

METÁSTASIS HEPÁTICA DE ADENOMA PLEOMORFO

FRANCISCO LAXAGUE¹, MARIELA K. BARRETO², LUCAS MC CORMACK¹,
MARIO L. IOVALDI¹, PABLO CAPITANICH¹¹Servicio de Cirugía General, ²Servicio de Patología, Hospital Alemán, Buenos Aires, Argentina

Resumen El adenoma pleomorfo es el tumor benigno más frecuente de las glándulas salivales. Puede sufrir transformación maligna y metastatizar a otros órganos distantes y, en otros casos, hacerlo como un tumor benigno. Se presenta el caso de un hombre de 82 años con lesión hepática detectada por ecografía en estudio urológico de rutina. La tomografía computarizada reveló una imagen sólida en los segmentos V-VI-VII del hígado. Se efectuó biopsia de la lesión de cuyo examen se informó metástasis de adenoma pleomorfo salival. Se realizó hepatectomía derecha y la anatomía patológica describió un tumor de 10 cm de diámetro, con margen libre, compatible con adenoma pleomorfo salival, 32 años después de la cirugía de su tumor primario. Luego de 8 años, en el seguimiento se hallaron cuatro nódulos hepáticos y una nueva imagen ósea en la vértebra L4 sugerente de recurrencia de la enfermedad. Se decidió administrar radioterapia corporal estereotáctica a la lesión ósea y evaluar la respuesta para decidir el futuro tratamiento de los nódulos hepáticos, debido a su lento crecimiento.

Palabras clave: adenoma pleomorfo, metástasis hepática, adenoma pleomorfo metastatizante

Abstract *Hepatic metastasis of a pleomorphic adenoma.* Pleomorphic adenoma is the most benign tumor of the salivary glands. It can undergo a malignant transformation to carcinoma and metastasize to distant organs, sometimes it can metastasize as a benign tumor. We present the case of an 82 years old male with hepatic lesion detected by ultrasound in routine urologic follow-up. CT scan revealed a solid image placed in segments V-VI-VII of the liver. A CT guided fine needle biopsy was made. Pathologic analysis reported a pleomorphic salivary adenoma metastasizing in the liver. Right hepatectomy was performed. Pathology study described a 10 cm diameter tumor with free margin, compatible with pleomorphic salivary adenoma, 32 years after surgery for the primary tumor. After 8 years of follow up, four hepatic nodules and a bone image in L4 vertebra that seemed to be a disease recurrence were found. It was decided to administer stereotactic body radiotherapy to the bone lesion and evaluate the response to decide the future treatment of the hepatic nodules, due to its slow growth.

Key words: pleomorphic adenoma, hepatic metastasis, metastasizing pleomorphic adenoma

El adenoma pleomorfo es la neoplasia benigna más frecuente que afecta las glándulas salivales.

La transformación maligna fue comunicada en un 9% de los casos¹. El adenoma pleomorfo metastásico se conoce desde la década de 1940. En una revisión reciente de la literatura en inglés, desde 1953 a 2005 se encontraron solo 42 casos con estas características histológicas². Este caso es la tercera publicación que describe una glándula hepática afectada por un adenoma pleomorfo metastásico, y, en nuestro conocimiento, es el primer caso de metástasis hepática como segundo sitio de enfermedad metacrónica.

Caso clínico

Hombre de 82 años con lesión hepática detectada mediante ecografía en seguimiento urológico de rutina. La tomografía computarizada (TC) informó una imagen sólida hepática, en los segmentos VII-VI-V, con realce heterogéneo después de una infusión endovenosa de contraste con área central de necrosis, compatible con metástasis. Se realizó punción/biopsia con aguja fina guiada por TC. El estudio anatómico-patológico informó una metástasis de adenoma pleomorfo salival en hígado.

Como antecedentes de la enfermedad actual, en 1975 se había efectuado enucleación de adenoma pleomorfo de glándula parótida izquierda, en 1999, resección de recidiva en la cicatriz de la intervención anterior, y en 2002, cirugía por metástasis de 2 cm de diámetro en el paladar duro con margen R0. En 2003, hubo una segunda recurrencia parotídea, y en 2005, una tercera. En 2007 el paciente fue derivado al Sector de Cirugía Hepatobiliopancreática por tumor hepático. Se encontraba asintomático al examen clínico; la TC de tórax y la resonancia magnética (RM) de cabeza y cuello fueron negativos. Al revisar los estudios histopatológicos previos, se hallaron

Recibido: 3-X-2018

Aceptado: 4-XII-2018

Dirección postal: Francisco Laxague, Servicio de Cirugía General, Hospital Alemán, Pueyrredón 1640, 1118 Buenos Aires, Argentina
e-mail: flaxague@hospitalaleman.com

los componentes típicos de adenoma pleomorfo sin atipia celular (Fig. 1).

Se realizó hepatectomía derecha. El estudio de anatomía patológica reveló un tumor de 10 cm con márgenes libres, compatible con adenoma pleomorfo (Fig. 1). El seguimiento fue sin hallazgos durante 30 meses.

En 2010, se detectó por RM de cabeza y cuello, una nueva imagen tumoral en el lado izquierdo del paladar duro, por lo que se sometió a una nueva resección R0. Se complementó ese tratamiento con radioterapia tridimensional con dosis diarias de 180 cGy (dosis totales: 5940 cGy).

En 2018 se detectó una nueva recaída tumoral en un control con RM abdominal (Fig. 2), con cuatro nódulos

hepáticos con restricción de la difusión, y una imagen ósea en la vértebra L4. Su caso se discutió en ateneo oncológico en el cual se consensuó en administrar radioterapia corporal estereotáctica en la lesión de L4 y evaluar la respuesta para decidir la conducta futura con respecto a los nódulos hepáticos.

Discusión

El adenoma pleomorfo es el tumor benigno más frecuente de las glándulas salivales. En algunos casos, pueden sufrir una transformación maligna a carcinoma y metastatizar a otros órganos distantes, y en otros, metastatizar como un tumor benigno, tal como el presente caso³.

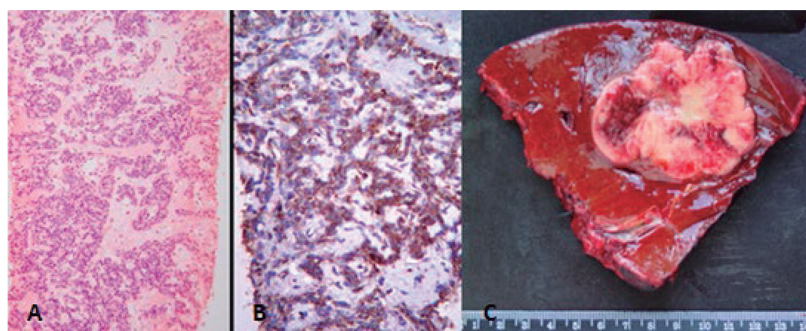


Fig. 1.- Biopsia con aguja fina de la lesión hepática. A. Histología. B. Positividad para calponina. Muestra de hepatectomía donde se evidencia tumor bien circunscripto de 10 cm (derecha)

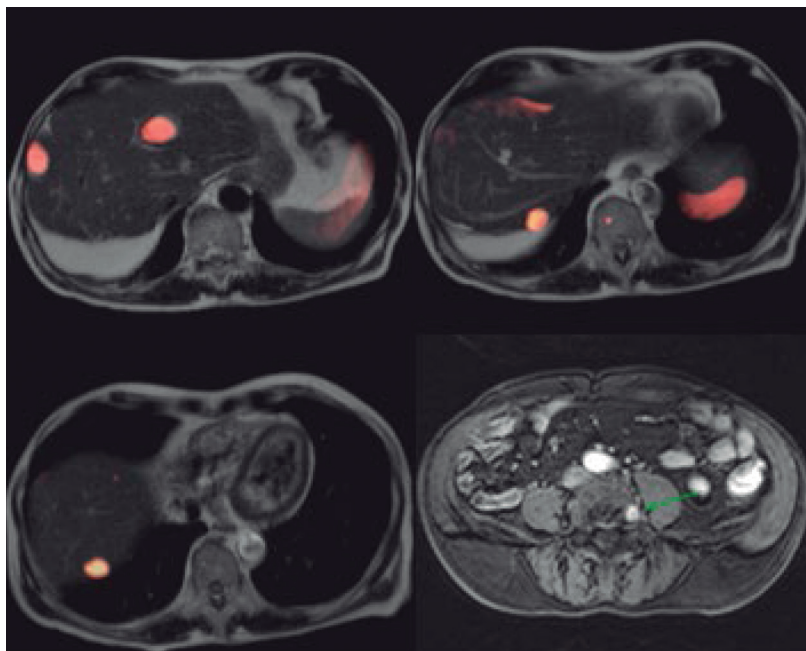


Fig. 2.- Cuatro imágenes hepáticas con restricción de la difusión e imagen nodular en vértebra L4

Esta rara entidad fue comunicada por primera vez en 1942 por Perrin⁴. En 1953 Foote y Frazell hicieron una descripción extensa de esta afección⁵. La evolución de los métodos diagnósticos por imágenes ha hecho posible diagnosticar el adenoma pleomorfo metastatizante con mayor frecuencia, pero aún es difícil para los patólogos definir esta enfermedad con precisión. Van der Wal y col. expusieron las dificultades para definir diferentes tumores que afectan a las glándulas salivales⁶. La Organización Mundial de la Salud clasificó al adenoma pleomorfo metastático como una neoplasia epitelial maligna definida por "un adenoma pleomorfo histológicamente benigno que manifiesta inexplicablemente metástasis local o distante".

El 17% de los pacientes se presentan asintomáticos al momento del diagnóstico de las metástasis². El adenoma pleomorfo primario de glándula parótida es responsable de casi 3/4 de todos los casos de metástasis. El hueso, la cabeza y el cuello, son los sitios más frecuentes de metástasis seguidos de los pulmones, el abdomen y los ganglios linfáticos entre otros^{2, 7-12}. Hay dos comunicaciones previas que se refieren a metástasis hepáticas de adenoma pleomorfo, pero este caso sería el primer informe de lesión hepática como segundo lugar de enfermedad metacrónica¹³.

Hay dos teorías que podrían explicar una posible diseminación de esta neoplasia benigna; la primera, por invasión vascular directa y la segunda, por exposición de vasos durante el procedimiento quirúrgico de la resección de las glándulas salivales con diseminación celular a lugares distantes.

La biopsia con aguja fina demostró ser de alto rendimiento para el diagnóstico y, hasta el momento no se describió que este procedimiento aumentara la recurrencia por siembra de células tumorales en el trayecto de la aguja^{14, 15}.

La recurrencia del adenoma pleomorfo luego del tratamiento quirúrgico en la glándula parótida es del 45% para la enucleación y del 1% al 5% para la parotidectomía superficial¹³. Nouraei y col.² describieron recidiva local del 81% previa a desarrollar metástasis a distancia, otros autores refieren metástasis a distancia sin recurrencia local previa^{10, 13}.

En nuestro caso, el paciente fue sometido a tres resecciones locales previas al diagnóstico de las metástasis¹¹. Algunos autores informan que el diagnóstico de metástasis se puede producir entre 6 y 52 años después de la cirugía del tumor primario². La terapia quirúrgica es el único tratamiento que demuestra 58% y 50% de supervivencia específica de la enfermedad y libre de enfermedad a 5 años. La mortalidad relacionada con la progresión de la enfermedad es de casi el 20%, lo que justifica su tratamiento quirúrgico¹¹.

La falta de estudios prospectivos sobre quimioterapia o radioterapia se debe a la cantidad insuficiente de casos tratados para evaluar el beneficio real^{2, 7, 11}. La radioterapia o la quimioterapia pueden tener algún rol en el tratamiento de lesiones inaccesibles para la cirugía⁸.

Algunos autores sugieren un seguimiento prolongado para la detección precoz de la recurrencia y así poder realizar un tratamiento quirúrgico que aumente la supervivencia. Marioni y col.¹ proponen la RM como el mejor estudio de imagen de seguimiento en cabeza y cuello, basados en la alta diferenciación entre tejido neoplásico y fibrótico.

Frente al diagnóstico de metástasis de adenoma pleomorfo salival es aconsejable realizar una exhaustiva estadificación preoperatoria, que incluya examen físico, RM de cabeza, cuello y cavidad oral, TC de tórax y abdomen y para descartar compromiso óseo. Se fundamenta la conducta quirúrgica en que esta es una enfermedad de desarrollo lento, con buen pronóstico y larga supervivencia.

Conflicto de intereses: Ninguno para declarar

Bibliografía

1. Marioni G, Marino F, Stramare R, Marchese-Ragona R, Staffieri A. Benign metastasizing pleomorphic adenoma of the parotid gland: a clinicopathologic puzzle. *Head Neck* 2003; 25:1071-6.
2. Nouraei SA, Ferguson MS, Clarke PM, et al. Metastasizing pleomorphic salivary adenoma. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2006; 132: 788-93.
3. Abou-Foul AK, Madi M, Bury D, Merritt A. Metastasizing pleomorphic salivary gland adenoma presenting as synchronous pulmonary and hepatic metastases. *BMJ Case Rep* 2014; pii: bcr2014204351
4. Perrin TL. Mixed tumor of the parotid with metastases. *Arch Pathol* 1942; 33: 930-4.
5. Foote FW Jr, Frazell LE. Tumor of the major salivary glands. *Cancer* 1953; 6: 1065-133.
6. Van der Wal JE, Leverstein H, Snow GB, Kraaijenhagen HA, van der Waal I. Parotid gland tumors: histologic reevaluation and reclassification of 478 cases. *Head Neck* 1998; 20: 204-7.
7. Chen KT. Metastasizing pleomorphic adenoma of the salivary gland. *Cancer* 1978; 42: 2407-11.
8. Steele NP, Wenig BM, Sessions RB. A case of pleomorphic adenoma of the parotid gland metastasizing to a mediastinal lymph node. *Am J Otolaryngol* 2007; 28: 130-3.
9. Hoorweg JJ, Hilgers FJM, Keus RB, Zoetmulder FAN, Loftus BM. Metastasizing pleomorphic adenoma: a report of three cases. *Eur J Surg Oncol* 1998; 24: 452-5.
10. Raja V, China C, Masaki KM, et al. Unusual presentation of uncommon tumors: Case 1. Benign metastasizing pleomorphic adenoma. *J Clin Oncol* 2002; 20: 2400-3.
11. Klijanienko J, El-Naggar AK, Servois V, Rodriguez J, Validire P, Vielh P. Clinically aggressive metastasizing pleomorphic adenoma: report of two cases. *Head Neck* 1997; 19: 629-33.
12. Goodisson DW, Burr RGM, Creedon AJ, Stirling RW, Morgan PR, Odell EW. A case of metastasizing pleomorphic adenoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1999; 87: 341-5.
13. Youngs GR, Scheuer PJ. Histologically benign mixed parotid tumour with hepatic metastasis. *J Pathol* 1973; 109: 171-2.
14. Jin Y, Jin C, Arheden K, Larsson O, et al. Unbalanced chromosomal rearrangements in a metastasizing salivary gland tumor with benign histology. *Cancer Genet Cytogenet* 1998; 102: 59-64.
15. Klijanienko J, Vielh P. Fine needle sampling of salivary gland lesions I. Cytology and histology correlation of 412 cases of pleomorphic adenoma. *Diagn Cytopathol* 1996; 14: 195-200.