



Adenoma de ductos intercalados de parótida: relato de caso

Parotid intercalated duct adenoma: case report

Adenoma del conducto intercalado de la parótida: reporte de un caso

Bruno Macedo¹, Robert Zuqui², Danielly Silva Facirolli², Marco Aurélio da Silva Pinhoti².

RESUMO

Objetivo: Descrever o caso de um adenoma pleomórfico que foi acompanhado em uma cidade no interior do Estado de São Paulo. **Detalhamento de caso:** O caso a seguir é de uma paciente feminina, 42 anos de idade, que procurou atendimento na cidade de Franca para a avaliação de um nódulo em região periauricular com aproximadamente 3 anos e meio de evolução. Após investigação detalhada com a realização de exames de imagens e laboratoriais, evidenciou que se tratava de um adenoma pleomórfico de ducto intercalado de parótida que, posteriormente, foi excisado. **Considerações finais:** O adenoma de parótida é uma neoplasia benigna, rara, encontrada em 1 a cada 100.000 casos. Acomete mais frequentemente as mulheres, com pico aos 45 anos de idade e tem como manifestação clínica principal o aumento do volume na região da glândula acometida. Seu diagnóstico é feito a partir da história clínica, exames físico, de imagem e biópsia. Por fim, tem como tratamento de escolha a excisão cirúrgica.

Palavras-chave: Adenoma Pleomorfo, Neoplasias Parotídeas, glândula parótida

ABSTRACT

Objective: Describe the case of a pleomorphic adenoma that was followed up in a city in the interior of the State of São Paulo. **Case detail:** A 42-year-old female who sought care in the city of Franca for the evaluation of a nodule in the periauricular region with approximately 3 and a half years of evolution. After detailed investigation with imaging and laboratory tests, it became clear that it was a pleomorphic adenoma of the intercalated parotid duct, which was subsequently excised. **Final considerations:** Parotid adenoma is a benign rare neoplasm, found in 1 in every 100,000 cases. It affects women more frequently with a peak age of 45 years and its main clinical manifestation is an increase the region of the affected gland. Its diagnosis is made from the clinical history, physical exams, imaging and biopsy. Finally, surgical excision was the treatment of choice.

Keywords: Adenoma Pleomorphic, parotid neoplasm, parotid gland.

RESUMEN

Objetivo: Describir el caso de un adenoma pleomorfo que fue seguido en una ciudad del interior del Estado de São Paulo. **Detalle del caso:** El siguiente caso es de una paciente de sexo femenino, de 42 años de edad, que acude a la ciudad de Franca para la evaluación de un nódulo en la región periauricular con aproximadamente 3 años y medio de evolución. Tras una exploración detallada con pruebas de imagen y de

¹ Santa Casa de Franca (SCF), Franca – SP.

² Universidade de Franca (UNIFRAN), Franca - SP.

laboratorio, se demostró que se trataba de un adenoma pleomórfico del conducto parotídeo intercalado, que fue posteriormente extirpado. **Consideraciones finales:** El adenoma de parótida es una neoplasia benigna poco frecuente, presente en 1 de cada 100.000 casos. Afecta con mayor frecuencia a mujeres, con un pico a los 45 años y su principal manifestación clínica es un aumento de volumen en la región de la glándula afectada. Su diagnóstico se realiza a partir de la historia clínica, exámenes físicos, imagenología y biopsia. Finalmente, la escisión quirúrgica es el tratamiento de elección.

Palabras clave: Adenoma pleomórfico, Neoplasia de la parótida, Glándula parótida.

INTRODUÇÃO

As neoplasias de glândulas salivares correspondem a aproximadamente 3% das neoplasias da região de cabeça e pescoço e 0,6% dos tumores do corpo humano, com incidência anual de 1 para 100.000 indivíduos, sendo considerado assim um grupo raro de tumores (JUNIOR AT, et al., 2009). Apesar de sua baixa prevalência a sua relevância não pode ser ignorada já que o número de pesquisas e estudos voltados ao assunto não são expressivos. O pico de incidência dos tumores de glândulas salivares ocorre na sexta e sétimas décadas de vida, com uma média aos 45 anos (JUNIOR AT, et al., 2009).

Dentre todas as glândulas salivares, a parótida é a mais acometida, presente em cerca de 70% dos casos. (JUNIOR AT, et al., 2009). Em 1991 a Organização Mundial da Saúde (OMS) publicou a classificação das neoplasias de parótida com mais de 30 subtipos. (MAAHS GS, et al., 2014). Cerca de 80% dos tumores de parótida são benignos, sendo o mais comum o adenoma pleomórfico, ou tumor misto benigno, seguido do Tumor de Warthin (JUNIOR AT, et al., 2009). Em relação aos tumores malignos, o mais comum é o carcinoma mucoepidermoide seguido pelo carcinoma adenoide cístico. As neoplasias benignas são mais frequentes em mulheres, enquanto os tumores malignos têm pequena preferência pelo gênero masculino (JUNIOR AT, et al., 2009).

Ainda é incerta a etiologia do adenoma pleomórfico, mas pressupõe que ele progride de uma mistura de elementos ductais e células mioepiteliais (PORTO DE, et al., 2014). Ele é pleomórfico pois as células mioepiteliais possuem propriedades multi potenciais, dando vários aspectos histológicos ao tumor (PORTO DE, et al., 2014). É uma neoplasia encapsulada, bem circunscrita sendo que a capsula pode ser incompleta ou mostrar infiltração pelas células tumorais. Em 3 a 4% dos casos pode ocorrer a transformação para maligno onde surge um carcinoma ex-adenoma pleomórfico (MAAHS GS, et al., 2014).

Pacientes com neoplasia de parótida terão como sintoma principal o aumento de volume da região acometida e em casos malignos podem ter concomitante outros sintomas, como dor, paralisia facial e ulceração da pele. (JUNIOR AT, et al., 2009). O diagnóstico dos tumores de parótida é feito a partir de uma história clínica detalhada e exame físico bem-feito, auxiliado por exames de imagem como ultrassonografia e tomografia para planejamento do tratamento mesmo não sendo de grande valor diagnóstico. Para determinação de malignidade ou benignidade é utilizada a biópsia aspirativa com agulha fina (BAAF) (JUNIOR AT, et al., 2009). O diagnóstico definitivo do adenoma pleomórfico é atingido através do exame histopatológico em cortes de parafina diante da parotidectomia com a identificação e preservação do nervo facial (TIAGO RSL, et al., 2003).

O tratamento de escolha é a excisão cirúrgica que pode ser realizada com a parotidectomia parcial ou total, deixando uma margem de segurança para que se evitem recidivas, ou, e em caso de malignidade, a radioterapia pode ser utilizada como tratamento adjuvante enquanto a quimioterapia é pouco indicada. Se a técnica escolhida for adequada, o prognóstico é excelente, com 95% de taxa de cura (PORTO DE, et al., 2014). Alguns pacientes podem ter complicações por conta do tratamento do tumor, sendo a mais comum a disfunção no nervo facial, que pode ser tanto transitória quanto uma disfunção permanente. A parestesia do nervo facial ocorre em 60% dos pacientes submetidos a parotidectomia total e em 23% daqueles submetidos a parotidectomia superficial. Essa maior prevalência de complicações na técnica total se deve a maior manipulação dos ramos do nervo. Outro fator importante para a disfunção do nervo facial é a experiência do cirurgião e a idade do paciente. (JUNIOR AT, et al., 2009).

Além disso, outra complicação que pode ocorrer nos pacientes submetidos a parotidectomia é a síndrome de Frey, ou síndrome auriculotemporal, que resulta de uma interrupção das fibras pós-ganglionares parassimpáticas do IX par craniano, fazendo com que o estímulo que deveria resultar na secreção de saliva acabe causando sudorese na região da glândula parótida (JUNIOR AT, et al., 2009).

Este trabalho teve como objetivo relatar um caso clínico de um adenoma pleomórfico de ductos intercalados de parótida com aproximadamente 3 anos e meio de evolução e que foi excisado, descrevendo um caso com baixa incidência na literatura para melhor descrição e discussão de casos raros.

DETALHAMENTO DO CASO

Este é um estudo de caso apreciado e aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa(CEP) (Parecer 6.099.916 e CAAE 68425723.1.0000.5438), tendo a concordância do paciente com a assinatura do Termo de Assentimento Livre e Esclarecido (TCLE).

Paciente feminina, 42 anos, vem à consulta na Fundação Santa Casa de Misericórdia de Franca para investigação de nódulo em região periauricular direita com aproximadamente 3 anos e meio de evolução. Informou a presença de uma nodulação indolor, sem fatores de melhora e/ou piora, no início do ano de 2019. Associado ao quadro clínico, relatou a presença de rubor e calor. A nodulação se encontrava na região submandibular, se movendo posteriormente para a região periauricular.

Em seu histórico médico, se tratava de uma paciente com um histórico obstétrico de 3 gestações, 2 partos e 1 aborto, antecedentes pessoais englobando Diabetes Mellitus tipo 2 e hipotireoidismo. Além disso, a paciente foi submetida à várias cirurgias, retirada de cisto ovariano com necessidade de transfusão sanguínea, dois partos cesarianos, correção de síndrome do túnel do carpo e retirada da mama direita após investigação e diagnóstico de carcinoma invasivo ductal.

Além das internações pelas operações citadas, esteve internada por 10 dias devido a tromboembolismo pulmonar e por 8 dias para tratamento de herpes zoster. Entre os medicamentos de uso contínuo estão a gabapentina, rivaroxabana, amitriptilina, insulina, metformina, dapaglifozina, levotiroxina, venlafaxina, anastrozol e uso de calcitram (suplemento contendo cálcio e vitamina D).

Devido ao carcinoma mamário mencionado anteriormente, durante o período de agosto de 2019 a abril de 2021 passou por tratamento oncológico no Hospital do Câncer de Barretos, onde foi realizado ressonância magnética do encéfalo em março de 2021, que evidenciou uma nodulação, com realce pelo meio de contraste, localizado na parótida direita, medindo 1,3 x 1,1 cm, de etiologia indeterminada, além de linfonodo indeterminado com dimensões normais, mas globoso, localizado no nível cervical 2B à esquerda.

Em dezembro de 2021, após percepção de aumento do nódulo, procurou por atendimento em Barretos, sendo solicitado ultrassonografia de cervical com técnica dopplerfluxométrica, descrevendo formação nodular sólida, ligeiramente heterogênea, hipoecogênica, bem definida e lobulada, avascular, com 1,5 cm no maior diâmetro, apresentando reforço acústico posterior, no lobo superficial da parótida direita, junto à sua margem inferior com ausência de linfonodomegalia cervical e nas fossas supraclaviculares, direita e esquerda. Em seguida, em maio de 2022, foi realizado o exame citopatológico – PAAF – que se demonstrou negativo para malignidade e sugestivo de Adenoma Pleomórfico com esfregaços hemorrágicos com material mixoide e moderada celularidade composta por placas e blocos tridimensionais bimodais com células epiteliais típicas e células fusiformes típicas.

Após a realização da PAAF, a paciente passou a sentir uma dor flutuante, em pontada, com escala de intensidade da dor de 9/10 no local, em horários inespecíficos, chegando a acordar durante a noite algumas vezes, e também em alguns momentos aleatórios durante o dia, sem fatores de melhora (tentou compressas frias, dipirona e paracetamol com codeína) e com piora ao toque local e durante a mastigação do mesmo lado. Devido à grande demanda de pacientes no Hospital do Câncer de Barretos, procurou por atendimento em Franca no dia 25/07/2022, sendo indicada a intervenção cirúrgica após avaliação com anestesista.

A operação foi realizada no dia 08/08/2022 com envio da amostra retirada para análise anatomopatológica. Pelo exame macroscópico foi evidenciado estrutura semiesférica, bem delimitada, aparentemente encapsulada, de consistência firme e elástica, medindo 1,5 x 1,4 x 1,0 cm (Nankin verde) e aos cortes observou-se tecido pardo claro denso. Pelo exame microscópico, lesão nodular bem delimitada, formada por células basaloideas sem atipias, dispostas em arranjos ductais pequenos e justapostos; alguns ductos dilatados com material seroso no lúmen e margens cirúrgicas livres. Por fim, foi necessário a realização do estudo imuno-histoquímico para complementação diagnóstica e conclusão de Adenoma de Ducto Intercalado.

Segundo informações colhidas, durante o pós-operatório a paciente evoluiu com edema importante, equimose e dor intensa (escala de intensidade da dor 10/10) em região cervical e no ouvido ipsilateral, sem fatores de melhora e com piora a digitopressão no local.

Em sua última consulta, no dia 24/10/2022, durante o exame físico cervical foi avaliada a cicatriz que se apresentava com aproximadamente 10 cm de extensão em região cervical direita, avermelhada e sem a presença de outros sinais flogísticos. Ademais, a paciente evidenciou restrição da mobilidade cervical em todos os eixos, mas mais evidente durante lateralização cervical para a esquerda e, além disso, presença de fibrose.

DISCUSSÃO

As neoplasias de parótida pertencem ao grupo de neoplasias das glândulas salivares, formando um grupo bastante diverso e heterogêneo, compondo mais de 30 tipos histológicos, as quais correspondem a 3% de todos os tumores de cabeça e pescoço (TIAGO RSL, et al., 2003).

A grande maioria é benigna, em torno de 80% de acordo com as bibliografias mais atuais e, dentro deste grupo, o Adenoma Pleomórfico é o mais comum, que representa 65% dos casos (MAAHS GS, et al., 2014). Tem preferência por pacientes do sexo feminino, com incidência entre a 4ª e a 6ª décadas de vida, sendo a idade média de 45 anos (PORTO DE, et al., 2014).

Em relação aos tumores malignos, o mais prevalente é o carcinoma mucoepidermóide, com ligeira predileção pelo sexo masculino (JUNIOR AT, et al., 2009). No detalhamento do caso apresentado acima, a paciente encontra-se na faixa etária estimada, entre a 4ª e a 6ª década de vida, com apenas 3 anos de diferença da idade média de pico de 45 anos e foi diagnosticada com Adenoma Pleomórfico, mais especificamente de Ducto Intercalar, também em concordância com os dados epidemiológicos, um tumor benigno de parótida, com o subtipo mais prevalente de todos.

Em aspectos clínicos, o primeiro e principal sintoma referido pelos pacientes é o aumento do volume na região acometida (JUNIOR AT, et al., 2009). Ademais, outros sinais e sintomas podem aparecer, dentre eles o destaque é para a dor local, paralisia facial e ulceração da pele, sendo estes, sintomas mais comuns em tumores malignos (JUNIOR AT, et al., 2009). Com relação aos nódulos, podem ser subdivididos em benignos e malignos pelo seu aspecto (MAAHS GS, et al., 2014). Lesões únicas, com margens bem delimitadas, sólidas, endurecidas, lobuladas, móveis à palpação e com evolução lenta são sugestivas de neoplasias benignas. (MAAHS GS, et al., 2014).

Já nódulos que apresentam crescimento rápido, limites mal definidos e infiltração da pele são sugestivos de neoplasias malignas. No caso descrito, a paciente apresentava, no início de 2019, nodulação única de crescimento lento, localizada em região submandibular, que se moveu para a região periauricular, indolor e com presença de rubor e calor local, sem outros sinais/sintomas.

Por meio de exames complementares, foi estabelecido que o tamanho da nodulação era de 1,3 x 1,1 cm em região submandibular que moveu para a região periauricular direita e, em seguida, após quase 3 anos (dezembro de 2021), teve aumento do tamanho da nodulação (1,5 cm) e suas características eram de formação nodular sólida, bem definida, lobulada, avascular, com reforço acústico posterior e ausência de linfonodomegalia.

Em maio de 2022 apresentou nova sintomatologia: uma dor de forte intensidade no local acometido, flutuante, que mesmo com compressas frias e analgesia não melhoraram seu desconforto. Os dados apresentados estão em convergência com as bibliografias, a primeira queixa da paciente foi um abaulamento da região acometida sem sinais e sintomas sugestivos de malignidade.

Por fim, o crescimento foi lento, 3 anos para aumento de seu tamanho e mudança do estado clínico da paciente. O diagnóstico das neoplasias de parótidas é realizado através de uma junção de anamnese e exame físico bem-feitos (TIAGO RSL, et al., 2003).

Os exames complementares não são necessários para a elucidação diagnóstica, porém podem ser realizados em casos selecionados, principalmente quando há dúvidas diagnósticas e planejamento do tratamento (MAAHS GS, et al., 2014). Dentre eles podem-se citar a ultrassonografia (primeiro exame de imagem a ser solicitado), a tomografia computadorizada e a ressonância magnética (MAAHS GS, et al., 2014).

Outros exames utilizados no contexto médico são a biópsia aspirativa com agulha fina (PAAF), exame citológico que diferencia tumores malignos de tumores benignos, e o exame histopatológico em cortes de parafina que fornece o diagnóstico definitivo (MAAHS GS, et al., 2014). No relato de caso apresentado existe uma singularidade, a paciente fazia o seguimento de um carcinoma mamário em uma instituição de saúde de Barretos e durante a realização de ressonância magnética de encéfalo em março de 2021, uma nodulação em nível cervical foi encontrada, sem investigações posteriores. Apenas após aparecimento de novos sinais/sintomas após 9 meses do exame foi então iniciado a investigação até culminar na excisão cirúrgica.

O tratamento padrão para estes tumores benignos da parótida é a retirada da glândula parótida acometida (parotidectomia) com preservação do nervo facial (TIAGO RSL, et al., 2003). Para a realização da parotidectomia, existem duas técnicas cirúrgicas distintas, a parcial (também chamada de superficial), em que o nódulo é retirado sem a exposição da sua cápsula, com margem livre de, ao menos, 2 centímetros, isto pois o adenoma pleomórfico possui pequenas digitações (pseudópodes) que causam a recorrência da neoplasia pois eles ultrapassam a cápsula, com exceção para os casos em que o tumor está proximal ao nervo facial e a total, para casos em que há acometimento profundo da parótida, sendo necessário remover todo o tecido glandular, lateral e medialmente ao nervo facial (JUNIOR AT, et al., 2009).

A paciente no caso foi submetida à parotidectomia superficial, uma vez que não apresentava o acometimento profundo da parótida, com resolução de sua doença. Vale ressaltar a presença de complicações que podem aparecer decorrentes do tratamento cirúrgico, uma delas é a disfunção do nervo facial de forma transitória ou permanente, que ocorre pela manipulação de seus ramos.

Sua prevalência varia de acordo com o tipo de cirurgia, sendo mais prevalente na parotidectomia total, em torno de 60% dos pacientes vão desenvolver algum nível de disfunção nervosa. Outro fator que pode aumentar a chance de complicações é a experiência do cirurgião e a idade do paciente (JUNIOR AT, et al., 2009).

Complicação que também pode ocorrer é a síndrome auriculotemporal ou síndrome de Frey, que causa sudorese na região da glândula parótida (JUNIOR AT, et al., 2009). Neste relato de caso, a paciente, durante as consultas de pós-operatório, não se queixou de sinais e sintomas que pudessem levar a pensar em disfunção do nervo facial, que tinha chance de 20% de acontecer pela parotidectomia superficial, e nem de sinais e sintomas sugestivos de síndrome auriculotemporal.

De quadro clínico apresentava edema importante em região periauricular, dor intensa localizada em região cervical e auricular, equimose local, restrição de movimentação cervical em todos os eixos e cicatrização com tamanho de 10 cm, com coloração avermelhada, sem presença de sinais flogísticos. Outra queixa informada era a restrição de mobilidade cervical em todos os eixos, mais predominante com movimentos para a esquerda.

REFERÊNCIAS

1. AUCLAIR PL, et al. Salivary gland neoplasms: general considerations. In: Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR, editors. Surgical pathology of the salivary glands. Philadelphia: WB Saunders; 1991;135-64.
2. BECELLI R, et al. Surgical treatment of an extraparotid pleomorphic adenoma of minor salivary glands of the cheek. *J Craniofac Surg.* 2009; 4.
3. ELLIS GL e AUCLAIR PL. Tumors of the salivary glands. 3rd ed. Armed Forces Institute of Pathology: Washington; 1996
4. EMODI O, et al. Superficial parotidectomy versus retrograde partial superficial parotidectomy in treating benign salivary gland tumor (pleomorphic adenoma). *J Oral Maxillofac Surg.* 2010; 2092-2098.
5. EVESON JW e CAWSON RA. Salivary gland tumours. A review of 2410 cases with particular reference to histological types, site, age and sex distribution. *J Pathol.* 1985; 8.
6. HUGO NE, et al. Management of tumors of the parotid gland. *North American Surgical Clinic* 1973; 53:105-11.
7. JUNIOR AT, et al. Neoplasias de parótida: análise de 600 pacientes atendidos em uma única instituição. *Jornal brasileiro de otorrinolaringologia*, 2009;1-5.
8. KAMAL AS e OTHMAN EO. Diagnosis and treatment of parotid tumours. *J Laringol Otol* 1997; 111:316-21.
9. KARA MI, et al. Neoplasms of the salivary glands in a turkish adult population. *Medicina Oral Patologia Oral y Cirurgia Bucal.* 2010; 880-885.
10. LINGAM RK, et al. Pleomorphic adenoma (benign mixed tumour) of the salivary glands: its diverse clinical, radiological, and histopathological presentation. *The British Journal of Oral and Maxillofacial Surgery.* 2011; 14- 20.
11. LOSCERTALES MB, et all. Multicentric recurrent parotid pleomorphic adenoma in a child. *Medicina Oral Patologia Oral y Cirurgia Bucal.* 2010; 743-745.
12. MAAHS GS, et al. Parotid tumors: a retrospective study of 154 patients. *Brazilian Journal of otorrinolaryngology*, 2014; 1-6.
13. MENDES RB, et al. Tratamento cirúrgico de adenoma pleomórfico – relato de caso clínico cirúrgico. *Rev. Odontologia (ATO).* 2013; 772-782.
14. NAGLER RM e LAUFER D. Tumors of the major and minor salivary glands: review of 25 years of experience. *Anticancer Res.* 1997; 7.
15. NEVILLE BW, et al. *Patologia Oral e Maxilofacial.* Rio de Janeiro: Guanabara Koogan, 3a. ed 393-396, 2009.
16. PINKSTON JA, COLE P. Incidence rates of salivary gland tumors: results from a population-based study. *Otolaryngol Head Neck Surg.*1999; 40.
17. PIRES FR, et al. Prognostic factors in head and neck mucoepidermoid carcinoma. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2004; 80.
18. PORTO DE, et al. Adenoma Pleomórfico de Parótida-relato de caso. *Revista de cirurgia e Traumatologia Buco Maxilo Facial.* 2014; 1-4.
19. PRZEWOZNY T e STANKIEWICZ C. Neoplasms of the parotid gland in northern Poland, 1991-2000: an epidemiologic study. *Eur Arch Otorhinolaringol.* 2004; 369-75.
20. SILVA PJM, et al. Adenoma pleomórfico no palato duro: relato de caso. *UFES Rev Odontol.*, 2008; 51-55.
21. SPIRO RH. Salivary neoplasms: overview of a 35-year experience with 2,807 patients. *Head Neck Surg.*, 1986; 84.
22. TIAGO RSL, et al. Adenoma pleomórfico de parótida: aspectos clínicos, diagnósticos e terapêuticos. *Revista brasileira de otorrinolaringologia*, 2003; 1-5.
23. TIAN Z, et al. Salivary gland neoplasms in oral and maxillofacial regions: a 23-year retrospective study of 6982 cases in a eastern chinese population. *Int J Oral Maxillofac Surg.*, 2010; 42.
24. TSAI SC e HSU H. Parotid neoplasms: diagnosis, treatment, and intraparotid facial nerve anatomy. *J Laringol Otol.*, 2002; 62.
25. UTUMI ER, et al. Adenoma pleomórfico em palato mole. *Rev Inst Ciênc Saúde.* 2009; 77-80.
26. VAN DER WAL JE, et al. Parotid gland tumors: histologic reevaluation and reclassification of 478 cases. *Head Neck*, 1998; 7.
27. YU GY e MA DQ. Carcinoma of the salivary gland: a clinicopathologic study of 405 cases. *Semin Surg Oncol.*, 1987; 4.