



Felipe Pontes Dobrachinski

ADENOMA CANALICULAR ENDOTRAQUEAL: PRIMEIRO CASO RELATADO

ENDOTRAQUEAL CANALIC ADENOMA: FIRST REPORTED CASE

Santa Maria - RS
2021



ADENOMA CANALICULAR ENDOTRAQUEAL: PRIMEIRO CASO RELATADO
ENDOTRAQUEAL CANALIC ADENOMA: FIRST REPORTED CASE

Trabalho final de graduação (TFG) apresentado ao Curso de Medicina, Área de Ciências da Saúde, da Universidade Franciscana - UFN, como requisito parcial para aprovação na disciplina TFG II.

Orientador: Leandro Almeida Streher

Santa Maria - RS
2021

RESUMO

Os adenomas canaliculares (AC) são neoplasias benignas originadas a partir das glândulas salivares menores, tem como sítio de maior frequência a cavidade oral. Dessa forma, esse trabalho visa relatar um caso inédito de apresentação endotraqueal em um paciente masculino, 61 anos, não tabagista, com dispneia progressiva com dois anos de evolução. A apresentação do caso (dispneia e sibilos) fez com que em uma primeira avaliação o paciente fosse manejado para asma; no entanto, não se obteve sucesso na terapia para tal patologia, visto que não se tratava de uma doença inflamatória brônquica, mas sim um tumor endotraqueal. Após ser realizada uma tomografia computadorizada (TC) de tórax, constatou-se que se tratava de uma lesão endobrônquica, que obstruía cerca de 90% da luz traqueal. Após confirmação via fibrobroncoscopia, o paciente foi submetido a uma ressecção endotraqueal sem complicações. O laudo histopatológico da biópsia elencou como hipótese diagnóstica o adenoma de glândulas mucosas; no entanto, ao analisar a peça cirúrgica, constatou-se que se tratava de um adenoma canalicular. Dessa forma, relatou-se uma apresentação endotraqueal de um tipo tumoral nunca antes descrito na literatura, bem como seu sucesso terapêutico.

Palavras-chave: Tumor endotraqueal; Ressecção intra-lumial; Adenoma Canalicular; Cirurgia Torácica; Broncoscopia; Patologia.

ABSTRACT

Canalicular adenomas (CA) are benign neoplasms originating from the minor salivary glands, with the oral cavity as the most frequent site. Thus, we report a rare case of endotracheal presentation in a male patient, 61 years old, non-smoker, with progressive dyspnea with two years of evolution. The presentation of the case (dyspnea and wheezing) meant that, in a first assessment, the patient was managed for asthma; however, therapy for such pathology has not been successful, since it was not a bronchial inflammatory disease, but an endotracheal tumor. After a chest computed tomography (CT) scan, it was found that it was an endobronchial lesion, which obstructed about 90% of the tracheal lumen. After confirmation via fibrobronchoscopy, the patient underwent an endotracheal resection without complications. The histopathological report of the biopsy listed as a diagnostic hypothesis the adenoma of mucous glands; however, when analyzing the surgical specimen, it was found that it was a canalicular adenoma. Thus, an endotracheal presentation of a tumor type never before described in the literature was reported, as well as its therapeutic success.

Keywords: Endotracheal tumor; Intra-luminal resection; Canalicular adenoma; Thoracic surgery; Bronchoscopy; Pathology.

SUMÁRIO

1 INTRODUÇÃO.....	4
2 RELATO DE CASO	5
3 DISCUSSÃO.....	9
5 CONCLUSÃO.....	11
REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS	12

1 INTRODUÇÃO

Adenoma canalicular (AC) é uma neoplasia epitelial benigna incomum originada a partir de glândulas salivares menores, que apesar de representar menos de 1% dos tumores das glândulas salivares, é o segundo ou terceiro tumor benigno mais frequente de glândulas salivares menores (SAMAR et. al. 2014; WANG et. al. 2015). Aparecem entre os 50 e 80 anos com maior incidência na sétima década de vida. Há uma maior predominância no sexo feminino com uma frequência de 2:1 (YUCE et. al. 2012; YRALIK et. al. 2013). Os locais relatados de aparecimento desse tipo tumoral são o lábio superior (em cerca de 80% dos casos), palato (em torno de 10%), mucosa da boca, parótida, esôfago, mandíbula, língua, seio maxilar (SIQUEIRA et. al. 2013; THOMPSON et. al. 2014). Sua estrutura histopatológica é composta por células epiteliais monomórficas colunares ou cuboidais, dispostas em fios e duplas bicamadas em estroma solto e relativamente fibroso, com ou sem cápsula de tecido conectivo (ARGYRIS et. al. 2014). Visto que não há nenhum caso relatado de AC endotraqueal, sendo este o primeiro, o objetivo desse trabalho é relatar um caso de adenoma canalicular com apresentação endotraqueal rara englobando seu aspecto clínico, histológico, diagnóstico e abordagem terapêutica preconizada.

2 RELATO DE CASO

Paciente masculino, branco, 61 anos, não tabagista, trabalha no setor administrativo de uma empresa. Foi levado à emergência de um hospital secundário por um quadro progressivo de dispneia com 2 anos de evolução. Apresentava estridor com o mesmo tempo de evolução. Nos últimos meses apresentou uma leve tosse purulenta; contudo, sem história de pneumonia neste período. Negou outros sintomas. Nessa internação, a primeira hipótese diagnóstica foi asma, sendo manejado para tal sem sucesso. Um parecer ao Pneumologista foi solicitado.

Após avaliar o paciente o pneumologista solicitou uma tomografia computadorizada (TC) de tórax, que demonstrou uma lesão endotraqueal ocluindo em torno de 90% do diâmetro da traqueia (as imagens podem ser observadas nas figuras 1 e 2). Após avaliar a TC uma fibrobroncoscopia foi solicitada.

Figura 1: tomografia de tórax, em janela de pleura, demonstrando lesão endotraqueal no terço distal, ocluindo cerca de 90% da luz traqueal.

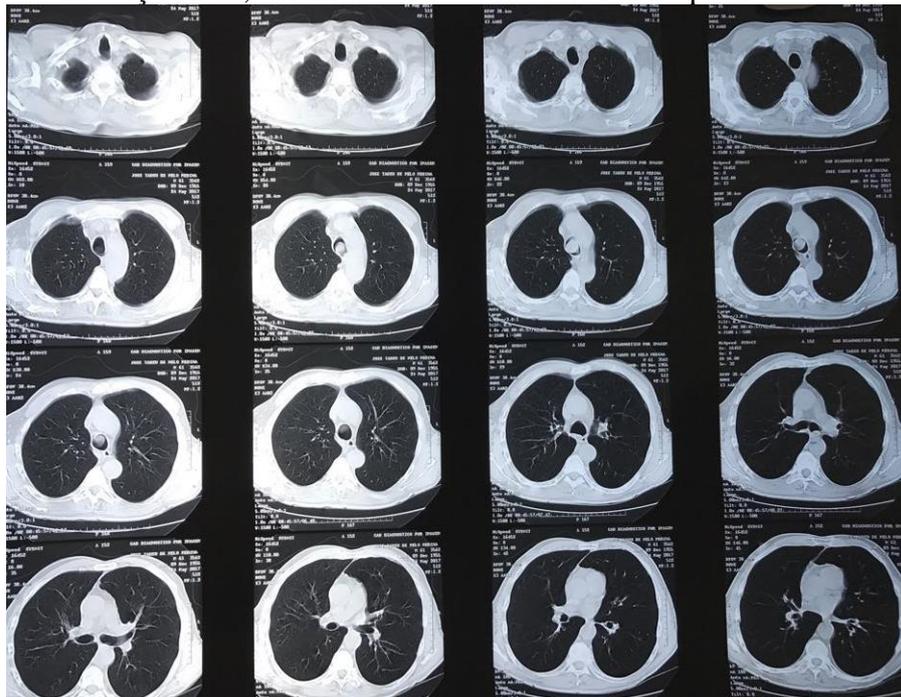
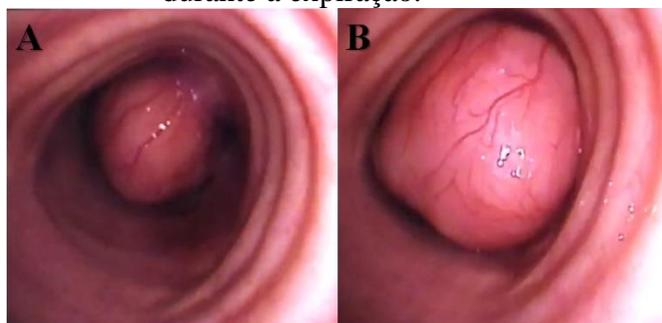


Figura 2: tomografia de tórax, em janela de mediastino, demonstrando lesão endotraqueal.



O paciente foi transferido para o hospital, onde foi realizada uma fibrobroncoscopia, a qual reafirmou a presença de uma lesão polipoide endotraqueal, no terço distal, ocluindo cerca de 90% da luz da traqueia. Uma biópsia da lesão foi realizada. As imagens do exame podem ser observadas na figura 3.

Figura 3: fibroncoscopia demonstrando uma lesão polipoide endotraqueal, no terço distal da traqueia, ocluindo cerca de 90% da luz traqueal. (A) durante a inspiração. (B) durante a expiração.



No dia seguinte, sob anestesia geral o paciente foi submetido a uma ressecção endotraqueal da lesão, por fibrobroncoscopia flexível. Imagens da cirurgia e da peça cirúrgica podem ser observadas nas figuras 4 e 5 respectivamente. O paciente apresentou uma excelente recuperação.

Em uma primeira análise histopatológica a partir da biópsia (figura 6), elencou-se como primeira hipótese diagnóstica o adenoma de glândulas mucosas; contudo, ao analisar as lâminas da peça toda (figura 7), estabeleceu-se o diagnóstico de adenoma canalicular de traqueia.

Figura 4: imagens do transoperatório, demonstrando na imagem A uma lesão polipoide endotraqueal; na B o resgate da lesão, que migrou para o brônquio principal direito pós-ressecção; e na C a broncoscopia pós-retirada de lesão.

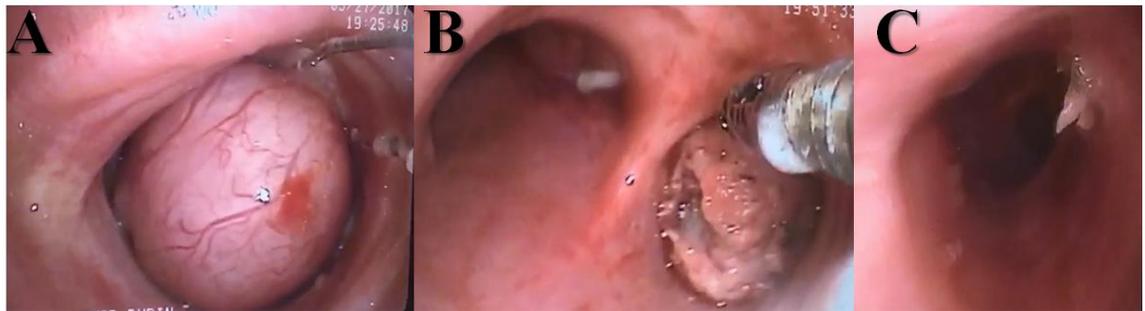


Figura 5: peça cirúrgica pós-ressecção, medindo 2,7 x 2,0 x 1,5 cm.

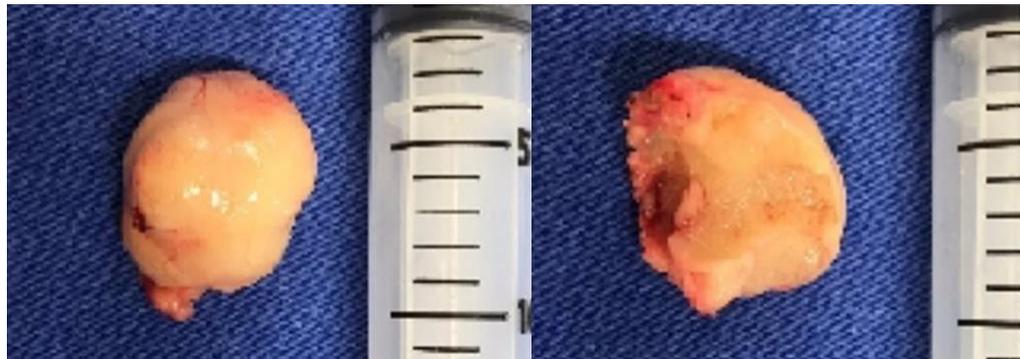


Figura 6: lâminas histopatológicas de um fragmento de 0,3 cm da lesão endotraqueal, obtido na fibrobroncoscopia, demonstrando proliferação glandular de aspecto benigno.

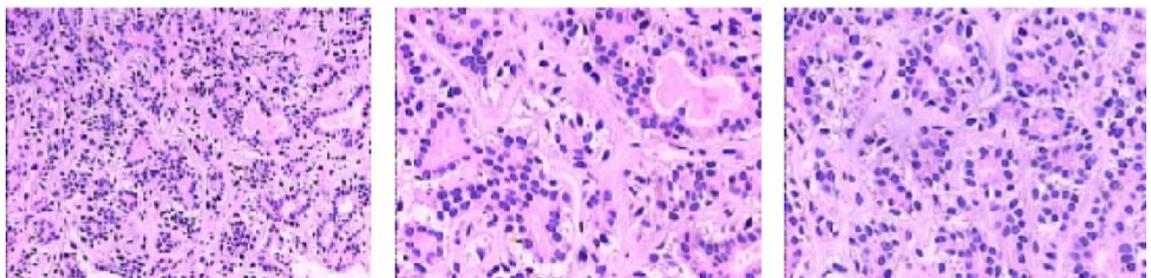
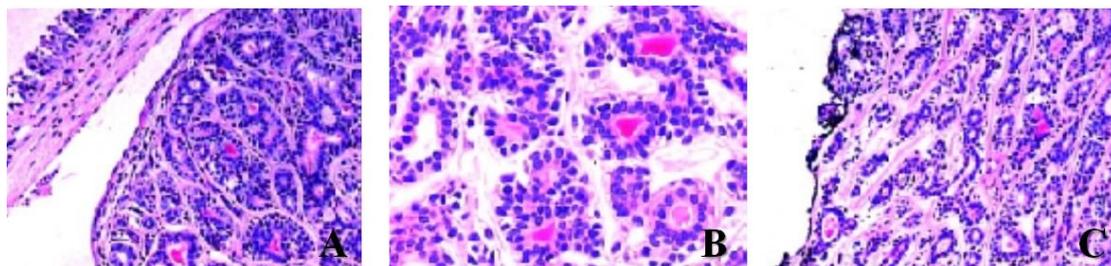


Figura 7: lâminas histopatológicas da lesão endotraqueal, demonstrando uma lesão bem delimitada, mas não encapsulada, como pode ser observada na figura A. Na figura B, pode-se observar a disposição das células em fios e bicamadas formando estruturas ductais com um lúmen central. Na figura C, é possível observar que a margem cirúrgica está comprometida – margem corada com nanquim.



3 DISCUSSÃO

Adenoma canalicular é uma neoplasia benigna incomum que afeta as glândulas salivares menores (NEVILLE et. al. 2016). Apesar de ser uma patologia rara, a qual representa menos de 1% dos tumores de glândulas salivares, está entre a segunda ou terceira posição entre as causas mais frequentes de tumores de glândulas salivares menores (SIQUEIRA et. al. 2013; TYRALIK et. al. 2013). Esse tumor acomete quase que de forma exclusiva a cavidade oral, tendo o lábio superior como local mais frequente, em cerca de 80% dos casos relatados, seguido por palato e mucosa da boca (TYRALIK et. al. 2013; SAMAR et. al. 2014). Aparecem entre os 50 e 80 anos com maior incidência na sétima década de vida. Há uma maior predominância no sexo feminino com uma frequência de 2:1 (YUCE et. al. 2012; LIMA et. al. 2015). Segundo Samar et. al. (2014) a incidência em sítios anatômicos fora da cavidade oral é extremamente rara, sendo reportada em poucos casos clínicos na mandíbula e no esôfago. Até o momento não existe relato de adenoma canalicular com implantação na traqueia, sendo este o primeiro.

O diagnóstico inequívoco de uma lesão endotraqueal ou endobrônquica como um adenoma pode ser muito difícil, uma vez que esses tumores são inabituais e a literatura sobre adenomas é muito escassa, mesmo em livros específicos de patologias pulmonares. Anteriormente, nomeava-se adenomas três tipos de lesões: carcinoides, carcinomas mucoepidermoides e adenomas verdadeiros. SIQUEIRA et al. sugere que esta nomenclatura não está correta, tendo em vista que os dois primeiros são neoplasias malignas e o último por definição é benigno.

Excetuando-se alguns casos de oncocitoma e de adenomas endotraqueais de paratireoides, os adenomas da árvore respiratória usualmente são do tipo mucinoso (KARPATHIOU et. al. 2013). Inicialmente, por ser o tipo tumoral mais frequente ele foi elencado como hipótese diagnóstica; todavia, ao analisar outras lâminas obtidas da peça integra (figuras 7) constatou-se que o caso não tinha características histopatológicas compatíveis com esse tipo tumoral.

Histopatologicamente, o AC é composto por células epiteliais monomórficas colunares ou cuboidais, dispostas em fios e duplas bicamadas em estroma solto e relativamente fibroso, com ou sem cápsula de tecido conectivo (ARGYRIS et. al. 2014). Essas células acabam formando estruturas ductais com um lúmen central (SIQUEIRA et. al. 2013). As células que formam o AC não apresentam pleomorfismo, irregularidades no núcleo e mitoses (SIQUEIRA et. al. 2013). A avaliação histopatológica e imuno-histoquímica do AC são extremamente importantes, visto que essa patologia pode mimetizar características de outras doenças, como o

adenocarcinoma polimorfo de baixo grau e adenoma de células basais (THOMPSON et. al. 2014). Nesse caso, o exame de imuno-histoquímica não estava disponível, sendo realizado apenas a avaliação histopatológica.

Clinicamente, o AC é assintomático na grande maioria dos casos. Apresenta-se como uma massa indolor não ulcerada de superfície lisa com formação cística e consistência sólida, o qual possui crescimento lento, com duração cerca de 3 anos (THOMPSON et. al. 2014; ALMEIDA et. al. 2016). Esse tumor possui tamanhos variados e é bem delimitado, apresentando um diâmetro médio entre 0,5 cm a 2 cm. Porém, na literatura há casos mostrando que o adenoma canalicular pode chegar até 6 cm no maior diâmetro (YUCE et. al. 2012). Nesse caso, as dimensões encontradas foram superiores ao diâmetro médio proposto pela literatura.

Apesar da natureza benigna dos adenomas canaliculares, recomenda-se a remoção cirúrgica completa e um acompanhamento clínico regular. Esse tipo de tumor apresenta um bom prognóstico (CARLSON, ORD 2015). A recorrência é um evento extremamente incomum, mesmo quando a ressecção é realizada localmente, mas podem ocorrer mesmo muitos anos após a cirurgia, mesmo em locais distantes do tumor primário, ocorrendo por excisão incompleta ou pelo crescimento lento devido à presença de “focos com um padrão de crescimento multicêntrico” (SAMAR et. al. 2014; YUCE et. al. 2012). Não há fatores de risco associados com essa patologia (LIMA et. al. 2015).

No entanto, a apresentação endotraqueal do tumor neste caso é inédita. As manifestações clínicas mais relatadas das lesões endotraqueais são tosse, hemoptise, dispneia, sibilos e pneumonias de repetição. Esses sintomas estão relacionados com a obstrução acarretada pela massa (BADYAL et. al. 2014; KARPATHIU et. al. 2013; MATSUURA et. al. 2011). O presente paciente apresentou dispneia e sibilos com dois anos de evolução. Na emergência, o paciente foi diagnosticado como portador de uma doença inflamatória brônquica, não evocando-se a possibilidade de um tumor endotraqueal.

Há diferentes metodologias cirúrgicas para o manejo desse tipo de lesão. A mais radical é a traqueoplastia e a menos invasiva é a ressecção intra-lumial. (MATSUURA et. al. 2011). Nesse caso, utilizou-se a ressecção endotraqueal, pois a lesão era benigna e o método possui menor agressividade ao paciente, resultando em um menor tempo de recuperação e, após um dia da cirurgia, o paciente já apresentava melhora de todos os sintomas apresentados. Após a alta hospitalar, o paciente não retornou ao consultório para acompanhamento pós cirúrgico até o presente momento.

4 CONCLUSÃO

O adenoma canalicular é uma neoplasia benigna, com origem em glândulas salivares menores e que se apresentam quase que exclusivamente na cavidade oral. Com maior incidência no sexo feminino (2:1) e entre a 6^a e 9^a décadas de vida. Sua estrutura histopatológica consiste em células cuboidais ou colunares monomórficas, arranjadas em fios e duplas camadas dispostas estroma solto e relativamente fibroso, as quais formam estruturas ductais, que pode ou não ter cápsula de tecido conjuntivo.

A sintomatologia apresentada pelo paciente, com estridor e dispneia grave, não era específica desta patologia, visto que os casos de AC fora da cavidade oral são extremamente raros. Isso fez com que ele fosse tratado para asma, sem qualquer sinal de sucesso no tratamento, necessitando encaminhamento para consulta com especialista.

Após os resultados dos exames de imagem, que apresentaram uma massa que ocluía 90% da luz traqueal, a hipótese diagnóstica foi estabelecida como adenoma mucinoso, visto que é o mais prevalente dos tumores da árvore respiratória. Dessa forma, foi decidido pela equipe cirúrgica que a ressecção endotraqueal da neoplasia seria a melhor opção de tratamento. Após a cirurgia, o paciente teve remissão completa dos sintomas dentro de 24 horas, o que evidencia o sucesso do tratamento cirúrgico.

No entanto, após a análise histopatológica da peça cirúrgica removida, constatou-se que não se tratava de um adenoma mucinoso, mas sim de um adenoma canalicular com implantação extremamente rara e que, até o momento, não há relato semelhante na literatura. Dessa forma, a finalidade deste relato é apresentar ao meio acadêmico, à comunidade científica e, também, à sociedade uma nova perspectiva sobre os adenomas canaliculares, suas características clínicas, aspectos histopatológicos e tratamento, visto que hoje a literatura sobre essa neoplasia é extremamente escassa.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

ALMEIDA, Oslei Paes de. **Patologia Oral**. São Paulo: Artes Médicas, 2016. (Série ABENO). Minha Biblioteca.

ARGYRIS, PROKOPIOS P. et al. Polymorphous low-grade adenocarcinoma of the upper lip with metachronous myoepithelioma of the buccal mucosa. **Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology And Oral Radiology**, v. 117, n. 6, p.441-448, jun. 2014.

DAYISOYLU, Ezher Hamza et al. Intra-mandibular canalicular adenoma: report of a rare case. **Journal of Pakistan Medical Association**, v. 62, n. 11, p. 1239-1241, nov. 2012.

GRIMM, Erin E. et al. Adenoma Canalicular Emergindo no Esôfago. **Arquivos de patologia e medicina de laboratório**, v. 131, n. 10, p. 1595-1597, out. 2007.

KAKKAR, Nandita et al. Bronchial mucous gland adenoma presenting as massive hemoptysis: A diagnostic dilemma. **Lung India**, v. 31, n. 3, p.274-276, 2014.

KARPATHIOU, Georgia et al. Pulmonary Mucus Gland Adenomas: Are They Always of Endobronchial Localization?. **Case Reports In Pathology**, v. 2013, p.1-3, 2013.

Lima, Nathália Kelly Veloso de et al. Retrospective Study of Salivary Gland Tumors. **Odontologia Clinica Cientifica**, Recife, v. 14, n. 3, p. 699-705, jul./set. 2015.

MATSUURA, Natsumi et al. Bronchoplastic Operation Using a Continuous Anastomosis for Mucous Gland Adenoma. **The Annals Of Thoracic Surgery**, [s.l.], v. 92, n. 6, p.2272-2274, dez. 2011.

NEVILLE, B.; DAMM, D. D.; ALLEN, C. M.; BOUQUOT J. E. **Patologia oral e maxilofacial**. [tradução Danielle Resende Camisasca Barroso et al.]. — Rio de Janeiro: Elsevier. 2009.

SAMAR, María Elena et al. Multifocal canalicular adenoma of the minor labial salivary glands. **International Journal of Clinica & Experimental Pathology**, v. 7, n. 11, p. 8205-8210, 15 oct. 2014.

SIQUEIRA, Carla Silva et al. Clinical and Histological Features of Multifocal Canalicular Adenomas of the Upper Lip. **Brazilian Dental Journal**, v. 24, n. 5, p.542-546, out. 2013.

THOMPSON, Lester D. R. et al. Canalicular Adenoma: A Clinico pathologic and Immunohistochemical Analysis of 67 Cases with a Review of the Literature. **Head And Neck Pathology**, v. 9, n. 2, p.181-195, 21 ago. 2014.

WANG, Xiao-dong et al. Frequency and Distribution Pattern of Minor Salivary Gland Tumors in a Northeastern Chinese Population: A Retrospective Study of 485 Patients. **Journal Of Oral And Maxillofacial Surgery**, v. 73, n. 1, p.81-91, jan. 2015.

YRALIK, Dariusz; DZIERWA-GAWRON, Aneta; RYŚ, Janusz. Quiz Correctanswerto the quiz. Check your diagnosis Canalicular adenoma of the upper lip Metachronous (multifocal) canalicular adenoma of the upper lip: a of anunusual finding. **Polish Journal Of Pathology**, v. 1, p.71-74, 2013.

Yüce, Salim et al. Canalicular Adenoma of the Palate. **Journal of Craniofacial Surgery**. v.23, n. 5, p. 396-398, sep. 2012.