



CASO CLÍNICO

Sialometaplasia necrotizante: reporte de un caso y revisión de la literatura



Oswaldo Gahona Gutiérrez^{a,b,*}, Javiera Beytía Erazo^b, Luis Pérez Lagos^b y Juan Argandoña Pozo^c

^a Área de Medicina Estomatológica y Clínica del Dolor, Facultad de Odontología, Universidad Finis Terrae, Santiago de Chile, Chile

^b Departamento de Cirugía y Traumatología Bucal y Maxilofacial, Facultad de Odontología, Universidad de Chile, Santiago de Chile, Chile

^c Servicio de Cirugía Maxilofacial, Hospital San Juan de Dios, Santiago de Chile, Chile

Recibido el 28 de julio de 2016; aceptado el 2 de septiembre de 2016

Disponibile en Internet el 4 de octubre de 2016

PALABRAS CLAVE

Sialometaplasia
necrotizante;
Glándulas salivales

KEYWORDS

Necrotizing
sialometaplasia;
Salivary glands

Resumen

Introducción: La sialometaplasia necrotizante (SN) es una rara enfermedad benigna, inflamatoria de las glándulas salivales menores y mayores, comúnmente asociada a las ubicadas en la porción más posterior del paladar duro. La similitud de sus características clínicas e histológicas con algunas lesiones glandulares malignas, puede resultar en tratamientos innecesarios, considerando que la SN se resuelve espontáneamente entre 3-12 semanas.

Caso clínico: Presentamos el caso de un adulto joven, con diagnóstico de SN, con sus características clínicas, histológicas y la evolución de la lesión.

© 2016 Sociedad de Cirujanos de Chile. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Necrotizing sialometaplasia: Case report and literature review

Abstract

Introduction: Necrotizing sialometaplasia (NS) is a rare benign inflammatory disease that affects the major and minor salivary glands. Commonly associated with the salivary glands of the rearmost portion of the hard palate. The similarity of their clinical and histological

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: ogahona@odontologia.uchile.cl (O. Gahona Gutiérrez).

features, with some malignant glandular lesions may result in unnecessary treatment, whereas the NS resolves spontaneously within 3-12 weeks.

Clinical case: We present the case of a young adult diagnosed with NS, with its clinical, histological and evolution of the injury.

© 2016 Sociedad de Cirujanos de Chile. Published by Elsevier España, S.L.U. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

La sialometaplasia necrotizante (SN) corresponde a un proceso inflamatorio, benigno y autolimitante. Se presenta en sitios con glándulas salivales menores, habitualmente en el paladar duro o en el límite entre el paladar duro y blando. Sin embargo, es posible observarla también en la cara interna de los labios, senos maxilares, piso de boca, lengua, zona retromolar, cavidad nasal, laringe y en glándulas salivales mayores^{1,2}. Puede presentarse como una úlcera con bordes eritematosos, o bien como un aumento de volumen de consistencia fluctuante³, doloroso o asintomático, y con un tamaño entre 0,7-5,0 cm de diámetro, aproximadamente⁴.

Esta enfermedad es relativamente inusual, con una prevalencia bajo el 1% del total de las biopsias^{4,5}. La importancia de esta lesión es que fácilmente se confunde con lesiones glandulares malignas¹⁻¹², tanto en su clínica como su histopatología, que conduce a tratamientos que van desde la biopsia incisional como manejo conservador, hasta la maxilectomía total⁶.

Caso clínico

Varón de 28 años, diagnosticado con acalasia y sometido a cirugía laparoscópica esofágica con intubación oro-traqueal hace 10 días. A los 5 días postoperatorios, presentó dolor agudo y sensación de disestesia en el paladar duro. Clínicamente se aprecia una lesión eritematosa que evoluciona con aumento de volumen, de 1,5 × 1,0 cm en hemipaladar izquierdo (fig. 1), de consistencia fluctuante. El segundo molar superior izquierdo con restauración ocluso-distal de resina compuesta cercana a cámara pulpar y dolor agudo irradiado en hemimaxilar izquierdo, a la masticación y percusión. Como tratamiento inicial, se indica trepanación de la pieza dentaria (inicio tratamiento endodóntico). Ante el curso, sin modificaciones de la sintomatología ni evidencia de drenaje, se solicita una tomografía computarizada *cone-beam* (CBCT) y biopsia incisional de la lesión. La imagenología no evidenciaba compromiso óseo (fig. 2). El informe histopatológico describe mucosa palatina en parte recubierta por epitelio plano pluriestratificado, con islotes de epitelio escamoso, y algunos ductos glandulares, asociado a tejido glandular con signos de necrosis, persistiendo solamente la pared de las células acinares, con un infiltrado mononuclear y algunos neutrófilos (fig. 3), lo cual indicaba una lesión de origen posiblemente traumático. El

diagnóstico fue la SN, la lesión remitió espontáneamente un mes posterior a la biopsia (fig. 4).

Discusión

La SN fue descrita en 1973 por Abrams et al., como un proceso inflamatorio necrotizante de las glándulas salivales menores del paladar duro⁷. Se trata de una lesión relativamente rara, con predominio de 2 a 3 veces mayor en el género femenino⁸, y que se presenta generalmente de forma unilateral, aunque existen reportes sobre SN bilaterales y en la línea media.

Si bien, su etiopatogenia no ha sido esclarecida, la mayoría de los autores coinciden con la teoría de la isquemia glandular y la relación de esta lesión con antecedentes de trauma o irritantes locales tales como tabaco, consumo de cocaína, ácido gástrico en cuadros de reflujo gastroesofágico o bulimia⁹, alcohol, radiación, infecciones de la vía aérea superior, procedimientos quirúrgicos e infiltración de anestesia local en la zona¹⁰. Este último punto suele ser citado con frecuencia en la literatura, sobre todo cuando la SN ha estado asociada a procedimientos del maxilar en los que se infiltró anestesia local con fármacos vasoconstrictores en la mucosa palatina, en más de una ocasión. En el caso descrito, la lesión apareció 5 días después de que el paciente se sometiera a una cirugía esofágica. Según la historia clínica es posible suponer en este caso, que la SN estaría asociada al trauma mecánico que se ejerció, ya sea durante la técnica de intubación o la compresión del tubo endotraqueal en la zona posterior del paladar, al ser la intubación el único factor traumático registrado en la cavidad bucal.

El vínculo entre la SN y los antecedentes de trauma o agentes irritantes locales, es un factor de suma importancia al momento de diagnosticar esta enfermedad, ya que como se mencionó anteriormente, las similitudes clínicas e histopatológicas con lesiones de carácter maligno como carcinoma mucoepidermoide, carcinoma adenoide quístico y adenocarcinoma con bajo grado de polimorfismo¹¹, pueden desencadenar planes de tratamientos invasivos, mutilantes y de alto costo, en un contexto donde son innecesarios.

Inicialmente, Abrams et al. propusieron los siguientes criterios histológicos: necrosis de los acinos glandulares, metaplasia escamosa del epitelio ductal y de los acinos, hiperplasia pseudoepiteliomatosa del epitelio de revestimiento de las glándulas, respuesta inflamatoria en o

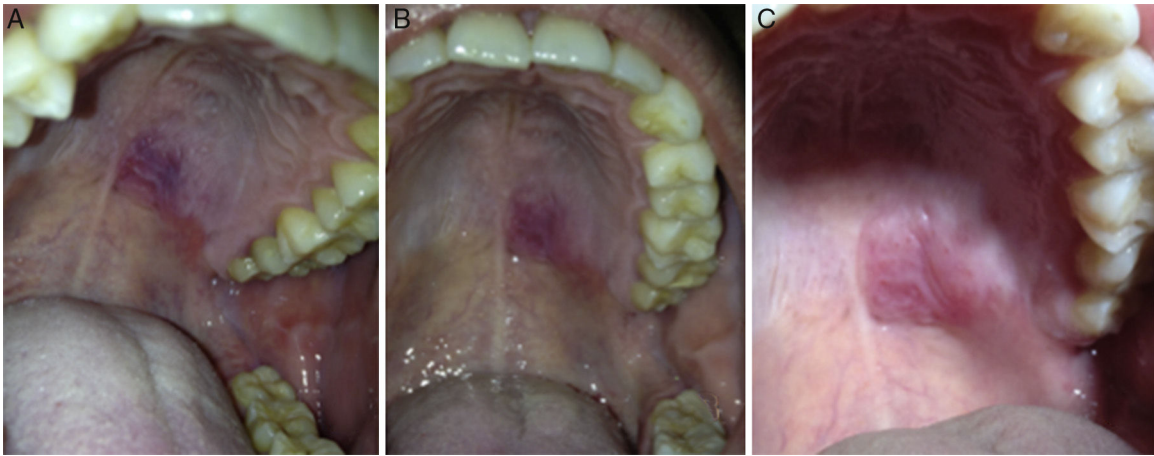


Figura 1 A) Evolución de la lesión a los 5 días, B) a los 12 días, y C) a los 20 días posteriores a cirugía esofágica.

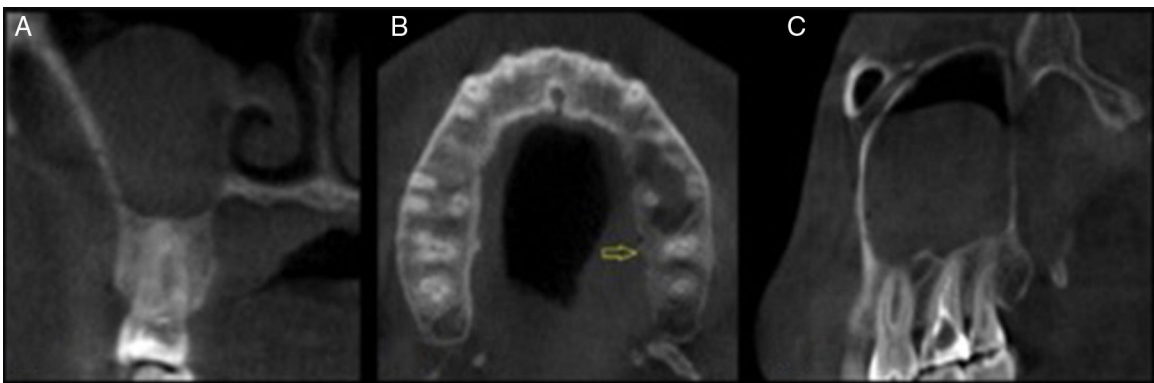


Figura 2 Imágenes del CBCT donde se observa integridad de corticales óseas y conservación de la línea periodontal del diente 15 (2,7) en el plano coronal (A), axial (B) y sagital (C).

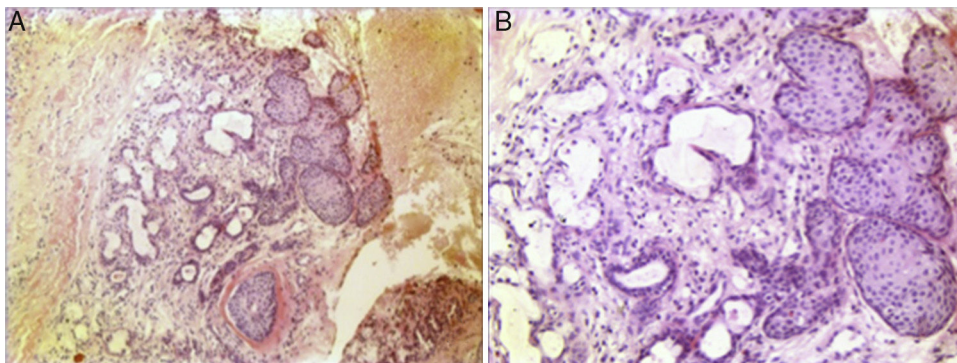


Figura 3 A) Microfotografía de corte histológico tinción hematoxilina-eosina $\times 100$. Se observan isletos epiteliales escamosos adyacentes a ductos glandulares muy dilatados con infiltrado mononuclear entre ellos. B) Se observa isletos epiteliales escamosos y también ductos y acinos, estos últimos con pérdida de sus núcleos y citoplasmas disgregados, con infiltrado linfocitario entre ellos. Tinción hematoxilina-eosina $\times 400$.

alrededor de las glándulas y morfología nuclear benigna⁷. La presencia de esta metaplasia en las glándulas viables residuales, es la que puede orientar erróneamente el diagnóstico hacia un carcinoma mucoepidermoide.

Se han descrito 3 criterios histológicos para distinguir la SN de lesiones glandulares malignas: preservación de la morfología lobular general, islas de células escamosas sin signos

de malignidad evidente en su citología, y que no se observen residuos ductales en dichas islas¹.

Por otra parte, Anneroth y Hansen propusieron 5 etapas histológicas en el desarrollo de la SN: infarto, secuestro, ulceración, reparación y curación. Según este esquema, una etapa de infarto más prolongada, seguida del secuestro de acinos necróticos, resultaría en la formación de una úlcera.

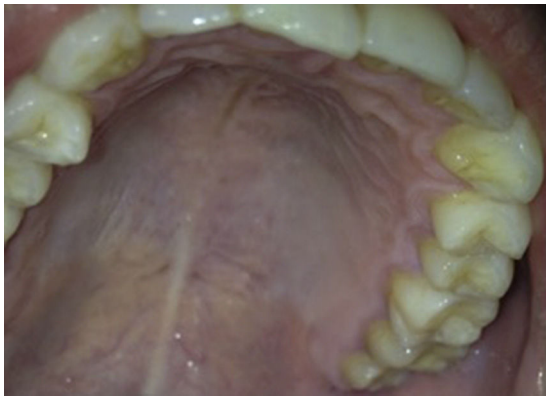


Figura 4 Control 30 posterior a la biopsia. Mucosa palatina indemne con remisión total de la lesión.

Mientras que una etapa de infarto más limitada no se producirían los secuestros ni la úlcera. Esta podría ser la razón de las 2 formas de presentación clínica de la SN¹².

Usualmente la SN no requiere tratamiento, y las lesiones ulceradas cicatrizan espontáneamente por segunda intención entre 4-10 semanas⁴. Cabe mencionar, que al momento de biopsiar la lesión se debe tomar una muestra que abarque los bordes de la lesión, y que sea lo suficientemente representativa para así evitar enviar solo tejido necrótico a estudio histopatológico¹¹.

Conclusión

La SN es una enfermedad benigna que afecta las glándulas salivales, que puede confundirse con lesiones malignas y puede desencadenar tratamientos inadecuados. Para evitar estos desenlaces es imperativo considerar la historia clínica tras estas lesiones. También es necesario la colaboración de especialistas en patología oral para el diagnóstico certero de la lesión, dada la gama de enfermedades que afectan las glandulares salivales.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Conflicto de intereses

Se declara que los autores no poseen conflicto de intereses.

Agradecimientos

Al Dr. Benjamín Martínez Rondanelli, por su cooperación con el estudio histológico del caso descrito.

Bibliografía

1. Brannon RB, Fowler CB, Hartman KS. Necrotizing sialometaplasia. A clinicopathologic study of sixty-nine cases and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1991;72:317-25.
2. Van der Wal JE, van der Waal I. Necrotizing sialometaplasia: Report of 12 new cases. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 1990;28:326-8.
3. Santis HR, Kabani SP, Roderiques A, Driscoll JM. Necrotizing sialometaplasia: An early nonulcerative presentation. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1982;53:387-90.
4. Joshi SA, Halli R, Koranne V, Singh S. Necrotizing sialometaplasia: A diagnostic dilemma! *J Oral Maxillofac Pathol.* 2014;18:420-2.
5. Mesa MI, Gertler RS. Necrotizing sialometaplasia: Frequency of histologic misdiagnosis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1984;57:71-3.
6. Shetty A, Chowdappa V, Devasamudra CR, Janardhan JV. Necrotizing sialometaplasia of the hard palate: A rare entity of dilemma on cytology, confirmatory on histopathology. *J Clin Diagn Res.* 2015;9:ED01-2.
7. Abrams AM, Melrose RJ, Howell FV. Necrotizing sialometaplasia: A disease simulating malignancy. *Cancer.* 1973;32:130-5.
8. Rye LA, Calhoun NR, Sedman RS. Necrotizing sialometaplasia in a patient with Buerger's disease and Raynaud's phenomenon. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1980;49:233-6.
9. Imai T, Michizawa M. Necrotizing sialometaplasia in a patient with an eating disorder: Palatal ulcer accompanied by dental erosion due to binge-purging. *J Oral Maxillofac Surg.* 2013;71:879-85.
10. Carlson DL. Necrotizing sialometaplasia-a practical approach to the diagnosis. *Arch Pathol Lab Med.* 2009;133:692-8.
11. Balaji SM, Balaji P. Surgical management of necrotizing sialometaplasia of palate. *Indian J Dent Res.* 2015;26:550-5.
12. Anneroth G, Hansen LS. Necrotizing sialometaplasia: The relationship of its pathogenesis to its clinical characteristics. *Int J Oral Surg.* 1982;11:283-91.