

PRESENTACIÓN DE CASO

Parotid Ductal Carcinoma with skin metastasis

Carcinoma Ductal Parotídeo con metástasis cutánea

Jadier Wong-Silva¹  , Lucien Gregoria Bory-Porras² , Mario Ramírez-Gómez³ 

¹Universidad de Ciencias Médicas de Pinar del Río. Hospital Pediátrico Provincial Docente “Pepe Portilla”. Pinar del Río, Cuba.

²Universidad de Ciencias Médicas de Pinar del Río. Hospital General Docente “Abel Santamaría Cuadrado”. Pinar del Río, Cuba.

³Universidad Anáhuac México, Campus Norte. México

Citar como: Wong-Silva J, Bory-Porras LG, Ramírez-Gómez M. Parotid Ductal Carcinoma with skin metastasis. Odontología (Montevideo). 2024; 2:133. <https://doi.org/10.62486/agodonto2024133>

Enviado: 12-02-2024

Revisado: 15-05-2024

Aceptado: 18-08-2024

Publicado: 19-08-2024

Editor: Nairobi Hernández Bridón 

ABSTRACT

Introduction: ductal carcinoma of the parotid salivary gland, have an epithelial origin. The behavior of this disease is aggressive, so a correct and early diagnosis is vital. In this research a case with a diagnosis of parotid ductal carcinoma with metastatic skin lesions is presented.

Case presentation: 60-year-old male patient with a history of high blood pressure who for approximately 3 months has been experiencing discomfort in the pre-auricular region, lower third of the right side of the face, and exophytic lesions in the skin of that area. An oral examination revealed poor oral hygiene, the presence of root remains, an increase in the volume of the excretory duct of the right parotid gland, and changes in the integrity of the buccal mucosa. Complementary and imaging tests are indicated (imaging, biopsy, computed axial tomography and immunohistochemistry). The diagnosis was confirmed with a T4N2M1 staging and total surgical treatment was determined immediately.

Conclusions: patients with ductal carcinoma, despite treatment with parotidectomy, cervical dissection and postoperative radiotherapy, a large proportion of patients develop local and distant recurrence, so a timely diagnosis can guarantee greater survival for the patient.

Keywords: Parotid; Cancer; Oncogenes; Biopsy.

RESUMEN

Introducción: el carcinoma ductal de la glándula salival parótida, tiene un origen epitelial y poco frecuente. El comportamiento de esta patología es agresivo por lo que un correcto y temprano diagnóstico es vital. En esta investigación se presenta un caso con diagnóstico de carcinoma ductal parotídeo con lesiones metastáticas cutáneas.

Presentación de caso: paciente masculino de 60 años de edad con antecedentes de hipertensión arterial que hace aproximadamente 3 meses presenta molestias en la región preauricular, tercio inferior de la hemicara derecha y lesiones exofíticas en la piel de esa zona. Al examen bucal se observa deficiente higiene bucal, presencia de restos radiculares, aumento de volumen del conducto excretor de la glándula parótida derecha y cambios en la integridad de la mucosa yugal. Se indican exámenes complementarios y de imagen (imagenológicos, biopsia, tomografía axial computarizada e inmunohistoquímica). Fue confirmado el diagnóstico con una estadificación T4N2M1 y se determina tratamiento quirúrgico total de inmediato.

Conclusiones: los pacientes con carcinoma ductal a pesar del tratamiento con parotidectomía, vaciamiento cervical y radioterapia postoperatoria, una gran proporción de pacientes desarrollan recurrencia local y a distancia, por lo que un diagnóstico oportuno puede garantizar una mayor sobrevivencia para el paciente.

Palabras clave: Parótida; Cáncer; Oncogenes; Biopsia.

INTRODUCCIÓN

El carcinoma ductal de glándulas salivares es un tumor poco frecuente, con una incidencia del 1 % al 3 % de todas las neoplasias epiteliales malignas de glándula salivar. En el 88 % de los casos se localiza en la parótida y representa entre el 0,9-6 % de todos los tumores parotídeos. Afecta con mayor frecuencia a hombres con un pico de incidencia entre la séptima y octava década de la vida, coincidiendo en edad, sexo y localización, con el caso que describimos.⁽¹⁾

Clínicamente se presenta como una tumoración parotídea dolorosa, asociada a parálisis facial en el 40-60 % de los casos, con afectación ganglionar en el 40-80 % y metástasis a distancia en el 35-65 % de los pacientes.⁽²⁾ Radiológicamente, la resonancia magnética (RM) es la prueba de elección para estudiar los límites y el grado de infiltración de estos tumores, con una sensibilidad del 80 % y 89 % respectivamente. Sin embargo, la TC es fundamental para la evaluación de la afectación ósea. Histológicamente presenta características similares al carcinoma ductal de mama, por lo que es importante descartar una metástasis de glándula mamaria. Tiene un componente carcinomatoso intraductal y otro infiltrativo. El intraductal presenta distintos patrones de crecimiento habitualmente de tipo cribiforme, papilar, sólido y/o comedocarcinoma, y el infiltrativo es un estroma desmoplásico.^(1,2,3)

Inmunoquímicamente, en el carcinoma ductal de glándulas salivares se ha identificado la sobreexpresión de citoqueratina (CAM5.2), citoqueratina (AE1/AE), citoqueratina, HMW-CK 34 β E12 (high-molecular-weight cytokeratin), EMA (epithelial membrane antigen), GCDFP-15 (gross cystic disease fluid protein-15), AR (androgen receptor) y HER2/neu. La sobreexpresión de la proteína *c-erbB-2* está asociada a un peor pronóstico, en base a esto, hay estudios que sugieren que la terapia hormonal con *Trastuzumb* (anticuerpo monoclonal que bloquea el dominio extracelular del receptor HER2/neu) aumenta la tasa de supervivencia.^(4,5)

El tratamiento debe de ser multidisciplinar, basado en la cirugía (parotidectomía total y vaciamiento cervical), radioterapia y quimioterapia, con el objeto de conseguir un mejor control de las ocurrencias y metástasis a distancia. El pronóstico del carcinoma ductal de glándulas salivares es desfavorable, con una tasa de recidivas locales del 33 %, metástasis ganglionares del 59 %, metástasis a distancia del 46 % y una tasa de mortalidad a los 4 años del 65 %.^(6,7,8,9,10)

El carcinoma ductal de parótida es un tumor de mal pronóstico. La tasa de recurrencia local se estima entre un 13-48 %, ^(11,12,13) la afectación ganglionar en torno al 40-80 % (4,8) y se detectan metástasis a distancia entre el 35-65 % de los casos.^(14,15,16)

Se han descrito en la literatura numerosos factores asociados a mal pronóstico y entre ellos destacamos: sexo masculino, tamaño tumoral (T) elevado, ganglios linfáticos afectados (N+), edad avanzada, márgenes quirúrgicos positivos e invasión perineural y linfovascular. La supervivencia de manera general ronda los 5 años, para un 40 y 60 % de los casos diagnosticados.^(16,17)

PRESENTACIÓN DE CASO

Paciente masculino de 60 años de edad con antecedentes de hipertensión arterial (HTA) que hace aproximadamente 3 meses presenta molestias en la región prearicular y tercio inferior de la hemicara derecha. Fue interpretado y diagnosticado como: herpes zóster, se indicó el tratamiento correspondiente y ante el curso desfavorable del cuadro, fue remitido al Servicio de Cirugía Maxilofacial, donde fue examinado y evaluado.

Al examen físico general se constató aumento de volumen en la región prearicular y tercio inferior de la hemicara derecha (figura 1), con signos de parálisis facial y tumefacción en zona de la glándula parótida derecha, de consistencia firme, dolorosa a la palpación; se detectaron adenopatías cervicales.



Figura 1. Presencia de aumento de volumen y lesiones faciales

Al examen bucal se encontró deficiente higiene bucal, presencia de restos radiculares, aumento de volumen del conducto excretor de la glándula parótida derecha y cambios en la integridad de la mucosa yugal (figura 2).



Figura 2. Examen bucal

Se indican exámenes complementarios y de imagen (imagenológicos, biopsia, tomografía axial computarizada e inmunohistoquímica.)

Exámenes Complementarios

1. Conteo de plaquetas $300 \times 10^9/L$
2. Leucocitos: $5,3 \times 10^9/L$
3. Linfocitos: 29 %
4. Polimorfonucleares: 60 %
5. Eritrosedimentación: 5 mm/h
6. Glicemia: 4,7 mmol/L
7. TGP: 14 U/l
8. TGO: 24 U/l
9. Fosfatasa Alcalina: 132 U/l.
10. Proteínas totales: 70 g/l
11. Bilirrubina total: 5
12. Creatinina: 90 mmol/l
13. LDH 134: mmol/l
14. VHC, VHB, HIV, VDRL : Negativo

Se realizó estudio imagenológico simple mediante ultrasonido, donde se constata la glándula involucrada por imagen heterogénea, de bordes irregulares, hiperdensa y conducto excretor engrosado, con lesiones a expensas de su pared.

En la tomografía axial computarizada contrastada de cuello y tórax se identificó aumento de volumen nodular en región parotídea derecha, bordes irregulares, compromiso del VII par craneal, sin compromiso óseo a definir mediante PET-TAC.

Se realizó biopsia por aspiración con aguja fina en concordancia con el ultrasonido inicial y mostró neoplasia epitelial (oncocítica), con ausencia de contenido linfoide. Las células neoplásicas mostraron positividad para los marcadores GCDFP-15 y CK34betaE12 y negatividad para Galectina-3, S100 y P63. Se observó infiltración perineural, infiltración vascular e infiltración ósea en hemimandíbula derecha. Los estudios realizados hasta ese momento permitieron definir que el paciente presentaba un carcinoma ductal de parótida.

Se determina realizar PET-TAC que confirmó la presencia de adenopatías locoregionales < 6cm, la toma del borde posterior de la rama mandibular derecha aunque se descartó la presencia de metástasis a distancia. La estadificación tumoral fue T4N2M1.

Se indicó parotidectomía total derecha con hemimandibulectomía derecha y vaciamiento ganglionar cervical. Además, como tratamiento de soporte y complementario, radioterapia.

DISCUSIÓN

El carcinoma ductal de las glándulas salivales es un adenocarcinoma muy poco frecuente generado a partir de las células del conducto excretor glandular. La incidencia publicada varía del 3-9 % de los tumores malignos de glándulas salivales, sin embargo, es difícil determinar la verdadera tasa de incidencia de este tumor, ya que no ha sido reconocido en numerosas series o ha podido ser confundido con otros tumores debido al poco conocimiento que existe sobre él.^(1,7)

Generalmente surgen de novo, aunque existen casos desarrollados a partir de un adenoma pleomorfo y con menor frecuencia a partir de un adenocarcinoma de bajo grado. Se manifiesta como una masa dolorosa, frecuentemente asociada con paresia/parálisis del nervio facial.

Se han descrito casos en pacientes jóvenes y en localizaciones distintas a las glándulas salivales, como es la laringe y los senos paranasales. Sin embargo, su presentación más común es en varones de 50 a 60 años con afectación en la glándula parótida. El hallazgo en TC de calcificaciones tumorales puede ser sugestivo de CDS en un 33 % de los casos. La RM ayuda a valorar signos que sugieren malignidad como son los márgenes mal definidos y la comedonecrosis. Es aconsejable realizar PET-TC para el diagnóstico y seguimiento de posibles metástasis a distancia.^(8,9)

La principal causa de muerte son las metástasis a distancia en pulmón y hueso, aunque se han descrito casos con supervivencia superior a 10 años, en los que se puede decir que existe criterio de curación de enfermedad. Existe controversia en cuanto a los factores de mal pronóstico, aunque destacan el tamaño tumoral y la afectación ganglionar, seguidos por las metástasis a distancia y la expresión del *Her-2/neu*.^(10,11)

Histológicamente, el CDS se caracteriza por su gran similitud con el carcinoma ductal de mama, con áreas de invasión y áreas de carcinoma intraductal. El patrón intraductal presenta distintos tipos de crecimiento, como son el cribiforme, el papilar y el sólido, generalmente asociado a áreas de comedonecrosis central.⁽¹²⁾ El invasivo presenta un estroma desmoplásico, inmunohistoquímicamente presenta fuerte positividad para el AR y para citoquinas.^(13,14)

En cuanto al tratamiento, se recomienda realizar parotidectomía total con vaciamiento cervical ipsilateral, radioterapia y quimioterapia. En casos avanzados con metástasis a distancia, existen estudios que muestran favorables resultados tras tratamiento con trastuzumab, un anticuerpo monoclonal selectivo para *Her-2/neu*, que también se expresa en el carcinoma ductal de mama.⁽¹⁵⁾

Para completar el estudio de extensión la prueba ideal es el PET-TAC que mostrará un tumor altamente metabólico en el área parotídea y que nos puede localizar metástasis regionales y a distancia.⁽⁶⁾

Para realizar diagnóstico de carcinoma ductal de parótida, necesitaremos una confirmación histopatológica con las características anteriormente descritas. La muestra se puede obtener mediante punción-aspiración con aguja fina, pero para un diagnóstico definitivo necesitaremos realizar exéresis de la muestra mediante cirugía.

Dadas las características agresivas de este tumor el tratamiento de elección es la parotidectomía radical (con o sin preservación del nervio facial) asociada a vaciamiento ganglionar cervical ipsilateral y radioterapia.⁽⁷⁾ La radioterapia está indicada en caso de presencia de características histopatológicas de mal pronóstico como márgenes quirúrgicos positivos, invasión linfática o perineural y extensión extraparotídea.⁽¹²⁾

CONCLUSIONES

El carcinoma ductal de parótida es un tumor maligno de características agresivas, y que en la mayoría de pacientes se diagnostica en estadios avanzados. Tiene unas características histopatológicas específicas, los pacientes con carcinoma ductal a pesar del tratamiento con parotidectomía, vaciamiento cervical y radioterapia postoperatoria, una gran proporción de pacientes desarrollan recurrencia local y a distancia, por lo que un diagnóstico oportuno puede garantizar una mayor sobrevida para el paciente.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. ANDREADIS D et al. Detection of C-KIT (CD117) molecule in benign and malignant salivary gland tumours. *Oral Oncol* [Internet] 2006 [citado 03/05/2024]; 42 (1): 57-65. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/16140564/>
2. EVESON JW et al. Tumours of the salivary glands. In: LEON BARNES, L. et al. (Ed.) *Pathology and genetics. Head and neck tumours. World Health Organization Classification of Tumours*. Lyon: IARC Press [Internet] 2008 [citado 03/05/2024]; 244. Disponible en: <https://publications.iarc.fr/Book-And-Report-Series/Who-Classification-Of-Tumours/Pathology-And-Genetics-Of-Head-And-Neck-Tumours-2005>
3. FANG X et al. Osteoclast-like giant cell tumor of the salivary gland. *Ann Diagn Pathol* [Internet] 2009 [citado 03/05/2024]; 13 (2): 114-8. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/19302960/>
4. Karaman E, Saritzali G, Kilic E, Korkut N, Enver O. Follicular dendritic cell sarcoma of the parotid

gland recurring 6 times within 12 years. *J Craniofac Surg.* [Internet] 2009 [citado 03/05/2024]; 20(6):2171-2. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/19884836/>

5. Liess BD, Hirschi S, Zitsch RP 3rd, Frazier S, Konrad A. Carcinosarcoma of the parotid gland: report of a case with immunohistochemical findings. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* [Internet] 2007 [citado 03/05/2024]; 116(9):702-4. Disponible en: doi: 10.1177/000348940711600913. PMID: 17926594.

6. QURESHI, A. True malignant mixed tumor of parotid. *J Coll Physicians Surg Pak* [Internet] 2007 [citado 03/05/2024]; 17 (11): 697-8. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/18070582/>

7. Staffieri C, Marioni G, Ferraro SM, Marino F, Staffieri A. Carcinosarcoma de novo of the parotid gland. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* [Internet] 2007 [citado 03/05/2024]; 104(2):e35-40. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/17630097/>

8. Vékony H, Leemans CR, Ylstra B, Meijer GA, van der Waal I, Bloemena E. Salivary gland carcinosarcoma: oligonucleotide array CGH reveals similar genomic profiles in epithelial and mesenchymal components. *Oral Oncol* [Internet] 2009 [citado 03/05/2024]; 45(3):259-65. Disponible en: doi: 10.1016/j.oraloncology.2008.05.009. Epub 2008 Aug 6. PMID: 18693132.

9. Granell JL, Sánchez-Jara J, Gavilanes MJ Velasco, T Collazo, J Herrero, et al. Manejo de la enfermedad quirúrgica de la glándula parótida: revisión de 54 casos *Acta Otorrinolaringol Esp* [Internet] 2010 [citado 03/05/2024]; 61: 189-195. Disponible en: <https://pesquisa.bvsalud.org/portal/resource/pt/ibc-87756>

10. Wang WH, Wang CY, Bian L, Xia B, Hu YY, Xu B. Study about the clinical and pathological characteristics of salivary duct carcinoma. *Hua Xi Kou Yi Xue Za Zhi.* [Internet] 2010 [citado 03/05/2024]; 28:128-131. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/20480651>

11. Kaidar-Person O, Billan S, Kuten A. Targeted therapy with trastuzumab for advanced salivary ductal carcinoma: case report and literatura review *Med Oncol* [Internet] 2011 [citado 03/05/2024]. Disponible en: <https://www.springerlink.com/content/n04h473260149608/>

12. General Medical Council. Workplace Based Assessment: A Guide for Implementation. A GMC/AoMRC Guidance Paper [Internet] 2010 [citado 03/05/2024]. Available at: http://www.gmc-uk.org/Workplace_Based_Assessment-A_guide_for_implementation_0410.pdf_48905168.pdf.

13. Curriculum for the Foundation Years in Postgraduate Education and Training Foundation Programme Committee of the Academy of the Royal Colleges, in cooperation with Modernising Medical Careers in the Departments of Health. [Internet] 2013 [citado 03/05/2024]. Available at [http://www.mmc.nhs.uk/pages/foundation/Curriculum 2005](http://www.mmc.nhs.uk/pages/foundation/Curriculum%202005).

14. Mlika M, Kourda N, Zidi Y, Aloui R, Zneidi N, Rammeh S, Zermani R and Jilani S. Salivary duct carcinoma of the parotid gland. *J Oral Maxillofac Pathol.* [Internet] 2012 [citado 03/05/2024]; 16(1):134-6. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3303509/>

15. Kristensen RN, Hahn CH. Facial nerve palsy caused by parotid gland abscess. *J Laryngol Otol* [Internet] 2012 [citado 03/05/2024]; 126: 322-4. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/22017803/>

16. D'Heygere E, Meulemans J, Vander Poorten V. Salivary duct carcinoma. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* [Internet] 2018 [citado 03/05/2024]; 26(2):142-151. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/29373327/>

17. Nijim-Nijim H, Díez-González L, Elhendi-Halawa W. Adenocarcinoma ductal de parótida. *An Orl Mex.* [Internet] 2015 [citado 03/05/2024]; 60:261-264. Disponible en: <https://www.revista-portalesmedicos.com/revista-medica/carcinoma-ductal-de-parotida-a-proposito-de-un-caso-clinico/>

CONFLICTOS DE INTERESES

Los autores declaran que no existe conflicto de intereses.

FINANCIACIÓN

Los autores no recibieron financiación para el desarrollo de la presente investigación.

CONTRIBUCIÓN DE LOS AUTORES

Conceptualización: Jadier Wong-Silva, Lucien Gregoria Bory-Porras, Mario Ramírez-Gómez.

Análisis formal: Jadier Wong-Silva, Lucien Gregoria Bory-Porras, Mario Ramírez-Gómez.

Redacción - borrador inicial: Jadier Wong-Silva, Lucien Gregoria Bory-Porras, Mario Ramírez-Gómez.

Redacción - revisión y edición: Jadier Wong-Silva, Lucien Gregoria Bory-Porras, Mario Ramírez-Gómez.