

MIOEPITELIOMA INTRAÓSEO

Presentación de un caso y revisión de la literatura

*Licéaga-Reyes, Rodrigo

**Fuenmayor-García, Luis Gerardo

***Mosqueda-Taylor, Adalberto

**Bahena-Ramírez, Edith

*Médico Adscrito al Servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital Juárez de México.

**Residente de tercer año de Cirugía Maxilofacial del Hospital Juárez de México.

***Patólogo Bucal. Departamento de Atención a la Salud UAM-Xochimilco.

RESUMEN Durante su formación remanentes de glándulas salivales pueden quedarse atrapados en diversas partes del cuerpo, incluyendo el maxilar y la mandíbula. Lo siguiente da lugar a proliferaciones neoplásicas de carácter benigno y maligno. El mioepitelioma es una rara neoplasia de glándulas salivales, cuya frecuencia es poco frecuente. Representa aproximadamente el 1.5% de todos los tumores de glándulas salivares, mayores y menores. Es aún más infrecuente su localización intraósea siendo reportados en la literatura menos de veinte casos en esta localización. En éste artículo se presenta un caso de mioepitelioma, variante epitelioide de localización intraósea. El mismo fue tratado mediante maxilectomía de infraestructura con márgenes libres de lesión. Obteniendo finalmente, buenos resultados estéticos y funcionales.

Palabras clave

Mioepitelioma benigno, glándulas salivales, Mioepitelioma intraóseo.

ABSTRACT During the embryologic development remnants of salivary glands can become trapped in various parts of the body, including the maxilla and mandible resulting in benign and malignant neoplastic proliferations. The myoepithelioma is a rare neoplasm of salivary glands, whose frequency is low. Represents approximately 1.5% of all salivary gland tumors. Intraosseous presentation is even less frequent and only some cases have been reported in the literature. This paper report a case of myoepithelioma, epithelioid variant of intraosseous location, which was treated with infra-structure maxillectomy, obtaining, finally good aesthetic and functional results.

Key words

Benign myoepithelioma, salivary gland tumors, intraosseous myoepithelioma.

Introducción

El tejido glandular se encuentra en muchos sitios de la región de cabeza y cuello incluyendo su localización central en el maxilar y la mandíbula.¹⁻²

El mioepitelioma benigno es un tumor poco frecuente de glándulas salivales. Representando aproximadamente el 1% del total de estos tumores. Es encapsulado y tiene un crecimiento lento, casi siempre asintomático. Afecta a un amplio rango de edades, siendo la media los 40 años. Compromete en un 48% la glándula parótida, en un 10% la submaxilar y en un 42% las glándulas menores.³⁻⁴⁻⁵

El término mioepitelioma fue usado por primera vez por Sheldon⁶. Se creyó en los años '40 que representaba una variante del adenoma pleomorfo, más una enti-

dad por separado⁷. Distinguir el mioepitelioma como una entidad separada es importante. Este tumor representa uno de los extremos del espectro de tumores mixtos; y tiene un comportamiento similar si no idéntico, así como potencial de malignización ocasionalmente.

El tumor está reconocido como una entidad individual en la reciente revisión de la clasificación de la OMS. Está compuesto predominante o exclusivamente por células mioepiteliales con diferentes morfologías (epitelioides, fusiformes, claras y plasmocitoides). Presenta diferentes patrones histológicos como son, sólido reticular y mixoide⁸.

* Presentado para su publicación en 04/2012



Figura 1. Tomografía con corte axial que muestra el tumor que invade el seno maxilar izquierdo.

El carcinoma epi-mioepitelial es introducido por Donath en 1972 y aceptado por la OMS. Se refiere a otra entidad patológica diferente que puede ser confundida con el mioepitelioma.

Los mioepiteliomas que se originan de la cavidad oral son muy raros. Representan el 1.5% de todos los tumores de las glándulas mayores y menores y representan el 2.2% de los tumores de las glándulas salivales mayores y el 5.7% de las menores⁵. Las lesiones crecen en un período de tiempo que va de meses a años. Su localización interósea no ha sido bien documentada. Ello ha traído problemas en los diagnósticos.^{5,6}

El mioepitelioma maligno presenta similitudes y diferencias con la variedad benigna ya escrita. El mismo es un tumor de mediano a alto grado de malignidad. Se presenta principalmente en la glándula parótida (65%). Histológicamente presenta células mioepiteliales, pero se observa atipia celular e infiltración neural y de estructuras vecinas³.



Figura 2. Aspecto transoperatorio de las osteotomías.

Presentación del caso

Fue remitida al servicio de cirugía maxilofacial del hospital Juárez de México una paciente femenina de 31 años de edad. Cursaba con un leve aumento de volu-

men en la zona posterior del maxilar del lado izquierdo de 2 meses de evolución. No tenía ningún antecedente de importancia en relación con el padecimiento. En la exploración clínica se encontraron mucosas aparentemente sanas sin datos de patologías con dentición permanente completa con un leve aumento de volumen en la zona posterior del maxilar izquierdo, sin datos clínicos que aparentaran una lesión de origen dental. En estudios simples de imagen se observó una lesión radidolúcida en la zona posterior del maxilar por encima de los ápices del primer y segundo molar superiores izquierdos. Se realizó una tomografía computada donde se ve una imagen hipodensa en la zona posterior del maxilar. Se realizó una biopsia incisional bajo anestesia local. Después del estudio histopatológico se obtuvo el diagnóstico de mioepitelioma.

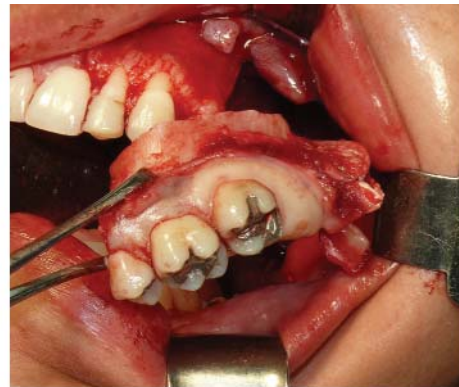


Figura 3. Maxilectomía parcial de infraestructura.

Bajo anestesia general se realizó un abordaje contorneante hasta el primer premolar superior izquierdo. Desde ahí hacia fondo de saco vestibular, dejando la encía insertada en la zona posterior con la pieza quirúrgica. Se realizaron osteotomías para hacer la maxilectomía parcial de infraestructura y se reconstruyó la sutura de los tejidos remanentes. La pieza quirúrgica se envió para estudio histopatológico. Se continuó con control en consulta externa sin complicaciones, Teniendo, por lo tanto, un postoperatorio nor-



Figura 4. Aspecto Macroscópico.

mal con adecuada cicatrización sin datos de comunicación oroantral. A la fecha la paciente ha cursado un control clínico y de imagen de 4 años sin datos de recidiva del tumor.

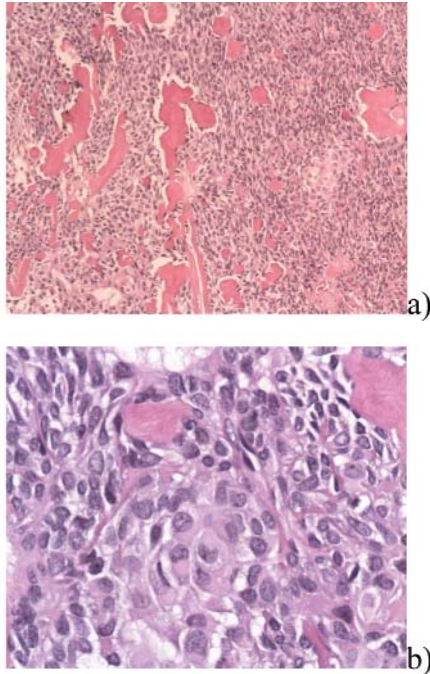


Figura 5. Aspecto Microscópico.

Histopatología

Se obtuvo una pieza quirúrgica de 4 x 3 x 2.2 cm correspondiente a la maxilectomía parcial, incluyendo segundo premolar, primer molar y segundo molar superior izquierdo. El borde superior correspondió al seno maxilar.

El aspecto microscópico mostró un fragmento de mucosa cubierto por epitelio escamoso estratificado paraqueratinizado, con abundante tejido fibroso laxo maduro. Se identificó una neoplasia de estirpe epitelial formada por mantos y cordones de células ovoidales y poligonales con amplio citoplasma eosinófilo. En la figura 5 se muestra el aspecto microscópico, a 100x (a). Se observan mantos de células mioepiteliales de aspecto plasmacitoide y fusocelular, con formación de masas de material eosinófilo de aspecto de membrana basal. Ello es característico en este tipo de tumor. A un aumento de 400x (b) se puede visualizar el aspecto plasmacitoide (parecido a células plasmáticas) de las células mioepiteliales de esta lesión.

El estroma que la rodeaba era de tipo laxo levemente mixoide, por lo tanto los hallazgos anteriores integraron el diagnóstico histopatológico de mioepitelioma

intraóseo. Los bordes se encontraron libres de lesión. a) b)



Figura 6. Aspecto intraoral postoperatorio.

Discusión

El Mioepitelioma es un tumor raro. El mismo representa menos del 2 % de los tumores de glándulas salivales⁶. Sin embargo, en otros estudios se ha reportado que el mioepitelilma representa el 5.6 % de los tumores de glándulas salivares menores. En cuanto a su localización el paladar se presenta en un 40% y el paladar blando con un 21%. En el caso presentado previamente se localizo en el paladar duro, lado izquierdo. Esta patología ha sido reportada en series de pocos casos con localización intraósea. Estos casos reportados han sido localizados principalmente en Maxila, al igual que nuestro caso presentado. Se ha reportado su presencia en localizaciones extra salivares incluyendo los tejidos blandos de cabeza y cuello en un 14%.

En cuanto a la predilección de sexo no existe preferencia de presentación. Nuestro caso presentó una femenina de 31 años. De los casos reportados se han reportado en un promedio de 17.4años¹¹. Debido a la naturaleza expansiva de la lesión, el tamaño y la localización dentro del maxilar -el cual debido a su conformación tipo de hueso no opone barrera física a la lesión. En nuestro caso se realiza una hemi maxilectomía estructural para reseca la lesión. Tal como se describe en la literatura, dejando al menos, 5mm de margen libre de lesión⁹.

Desde el punto de vista de su histopatología existe una relación controversial entre el mioepitelioma y el adenoma pleomorfo. Algunos autores los colocan como variantes de una misma entidad. Sin embargo, la falta de estructuras ductales en los mioepiteliomas, no deben superar el 10%⁵. Asimismo, el termino mioepitelioma ha sido definido como aquellas tumoraciones compuestas exclusivamente de células monomórficas. Las mismas exhiben diferenciación mioepitelial exclusiva-

mente con falta de elementos ductales¹¹. Este concepto converge con el reporte histológico de nuestro caso reportado, en donde se encontró manto de células ovoideas y miopiteliales con citoplasma abundante y eosinófilo con células monótonas; núcleo regular con cromatina uniforme y sin aéreas mixocondrales. En la literatura se ha subrayado la importancia de ser cuidadoso con el diagnóstico histopatológico para no mal diagnosticar. Ésta patología con patologías malignas como el carcinoma mucoepidermoide, carcinoma epi-mioepitelial o la variante maligna de ésta misma el mioepitelioma maligno. En nuestro caso se necesitó una revisión exhaustiva de los cortes histopatológicos para llegar a nuestro diagnóstico de mioepitelioma variante epitelioide.

Conclusiones

Debido a su origen y localización el mioepitelioma intraóseo es una neoplasia extremadamente rara. Su diagnóstico clínico e histopatológico es complicado, pudiéndose confundir con otras patologías tales como el adenoma pleomorfo, carcinoma mucoepidermoide e incluso la variante maligna del propio mioepitelioma. Varias teorías se han propuesto para explicar los restos de glándulas salivales que quedan atrapados en los maxilares. Por lo tanto, es importante tener en cuenta esta patología -aunque rara en frecuencia- se presenta en el área maxilofacial, por lo cual su estudio se hace pertinente.

Bibliografía

1. Baldi A, Percichetti P, Di Marino MP, Nicoletti P, Baldi F. Pleomorphic Adenoma of Cervical Heterotopic Salivary Glands. *J. Exp. Clin. Cancer Res.*, 22, 4, 2003.
2. Sperandio FF, Giudice FS, Pinto-Junior DD, de Sousa SC. Myoepithelioma of the Soft Palate: a Case Report Giving Special Attention to the Differential Diagnosis. *J Oral Maxillofac Res* 2011; 2, 1.
3. Batsakis JG, EL-Naggar AK, Luna MA. Pathology consultation: Epithelial-myoepithelial carcinoma or salivary glands. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1992;101:540.
4. Gnepp Douglas R. *Diagnostics Surgical Pathology of the Head and Neck*. WB. Saunder Company 2001; 357-60.
5. Gnepp Ellis Auclair. *Surgical Pathology of the Salivary Glands*. WB. Saunder Company 1991: 182-4.
6. Sheldon WH: So-called mixed tumours of the salivary glands. *Arch Pathol* 35:1, 1943.
7. Ellis GL, Auclair PL: *Atlas of Tumor Pathology*. Washington, DC, Armed Forces Institute of Pathology, 1996, p 57.
8. Gil C, Bucci T, Navarro-Cuellar C, Duarte - Ruiz B, Pannone G, Bufo P, Navarro-Vila C. Intraosseous Myoepithelioma of the Maxilla: Clinicopathologic Features and Therapeutic Considerations. *J Oral Maxillofac Surg* 2008; 66:800-803.
9. Ostrosky A, Villa D. M., Gonzalez M, Klurfan F. Benign myoepithelioma: presentation of a case report. *Rev Esp Cir Oral y Maxilofac* 2007; 29,5:336-341.
10. Olivia-Pons V, Almendros-Marques N, Berini-Aytes L, Gay-Escoda C. Minor salivary gland tumors: A clinicopathological study of 18 cases. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2008; 13(9):582-8.
11. Ferreti C, Coleman H, Altini M, Meer S. Intraosseous myoepithelial neoplasms of the maxilla: diagnosis and therapeutic considerations in 5 South African patients. *J Oral Maxillofac Surg*. 2003, 61(3):379-86.

I. Dirección de los Autores

r_liceaga@hotmail.com

www.maxilofacial.com.mx