adenoma pleomórfico, através dos anos, recebeu várias denominações como:

enclavoma, braquioma, endotelioma; mas a atual denominação do tumor misto foi sugerida por Willis em 1967 (Prado & Salim<sup>13</sup> 2004).

Neville et al<sup>12</sup> (2004), publicaram que o tumor pode ocorrer em qualquer idade, sendo mais comum, porém, em adultos jovens entre 30 e 50 anos de idade.

Regezi e Sciuba<sup>15</sup> (1993), no entanto, acreditam ser a segunda década de vida a mais prevalente. Já Courten et al<sup>1</sup> (1996), citam que o tumor pode ocorrer em qualquer idade, com prevalência entre 40 e 60 anos, no sexo feminino, sendo raro em crianças.

Neville et al<sup>12</sup> (2004), concordam com Courten et al<sup>1</sup> (1996), que existe uma leve prevalência no sexo feminino.

Adenomas pleomórficos apresentam-se como tumores lisos, indolores, de crescimento lento, que não se fixam ao tecido adjacente. Por ocasião do diagnóstico, geralmente têm dimensões entre dois e três centímetros, mas, se deixados à própria sorte, podem atingir grandes volumes. Pode ocorrer, ocasionalmente, aumento rápido de volume, indício presuntivo de transformação maligna (Eveson & Cawson<sup>5</sup> 1985).

Inicialmente o tumor apresenta uma determinada mobilidade, com exceção dos tumores localizados no palato duro, mas, com o crescimento vai perdendo esta característica. Se negligenciado, poderá atingir proporções grotescas (Neville et al<sup>12</sup> 2004).

Macroscopicamente, o tumor apresenta-se como uma massa arredondada ou ovóide, de superfície irregular que, quando cortada, apresenta

\* Cirurgião Buco-Maxilo-Facial, Mestre em Ciências de saúde, Professor Adjunto UNIRG, Chefe do Serviço de CTBMF - HUANA

\*\* Cirurgião-dentista, Voluntário CTBMF HUANA, Pós Graduando em CTBMF - HC - UFGO

\*\*\* Acadêmico de Odontologia da UNISANTA - SP

\*\*\*\* Médico Radiologista HUANA

\*\*\*\*\* Médico Anátomo-Patologista

estrutura homogênea. Ao exame microscópico, o adenoma possui inúmeras variações histopatológicas, porém as células epiteliais estão sempre presentes. Estas células possuem núcleo uniforme e raras mitoses, estando distribuídas em cordões, aglomerados e estruturas tubulares, com presença de material hialino. O componente mesenquimal é do tipo mixóide e condróide. Esta área de aspecto cartilaginosa, na verdade, é conseqüente a acúmulo de material hialino ao redor das células, pois a formação de cartilagem é muito rara (Prado & Salim<sup>13</sup> 2004).

Como meios complementares de diagnóstico, a ultra-sonografia informa se o tumor é sólido ou cístico, além da presença ou não de linfonodos peri ou intraglandulares. A tomografia computadorizada fornece maiores detalhes a respeito da localização da neoplasia, sugerindo característica de benignidade ou malignidade. A ressonância magnética nuclear pode ser utilizada na avaliação de grandes tumores para demonstrar sua relação com estruturas adjacentes e para o planejamento cirúrgico (Shah<sup>17</sup>2002).

Sapp<sup>16</sup> (1998), recomenda a ressonância magnética nuclear como método de diagnóstico por imagem. Já Kamal<sup>8</sup> (1997), cita que os exames de imagem não são essenciais, mas, em determinadas situações, podem auxiliar na localização e extensão da lesão. Conclui, ainda, que a ultra-sonografia é uma técnica não-invasiva, de baixo custo, indolor e de fácil obtenção, que pode ajudar a definir se a lesão é sólida ou cística.

A sialografia não tem sido utilizada devido ao risco de disseminar células tumorais (Touquet et al<sup>18</sup> 1990).

Aproximadamente, 75% a 85% de adenomas pleomórficos ocorrem na glândula parótida, 8% na glândula submandibular e 7% a 15% nas glândulas salivares menores (Erol et al<sup>4</sup> 1997).

Na glândula submandibular, os tumores mistos apresentam-se como massas discretas. Clinicamente, é impossível distingui-los dos tumores malignos das glândulas salivares durante os estágios precoces de crescimento. Também pode ser difícil diferenciá-los dos nódulos linfáticos aumentados no triângulo submandibular (Freitas<sup>6</sup> 2006).

Prado & Salim<sup>13</sup> (2004), também citam que nas glândulas salivares maiores, geralmente os tumores são encapsulados, porém esta característica, freqüentemente,

não é observada nas glândulas salivares menores, podendo levar a uma suspeita errônea de malignidade.

A cápsula é de densidade variável, mas é freqüentemente incompleta, de forma que o tumor pode estar em continuidade, com tecido glandular normal adjacente, que é deslocado ou comprimido (Freitas<sup>6</sup> 2006).

Laskawi et al<sup>10</sup> (1995), publicam um estudo sobre o tratamento das lesões benignas das glândulas submandibulares e citam que os casos de recidiva dos adenomas pleomórficos poderiam ser evitados com a excisão completa da glândula submandibular e tumor associado, em vez de extirpar somente a neoplasia durante o ato cirúrgico primário.

Ellis et al<sup>2</sup> (1984), expressam a opinião que a causa principal para a recidiva do adenoma pleomórfico era a cirurgia inicial inadequada.

Erol et al<sup>4</sup> (1997), citam que o tumor possui uma alta recidiva por causa da excisão inadequada, ruptura da cápsula do tumor, e pelo receio de causar dano ao nervo facial.

Um aspecto importante é o fenômeno de pseudo-podia, onde este processo está relacionado com a recidiva. Histologicamente é caracterizado por brotos de tumor onde, macroscopicamente, não são visíveis, por isso as recidivas são tipicamente multifocais e difíceis de serem controladas. Cada recidiva que se sucede há uma possibilidade aumentada de transformação maligna (Kusafuka et al<sup>9</sup> 2007).

O fenômeno da recidiva representa, hoje em dia, um importante fator epidemiológico, visto que esses tumores são radioresistentes e a radioterapia não traz benefícios, sendo, portanto, contraindicada (Mori et al<sup>11</sup> 2002).

Prado & Salim<sup>13</sup> (2004), citam que o tratamento do adenoma é cirúrgico, variando a maneira de remoção da lesão. O prognóstico é bom, porém, não tendo sido feita a remoção de todo o tumor, pode ocorrer recidiva.

O tratamento de escolha para o adenoma pleomórfico é por excisão cirúrgica. Lesões da gengiva ou palato, freqüentemente, envolvem o periósteo ou osso, tornando a remoção difícil. A remoção do adenoma da glândula parótida pode ter como complicação o dano ao nervo facial e os tumores da glândula submandibular são melhor tratados com a

remoção total da glândula com o tumor (Neville et al<sup>12</sup> 2004).

A malignização é rara e normalmente acontece em tumores com muito tempo de ocorrência. O tipo mais comum é o carcinoma ex-adenoma pleomórfico (Prado & Taveira<sup>14</sup> 2006).

Em uma revisão de 209 casos de adenoma pleomórfico, tratados no período de 30 anos, foram encontradas 34 recidivas em glândulas parótidas e 3 em glândulas submandibulares. Três pacientes desenvolveram transformação maligna na recidiva do tumor (Jackson et al<sup>7</sup> 1993).

Clinicamente, a variedade maligna é semelhante à lesão benigna, embora tenha tendência para crescer mais rapidamente e atingir um volume maior. Ele se apresenta fixo aos tecidos e pode ter a superfície ulcerada. A dor parece ser queixa mais freqüente nas lesões malignas do que no tipo benigno. O tratamento consiste na excisão cirúrgica completa. O índice de recidiva e de metástases locais é elevado. As metástases distantes ocorrem geralmente nos pulmões, ossos, vísceras e cérebro (Mori et al<sup>11</sup> 2002).

### Relato de caso clínico

Paciente LGDS, 28 anos, gênero masculino, melanoderma, procurou o Serviço de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital de Urgências de Anápolis, queixando-se de um aumento de volume na região submandibular direita. Durante a anamnese, relatou uma história de longa evolução (aproximadamente quatro anos), indolor e sem alterações no seu estado geral.

Ao exame físico, notou-se uma lesão na região submandibular direita, de consistência dura, móvel e indolor. O tecido epitelial não apresentava quaisquer sinais flogísticos ou de supuração.

Relatou ainda ter realizado biópsia em outro serviço, cujo diagnóstico foi adenoma pleomórfico (Figura 1).

Foram solicitados exames imaginológicos (radiografia norma lateral oblíqua da mandíbula, PA de face com a finalidade de detectar possível cálculo salivar) e também ultra-sonografia com a finalidade de avaliar os limites e tamanho real da lesão (Figura 2).

Foram solicitados exames laboratoriais pré-operatórios (hemograma completo, TS, TTPA, TAP, glicemia, creatinina, sódio e potássio). Os resultados estavam dentro



**Figura 1.** Fotografia facial do paciente com aumento volumétrico na face, na região submandibular direita

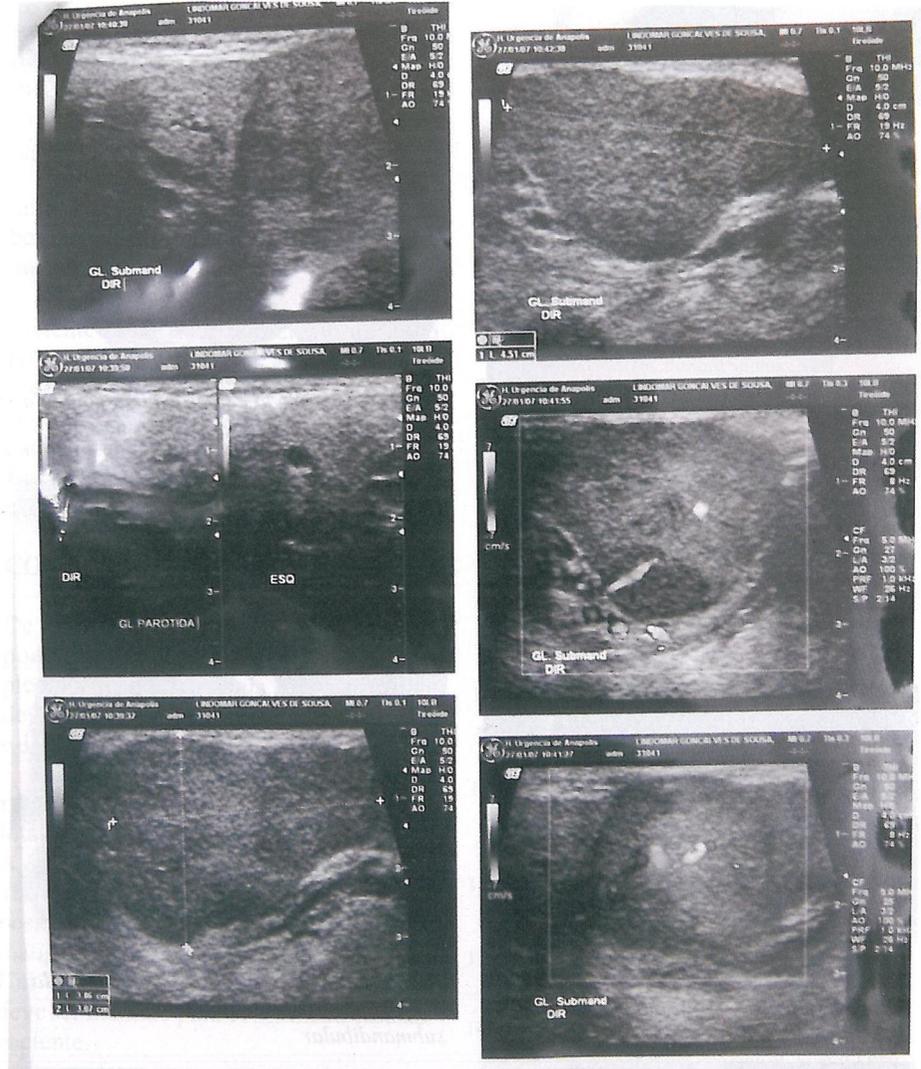
do padrão de normalidade, sendo então programada a cirurgia para exérese do tumor e da glândula submandibular acometida. Paciente foi submetido a anestesia geral inalatória e endovenosa por intubação naso-traqueal.

Foi feita infiltração de anestésico local com vasoconstritor, para auxiliar na hemostasia local. A incisão de 4 cm foi realizada no bordo inferior da mandíbula, coincidentemente, à ruga natural do pescoço, devido à obtenção de melhor resultado estético (Figura 3). A pele foi divulsionada por dissecação, com tesoura de metzembaum, em todas as direções, promovendo melhor relaxamento tecidual e conseqüente exposição da glândula envolvida (Figuras 4 e 5).

Após a dissecação das estruturas anatômicas importantes foi realizado a ressecção do ducto da glândula submandibular (Figura 8). A estrutura glandular foi removida e enviada para exame histopatológico (Figura 9).

Após a remoção, a sutura foi realizada por planos, até o fechamento dérmico, com fio de nylon 5-0 (Figuras 10 e 11). Foi

instituída a antibioticoterapia profilática (Cefazolina 1g) em intervalos de 8 horas, durante 48 horas, bem como substância analgésica (dipirona sódica 2 ml) no caso de dor, e antiinflamatório (Tenoxican 40 mg) 1 vez ao dia, nas primeiras 48 horas. A remoção da sutura foi feita após sete dias e o paciente foi acompanhado por trinta dias (Figura 12). O resultado da peça enviada ao exame histopatológico, confirmou o diagnóstico anterior de adenoma pleomórfico. As margens da peça estavam livres de células neoplásicas (Figura 13).



**Figura 2.** Ultra sonografia demonstrando lesão expansiva arredondada na glândula submandibular direita com aspecto de neoplasia.

O paciente foi orientado sobre o controle por, no mínimo, dez anos.

## DISCUSSÃO

O mais importante no tratamento do adenoma pleomórfico é o conhecimento do comportamento biológico do tumor,

fator primeiro e determinante da terapêutica correta (Freitas<sup>6</sup>2006).

Em todos os autores consultados, existe um consenso de que os adenomas pleomórficos presentes na glândula submandibular necessitam da remoção do tumor com exérese da glândula. A permanência da glândula pode aumentar a possibilidade de recidiva e transformação maligna do tumor.

A malignização é rara e acontece em tumores com muito tempo de ocorrência; o tipo mais comum é o carcinoma exadenoma pleomórfico (Kusafuka et al<sup>9</sup>2007).

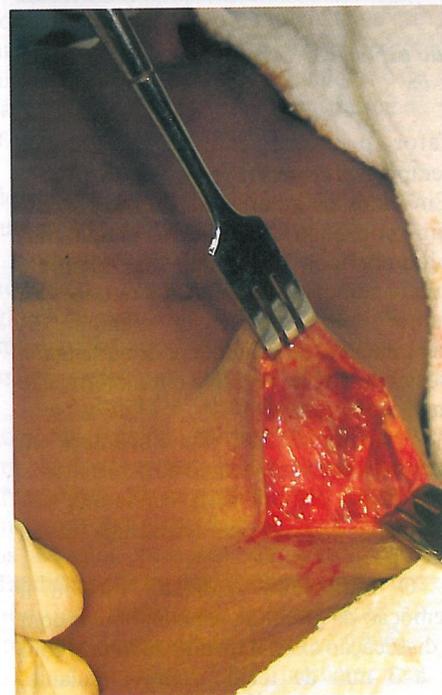
O tratamento realizado buscou a remoção da glândula submandibular com a dissecação extra-capsular do tumor, com 2 a 3 mm de tecido sadio circulante, baseado nos escritos do Prado & Salim<sup>13</sup> (2004).



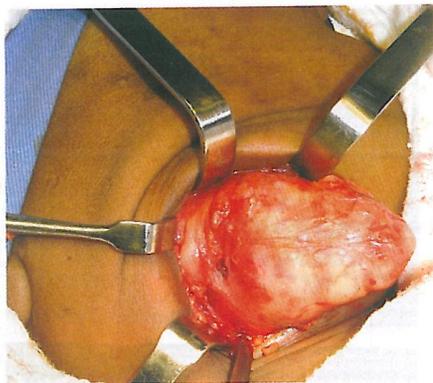
**Figura 3.** Incisão realizada com lâmina de bisturi número 15.



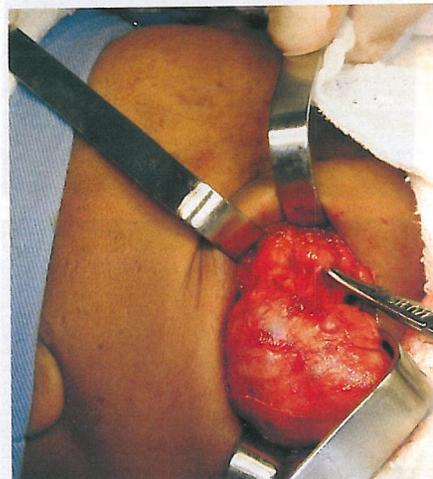
**Figura 4.** Divulsão realizada para incisão do tecido subcutâneo



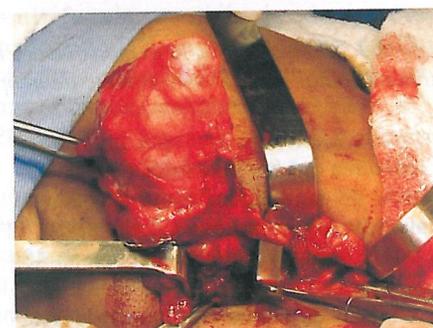
**Figura 5.** Músculo platísmo exposto pela divulsão da pele e do tecido subcutâneo.



**Figura 6.** Exposição e liberação da glândula submandibular dos tecidos adjacentes



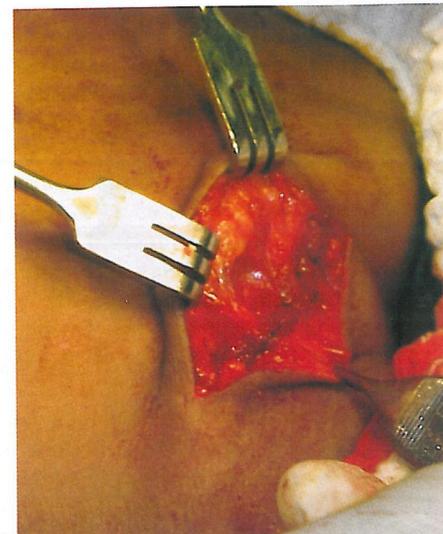
**Figura 7.** Pinça hemostática demonstrando a relação superior do linfonodo submandibular



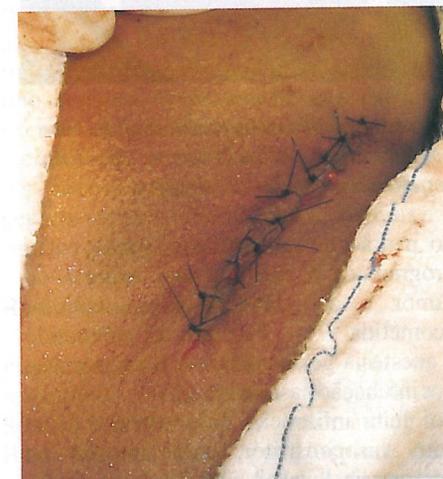
**Figura 8.** Dissecção da parte profunda da glândula submandibular com a ressecção do ducto.



**Figura 9.** Peça enviada ao exame histopatológico



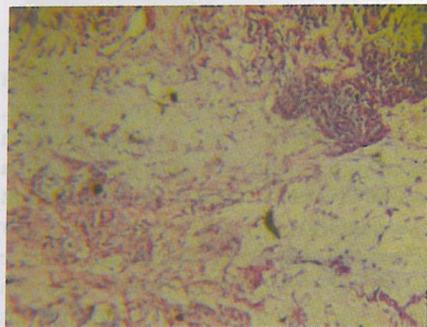
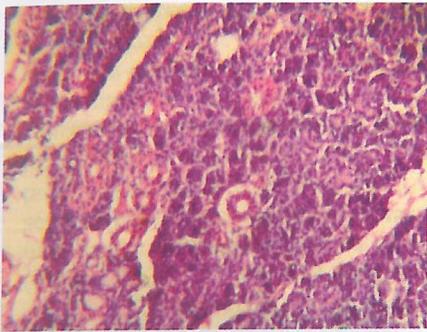
**Figura 10.** Sutura realizada por camadas



**Figura 11.** Sutura da pele realizada com Fio de Nylon 00000



**Figura 12.** Pós-operatório com 7 dias.



**Figura 13.** Cortes histológicas mostrando neoplasia matura mista exibindo proliferação de estrutura mioepitelial, formando blocos irregulares. Existe ainda proliferação de estroma condróide e fibroso.

No caso descrito verificamos que as margens da biópsia estavam livres de células neoplásicas, de acordo com o laudo enviado pelo patologista. Essa afirmação é importante para se esperar um bom prognóstico, mas o caso deverá ser acompanhado por um período de, no mínimo, 10 anos.

Laskawi et al<sup>10</sup> (1995), concluem que cirurgias conservadoras que não removem todo o tumor, seguramente, podem se disseminar pelos tecidos ao redor, pelo motivo da cápsula tumoral não envolver completamente o tumor.

A palpação do tumor deve ser sempre feita comparando-se com o lado contralateral. No caso dos tumores benignos das glândulas submandibulares, à palpação, geralmente, apresentam-se como massas bem delimitadas, de consistência cística ou fibro-elástica, mobilidade conservada, com ou sem sinais flogísticos locais, ocorrendo sempre o oposto para os tumores malignos. O caso apresentado também mostra características semelhantes.

Os exames de imagem determinam a

extensão tumoral e o comprometimento de estruturas adjacentes, elucidando o melhor tipo de intervenção, neste caso, foi solicitado ultra-sonografia e exames radiológicos.

Em relação ao acesso, foi realizada uma incisão submandibular abaixo da borda inferior da mandíbula, como preconizado por Ellis e Zide<sup>3</sup> (2006).

Neville et al<sup>12</sup> (2004), citam que o paciente pode estar consciente da lesão por muitos meses ou anos, antes de procurar um diagnóstico. Este fato ocorreu no caso relatado em que o paciente só procurou o serviço de Cirurgia BucoMaxiloFacial após um período extenso de evolução.

## CONCLUSÃO

De acordo com a literatura consultada, podemos concluir que o adenoma pleomórfico da glândula submandibular deve ser tratado com a remoção do tumor e da glândula.

Existe a possibilidade de recidiva, desde que o tumor não seja totalmente removido.

A permanência da glândula submandibular pode aumentar a possibilidade de recidiva e transformação maligna do tumor.

Um controle pós-operatório de 10 anos deve ser mantido para confirmar a cura do paciente.

## SUMMARY

This article presents a case Pleomorphic adenoma located in the submandibular gland. The surgical treatment was accomplished in hospital environment, under general anesthesia, totally removing the lesion and the gland attacked by the neoplasm.

## UNITERMS

Pleomorphic adenoma, Salivary glands, Mixed tumor

## REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Courten A, Lombardi T, Samson J. Pleomorphic adenoma of the palate in a child: 9-year follow-up. *Int J Oral Maxillofac Surg*

- 1996;25(4):293-5.
2. Ellis GL. Salivary gland neoplasms. *Ear nose throat*. 1984;63:358-69.
3. Ellis III E, Zide MFA. *Acessos cirúrgicos ao esqueleto facial*. Editora Santos, 2006.
4. Erol B, Nedim O, Gulten U, Belgin G. A Massive pleomorphic adenoma of the submandibular salivary gland. *J Oral Maxillofac Surg* 1997;55:1011-4.
5. Eveson JW, Cawson RA. *Salivary gland tumors. A review of 2410 cases with particular reference to histological types, site, age and sex distribution*. *J Pathol* 1985;146:51-8.
6. Freitas R. *Tratado de Cirurgia e Traumatologia Bucocomaxilofacial*. Editora Santos, 2006.
7. Jackson SR, Roland NJ, Clarke RW, et al: Recurrent pleomorphic adenoma. *J Laryngol Otol* 1993;107:546.
8. Kamal AS, Othman EO. Diagnosis and treatment of parotid tumours. *J Laringol Otol* 1997;111:316-21.
9. Kusafuka K, Watanabe H, Kimata K, Hiraki Y, Shukunami C, Kameya T. Minute pleomorphic adenoma of the submandibular gland in patients with oral malignancy : a report of two cases with histological and immunohistochemical examination. *Histopathology* 2007;51(2):258-61.
10. Laskawi R, Ellies M, Arglebe C, Schott A. Surgical management of benign tumors of the submandibular gland: A follow-up study. *J Oral Maxillofac Surg* 1995;53:506-8.
11. Mori KS, Moraes LC, Watanabe S. Adenoma Pleomórfico no palato duro – revisão de literatura e relato de caso. *Rev Fac Odont Anápolis* 2002jul/dez;(4):294-7.
12. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquet JE. *Patologia Oral & Maxilofacial*. Editora Guanabara Koogan, 2004.
13. Prado R, Salim M. *Cirurgia. Bucocomaxilofacial – Diagnóstico e tratamento*. Rio de Janeiro: MEDSI, 2004.
14. Prado RF, Taveira LAS. Adenoma pleomorfo e carcinoma ex-adenoma pleomorfo: uma revisão clínica e morfológica. *Rev Ciênc Odontol Brás* 2006; 9:18-26.
15. Regezi JA, Sciubba JJ. *Oral Pathology*. Lond, Saunders. 1993
16. Sapp JP. *Patologia oral e maxilofacial contemporânea*. Luso ciência. 1999;10 345-7.
17. Shah GV. MR imaging of salivary glands. *Magn Reson Imaging Clin N Am* 2002;10(4):631-62.
18. Touquet R, Mackenzie IJ, Carruth JAS. Management of parotid pleomorphic adenoma. *J Oral and Maxillofac Surg* 1990;28:404-8.

## AUTOR RESPONSÁVEL

**Mário Serra Ferreira**

Avenida 09, Quadra 09, Lote 10 Jardim Mirage.

Anápolis-Go CEP : 75063-320

Email: mario\_serraf@yahoo.com.br

Telefone : (62) 3321 3487 / 8436 2825

Recebido para publicação: 10/10/2007

Aceito para publicação: 12/12/2007