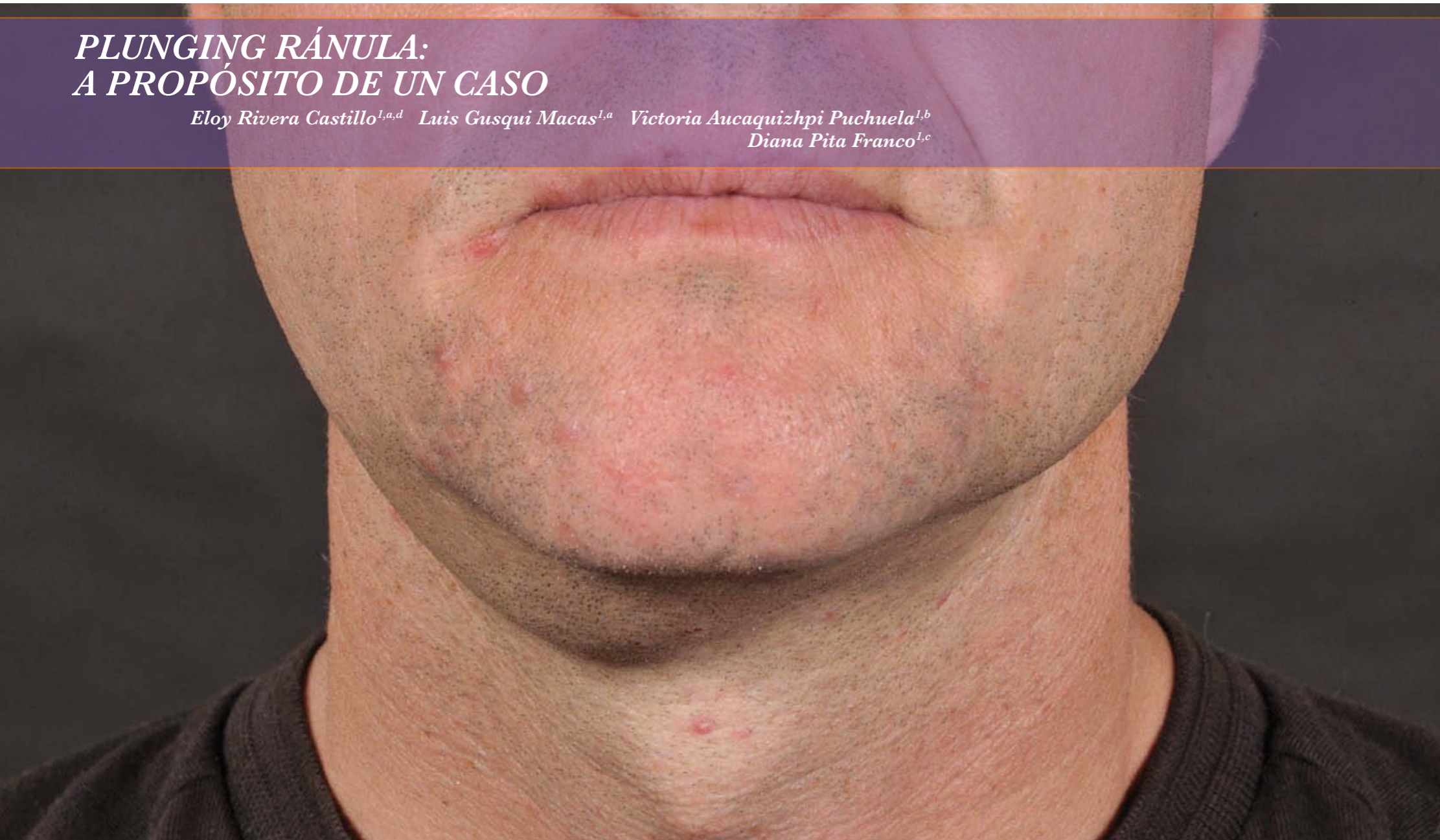


PLUNGING RÁNULA: A PROPÓSITO DE UN CASO

Eloy Rivera Castillo^{1,a,d} Luis Gusqui Macas^{1,a} Victoria Aucaquizhpi Puchuela^{1,b}
Diana Pita Franco^{1,c}



originating in the minor salivary glands, but the ranula also may originate in the submandibular conduct.

Plunging large ranula also known as cervical or sunk-en ranula are an unusual clinical variant which occurs when the spilled or retained mucine dissects through the posterior/inferior zone of the mylohyoid muscle to the submental region or to the cervical area and produces protrusion in the neck.

These usually originate from the sublingual gland, although smaller lesions may develop along the stem duct of the sublingual gland's Rivini's surface. In the case of very large plunging ranula, the tongue may compress the injury during swallowing and cause interference with salivary flow from the submandibular gland. It may also cause dyspnea and dysphagia and may spread to the mediastinum.

We report the case of a 53 year old female patient, who presented a tumor in the left submandibular area which was also causing light discomfort in swallowing, functional limitation and discreet neck pain.

The patient underwent surgery via the submaxillary cervical approach, performing complete resection of the piece. The pathological result shows giant retention mucocele of the minor salivary glands.

KEYWORDS:

Plunging Ránula, mucocele, salivary gland

RESUMEN

Ránula es un término usado para mucocelos que ocurren en el piso de la boca. El origen usualmente es un derrame de la glándula sublingual, o bien de la extravasación de saliva de los conductos salivales o de la retención de saliva en el interior de los mismos originados en la glándula salival menor, pero las ránulas además pueden originarse en el conducto submandibular.

Una variante clínica inusual, ránulas grandes también llamadas plunging ránula o ránula cervical o hundida, ocurre cuando la mucina derramada o retenida, diseca a través de la zona posteriorinferior del músculo milohioideo a la zona submentoniana o área cervical y produce protrusión en el cuello usualmente se originan del cuerpo de la glándula sublingual, aunque lesiones

más pequeñas pueden desarrollarse a lo largo de la plica sublingual de los conductos superficiales de las glándulas de Rivini. En el caso de plunging ránula muy grandes, la lengua puede comprimir la lesión durante la deglución y producir interferencia con el flujo salival de la glándula submandibular. Además, puede causar disnea y disfagia y puede expandirse hasta el mediastino.

Presentamos el caso de una paciente de sexo femenino de 53 años de edad que acude a la consulta presentando tumoración en área submaxilar izquierda, la misma que produce molestias ligeras a la deglución más limitación funcional del cuello y discreto dolor. La paciente es intervenida quirúrgicamente realizándose abordaje

por vía cervical submaxilar realizándose exeresis completa de la pieza.

El resultado patológico nos define mucocele de retención gigante de glándula salival menor.

PALABRAS CLAVE:

Plunging Ránula, mucocele, glándula salival

SUMMARY

Ranula is a term used for mucocelos, that occur on the floor of the mouth. The source is usually a sublingual gland spillover or extravasation of saliva from the salivary ducts, or retention of saliva inside there,

¹. Hospital Abel Gilbert Pontón "Guayaquil"

^a. Cirujano General

^b. Anestesióloga

^c. Médico General

^d. Docente Universidad de Guayaquil

* Recibido 05 de Marzo y Aceptado el 15 de Marzo del 2013

Correspondencia:

Dr. Eloy Fernando Rivera Castillo
Cirujano General Hospital Abel Gilbert Pontón
"Guayaquil"
Email: eloyrivera@hotmail.com
Cel: 0999330611
Guayaquil-Ecuador

INTRODUCCIÓN

Mucocele es un término que incluye los siguientes conceptos: el quiste producido por extravasación como resultado de la ruptura del conducto de la glándula salival y el consiguiente derrame de la mucina en los tejidos blandos que la rodean y el quiste de retención que se origina como consecuencia de la obstrucción del conducto de la glándula salival¹.

No se debe considerar al mucocele como un verdadero quiste, es un pseudoquiste ya que su pared carece de revestimiento con epitelio. Una ránula es un mucocele que ocurre en el suelo de la boca y se deriva de los procesos antes mencionados⁴. Existe la forma frecuente que se presenta en el piso de la boca y otra forma poco frecuente llamada ránula plunging o ránula cervical que se ubica en la región del cuello.

Los traumatismos producidos en forma accidental o por un acto quirúrgico que lesione (sección) el conducto salival y la obstrucción de cualquiera de los conductos de la glándula sublingual o el conducto de Wharton de la glándula submandibular pueden provocar esta alteración. La obstrucción ductal también puede suceder por un lito formado por la precipitación de diferentes sales componentes de la saliva, alrededor de la mucina acumulada en cualquier punto del conducto salival.

Este tipo de patología es muy común en las glándulas salivales menores (sobre todo en labiales), pero es muy poco frecuente en las glándulas salivales mayores sublingual y submaxilar^{1, 2,3}. La ránula no causa síntomas graves de dolor, excepto algunas molestias, y apenas da lugar a ninguna manifestación clínica grave. Según Baurmash⁵, los hallazgos clínicos tales como molestias en el habla, la masticación y la deglución y la hinchazón externa varían en función del tamaño y la ubicación de la masa y podrían presentarse en caso de ránula cervical (Plunging).

Se concuerda que es más frecuente en niños y adultos jóvenes, aunque no existe evidencia significativa en cuanto⁶ edad, sexo y raza; sin embargo, algunos otros autores mencionan que es más común en mujeres y que se encuentran frecuentemente afectando al lado izquierdo⁷.

La ránula plunging es una lesión poco común, tampoco hay edad específica de de presentación, sin embargo la mayoría de los casos reportados ha ocurrido en adultos jóvenes, con igual distribución entre sexo masculino y femenino⁸. Si la lesión no se produce en la boca, entonces el diagnóstico clínico de ránula puede no ser de sospecha.

Estudios de imágenes pueden ser de ayuda como TAC y RMN. El examen microscópico demuestra desde el punto de vista histológico que está formada por una fina pared de tejido conjuntivo fibroso comprimido, con algunos elementos de tejido de granulación; cuando se forma a expensas de un conducto dilatado, pueden observarse restos de este en un tapizado epitelial.

La luz de la cavidad está llena de un infiltrado de eosinófilos con macrófagos abundantes. Las glándulas salivales menores adyacentes presentan a menudo alteraciones inflamatorias con signos de obstrucción.

El diagnóstico diferencial debe establecerse con otras patologías que cursen con masas fluctuantes de localización inframandibular, suprahoidea y paramediana, entre las que tenemos, abscesos, quiste del conducto tirogloso, quiste dermoide, higroma quístico, quiste branquial, linfangioma, hemangiomas, tumores quísticos y glándulas quísticas aberrantes^{8,9,10,11}. Se diferencia del angioma por ser más firme; los quistes dermoides son más frecuentes en la línea media y tienen una consistencia pastosa; los lipomas son más firmes; los quistes del conducto submaxilar, se desarrollan más rápidamente que la ránula y generalmente provocan tumefacción de la glándula acompañado de dolor.

El tratamiento para la ránula puede ser conservador o quirúrgico, y a pesar de que se han realizado diferentes técnicas, algunos autores indican que el mejor tratamiento es la técnica de marsupialización^{12, 13, 14}. Otros manifiestan que la excisión quirúrgica es el tratamiento usado más frecuentemente especialmente en los casos de Plunging ránula, pero puede recaer si la extirpación quirúrgica no es completa^{15, 16,17}.

El pronóstico es bueno y no existe posibilidad de que constituya una lesión preneoplásica. El objetivo del presente trabajo es la presentación de un caso clínico, su resolución y la descripción del tratamiento realizado relacionándolo con la literatura que existe sobre el tema.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente femenina de 53 años de edad quien acude al Servicio de Cirugía General del Hospital Abel Gilbert Pontón referida de uno de los Dispensarios de la Red de Salud del Ministerio de Salud Pública por presentar 1 año de evolución con le presencia de tumoración submaxilar izquierda la misma que fue aumentando de tamaño en forma paulatina, hasta alcanzar un tamaño considerable que comenzó a

producir dificultad en la deglución, poco dolorosa, no relacionada con la ingesta y con un efecto negativo en la parte estética del rostro de la paciente (Fig.1-2 Fuente: Hospital Abel Gilbert Pontón).



Fig.1. Se observa gran tumoración submaxilar izquierda.



Fig. 2. Tumoración vista de otro ángulo

Se realiza la valoración pre quirúrgica en la consulta, en la historia clínica no existen antecedentes patológicos personales ni familiares de importancia. Al examen físico se puede evidenciar a la inspección tumoración del área submaxilar izquierda de aproximadamente 8 cms de diámetro, a la palpación es una masa fluctuante poco movable, bien delimitada y circunscrita, no reducible, poco dolorosa a la palpación. No existen adenopatías cervicales; a la inspección de la cavidad oral podemos evidenciar que no existen alteraciones anatómicas.

Para el estudio del caso se solicita ecografía partes blandas de región submaxilar izquierda que revela masa quística de aproximadamente 9 cms de diámetro bien definida, sin flujo al doppler.

Además se realiza TAC de cuello que revela gran tumoración de aspecto quístico de bordes definidos en área submaxilar izquierda, se observa que no existe adhesión radiológica de la lesión a los tejidos cervicales vecinos (Fig. 3-4 Fuente: Hospital Abel Gilbert Pontón). Los exámenes de laboratorio prequirúrgicos se encontraban bajo parámetros normales y en la valoración cardiológica no existió ningún tipo de contraindicación.

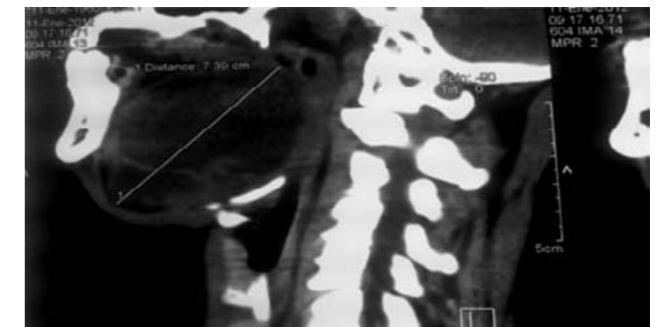


Fig. 3. Imagen tomográfica que revela la extensión del tumor quístico

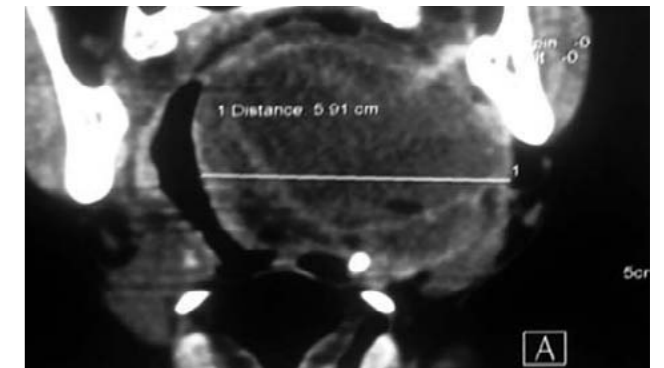


Fig. 4. Tumoración quística.

Se programa la intervención quirúrgica y se realiza bajo anestesia general, el abordaje es por vía cervical submentoniana, realizando disección profunda hasta obtener la pieza completa, preservando los tejidos adyacentes especialmente las ramas del facial. (Fig. 5-6 Fuente: Hospital Abel Gilbert Pontón).



Fig. 5. Extracción de la tumoración vía submentoniana.



Fig. 6. Se observa el gran tamaño de la tumoración.

La paciente permanece hospitalizada durante 48 horas posterior a la intervención, se comprobó que no hubo lesiones nerviosas que limiten funciones, especialmente la deglución, luego es dada de alta sin complicaciones. El resultado de patología reveló mucocoele de glándula salival menor. Se realizaron controles hasta los 6 meses de postoperatorio, evolucionando satisfactoriamente sin existir recidiva (Fig. 7 Fuente: Hospital Abel Gilbert Pontón).



Fig. 7. Postoperatorio 6 meses

DISCUSIÓN

El caso que estamos presentando se trata de una ránula cervical o ránula plunging, una patología de presentación poco frecuente y poco descrita en la literatura, de ahí la importancia de reportar este caso. Uno de los estudios más completos es el realizado por la Universidad de Michigan en el cual se vieron 8 casos en un lapso de 10 años¹¹.

Básicamente la ránula tiene su origen en la glándula sublingual, en los conductos de Rivini, en el conducto de Wharton de la glándula submandibular y con poca frecuencia en las glándulas salivales menores. Puede presentarse en cualquier edad, con cierta inclinación hacia el sexo femenino. Se han propuesto múltiples teorías sobre el origen de la ránula.

Desde las primeras publicaciones, no se ha demostrado claramente un mecanismo patogénico para explicar la formación de la plunging ránula, aunque existen datos suficientes para poder afirmar que dicha entidad tiene su origen en la glándula sublingual.

La teoría más aceptada durante muchos años para explicar la ránula aduce que ésta se forma después de la obstrucción parcial del conducto salival que produce una retención salival y que provoca la formación de un quiste verdadero revestido de epitelio o quiste de retención mucoso, esto ha sido negado por otros autores en base a la observación de que los mucoc

celes cervicales carecen de un límite epitelial y que frecuentemente son causados por traumatismos o antecedentes quirúrgicos que originan extravasación de contenido mucoso y la consiguiente respuesta inflamatoria que produce la infiltración de estos contenidos en los tejidos blandos vecinos.

Cuando este contenido se extiende hacia el espacio submandibular o submentoniano a lo largo de los planos faciales del cuello se les llama plunging ránula, pudiendo llegar tan lejos como la zona supraclavicular, espacio retrofaríngeo e incluso la base del cráneo^{5,8,9}. Su incidencia real se desconoce. Algunos autores dan un enfoque mixto a la patogenia. Se presentan como una tumoración de crecimiento progresivo y lento y generalmente es asintomático, aunque en casos de gran tamaño (Plunging Ránula) se han manifestado con trastornos en la masticación, deglución, y fonación. También puede aparecer disfagia y disnea cuando se produce desplazamiento de la lengua hacia la Orofaringe^{1,4,9,10}. En esta situación, pueden expandirse hacia la región submentoniana y aparecer durante la inspección como una masa lateral de cuello como sucedió en nuestro caso.

Referente al diagnóstico de plunging ránula se basa principalmente en evaluación clínica y radiológica de la lesión que se hace principalmente para conocer la extensión de la masa antes de la cirugía y para esclarecer el origen de la misma. Hay que mencionar que como toda enfermedad de baja incidencia existe dificultad en diagnosticarla por la escasa sospecha del médico que recibe al paciente inicialmente.

En primer lugar se ha de basar como dijimos anteriormente en la clínica y se debe pensar en esta patología ante toda tumoración cervical blanda fluctuante sin signos de inflamación aguda, sin que exista dolor a la palpación. Todo esto va asociado con antecedentes de sufrir una ránula intraoral o haber padecido de intervenciones sobre el suelo de la boca o la glándula submaxilar, extracciones dentarias, abscesos, etc., la sospecha se ve fuertemente reforzada, aunque hay autores que reportan la presencia cervical aislada de la plunging ránula^{9,11}. Actualmente el diagnóstico empieza con solicitar una ecografía de partes blandas de la región afecta que nos señala la colección y la posible naturaleza quística de la lesión.

La Tomografía axial computarizada es determinante para establecer el diagnóstico, puesto que puede presentarse el "signo de la cola" que es una imagen patognomónica de la ránula cervical o de hundimiento (plunging) y que se debe a la extensión del proceso por debajo del musculo milohioideo y que a su vez la diferencia de otras lesiones de la región submandibular como masas

quísticas, que pueden ser de origen congénito (hemangioliangiomias, higroma quístico, quiste branquial, quiste tirogloso, quiste dermoide) o bien de origen adquirido (mucocoele, quiste de conducto salival, sialocoele, quistes de la glándula submaxilar, abscesos, y tumoraciones con degeneración quística).

La RMN puede darnos imágenes que nos ayuden en el diagnóstico diferencial. Además, también mediante PAAF es posible identificar la composición del material quístico. En lo referente al manejo, se han propuesto algunas opciones de tratamiento de las plunging ránulas, esta diversidad de tratamientos tienen su origen en la falta de una explicación etiopatogénica clara¹⁴⁻¹⁷. Empezando con acciones de tipo conservador como la punción/ aspiración aunque con un riesgo de daño de tejidos y elementos anatómicos o de derrames, también se menciona la irradiación o la inyección de sustancias esclerosantes. El tratamiento quirúrgico está basado en la etiopatogenia y es necesario individualizar el diagnóstico y el plan de tratamiento en cada paciente para lograr buenos resultados. Las diversas opciones quirúrgicas comprenden la exéresis de la lesión sola (ránula), la marsupialización y la exéresis de la glándula sublingual, mediante un abordaje cervical puro o una combinación de abordaje cervical e intraoral.

La modalidad adecuada en cuanto al tratamiento quirúrgico es todavía un tema de debate debido a la tendencia a la recidiva. Zhao et al¹³. afirmó que las tasas de recurrencia de ránulas no estaban relacionados con los patrones de lesión, pero están estrechamente relacionadas con la técnica quirúrgica utilizada. Otros autores informan sobre la recurrencia del tumor, el déficit sensorial de la lengua, los daños al conducto de Wharton, así como hematomas, infecciones y dehiscencias de la herida quirúrgica^{8,9}.

CONCLUSIONES

La ránula cervical o plunging ránula es una patología de presentación poco frecuente y por ende el tratamiento, preferiblemente quirúrgico va a depender de un adecuado diagnóstico como lo describe la literatura existente sobre el tema; en este caso se realizó tratamiento quirúrgico con abordaje cervical por el tamaño y localización de la lesión y con un postoperatorio satisfactorio y sin recidiva hasta los 8 meses de controles por consulta externa.

Creemos que es importante conocer sobre esta enfermedad de las glándulas salivales, por cuanto al presentarse cualquier tipo de masa submentoniana o cervical, la misma debe ser sospechada por el médico que atiende al paciente y debe formar parte

del diagnóstico diferencial, lo que nos permitirá establecer un tratamiento adecuado y evitar las posibles complicaciones.

BIBLIOGRAFÍA

1. Surkin M, Remsen K, Lawson W. A mucocoele of the submandibular gland. Arch Otolaryngol 1985;11:623-5.
2. Van der Goten A, Hermans R, Smet MH. Submandibular gland mucocoele of the extravasation type. Report of two cases. Pediatr Radiol 1995;25:366-8.
3. Anastasov GE, Haiavy J. Submandibular gland mucocoele. Diagnosis and management. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2000;89:159-63
4. Baurmash HD. Un caso en contra de extirpación de la glándula sublingual como tratamiento primario de la ranulas. J Oral Surg Maxillofac 2007; 65:117-21.
5. Baurmash HD. Los mucocoeles y ránulas. J Oral Maxillofac Surg 2003; 61:369-78.
6. Burkhart, N.W. Ránula. RDH. 2008;87-88.
7. Peterson, L.J., Hupp, J., Ellis, E., Tucker, M. Contemporary Oral and Maxillofacial Surgery. USA. Mosby. 1998;486-509.
8. Fridrich, K. et al.:Dermatомуositis presenting whit Ludwig's angina. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1987;63:21-24,
9. Residen't Page.: Report of case; plunging or cervical ranula. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 1987;113:783.
10. Parras, G et al.: Pethologic Quiz case2. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 1988;114:210-213.
11. Mc Clatchey, K. et al.: Plunging ranula. Oral Surg 57(4): 1984. 408-412, Apr.
12. Azuma.M; TamatanI.T; Fukui.K; Yuki.T; Hoque. M.O ; Yoshide.H; Sato. M. Proteolitic enzymes in salivary extravasation mucocoeles. J. Oral Pathol Med. 1995; 24: 299-302.
13. Zhao YF, Jia Y, Chen XM, Zhang WF. Clinical review of 580 ranulas. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 2004 Sep; 98(3):281-7.
14. Jib Hyun S, Jung Je P, Ho You K, Sea-Young J, Jin Pyeong K, Seong-Ki A, et al. Surgical management of intraoral ranulas in children: An analysis of 17 pediatric cases.J Podiatry Otorhinolaryngol. 2010 Feb;74(2):202-5.
15. Ferrari. M; Gesi. A. Tratamiento quirúrgico de las glándulas salivales menores. Journal de Educación Continua. 1995, 2 (8): 68-72.
16. SHADEN. RJ. Review of a technique in the treatment of mucocoeles. Oral Surg. 1974, 7(5) : 695-698.
17. MARCUSHAMEN. M ; KING. D; RUANO. N. Cryosurgery in the management of mucocoeles in children. Pediatric Dentistry.1997, 19 (4): 292-293.
18. Sfaciotti. M; Perfetti. G; anmibali. S. PP. S: i l mucocoele delle glandole salivari minore: Parte I. Eziopatogenesis ad Istoratologie: Dent Cadm 1991, 11:66-78.
19. Terrible .w; Mani. v; Miotti. a; Brogazzia. p; Presacco..m; Mayellacio .F. i l mucocoele (studio so 50 osservazioni bioptiche) . G Stomatol Ortognat: 1984, 3 (4) ; 623-629.
20. Sugerma. P; savage. N; Young. W. Mucocoeles of the anterior lingual salivary glands(glands of Blandin and Nuhn) : report of 5 cases. Oral surg. Oral med. Oral Pathol. Oral Radiol. Endod. 2000, 90: 478-482.