



## **Artículo Aceptado para su pre-publicación / Article Accepted for pre-publication**

### **Título / Title:**

Sialometaplasia necrotizante: una entidad simuladora. / Necrotizing sialometaplasia: a simulating entity.

### **Autores / Authors:**

Álvaro Gutiérrez Domingo, Pilar Toledano Valero, Erika Olmos Juárez

DOI: [10.20986/recom.2020.1118/2020](https://doi.org/10.20986/recom.2020.1118/2020)

### **Instrucciones de citación para el artículo / Citation instructions for the article:**

Gutiérrez Domingo Álvaro, Toledano Valero Pilar, Olmos Juárez Erika.  
Sialometaplasia necrotizante: una entidad simuladora. / Necrotizing sialometaplasia: a simulating entity.. j.maxilo 2020. doi: 10.20986/recom.2020.1118/2020.



Este es un archivo PDF de un manuscrito inédito que ha sido aceptado para su publicación en la *Revista Española de Cirugía Oral y Maxilofacial*. Como un servicio a nuestros clientes estamos proporcionando esta primera versión del manuscrito en estado de prepublicación. El manuscrito será sometido a la corrección de estilo final, composición y revisión de la prueba resultante antes de que se publique en su forma final. Tenga en cuenta que durante el proceso de producción se pueden dar errores, lo que podría afectar el contenido final. El copyright y todos los derechos legales que se aplican al artículo pertenecen a la *Revista Española de Cirugía Oral y Maxilofacial*.

## **SIALOMETAPLASIA NECROTIZANTE: UNA ENTIDAD SIMULADORA**

### **NECROTIZING SIALOMETAPLASIA: A SIMULATING ENTITY**

**Álvaro Gutiérrez-Domingo<sup>1</sup>, Pilar Toledano-Valero<sup>2</sup> y Erika Olmos-Juárez<sup>2</sup>**

*<sup>1</sup>Unidad de Gestión Clínica de Anatomía Patológica, Hospital Universitario Virgen Macarena. Sevilla, España. <sup>2</sup>Unidad de Gestión Clínica de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital Universitario Virgen Macarena. Sevilla, España*

#### **CORRESPONDENCIA:**

Álvaro Gutiérrez-Domingo  
agutierrezdomingo@gmail.com

#### **RESUMEN**

La sialometaplasia necrotizante es una condición inflamatoria, benigna y autolimitada, simuladora de entidades malignas. Exponemos el caso de un paciente de 24 años de edad, fumador y bulímico, que presenta dos lesiones ulceradas con fondo eritematoso en el paladar duro con resolución espontánea.

**Palabras clave:** Sialometaplasia necrotizante, isquemia, carcinoma.

#### **ABSTRACT**

Necrotizing sialometaplasia is a self-limiting, benign inflammatory condition simulating malignant entities. We expose the case of a 24-year-old smoker and bulimic patient, who presented two ulcerated lesions with an erythematous fundus on the hard palate with spontaneous resolution.

**Keywords:** Necrotizing sialometaplasia, ischemia, carcinoma.

## **INTRODUCCIÓN**

La sialometaplasia necrotizante, descrita por primera vez por Abrahams y cols.<sup>1</sup> en 1973 y por Dunlap y Barker<sup>2</sup> en 1974, es una condición metaplásica reactiva del tejido de la glándula salival menor que se observa típicamente en el contexto de una lesión, química o traumática, no neoplásica y autolimitada<sup>3</sup>. Presenta una mayor predilección por el sexo masculino con una edad media de presentación de 50 años. La localización característica es en zonas donde existan glándulas salivales menores, sobretodo en el paladar duro o en el límite entre paladar duro y blando, siendo la afectación típicamente unilateral, aunque, de manera ocasional, puede presentarse de manera bilateral o en la línea media. Con mucha menos frecuencia, puede ocurrir en otras localizaciones de la cavidad oral, glándulas salivares mayores o senos paranasales. La etiología de esta entidad no está del todo aclarada, aunque la literatura sugiere como origen del proceso una isquemia de los vasos sanguíneos que llevaría a un infarto del tejido y necrosis. Posteriormente se produciría un proceso inflamatorio con reparación y finalmente cicatrización. Algunos de los factores involucrados en esa alteración vascular serían: traumatismos directos locales, anestésicos locales asociados a vasoconstrictores, vómitos violentos, radioterapia, consumo de tabaco, cocaína, etc. Inicialmente, se presenta como una tumefacción del área afectada y evoluciona a una úlcera de aspecto crateriforme asociado a dolor y entumecimiento<sup>4</sup>. No requiere tratamiento, ya que se trata de un proceso autolimitado. El objetivo de nuestro trabajo es establecer el diagnóstico diferencial de esta entidad, en base a la clínica y a los hallazgos histopatológicos ya que, a pesar de ser un proceso muy poco frecuente, hay que tenerlo siempre presente por su posible confusión con neoplasias malignas.

## **CASO CLÍNICO**

Un varón de 24 años de edad acude al servicio de Urgencias de Cirugía Oral y Maxilofacial de nuestro hospital derivado por su médico de familia por presentar una lesión en el paladar de 6 días de evolución, muy dolorosa. El paciente no refería ninguna sintomatología asociada. Como antecedentes, destacaba hábito tabáquico y

bulimia nerviosa.

En la exploración física se observó una lesión ulcerada en el paladar duro izquierdo con fondo eritematoso de 1 cm aproximadamente. Se realizó una biopsia-punch bajo anestesia local sin vasoconstrictor, se pautó tratamiento analgésico a demanda y se citó para revisión a los 10 días. En la biopsia, que no fue concluyente ya que era material escaso, se observaron nidos de células escamosas con atipia en un fondo inflamatorio. Esto orientaba a un carcinoma de células escamosas ulcerado pero, dada la edad del paciente y la muestra escasa, se realizó una nueva toma de biopsia. Transcurridos los 10 días, el paciente presentaba una clara progresión. Se advirtió una lesión ulcerada, “crateriforme”, de 1,3 cm que se extendía hacia línea media (Figura 1A) y en el lado derecho se apreció, de reciente aparición, otra lesión eritematosa, con principio de ulceración, de 0,5 cm aproximadamente. Además, el paciente refería cada vez más dolor. Se volvió a realizar una toma de biopsia, esta vez biopsia incisional, de la lesión de mayor tamaño, bajo anestesia local, sin vasoconstrictor para evitar necrosis y llegando a plano subperióstico. En la biopsia, según Anatomía Patológica, se observó un gran proceso inflamatorio agudo y crónico con una necrosis coagulativa de los acinos salivares que mantenía una arquitectura lobulada. Además, se apreció metaplasia escamosa de las estructuras ductales y una hiperplasia pseudoepiteliomatosa de la epidermis (Figura 2). Los nidos de células escamosas presentaban atipia citológica de carácter reactivo. Todo esto era compatible con una sialometaplasia necrotizante. Transcurridas dos semanas, la lesión ulcerosa había aumentado de tamaño en lado izquierdo, pero se encontraba en inicio de resolución, observando la formación de tejido nuevo en el fondo de la úlcera y la lesión del lado derecho también se encontraba en inicio de resolución (Figura 1B), remitiendo las lesiones de ambos lados por completo a la sexta semana.

## **DISCUSIÓN**

Aunque la etiología de esta entidad es desconocida, el compromiso vascular de una glándula salivar conduce a la necrosis isquémica de la misma. Esto puede deberse a traumatismos por diversas causas: anestésicos locales, radioterapia, consumo de

tabaco, vómitos de repetición, etc. La bulimia nerviosa se ha relacionado con la sialometaplasia necrotizante en numerosos estudios<sup>5</sup>. La mayoría de los autores aceptan una interrupción de la irrigación sanguínea a una glándula menor como origen de la lesión<sup>6</sup>. En nuestro caso, el paciente era consumidor habitual de tabaco y padecía bulimia nerviosa. Ambos factores podrían haberse potenciado mutuamente y originar la lesión.

Para el diagnóstico de sospecha es fundamental la edad del paciente, antecedentes personales y la exploración clínica. Como curiosidad del caso, nuestro paciente presentaba lesiones bilaterales, siendo lo más frecuente la unilateralidad.

La confirmación diagnóstica requiere de la toma biopsia, siendo las características histológicas comunes para los autores las siguientes: metaplasia escamosas de los conductos y acinos, necrosis de coagulación de los lóbulos, arquitectura lobular conservada<sup>7</sup> y la presencia de un tejido de granulación con un infiltrado inflamatorio mixto con hiperplasia pseudoepiteliomatosa del epitelio de superficie. Es importante recalcar también la importancia de la tomografía axial computerizada (TAC) en el diagnóstico y manejo de la lesión. Además de darnos información sobre la lesión, la evolución de la ulceración, y si existe erosión ósea o no, también puede resaltar ganglios linfático cervicales que nos hagan sospechar una entidad maligna. Por todo esto, el TAC se ha convertido en el gold estándar en el diagnóstico y manejo de esta entidad<sup>8</sup>.

Como diagnóstico diferencial hay que tener en cuenta que la sialometaplasia necrotizante es enfermedad "simuladora". Como principales diagnósticos diferenciales debido a su importancia sería, en primer lugar, con el carcinoma de células escamosas<sup>9</sup>, ya que los nidos de células escamosas pueden simular un carcinoma, aunque habría otras características histológicas que nos permitirían diferenciarlos y con el carcinoma mucoepidermoide. Además sería necesario introducir entre los posibles diagnósticos diferenciales otras entidades malignas de glándula salivares menores, como el carcinoma de células acinares, el adenocarcinoma polimorfo de bajo grado o el linfoma T angiocéntrico y procesos benignos como la enfermedad de Crohn, sífilis, tuberculosis, mucormicosis, abuso de cocaína, enfermedad de Wegener entre otras<sup>10</sup>.

En nuestro caso, en la primera biopsia tomada, únicamente estaban representados dos componentes de esta entidad: nidos escamosos atípicos y el infiltrado inflamatorio. Esto sugería un carcinoma de células escamosas, pero en la nueva biopsia se observaron ya todos los componentes de esta entidad comentados y pudo descartarse un proceso neoplásico maligno. Además, la evolución del paciente nos reafirmó el diagnóstico.

Con respecto al tratamiento, los autores coinciden en un tratamiento expectante, ya que la lesión se regenera espontáneamente después de solventarse el proceso isquémico. Por tanto, la cirugía no tiene un papel relevante en esta entidad, utilizándose analgésicos y profilaxis antibiótica.

Para concluir, con la presentación de este caso queremos poner de manifiesto que la sialometaplasia necrotizante es una entidad benigna, autolimitada y “simuladora”. Esta última característica es determinante ya que, a pesar de su baja incidencia, hay que tenerla siempre presente y conocerla bien, debido a que nos puede llevar a diagnósticos erróneos, tanto de entidades benignas como de malignas. Por todo ello, es fundamental tener claro los criterios clínicos, patológicos y radiológicos definitorios de esta entidad y tener una buena comunicación entre cirujanos maxilofaciales y patólogos.

## **BIBLIOGRAFÍA**

1. Abrams AM, Melrose RJ, Howell FV. Necrotizing sialometaplasia. A disease simulating malignancy. *Cancer* 1973;32(1):130-5. DOI: 10.1002/1097-0142(197307)32:1<130::aid-cncr2820320118>3.0.co;2-8.
2. Dunlap CL, Barker BF. Necrotizing sialometaplasia. Report of five additional cases. *Oral Surgery, Oral Med. Oral Pathol.* 1974;37(5):722-7. DOI: 10.1016/0030-4220(74)90137-6.
3. Gadkaree SK, Fuller JC, Sadow PM, Deschler DG, Richmon JD. Necrotizing Sialometaplasia of the Hypopharynx. *Ear Nose Throat J.* 2019;98(9):NP138-NP141. DOI: 10.1177/0145561319840826.

4. Kaplan I, Alterman M, Kleinman S, Reiser V, Shuster A, Dagan Y, et al. The clinical, histologic, and treatment spectrum in necrotizing sialometaplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol.* 2012;114(5):577-85. DOI: 10.1016/j.oooo.2012.02.020.
5. Gilowski Ł, Wiench R, Polakiewicz-Gilowska A, Dwornicka K. Necrotizing sialometaplasia of the palatal mucosa in patient with history of anorexia: review and case report. *Am J Otolaryngol.* 2014;35(3):400-1. DOI: 10.1016/j.amjoto.2014.03.001.
6. Penner CR, Thompson LDR. Necrotizing sialometaplasia. *Ear Nose Throat J.* 2003;82(7):493-4.
7. Kandula S, Manjunatha BS, Tayee P, Astekar M. Bilateral necrotising sialometaplasia. *BMJ Case Rep.* 2016;2016. pii: bcr2015211348. DOI: 10.1136/bcr-2015-211348.
8. Suomalainen A, Törnwall J, Hagström J. CT findings of necrotizing sialometaplasia. *Dentomaxillofac Radiol.* 2012;41(6):529-32. DOI: 10.1259/dmfr/53649200.
9. Moreno García CM, Monje Gil F, Serrano Gil H, Maestre o, Villanueva Alcohol L, Ruiz Laza L, et al. Sialometaplasia necrotizante. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac.* 2008;30(4):286-90.
10. Bijai Kumar L, Muthukrishnan A, Gopalakrishnan S. Necrotising sialometaplasia at multiple sites: a therapeutic challenge to oral physicians. *BMJ Case Rep.* 2016;2016. pii: bcr2016216621. DOI: 10.1136/bcr-2016-216621.

**Figura 1. A. Lesión ulcerada, “crateriforme”, de 1,3 cm, que se extiende hacia línea media y lesión eritematosa con principio de ulceración, de 0,5 cm, en el lado derecho. B. Aumento de tamaño de la lesión del lado izquierdo, pero en inicio de resolución, observando la formación de tejido nuevo en el fondo de la úlcera. La lesión del lado derecho también se encontraba en inicio de resolución.**





Figura 2. A. A poco aumento, observamos una hiperplasia epitelial pseudoepiteliomatosa y un gran infiltrado inflamatorio agudo subepitelial (HE,4x). B. En esta imagen observamos la característica metaplasia escamosa de los ductos con inflamación alrededor (HE,10x). C. A mayor aumento, vemos un nido de metaplasia escamosa con atipia citológica (flecha) (HE,20x). D. En esta última imagen observamos, a poco aumento, el característico patrón lobulado que conservan los acinos salivares tras la necrosis (HE,4x).

