

## ADENOMA CANALICULAR MÚLTIPLO: RELATO DE CASO

*Ana Carolina Lyra de Albuquerque<sup>1\*</sup>; Maria Sueli Soares<sup>2</sup>; Lino João da Costa<sup>2</sup>; Daniel Furtado Silva<sup>3</sup>; Bruna Rafaela Santana de Oliveira<sup>4</sup>; Thales de Figueiredo Costa Marinho<sup>4</sup>.*

1. Doutora em Diagnóstico Bucal. Centro de Saúde e Tecnologia Rural. Universidade Federal de Campina Grande (CSTR-UFCG). \*Correspondência: Rua Santa Cavalcante, 169, Praia do Poço- Cabedelo (PB). CEP: 58310-000.
2. Doutor(a) em Diagnóstico Bucal. Universidade Federal da Paraíba (UFPB)
3. Pós-Graduando em Implantodontia do Centro de Estudos e Pesquisas.
4. Graduandos em Odontologia (CSTR-UFCG).

### RESUMO

Trata-se, o Adenoma Canalicular, de um tumor benigno, raro, de glândulas salivares e intraoral que acomete, com mais frequência, o lábio superior. Apresenta aspecto clínico de massa nodular com crescimento lento, normalmente limitado, atingindo, no máximo, 2 cm, sendo uma lesão normalmente única e raramente aparece como lesão múltipla. No exame histopatológico, o adenoma canalicular se caracteriza pela presença de cordões de células epiteliais cuboides e colunares, os quais podem estar organizados em bicamadas de células, formando, entre si, estruturas semelhantes a ductos ou lúmen, havendo ainda a presença de espaços císticos grandes e periféricos. A essa lesão é atribuído um prognóstico normalmente bom, com tratamento baseado em excisão cirúrgica e acompanhamento do caso, com pouca probabilidade de recidiva. Este trabalho tem como objetivo relatar um caso incomum de Adenoma Canalicular Múltiplo de lábio superior e em mucosa jugal.

**Descritores:** Adenoma; lábio; mucosa bucal

### MULTIPLE CANALICULAR ADENOMA: CASE REPORT

#### ABSTRACT

Canalicular adenoma is rare benign tumor of intraoral, salivary glands that occur more frequently on the upper lip. The canalicular adenoma presents clinical aspect of nodular mass with slow growth, normally limited, reaching 2 cm at the most, being a unique injury rarely appearing as multiple. In histopathology, this injury is characterized by strands of cuboidal epithelial cells and columnar cells that can be organized in bilayers of cells forming similar structures among themselves, having the presence of large, peripheral cystic spaces. A good prognostic is normally attributed to this injury, with treatment based on surgical removal and monitoring the case, with little probability of relapse. The purpose of this article is to report an uncommon case of Multiple Canalicular Adenoma of upper lip in the oral mucosa.

**Keywords:** Adenoma; lip; buccal mucosa.

### INTRODUÇÃO

O Adenoma Canalicular (AC) é um tumor incomum que, em 1983, teve sua classificação elucidada, visto que, até então, era confusa entre os autores. Essa lesão é de caráter benigno e geralmente acomete glândulas salivares menores. Sua predileção é pelo lábio superior, acometendo essa localidade em 70% dos casos, sendo seguido por

mucosa jugal e palato (1). Ocorre quase sempre em pessoas que têm, aproximadamente, 70 anos e há predominância entre pessoas do gênero feminino (2-4).

Clinicamente, essa lesão se apresenta como massa tumoral indolor, firme, com pequena flutuação, coloração normal da mucosa, ou azulada, geralmente confinado em tecido mole, raramente apresenta erosão óssea ou úlceras na mucosa que reveste a lesão. Apresenta crescimento lento e tamanho que varia de alguns milímetros a 2cm (1,5,6). De maneira mais frequente, aparece como uma lesão solitária, e poucos casos de AC múltiplos foram descritos na literatura (1,5,7). Como tratamento, preconiza-se a excisão cirúrgica local conservadora, sendo o prognóstico excelente e as recidivas são raras. Se novos tumores apresentarem recidivas reais ou desenvolvimento multifocal ainda é difícil de se verificar tal doença (1,3).

No exame histopatológico essa lesão pode ou não se apresentar revestida por cápsula fibrosa (3). Há presença de cordões de células epiteliais cuboides e colunares organizadas em bicamadas com presença de grandes espaços císticos e em forma de lúmen, sustentados por estroma de tecido conjuntivo frouxo e pouco fibrilar, pouco celular e muito vascularizado (1,3,5,7). Ocasionalmente, o tumor é circundado por uma fina cápsula fibrosa ou apresenta úlceras na mucosa que reveste a lesão (3, 8).

Um estudo comprovou o fato de que existem alguns fenótipos diferentes do fenótipo histopatológico normal, com presença de células mucosas, células semelhantes a células apócrinas, células pigmentadas e macrófagos (8). No exame imunohistoquímico é verificada a presença de algumas Citoqueratinas (CKs) características para AC e negatividade para expressão de vimentina (1, 7, 9).

O AC não é uma lesão que apresente grande potencial de transformação maligna, normalmente os exames histopatológicos não mostram atipias celulares, mitoses atípicas, invasão de nervos por parte das células do tumor linfadenomegalia, nem metástases. Se houver transformação maligna, o exame imunohistoquímico será positivo para a expressão de vimentina (1,3). Por conseguinte, este trabalho pretende fazer um relato de caso de AC múltiplo bilateral em lábio superior e em mucosa jugal.

## **RELATO DE CASO**

Paciente, sexo feminino, 78 anos, melanoderma, fumante, referiu a presença de lesão na mucosa jugal esquerda com 1cm em seu maior diâmetro (Figura 1).



**Figura 1:** Lesão na mucosa jugal esquerda

No exame clínico também foram constatadas duas lesões em lábio superior, sem sintomatologia dolorosa, firmes à palpação, com leve flutuação, e com as seguintes dimensões: de 5 mm e 3 cm (Figura 2).



**Figura 2:** Lesões em lábio superior, sem sintomatologia dolorosa, firmes à palpação, com leve flutuação, de tamanhos de 5mm e 3cm.

A mucosa apresentou aspecto normal, sem eritema, com crescimento de aproximadamente 8 meses. Após o diagnóstico provável, sugeriu-se uma lesão glandular (Figura 3).



**Figura 3:** A mucosa que recobria as lesões era dotada de aspecto normal e sem eritema.

Após avaliação clínica, realizou-se biópsia excisional das duas lesões em lábio superior, mediante anestesia local infiltrativa; o material coletado fora encaminhado para exame histopatológico.

No laudo histopatológico foi verificada a presença de camada única de cordões de células epiteliais colunares e cuboidais, com núcleos fortemente basofílicos, que envolviam estruturas ductais ou lumenformes. Em algumas áreas, foi possível observar duplas camadas dos cordões do tumor. Grandes espaços císticos foram detectados, onde o epitélio exibia projeções papilares em direção ao lúmen. O suporte da lesão era um estroma de tecido conjuntivo frouxo com proeminente vascularização, poucos fibroblastos e fibras colágenas. Logo, o diagnóstico de AC foi confirmado após realização, também, de biópsia da lesão em mucosa jugal e confirmação por meio do exame histopatológico.

## DISCUSSÃO

A partir de 1977, alguns casos de tumores semelhantes ao AC começaram a ser relatados, de modo que a nomenclatura era baseada em termos e conhecimentos da época (3,5). Por causa disso, como foi mencionado anteriormente, a classificação do AC foi, até 1983, bastante debatida, de modo que era utilizada como sinônimo de Adenoma de Células Basais e até dividido em Adenoma de Células Basais tipo Canalicular e Adenoma de Células Basais tipo Ductal, entre outros termos que lhe foram atribuídos.

Dentro desse contexto, em 1983, pesquisadores observaram que Adenoma Monomórfico, Adenoma Canalicular e Adenoma de Células Basais eram entidades distintas (10). Para consolidar tal afirmação também a Organização Mundial de Saúde (OMS) considerou assim, mencionando, ainda, que a diferenciação dessas lesões pode ser feita a partir do padrão de imunohistoquímico que cada uma apresenta (3,9).

Sendo assim, sabe-se que a comparação do padrão imunohistoquímico dessas lesões se embasa na investigação da expressão de vimentina e citoqueratinas (CKs) 7, 8, 13, 14, 18 e 19. No caso de AC, a maioria das células expressa CKs 7, 13 e 19, ao passo em que poucos grupos de células, uniformemente distribuídas, são positivas para CK 14. CKs 8 e 18 são expessas focalmente. Para vimentina, o AC se mostra negativo (1, 9, 7).

Investigações prévias têm descrito fenótipos estruturais para o Adenoma Canalicular salivar, e afirmam que o AC tenta, de alguma forma, mimetizar a função das glândulas salivares. De acordo com estudo realizado que examinou espécimes de AC oriundos de 15 pacientes utilizando-se de histologia, histoquímica para proteína, mucosubstâncias e pigmentos, evidenciação de nervo e imunocitoquímica para os componentes do citoesqueleto, foram reconhecidos fenótipos distintos do padrão fenotípico habitual, que se refere ao aspecto histopatológico descrito anteriormente. Neste estudo foram verificados fenótipos de variados tipos celulares (8).

Apesar de ser considerada uma lesão rara, especialmente quando se manifesta com aspecto multifocal, relatos de casos de AC multifocal ou em lesão única têm sido feitos. No ano de 1995, pesquisadores relataram o caso de uma paciente com 75 anos de idade que apresentou lesão com aspecto clínico de AC em lábio superior cuja remoção cirúrgica foi feita e, meses depois, houve duas recorrências seguidas em fundo de vestibulo próximo à região dos dentes pré-molares. No caso, não foi observada nenhuma alteração maligna, de modo que hemograma e radiografias apresentaram padrões normais, e as recorrências da lesão cessaram no prazo de 3 anos (11). No caso descrito neste artigo, a paciente tinha 78 anos de idade, e apresentava lesão em lábio superior corroborando com as características clínicas apresentadas por boa parte das lesões de AC descritos na literatura.

Há relato na literatura de um trabalho inédito de AC bilateral em glândula parótida, em um homem de 26 anos de idade no qual foi realizado parotidectomia (4). Apesar de não apresentar um caráter agressivo, pesquisadores fizeram menção de um caso de AC em palato duro de crescimento de 3 a 4 meses em paciente do sexo masculino, 74 anos,

portador de prótese dental mal adaptada devido a uma lesão em palato. Foi visto, em tomografia, que o tumor havia invadido o seio maxilar e causado destruição óssea adjacente significativa (6).

Publicou-se um caso de AC em lábio superior que se apresentava como dois nódulos. O exame histopatológico mostrou que os dois nódulos possuíam, cada um, suas respectivas cápsulas, de modo que elas ainda apresentavam extensão para os tecidos de glândulas salivares que estavam saudáveis. Não foi verificada a presença de mitoses atípicas, nem atipia celular ou invasão perineural, e os achados imunohistoquímicos eram característicos de Adenoma Canalicular. Foi feita a remoção cirúrgica das lesões e não foram relatadas recidivas (7). No caso relatado, foi verificada, no laudo histopatológico, a presença de camada única de cordões de células epiteliais colunares e cuboidais em algumas áreas, sendo possível observar duplas camadas dos cordões do tumor, e o suporte da lesão era um estroma de tecido conjuntivo frouxo com proeminente vascularização, poucos fibroblastos e fibras colágenas.

### **CONSIDERAÇÕES FINAIS**

Apesar de ser uma lesão incomum, o AC múltiplo ocorre em indivíduos de idade mais avançada, na qual, mesmo possuindo uma característica de lesão normalmente inócua, pode apresentar-se com alto grau de agressividade e invadir tecidos adjacentes.

A adequação e elucidação da nomenclatura do AC foram, sem dúvida, de grande valia para o estudo dessas lesões. Com relação ao caráter pré-maligno da lesão, é sugerida a elaboração de mais estudos e pesquisas que esclareçam tal informação.

É importante o conhecimento das características e comportamento da lesão, do tratamento adequado e dos meios disponíveis para o diagnóstico para que o paciente seja beneficiado. O diagnóstico final é obtido por exame histopatológico, sendo interessante o conhecimento de lesões com diagnóstico diferencial como, por exemplo, a mucocele, com a finalidade de que o tratamento possa ser escolhido e efetuado corretamente. Vale salientar que, por envolver de modo mais comum o lábio superior, essa lesão tem um comprometimento estético, de modo que é imprescindível que seja realizado o tratamento mais conservador possível.

**REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS**

1. Queiroz LM, Silveira EJ, Silva AML, Ramos CC. Arare salivary gland neoplasm: multiple canalicular adenoma. *Acase report. Auris Nasus Larynx* 2004;31:189-93.
2. Wang D, Li Y, He H, Liu L, Wu L, He Z. Intraoral minor salivary gland tumors in a Chinese population: a retrospective study on 737 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod China* 2007;104:94-100.
3. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. *Oral and maxillofacial pathology*. Philadelphia: Saunders; 2009.
4. Liess B, Lane R.V.; Frazier S. ; Zitsch R.P. Bilateral Canalicular Adenoma of the Parotid Gland. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2006;132:339-341.
5. Rousseau A, Mock D, Dover DG, Jordan RCK. Multiple canalicular adenomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1999;87:346-50.
6. Smullin SE, Fielding AF, Susarla SM, Pringle G, Eichstaedt R. Canalicular adenoma of the palate: Case report and literature review *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2004;98:32-6.
7. Yoon AJ, Beller DE, Woo VL, Pulse CL, Park A, Zegarelli DJ. Bilateral canalicular adenomas of the upper lip. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2006;102:341-3.
8. Triantafyllou AP, Scott J. Phenotypes in canalicular adenoma of human minor salivary glands reflect the interplay of altered secretory product, absent neuro-effector relationships and the diversity of the microenvironment. *Histopathology* 1999, 35, 502–516.
9. Sousa S.O.M., Melhado R.M., Araujo N.S, Araujo V.C.. Immunohistochemistry of basal cell adenoma (monomorphic type) and canalicular adenoma of minor salivary glands. University of São Paulo. Brazil. *Oral Surgery Oral Medicine Oral Pathology*. October. 1995.
10. Gardner DG, Daley TD. The use of the terms monomorphic adenoma, basal cell adenoma, and canalicular adenoma as applied to salivary gland tumors. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1983;56:608-15.
11. Nelson ZLL, Newman RA, Loukota DM, Williams. Bilateral multifocal canalicular adenomas of buccal minor salivary glands: a case report. *British journal of oral and maxillofacial surgery*. (1995) 33, 299-301.

**Recebido:** abril / 2012

**Aceito:** maio / 2012