

Un gigante oculto: presentación de un adenoma pleomórfico sublingual de gran tamaño.

Alirio José Mijares Briñez¹, Carmen Maria Suarez¹, Gabriela Marcano Antonucci¹, Diana Perez¹, Betania Cabrita¹.

Resumen

Introducción: Las neoplasias de glándulas salivales son un hallazgo extremadamente raro, dentro de los cuales los tumores de glándulas sublinguales están caracterizados por ser malignos en su mayoría (>70-90%), con mayor prevalencia en adultos de 40 años, de etiología incierta, asociándose a su desarrollo algunos factores como cigarrillo, radiación, traumatismos, genética y otros. Caso clinico: paciente joven de 20 años con una masa submental de cinco años de evolución, que ocupó la totalidad del piso de la boca, refiriendo disfagia progresiva y sensación de cuerpo extraño al deglutir; al examen físico presenta disfonía, elevación de la base de la lengua, contactando con la cara lingual de la epiglotis, dado por una masa blanda, móvil, no dolorosa. En tomografía de cuello con contraste endovenoso se observa lesión ocupante de espacio de 8,5 cm, redondeada, bien delimitada, heterogénea, con imágenes hipodensas en su interior. Se realiza punción aspiración aguja fina no concluyente. Se realiza resección oncológica de tumor de piso de boca, reportando en hallazgos histopatológicos: adenoma pleomórfico celular sin evidencia de malignidad. Conclusión: El diagnóstico temprano y tratamiento adecuado son esenciales para un buen pronóstico. El seguimiento a largo plazo es importante para detectar recurrencia o transformación maligna.

Palabras clave: Adenoma pleomórfico, tumor, piso de boca, glándulas sublinguales.

A hidden giant: presentation of a large sublingual pleomorphic adenoma.

Abstract

Introduction: Salivary gland neoplasms are an extremely rare finding, among which sublingual gland tumors are characterized by being malignant in the majority (> 70-90%), whit a higher prevalence in adults over 40 years of age, of uncertain etiology. Some factors such as cigarettes, radiation, trauma, genetics and others are associated with its development. **Clinical case:** a young patient of 20 years of age with a submental mass of 5 years of evolution, which occupies the entire floor of the mouth, reporting progressive dysphagia and sensation of a foreign body when swallowing; On physical examination, he presented dysphonia, elevation of the base of the tongue, contacting the lingual surface of the epiglottis due to a soft, mobile, non-painful mass. In contrast-enhanced neck tomography, a space-occupying lesion measuring 8.5 cm was observed, rounded, well-defined, heterogeneous, with hypodense images inside. Inconclusive fine needle aspiration puncture was performed. Oncological resection of the floor of mouth tumor was performed, reporting histopathological findings: cellular pleomorphic adenoma without evidence of malignancy. **Conclusion:** Early diagnosis and complete surgical removal are essential for a good prognosis. Long-term follow-up is important to detect recurrence or malignant transformation.

Keywords: Pleomorphic adenoma, tumor, floor of mouth, sublingual glands.

Introducción

Los tumores de glándulas salivales representan el 3,5% de todos los tumores de cabeza y cuello, de los cuales las neoplasias de las glándulas sublinguales abarcan el 0,3-5,2%¹, considerándose una entidad poco frecuente, correspondiendo en su mayoría a neoplasias malignas (70-90%) que suele presentarse en una edad promedio de 45-50 años, siendo poco frecuentes en jóvenes (5%)². Aunque se desconoce la etiología de los tumores benignos de esta localización, en general, se han relacionado con algunos factores como radiación, tabaquismo, trauma, infecciones virales como citomegalovirus, coxsackie A, influenza A y genética³.

Se estima que mientras más pequeña es la glándula salival, mayor es la probabilidad de malignidad, describiéndose los tumores benignos (como el adenoma pleomórfico) en menos del 1% en las glándulas sublinguales, 50% de las glándulas submaxilares y 80% de la glándula parótida².

La presentación clínica es muy heterogénea, aún más, en pacientes jóvenes, en la cual las lesiones de las glándulas sublinguales suelen estar asociadas a procesos infecciosos, obstructivos o inflamatorios y dentro de las neoplasias benignas, las lesiones linfovasculares y lipomatosas son las más comunes⁴, con una aparición súbita que desaparece con tratamiento médico, al contrario de las neoplasias benignas, que se presentan como una masa indolora, de crecimiento lento, persistente y larga evolución.

Detectar un tumor gigante de la glándula sublingual a partir de la aparición de masas en el cuello resulta complicado. Los hallazgos clínicos y las pruebas de imagen suelen ser poco específicos y, a menudo, no permiten distinguir si la lesión es benigna o maligna. Incluso la punción con aguja fina, a pesar de tener una especificidad del 93 % y una sensibilidad del 73 %, arroja resultados poco concluyentes en hasta el 10 % de los casos⁵. Por este motivo es importante un diagnóstico oportuno, ya que reduce el riesgo de invasión local y complicaciones respiratorias o deglutorias. Además, permite planificar un abordaje quirúrgico más conservador y mejorar la calidad de vida del paciente, minimizando secuelas estéticas y funcionales.

Caso Clínico

Paciente masculino de 20 años de edad, natural y procedente de Caracas, sin antecedentes médicos relevantes, antecedentes quirúrgicos: amigdalectomía a los 10 años sin eventualidades, niega consumo de cigarrillo y alcohol. Refiere inicio de enfermedad actual a los 15 años de edad, caracterizado por aumento de volumen en región submental, no doloroso, progresivo, de crecimiento lento, al cual posteriormente se asocia disfonia, sensación de cuerpo extraño en la base de la lengua que dificulta la deglución y disnea nocturna posicional. Acude a nuestra consulta donde se observa gran aumento de volumen en región cervical anterior (Figura 1-2), bien delimitado, redondeado, móvil, no doloroso, sin eritema, que a la apertura bucal ocupa el piso de la boca en su totalidad (Figura 3), se realiza nasofibrolaringoscopia con evidencia de hipertrofia del anillo de waldeyer a predominio adenoideo (Figura 4) y base de lengua elevada por efecto masa del tumor que contacta con la epiglotis (Figura 5).



Figura 1: Tumor cervical anterior.



Figura 2: Lesión tumoral al examen fisíco.



Figura 3: Tumor de piso de boca.

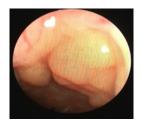


Figura 4: Hipertrofia adenoidea.



Figura 5: Tumor en contacto con la epiglotis.

En el ultrasonido de piel y partes blandas se confirma la presencia de imagen hipoecoica, heterogenéa, encapsulada, de 4x5 centimetros aproximadamente (Figura 6-7), consono con imágenes tomográficas que demuestran una masa heterogénea, redondeada, bien delimitada, con areas hipodensas en su interior, que ocupa el piso de la boca en su totalidad, con captación de contraste hacia la periferia, sin infiltración de estructuras adyacentes (Figura 8-10).



Figura 6: Imagen hipoecoica en ultrasonido cervical.

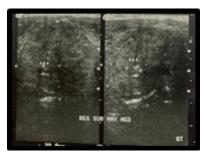


Figura 7: Imagen tumoral en ultrasonido de partes blandas.

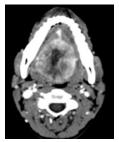


Figura 8: Tumor que abarca todo el piso de boca en tomográfía.



Figura 9: Tumor que abarca todo el piso de boca en tomográfía.



Figura 10: Corte sagital de tomografía de cuello con contraste.

Se realizó punción aspiración con aguja fina y biopsia de aguja gruesa, las cuales se consideraron como satisfactorias para el estudio y fueron negativas para malignidad, compatibles con contenido de absceso y sin presencia de atipías celulares. Estas carateristicas asi como el crecimiento lento, no expansivo, poco infiltrativo y no doloroso, permitieron plantear el diagnóstico de tumor benigno de glándula submental. Esto a diferencia de otros tumores frecuentes como el adenocarcinoma y el carcinoma adenoideo quístico, lo cuales presentan un crecimiento rápido, infiltración perineural que genera dolor de intensidad variable, ademas, suele estar acompañado de metástasis cervical e invasión a estructuras como la mandibula.

Se realizó cirugía mediante abordaje cervical transverso suprahioideo, se evidenció lesión de bordes irregulares, blanquecina, redondeada, hipervascularizada, friable, firmemente adherida a los músculos suprahioideos de 8x5 cm de diámetro (Figura 11-12), donde se realiza resección oncologica delimitada a los laterales por ambos vientres anteriores del músculo digastrico, superior: músculo milohioideo, al cual se encontraba firmemente adherido, e inferior el hueso hioides; conservando el nervio marginal, lingual e hipogloso. La reconstrucción primaria fue realizada con el músculo milohioideo con sutura reabsorbible poliglactina 910 número 0. El paciente egresa de mesa operatoria en buenas condiciones, iniciando tolerancia a la via oral seis horas posterior al acto quirúrgico sin eventualiades, egresa del centro hospitalario y es evaluado en consultas posteriores con ausencia de disfagia a liquídos y sólidos y con mejoría de la voz.

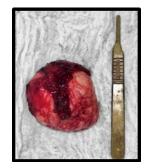


Figura 11: Pieza quirúrgica.



Figura 12: Tumor de bordes irregulares, blanquecina, redondeada

El reporte histológico macroscópico describe una lesión que mide 7 x 6 x 5 cm, pardo amarillento, semifirme, de superficie heterogénea, con áreas de hemorragia (Figura 13). En las secciones histológicas microscópica se muestran fragmentos de neoplasia mixta, con abundante celularidad, constituida por componentes mesenquimaticos mioepiteliales, estromal condromixoide y epitelial ductal dado por aisladas glándulas irregulares,

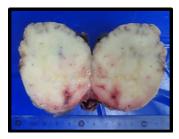


Figura 13: Corte macroscópico de adenoma pleomórfico.

rodeado por moderado infiltrado inflamatorio crónico a predominio de linfocitos tipícos, fibrosis, focos de calcificación distrófica, áreas de hemorragia reciente, proliferación y congestión vascular. Concluyendo como: Hallazgos histopatológicos compatibles con adenoma pleomorfico celular, sin evidencias de malignidad.

Discusión

Los adenomas pleomórficos de las glándulas sublinguales suelen ser asintomáticos y se detectan como un hallazgo incidental durante un examen clínico o una prueba de imagen. Sin embargo, los tumores gigantes pueden causar síntomas como dolor, disfagia, disfonía y asimetría facial4. El diagnóstico de estos tumores se basa en la combinación de evaluación clínica, pruebas de imagen y análisis histopatológico, el cual puede incluir inmunohistoquímica e incluso pruebas de biología molecular para detectar alteraciones moleculares en tumores malignos que permitan establecer terapias dirigidas, mejorando el pronóstico y la supervivencia de estos pacientes⁶. La ecografía y la resonancia magnética son las técnicas de imagen más utilizadas para evaluar los tumores de las glándulas salivales, donde se observa ecograficamente como masas bien definidas, con contornos regulares y capsuladas, que no presentan infiltración en los tejidos circundantes, lo cual los distingue de los tumores malignos. En la resonancia magnética, suelen mostrar una señal homogénea, con bordes nítidos y ausencia de infiltración a los nervios. La característica clave en la resonancia es la ausencia de invasión nerviosa, ya que la presencia de dolor o entumecimiento puede sugerir un tumor maligno.

La punción con aguja fina (PAAF), es una herramienta valiosa para el diagnóstico inicial, con una sensibilidad

alrededor del 60-95%, especificidad del 70% y valor predictivo negativo entre el 27 al 85% ⁷, sin embargo, presenta rangos amplios de valor diagnóstico dados por factores independientes como: técnica de aspiración, tamaño de la muestra, preparación del material, heterogeneidad intratumoral y experiencia del patólogo. En estos casos puede utilizarse como herramienta diagnóstica la biopsia realizada por aguja gruesa (*trucut*), la cual suele tener mayor sensibilidad y especificidad respectivamente (90% - 98 al 100%), aunque no suele realizarse de rutina, representa una herramienta importante cuando la PAAF es dudosa o no concuerda con los rasgos clínicos, no obstante, el diagnóstico definitivo requiere la extirpación quirúrgica completa del tumor y el análisis histopatológico³.

Así como lo reportan Rosas y cols.⁵, el rango etario de presentación suele ser en adultos de 40-50 años, siendo la presentación en jóvenes bastante infrecuente, además de acompañarse de un tamaño significativo en un paciente sin factores de riesgos conocidos.

El tratamiento consiste en la disección y exéresis quirúrgica completa extracapsular con indemnidad del tumor y márgenes de tejido sano, para evitar así recurrencias tumorales, sabiendo que, la enucleación en este tipo de tumores esta contraindicada, al presentar tasas de recidiva que alcanzan el 45% de los pacientes. Aunque la radioterapia y la quimioterapia no suelen ser necesarias para los tumores benignos, pudiera estar indicada en algunos casos como persistencia o recurrencia tumoral o márgenes positivos por imposibilidad de resección tumoral completa por cercanía a elementos nerviosos importantes como el nervio lingual, hipogloso y marginal^{5,6}. Si existe alguna sospecha de malignidad, está indicada una resección más radical y la disección de los ganglios linfáticos^{3,8}.

El pronóstico de los adenomas pleomórficos es generalmente favorable. La tasa de recurrencia es baja, alrededor del 10%, y la transformación maligna es aún más rara, entre el 4% y el 9%. El seguimiento a largo plazo es importante para detectar cualquier recurrencia o transformación maligna³.

Dalampiras y cols.¹, expresan que la mayoría de los tumores en esta zona son malignos, dentro de los cuales el principal es el adenocarcinoma y el carcinoma adenoideo quístico en un 70% aproximadamente,

seguido del carcinoma mucoepidermoide, carcinoma ductal, entre otros, y su extirpación completa varía en dificultad según el tamaño y la ubicación del tumor. Esta complejidad aumenta por la cercanía de la glándula sublingual a estructuras críticas como la mandíbula, la glándula submandibular y su conducto, arteria, vena y nervios linguales, y los nervios marginal mandibular e hipogloso, por lo que la técnica quirúrgica se diseñó para respetar márgenes de seguridad que protejan dichos elementos:

- Límite superior: borde inferior de la mandíbula y músculo milohioideo.
- Límite inferior: hueso hioides.
- Límites laterales: ambos vientres anteriores del músculo digástrico.

De esta forma, se garantiza una cirugía libre de riesgo con un resultado funcional optimo y morbilidad aceptable, aunado a ello debe realizarse un seguimiento a largo plazo para detectar recurrencias o transformaciones malignas de remanentes glandulares.

Conclusiones

Los tumores gigantes benignos de las glándulas sublinguales representan un bajo porcentaje de los tumores que afectan esta glándula. Esto ocurre especialmente en pacientes jóvenes donde la mayoría de los tumores tienen origen infeccioso o maligno. El diagnóstico de los tumores como el que reportamos es difícil, ya que estas neoplasias suelen ser tener presentación clínica diversa. En este caso, al establecer un diagnóstico temprano sustentado en la correlación clínica y radiológica se logró la extirpación quirúrgica completa. De esta forma se evitó un procedimiento quirúrgico extenso que incluiría márgenes amplios como los requeridos para tumores malignos, o incluso la extirpación de estructuras como músculos del piso de la boca. Es ello que consideramos que investigaciones futuras de estas patologías, deben plantear la creación de un algoritmo diagnóstico que permita establecer la identificación preoperatoria de tumores benignos de las glándulas salivales menores.

Conflicto de interés

Los autores declaran que no existe ningún conflicto de interés en el presente trabajo de investigación.

Referencias

- Dalampiras S, Andreadis D, Epivatianos A, Salas L, Stanko P. Pleomorphic adenoma of the sublingual salivary gland: An unusual diagnostic challenge. Med Princ Pract [Internet]. 2012 [citado el 27 de junio de 2024];21(3):282–4. Disponible en: https://karger.com/ mpp/article/21/3/282/203370/Pleomorphic-Adenomaof-the-Sublingual-Salivary
- Cisternas Bittencourt MJ, de la O Corrochano E, de Saa Álvarez MR. Patología tumoral de las glándulas salivares [Internet]. Seorl.net. [citado el 27 de junio de 2024]. Disponible en: https://seorl.net/PDF/cabeza%20cuello%20y%20plastica/148%20-%20PATOLOG%C3%8DA%20TUMORAL%20DE%20LAS%20GL%C3%81NDULAS%20SALIVARES.pdf?boxtype=pdf&g=false&s=false&s2=false&r=wide
- Young A, Oluyemi OF. Benign salivary gland tumors. StatPearls [Internet]. 2024 [citado el 27 de junio de 2024]; Disponible en: https://pubmed.ncbi.nlm.nih. gov/33231965/
- Jesberg P, Monzon A, Gitomer SA, Herrmann BW. Pediatric primary salivary gland tumors. Am J Otolaryngol [Internet]. 2023 [citado el 27 de junio de 2024];44(5):103948. Disponible en: https://pubmed. ncbi.nlm.nih.gov/37352681/

- Rosas Rosas L, Ochoa Vecchione A, Romero Aguaida S, Mau E. Glándulas salivales mayores: Estudio clínicopatológico de 27 casos. Rev Venez Cir. [Internet]. 2012. [citado el 27 de junio de 2024]; 65 (1): 21-23. Disponible en: https://www.revistavenezolanadecirugia.com/ index.php/revista/article/view/151/10
- Broseghini, E., Carosi, F., Berti, M., Compagno, S., Ghelardini, A., Fermi, M., Querzoli, G., y Filippini, D. M. Salivary Gland Cancers in the Era of Molecular Analysis: The Role of Tissue and Liquid Biomarkers Cánceres. [Internet]. 2025. [citado el 12 de septiembre de 2025]; 17(4), 660. Disponible en: https://doi.org/10.3390/ cancers17040660
- Rached L, Saleh K, Casiraghi O, Even C. Salivary gland carcinoma: Towards a more personalised approach. Cancer Treat Rev. [Internet]. 2024. [citado el 15 de septiembre de 2025];124:102697. Disponible en: https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/38401478/
- Smith E, Zaro C, Dhingra JK. Salivary gland tumors: A 20-year review from a single community practice. Ear Nose Throat J [Internet]. 2024 [citado el 27 de junio de 2024]; Disponible en: https://pubmed.ncbi.nlm.nih. gov/38445603