

Mucocele de glándulas de Blandin Nuhn. Caso inusual y revisión de la literatura

Mucocele of the glands of Blandin-Nuhn. Unusual case and literature review

Mucocele da glândula Blandin Nuhn. Caso incomum e revisão da literatura

Susana Vanessa García-Benítez¹ ORCID: 0000-0002-5809-6987

David Fonseca-Lozada² ORCID: 0000-0003-0560-2169

Luis Roberto Adame Sosa² ORCID: 0000-0003-4839-8436

Francisco Germán Villanueva Sánchez¹ ORCID: 0000-0003-3567-5393

DOI: 10.22592/ode2020n35a9

Resumen

El mucocele asociado a las glándulas de Blandin Nuhn es un fenómeno de extravasación mucosa que ocurre en las glándulas salivales localizadas en la superficie ventral anterior de la lengua, son de tipo mixto, no encapsuladas, que forman parte del complejo de glándulas salivales menores de cavidad bucal. **Objetivo:** Se presenta el caso clínico de un paciente masculino que cursa la segunda década de vida con características clínicas peculiares de un mucocele de Blandin Nuhn. **Caso clínico:** Adolescente masculino de 14 años de edad presenta aumento de volumen localizado en superficie ventral de lengua, forma cilíndrica, de 3 meses de evolución y asintomático. Se realiza biopsia excisional para estudio histopatológico, el cual reporta fenómeno de extravasación mucosa y se establece la correlación clínico histopatológica. **Conclusiones:** Se debe fundamentar un diagnóstico correcto para proporcionar un tratamiento oportuno y evitar complicaciones en el paciente que afecten su calidad de vida.

Palabras clave: mucocele, glándulas salivales menores, lengua, tratamiento.

¹ Escuela Nacional de Estudios Superiores, Unidad León, Universidad Nacional Autónoma de México, México.

² Centro Mexicano de Estomatología, México.

Fecha de recibido: 12/10/2019 - Fecha de aceptado: 06/01/2020

Abstract

Mucoceles of the glands of Blandin-Nuhn consist in a mucus extravasation phenomenon that occurs in the salivary glands located in the anterior ventral surface of the tongue. They are mixed, not encapsulated, and part of the complex of minor salivary glands of the oral cavity.

Objective: This paper presents the clinical case of a male patient in his second decade of life with peculiar clinical characteristics of a mucocele of the glands of Blandin-Nuhn.

Clinical case: A 14-year-old male adolescent has an increase in volume located on the ventral surface of the tongue, of cylindrical shape, with three months of evolution and is asymptomatic. An excisional biopsy is performed for histopathological study, which reports mucosal extravasation phenomenon and a histopathological clinical correlation is established.

Conclusions: A correct diagnosis should have a solid foundation in order to provide timely treatment and avoid complications for the patient that may affect quality of life.

Keywords: mucocele, minor salivary glands, tongue, treatment.

Resumo

A mucocele associada às glândulas de Blandin Nuhn é um fenômeno de extravasamento de mucosa que ocorre nas glândulas salivares localizadas na superfície ventral anterior da língua, do tipo misto, não encapsuladas, que fazem parte do complexo de glândulas salivares menores da cavidade oral.

Objetivo: É apresentado o caso clínico de um paciente do sexo masculino na segunda década de vida com características clínicas peculiares de uma mucocele de Blandin Nuhn.

Caso clínico: Adolescente de 14 anos apresenta aumento de volume localizado na superfície ventral da língua, formato cilíndrico, evolução de 3 meses e assintomático. A biópsia excisional é realizada para estudo histopatológico, que relata o fenômeno do extravasamento da mucosa e a correlação clínica histopatológica é estabelecida.

Conclusões: Um diagnóstico correto deve ser baseado para fornecer tratamento oportuno e evitar complicações no paciente que afetem sua qualidade de vida.

Palavras-chave: mucocele, glândulas salivares menores, língua, tratamento.

Introducción

Una de las lesiones comunes de la mucosa bucal son los mucoceles, los cuales resultan de la ruptura de un conducto de la glándula salival y derrame de mucina en los tejidos blandos circundantes. Este derrame es con frecuencia el resultado de un trauma local, si bien en muchos casos no se conoce antecedentes del mismo.^(1,2) Los mucoceles son más comunes en niños y adultos jóvenes,^(1,2,3) probablemente porque las personas jóvenes son más propensas a experimentar un trauma que induce el derrame de

mucina, no obstante, se han reportado en pacientes de todas las edades⁽¹⁾.

Estos no tienen predilección por sexo^(2,3), pero pueden presentarse con mayor frecuencia en el sexo femenino⁽²⁾.

Los mucoceles se originan principalmente en el labio inferior y los sitios menos comunes son piso de boca, cara ventral anterior de la lengua (asociado a glándulas de Blandin Nuhn), mucosa bucal y paladar^(1,4,5).

La presentación clínica es variable y depende de la profundidad en la que se localicen y nivel de queratosis de la mucosa⁽³⁾.

Por otro lado, en el estudio histopatológico se observa un fenómeno de extravasación de mucina rodeada de una respuesta de tejido de granulación con numerosos histiocitos espumosos, sin revestimiento epitelial rodeando ^(1,6).

Los principales diagnósticos diferenciales que se consideran en la evaluación de un mucocele asociado a las glándulas de Blandin Nuhn son lesiones vasculares (hemangioma, linfangioma), granuloma piógeno, papiloma escamoso y tumores de glándulas salivales ^(3,7).

Además, existen múltiples tratamientos para el mucocele de glándulas de Blandin Nuhn que se clasifican en: quirúrgicos y conservadores ⁽³⁾. El pronóstico es excelente, aunque en ocasiones los mucocelos recurren, lo que requiere una nueva escisión ⁽¹⁾.

Este artículo tiene como objetivo presentar un caso clínico de un mucocele asociado a las glándulas de Blandin Nuhn con características clínicas específicas relacionadas con los hallazgos histopatológicos, así como su tratamiento.

Antecedentes

El mucocele a diferencia del quiste del conducto salival no es un quiste verdadero porque carece de un revestimiento epitelial ⁽¹⁾. Sin embargo, en series reportadas de mucocelos se han incluido quistes verdaderos del conducto salival, a veces bajo la clasificación de mucocele de retención o quiste de retención mucosa ^(1,8) ya que estos autores consideraron que el quiste del conducto salival es una variante histopatológica del mucocele de retención mucosa en oposición al fenómeno de extravasación mucosa de los mucocelos convencionales ⁽⁸⁾.

Tomando en cuenta que algunos autores clasifican a los mucocelos en 2 tipos de acuerdo a su mecanismo de formación y a sus características histológicas en: mucocele de extravasación y retención ⁽⁹⁻¹¹⁾.

Por otra parte, de un estudio reciente de 1715 casos de mucocelos se encontró que el 81.9% se presentó en el labio inferior (generalmente la-

teral a la línea media) y los sitios menos comunes eran piso de boca (ránulas: 5.8%), vientre lingual anterior (de las glándulas de Blandin-Nuhn: 5.0%), mucosa bucal (4.8%), paladar (1.3%) y zona retromolar (0.5%) ⁽¹⁾.

Descripción del caso

Paciente masculino de 14 años de edad originario y residente de León Guanajuato, acudió acompañado de su madre a consulta en la clínica de Patología Oral y Maxilofacial de la Escuela Nacional de Estudios Superiores, Unidad León, UNAM, por presentar un aumento de volumen localizado en cara ventral de la lengua (Fig. 1).



Fig. 1. Aumento de volumen cilíndrico localizado en la cara ventral de la lengua para medial del lado izquierdo, de coloración ligeramente más eritematosa a la mucosa adyacente.

En el interrogatorio directo no refirió antecedentes heredofamiliares, personales no patológicos y patológicos de importancia para el padecimiento actual ni antecedentes de traumatismo en lengua.

Así mismo se realizó la exploración extraoral no apreciándose alteraciones visibles.



Fig. 2. Cara lateral de aumento de volumen cilíndrico en cara ventral de la lengua, superficie lisa, consistencia blanda, asintomático, con periodos de remisión y exacerbación.

En la exploración intraoral se observó aumento de volumen localizado en cara ventral de la lengua, de color rosa con áreas eritematosas, de 1.5 cm aproximadamente, forma cilíndrica, superficie lisa, consistencia blanda, asintomático, de 3 meses de evolución y el cual refiere que en ocasiones disminuye de tamaño (Fig. 2).

Posteriormente se programó para biopsia de tipo excisional ambulatoria previa firma de consentimiento informado. El protocolo quirúrgico consistió en asepsia mediante yodo povidona en área quirúrgica, antisepsia mediante técnica estéril, infiltración local con artícaína 1:100000 un cartucho, incisión en huso quirúrgico de espesor total, hemostasia, tratamiento del lecho quirúrgico y colocación de puntos de sutura aislados con ácido poliglicólico 4-0 (Fig. 3). Posteriormente se envió para su estudio histopatológico.



Fig. 3. Escisión quirúrgica mediante protocolo establecido, abordaje en huso quirúrgico y disección roma.

En la descripción macroscópica se recibió espécimen único de tejido blando proveniente de vientre lingual fijada con formalina al 10%, el cual midió 0.9 x 0.4 x 0.3 cm de forma oval, superficie irregular, color café claro con áreas de color gris y de consistencia firme. Se incluyó en su totalidad en la capsula ENES 58-18 para su procesamiento (Fig. 4).



Fig. 4. Especimen único de tejido blando proveniente de vientre lingual fijada con formalina al 10%, el cual midió 0.9 x 0.4 x 0.3 cm de forma oval, superficie irregular, color café claro con áreas de color gris y de consistencia firme.

En la evaluación microscópica se reportó lo siguiente: cavidad compuesta por material anfófilo compatible con mucina, escasos macrófagos espumosos, bacterias, infiltrado inflamatorio crónico, moderado y difuso y extravasación de eritrocitos. Rodeado por una pseudocápsula

de tejido conjuntivo fibroso denso abundantemente vascularizado con vasos hemocongestionados. Hacia la superficie se observó epitelio escamoso estratificado paraqueratinizado con acantosis (Fig. 5), por lo que se emitió el diagnóstico de fenómeno de extravasación mucosa.

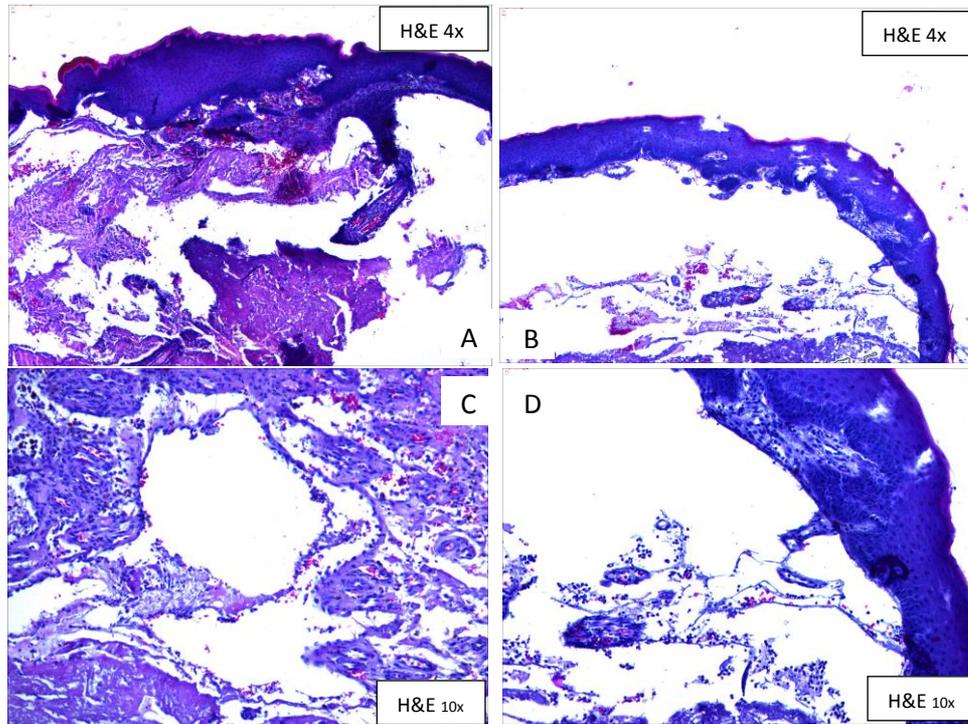


Fig. 5. Cortes histológicos a 4x aumentos, A-B cavidad que contiene material anfófilo, rodeado por una pseudocápsula de tejido conjuntivo fibroso denso, cortes histológicos a 10x aumentos, C infiltrado inflamatorio crónico con presencia de macrófagos espumosos, vasos hemocongestionados y D cavidad limitada por epitelio escamoso estratificado de cubierta.

De acuerdo a la correlación clínica e histopatológica se estableció el diagnóstico de mucocele asociado a las glándulas de Blandin Nuhn.

Una semana después acudió a consulta postquirúrgica; en buenas condiciones generales, herida limpia y en proceso de reparación, se retiraron puntos de sutura y se dieron indicaciones. A un mes del procedimiento quirúrgico se realizó valoración observándose adecuada reparación sin recurrencia o permanencia de la lesión.

Discusión

Los mucocelos de las glándulas de Blandin - Nuhn son lesiones de la mucosa bucal infrecuentes ^(3,6), que por sus características clínicas y ubicación pueden confundirse con otras lesiones ⁽⁷⁾.

En 1970 Heimansohn reportó el primer caso de mucocele de glándulas de Blandin Nuhn en una mujer de 14 años ⁽¹²⁾. Estas lesiones representan aproximadamente el 2-8% de todos mu-

cocceles ⁽¹¹⁾. Por otro lado, en la serie publicada por Jinbu et al. ⁽¹³⁾, los mucocceles de las glándulas de Blandin Nuhn constituyen el 9.9% de todos los mucocceles en cavidad bucal estudiados por ellos.

Es por ello que se cree que estos mucocceles son considerados poco comunes en la población a medida que se disponen entre los músculos de la parte anterior y ventral de la lengua, región con mayor protección y menor susceptibilidad a trauma físico y mecánico ⁽¹⁴⁾.

Sin embargo, Moraes et al., ⁽¹⁵⁾ en el 2009 informaron que la baja prevalencia de mucocceles asociado a las glándulas de Blandin-Nuhn se debe a un diagnóstico erróneo, falta de diagnóstico o a la ruptura fácil del mismo, por lo que no se puede considerar como una lesión rara.

Andiran et al. ⁽¹⁶⁾, establecieron que la edad de ocurrencia de los mucocceles de Blandin Nuhn es de 10 semanas a 26 años con un pico en la segunda década, correspondiendo con nuestro caso y con el de otros autores. No obstante, los mucocceles de glándulas de Blandin Nuhn pueden ocurrir en cualquier momento durante la vida de un individuo ⁽²⁾.

Estos parecen tener una predilección por el género femenino ^(13,16,17) inclusive Jinbu et al., ⁽¹³⁾ indican que las mujeres son más afectadas que los hombres en una proporción 4:1, contrastando con nuestro caso.

En general los mucocceles asociados a las glándulas de Blandin Nuhn pueden estar localizados en cualquier lugar de la superficie ventral de la lengua ⁽⁶⁾.

Joshi et al. ⁽¹⁷⁾, publicaron que, de 30 lesiones, 24 estaban localizadas en la línea media y solo 6 ocurrieron lateral a la misma; presentándose raramente lateral a la línea media ^(11,13,15).

Los mucocceles varían de tamaño de 2 mm de diámetro a 20 mm aproximadamente ⁽⁶⁾.

La mayoría de los casos de mucocceles de Blandin Nuhn son polipoides ^(4,10) mientras que otros autores los describe en forma de tubo ⁽¹⁴⁾.

La variación en color depende del tamaño de la lesión, su proximidad a la superficie mucosa y elasticidad ⁽¹⁸⁾.

El estudio histopatológico de este tipo de mucoccele muestra un área de mucina derramada sin revestimiento epitelial (pseudocapsula) rodeada por una respuesta tisular de granulación, infiltrado inflamatorio crónico, macrófagos espumosos y en algunos casos se puede identificar un conducto salival roto alimentando el área. ⁽¹⁹⁾

En relación al tratamiento de los mucocceles asociados a las glándulas de Blandin Nuhn es variable. Siendo la escisión quirúrgica el tratamiento de elección ⁽²⁰⁾; autores recomiendan la remoción de las glándulas salivales menores involucradas ⁽⁴⁾ incluso su conducto asociado ⁽²⁾, pero con precaución para evitar iatrogenias.

Un complemento de la terapia quirúrgica es la inyección de silicona para delimitar efectivamente el tejido glandular que puede estar dañado ⁽¹⁴⁾. Aunque en este caso se debe considerar la posibilidad de una reacción a cuerpo extraño. Otros indican que las lesiones más grandes son tratadas con marsupialización y micro-marsupialización ^(7,18) coincidiendo con Banu, et al. ⁽⁶⁾.

Entre los tratamientos alternativos conservadores se incluye: ablación laser, crioterapia, electrocauterio e inyecciones intralesionales de corticoesteroides ^(6,21-23).

Finalmente, en la actualidad se investiga la aplicación de ablación por microondas como tratamiento alterno en mucocceles de glándulas salivales en superficie ventral de la lengua obteniendo resultados ideales ⁽⁵⁾.

Conclusiones

El mucoccele asociado a las glándulas Blandin Nuhn es una lesión poco frecuente por lo que al establecer su diagnóstico se debe de tener en cuenta las diferentes características clínicas que puede presentar, las cuales están determinadas por la profundidad en la que se encuentran y el

grado de queratinización de la mucosa de recubrimiento principalmente. Además, se debe de considerar las características histopatológicas, así como, los datos proporcionados por el paciente como antecedentes de trauma y periodos de cambio en el tamaño de la lesión, para poder valorar los posibles diagnósticos diferenciales específicos en base a sus peculiaridades.

Es de gran importancia proporcionar un diagnóstico preciso ya que dependiendo de las características de la lesión puede originar alteraciones en ciertas funciones afectando la calidad de vida del paciente. Por ello el tratamiento debe ser oportuno, adecuado y específico para cada individuo reconociendo las características del caso como localización exacta, tamaño y forma de la lesión, edad del paciente, implicaciones sistémicas y antecedentes de recurrencia con la finalidad de evitar complicaciones para el paciente.

Asimismo, a partir de lo anterior se propone realizar estudios para especificar la eficacia de cada uno de los diferentes tipos de tratamientos incluyendo los recién publicados como la ablación por microondas, bajo ciertos criterios estandarizados.

Contribución de autoría

1. Concepción y diseño del estudio
2. Adquisición de datos
3. Análisis de datos
4. Discusión de los resultados
5. Redacción del manuscrito
6. Aprobación de la versión final del manuscrito

SVGB ha contribuido en: 1, 2, 3, 4, 5, 6.

DFL ha contribuido en: 2, 3, 6.

LRAS ha contribuido en: 2, 3, 6.

FGVS ha contribuido en: 1, 2, 3, 4, 5, 6.

Referencias

1. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Chi AC. Oral and Maxillofacial Pathology. 4th ed. United States American: Elsevier; 2016.
2. Shamma N, Mandel L. Mucocele of Blandin-Nuhn. The New York State Dental Journal. March 2018; 27-29.
3. Krzysztof Jachewicz T, Nyrka B. Mucocele of the Glands of Blandin-Nuhn-Case Report. Dent. Med. Probl. 2016; 53 (1): 142-146.
4. Rajalakshmi R, Shabana Fathima S, Sajeev R. Mucous extravasation phenomenon of lingual glands of Blandin and Nuhn. Journal of Orofacial Research. July-September 2013; 3 (3): 230-232.
5. Feng H, Wang S, Liu Y, Liao X, Tang Y, Liang X. Microwave Ablation: A Novel Treatment for the Mucoceles of Anterior Lingual Salivary Glands. J Oral Maxillofac Surg. 2017; 75: 530-535.
6. Banu V, Kishor Kanneppady S, Anusha RL. Mucocele of the glands of Blandin-Nuhn. International Dentistry-African edition. 2013; 3 (6): 26-29.
7. García León N, Marrugo Pardo GE. Mucocele of the glands of blandin nuhn: a case report. Colomb. Med. 2013; 43 (1): 46-47.
8. Stojanov IJ, Malik UA, Woo SB. Intraoral Salivary Duct Cyst: Clinical and Histopathologic Features of 177 Cases. Head and Neck Pathol. 2017; 11: 469-476.
9. Khalekar YJ, Sande AR, Zope A, Suragimath A. Mucocele of tongue: A rare case report. J Indian Acad Oral Med Radiol. 2016; 28(4): 462-464.
10. Subalakshmi K, Jayakumar J, Rani SA, Justhous Fabi BA, Arun R, Bhagya Lakshmi S. Mucocele of the Glands of Blandin-Nuhn; A Rare Entity A Case Report. Journal of Dental and Medical Sciences. 2016; 15 (12): 35-37.
11. Shaik N, Shanbhog R, Suhas Godhi B, Krishna Degala S. Mucocele Involving the Glands of Blandin and Nuhn: A Rare Case Report. Int J Pharma Res Health Sci. 2017; 5 (6): 1915-1918.
12. Heimansohn HC. Mucocele of anterior lingual tongue glands: report of a case. Dent Dig. 1970; 76: 470-471.
13. Jinbu Y, Kusama M, Itoh H, Matsumoto K, Wang J, Noguchi T. Mucocele of the glands

- of Blandin-Nuhn: clinical and histopathologic analysis of 26 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2003; 95: 467–470.
14. Silva-Santos IK, Melo de Matos JD, Pereira-Lucena FJM, Cavalcante-Pereira N, Cavalcante-Pita NI, Eversong Lucena de Vasconcelos J. Mucocele in Blandin-Nuhn Glands: Case Report and Integrative Review. *International Archives of Medicine.* 2016; 9 (392): 1-7.
 15. Moraes PC, Bönecker M, Furuse C, Thomaz LA, Teixeira RG and Araújo VC. Mucocele of the gland of Blandin–Nuhn: histological and clinical findings. *Clin Oral Invest.* 2009; 13: 351-353.
 16. Andiran N, Sarikayalar F, Unal OF, Baydar DE, Ozaydain E. Mucocele of the anterior lingual salivary glands from extravasation to an alarming mass with a benign course. *Int J Paediatr Otorhinolaryngol.* 2001; 61:143-147.
 17. Joshi SR, Pendyala GS, Choudhari S, Kalburge J. Mucocele of the Glands of Blandin–Nuhn in Children: A Clinical, Histopathologic, and Retrospective Study. *N Am J Med Sci.* 2012; 4 (9): 379-383.
 18. Baurmash HD. Mucoceles and Ranulas. *J Oral Maxillofac Surg.* 2003; 61: 369-378.
 19. Adachi P, Pires AM, Horikaw FK, Shinohara EH. Mucocele of the glands of Blandin–Nuhn—clinical, pathological, and therapeutical aspects. *Oral Maxillofac Surg.* 2011; 15: 11-13.
 20. Khalekar YJ, Sande AR, Zope A, Suragimath A. Mucocele of tongue: A rare case report. *J Indian Acad Oral Med Radiol.* 2016; 28 (4): 462-464.
 21. Kopp WK, St-Hilaire H. Mucosal preservation in the treatment of mucocele with CO2 laser. *J Oral Maxillofac Surg.* 2004; 62: 1559–1561.
 22. Twetman S, Isaksson S. Cryosurgical treatment of mucocele in children. *Am J Dent* 1990; 3:175–176.
 23. Rezende K.M. Cryosurgery as an effective alternative for treatment of oral lesion in children. *Braz. Dent. J.* 2014; 25: 352–356.

Germán Villanueva Sánchez: drvillanueva.enesunam@gmail.com