

ISSN: 2340-3438

Edita: Sociedad Gallega de  
Otorrinolaringología.

Periodicidad: continuada.

Web: [www.sgorl.org/revista](http://www.sgorl.org/revista)

Correo electrónico:

[actaorlgallega@gmail.com](mailto:actaorlgallega@gmail.com)

**SGORL PCF**  
Sociedad Gallega de Otorrinolaringología  
y Patología Cervicofacial



# Acta Otorrinolaringológica Gallega

## Caso clínico

### **Quisto Epidermóide da Glândula Submandibular – Um Desafio Diagnóstico**

### **Title – Epidermoid Cyst of Submandibular Gland – A Diagnosis Challenge**

Miguel Sá Breda<sup>1</sup>, Tiago Gil Oliveira<sup>2,3</sup>, Daniela Ribeiro<sup>1</sup>, Joana Guimarães<sup>1</sup>, Sara Ramalho<sup>1</sup>, Jaime Rocha<sup>2</sup>, Luís Dias<sup>1</sup>

1-Serviço de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial – Hospital de Braga.

2- Serviço de Neurorradiologia – Hospital de Braga.

3 - Life and Health Sciences Research Institute (ICVS), School of Health Sciences, University of Minho, Campus Gualtar, Braga, Portugal.

Recibido: 20/9/2016 Aceptado: 27/10/2016

## Resumo

**Introdução:** A tumefacção submandibular é um achado clínico comum observado na nossa prática clínica. Trata-se de um desafio diagnóstico devido à multiplicidade de causas possíveis e complexidade da região anatómica. Usualmente deve-se a um abscesso ou sialoadenite, mas também, pode resultar de um tumor maligno ou benigno. As lesões quísticas da glândula submandibular são raras, sendo o mucocelo a mais frequente. Há poucos casos relatados na literatura sobre quisto epidermóide da glândula submandibular.

**Caso-clínico:** Apresenta-se um caso clínico de uma doente de 57 anos, professora, sem antecedentes relevantes, que recorreu ao serviço de urgência por tumefacção submandibular direita progressiva, com cerca de 1 mês de evolução, sem sinais inflamatórios acompanhantes. À palpação salientava-se o facto de ser indolor, não aderente aos planos

Correspondencia: Miguel Sá Breda

Hospital de Braga

Correo electrónico: [miguelbreda@gmail.com](mailto:miguelbreda@gmail.com)

profundos e ter cerca 3 cm de maior diâmetro. O TC e a RMN apontaram para lesão quística da glândula submandibular. Procedeu-se a sialoadectomia submandibular direita. O resultado anátomo-patológico revelou tratar-se de um quisto epidermóide. O período pós-operatório decorreu sem complicações, sendo que após 1 ano a paciente não apresenta qualquer recidiva ou outro sintoma.

**Palavras-Chave:** doença da glândula submandibular; quisto epidermóide; tumefacção da cabeça e pescoço

### **Abstract**

**Introduction:** Swelling in the submandibular region is commonly seen in clinical practice. It is a diagnostic challenge due to multiplicity of causes and complexity of this anatomic region. Usually this can be due to an abscess or sialoadenitis or, more rarely, due to a benign or malignant tumor. Cystic lesions of the submandibular gland are uncommon, being mucoceles the most frequent. There are few published scientific reports about epidermoid cyst of submandibular gland.

**Case-report:** We present a case of a 57 years old woman, teacher, without relevant past medical history, which recurred to the emergency department due to progressive right submandibular swelling with 1 month of evolution, without accompanying inflammatory signs. The physical examination revealed a painless and non-adherent to the deep planes tumefaction with 3 cm. The CT and MRI uncovered a cystic lesion in the submandibular gland. The patient underwent to a cervicotomy with right submandibular gland excision. The histopathologic examination revealed an epidermoid cyst. The postoperative period had no complications and after 1 year the patient shows no recurrence or other symptoms.

**Keywords :** submandibular gland disease; epidermoid cyst; head and neck swelling

### **Introducción**

A tumefacção submandibular é um achado clínico frequente que na maioria das vezes está associado a um quadro de linfadenopatia, sialoadenite ou abscesso submandibular de causa glandular ou odontogénica<sup>1</sup>. As neoplasias das glândulas salivares são incomuns, representando apenas 2 a 3 % de todos os tumores da cabeça e pescoço<sup>2</sup>. O tumor benigno mais usual da glândula submandibular é o adenoma pleomórfico (50% dos casos)<sup>2</sup>. As lesões quísticas da glândula submandibular são raras, todavia a ter em conta no diagnóstico diferencial. O mucocele é o mais frequente, e o quisto epidermóide muito raro, com poucos casos publicados na literatura nos últimos 25 anos<sup>3</sup>. O quisto epidermóide tem origem ectodérmica e histologicamente é constituído por uma camada externa de epitélio pavimentoso estratificado queratinizado contornando produtos de degradação epitelial de densidade viscosa a semi-sólida<sup>1</sup>. Não deve ser confundido com quisto epidérmico (lesão benigna observada na pele<sup>3,4</sup>) secundário a fenómenos

obstrutivos e caracterizado por igual camada externa e interior repleto de queratina<sup>1</sup>. Apenas a biópsia excisional permite o diagnóstico<sup>3</sup>.

### Caso Clínico

Doente de 57 anos de idade, professora, sem antecedentes médicos de relevo, recorreu ao serviço de urgência de ORL, no final de Janeiro de 2015, por tumefacção submandibular direita de crescimento progressivo não flutuante, e indolor, com cerca de 1 mês de evolução. Negou trauma facial/submandibular, patologia odontogénica, noção de drenagem purulenta para a cavidade oral ou dor despertada pelas refeições. Referiu igualmente ser um episódio inaugural e nunca ter tido litíase de qualquer natureza. Negou alguma vez ter tido febre, rubor ou tensão submandibular. Nunca necessitou de recorrer a medicação por este motivo.

No exame físico, à palpação superficial e bimanual da região submandibular direita, salientava-se uma tumefacção de consistência mole/flutuante com cerca de 3 cm de maior diâmetro, de limites superficiais bem definidos, com mobilidade limitada, não aderente aos planos profundos. O pavimento da boca não apresentava qualquer abaulamento.

Realizou TC cervical, no início Fevereiro de 2015, que revelou lesão quística no espaço submandibular direito com diâmetros máximos aproximados de 5x4,5x4,5 cm (superio-inferior, latero-medial e antero-posterior, respectivamente) de aspecto ovóide com contornos bem definidos e ausência de carácter infiltrativo da glândula (**Figura 1 e 2**). O conteúdo do quisto era homogeneamente hipodenso. Afastou-se a hipótese de possibilidade de complicação infecciosa, celulite ou adesão aos planos profundos. Colocou-se como possibilidade poder tratar-se de adenoma pleomórfico, mucocelo ou quisto do 1º arco branquial.



Figura 1: TC – corte coronal realçando quisto submandibular com 4,5 x 3,5 cm de diâmetros máximos.



Figura 2: TC – corte sagital realçando tumefacção superficial com cerca de 3,5 cm de diâmetro máximo antero-posterior.

A biópsia aspirativa percutânea guiada por ecografia foi inconclusiva.

A RMN, realizada uma semana após, confirmou a presença de lesão quística com dimensões sobreponíveis, de limites bem definidos. A lesão apresentava-se como hipointensa em T1, hiperintensa em T2 e com restrição de difusão. Em T1, após injeção de contraste, demonstrou-se lesão de contornos bem definidos, hipocaptante no centro. Apontou-se a possibilidade de ser intrínseca à glândula submandibular e de natureza tumoral (**Figura 3, 4 e 5**).

Figura 3: RMN cortes frontais com hipersinal em T2 (esquerda) e hipossinal em T1(direita) com cerca de 5,3 cm de diâmetro máximo crânio-caudal.

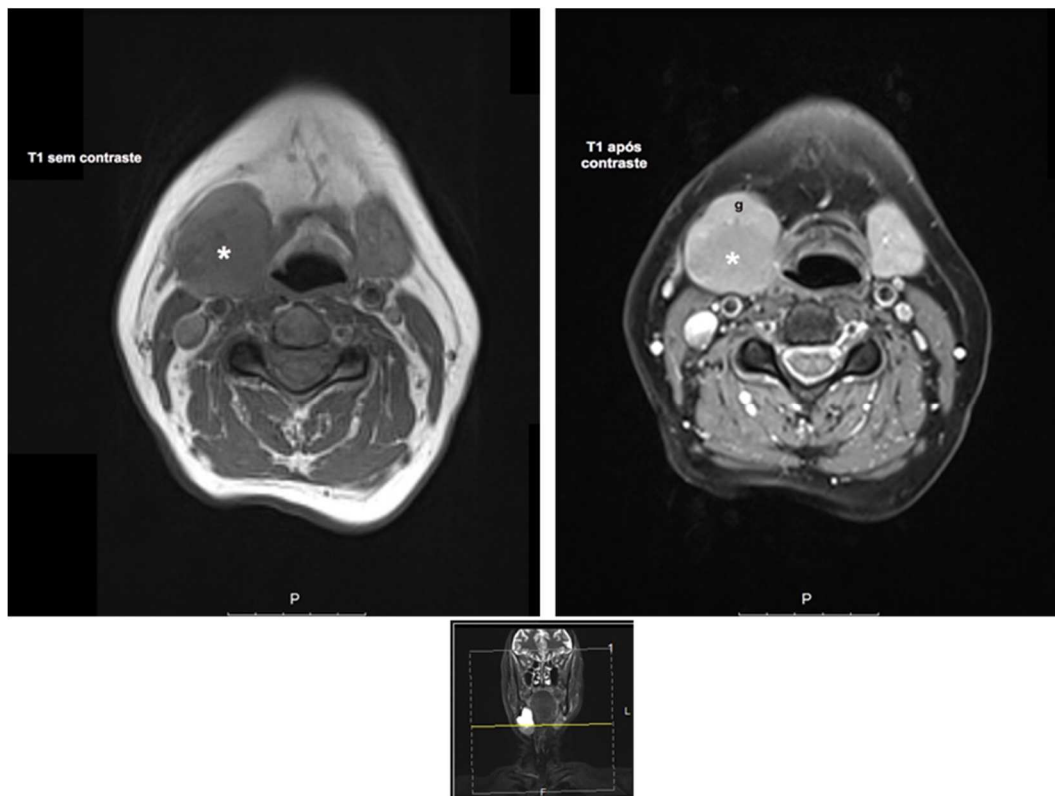
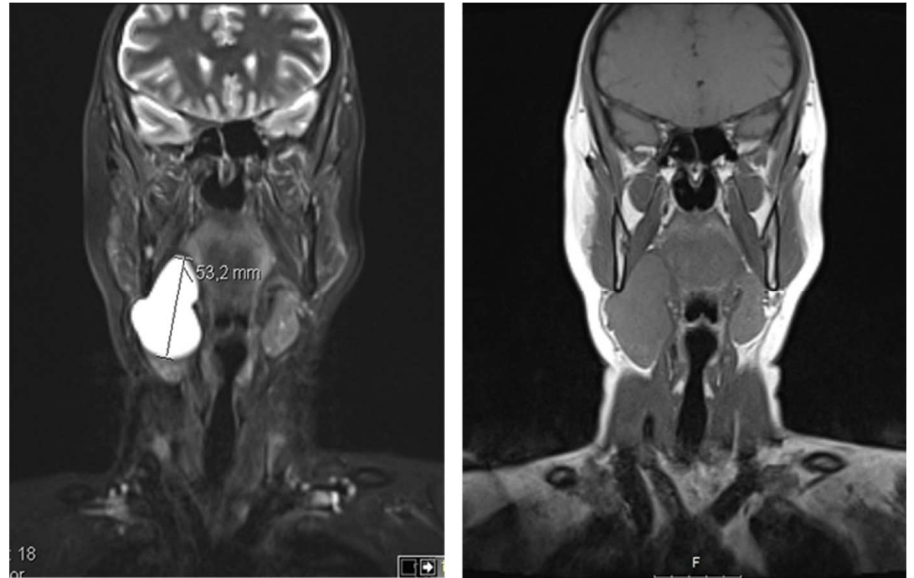
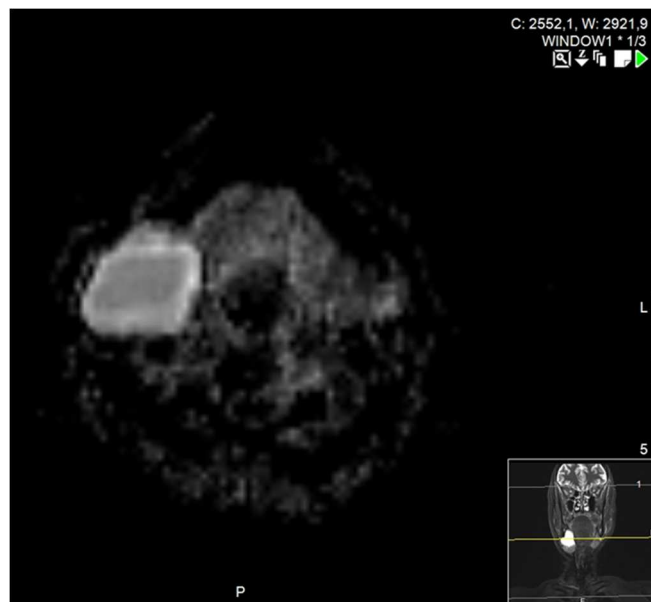


Figura 4: RMN - T1 em corte axial. Sem e após contraste. (\* - lesão; g - glândula submandibular).

Figura 5: RMN com restrição de difusão no centro da lesão quística (ADC) – corte axial.



Perante incerteza diagnóstica, no dia 26 de Março de 2015, a doente foi submetida a submaxilectomia direita por cervicotomia submandibular direita sob monitorização do nervo marginal da mandíbula (**Figura 6**). Durante a cirurgia constatou-se a presença de lesão de contornos bem definidos com conteúdo de provável natureza líquida adjacente à glândula submandibular. A peça cirúrgica tinha cerca de 8 cm de maior diâmetro (**Figura 7**). A cirurgia decorreu sem incidentes e o período pós-operatório imediato não teve qualquer intercorrência. O exame anátomo-patológico revelou tratar-se de quisto epidermóide (**Figura 8 e 9**).

Passado mais de 1 ano a paciente mantém-se assintomática, sem qualquer recidiva ou sequela da cirurgia realizada.

Figura 6: Abordagem cirúrgica. (\*) Quisto submandibular. Ramo marginal da mandíbula destacado a marcador dermatográfico.

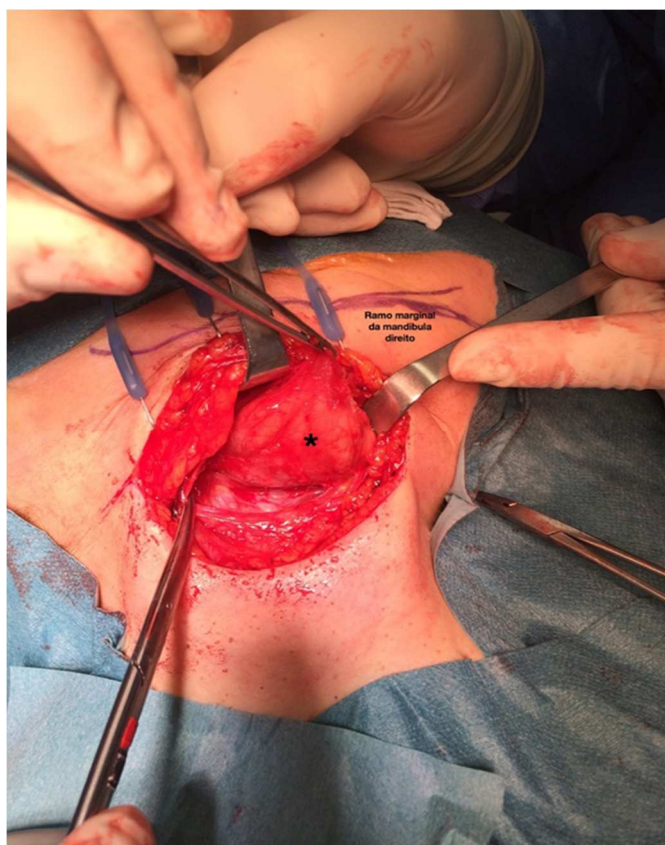


Figura 7: Glândula submandibular com quisto adjacente.

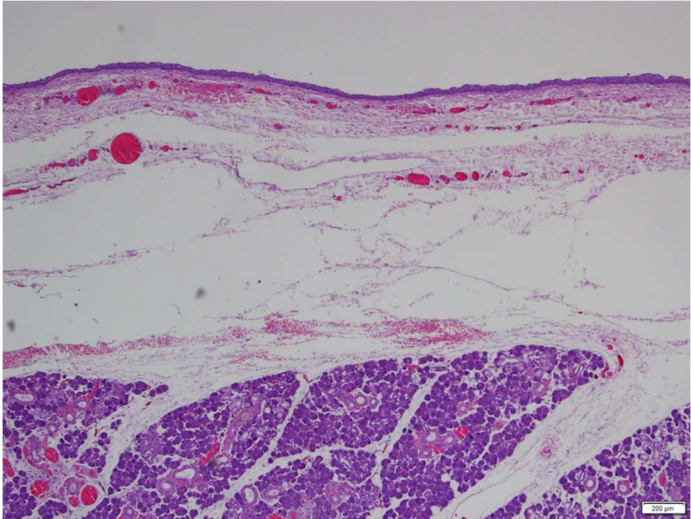
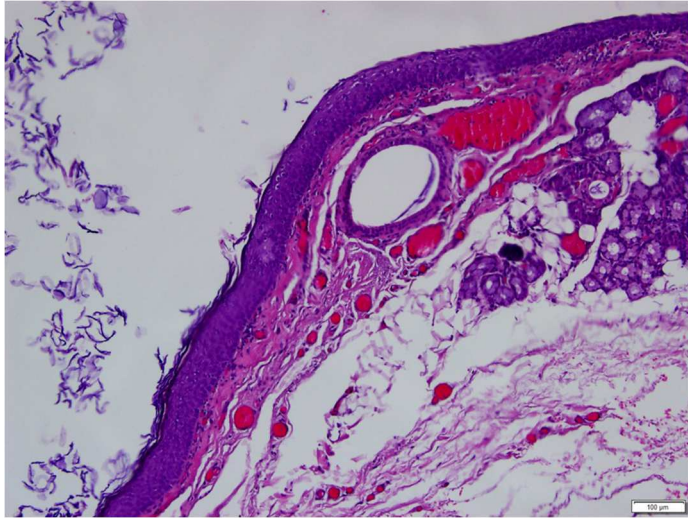
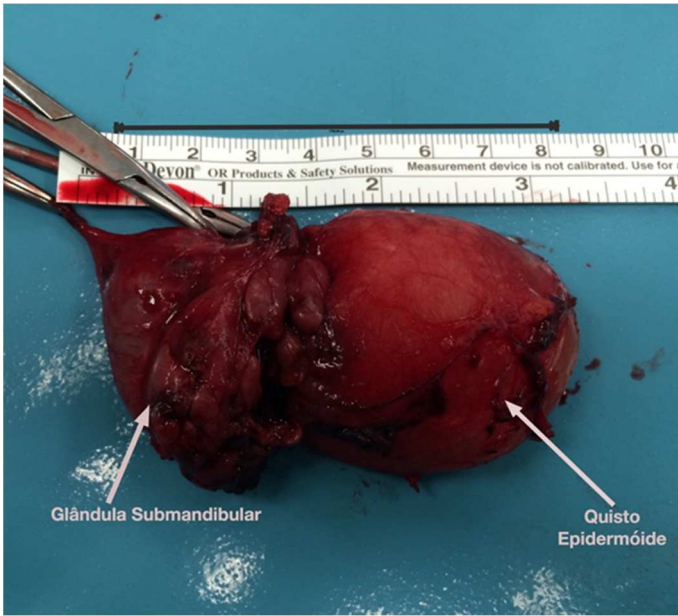


Figura 8: Corte histológico de cápsula de quisto epidermóide – Epitélio pavimentoso estratificado queratinizado (Hematoxilina-Eosina).

Figura 9: Corte histológico de região de transição do quisto epidermóide (superior) para a glândula submandibular (inferior) (Hematoxilina-Eosina).

### Discusión

O diagnóstico diferencial de tumefacção na região submandibular não é linear, tornando-se essencial realizar um estudo clínico complementado com os achados imagiológicos. O primeiro exame a requisitar-se é a ecografia, com a vantagem de poder auxiliar uma biópsia percutânea, seguido de eventual TC e ou RMN. Na região submandibular, relativamente às lesões quísticas, podemos encontrar quistos dermóides, epidermóides e do ducto salivar<sup>1</sup>. Equaciona-se que a possível patogénese desta entidade, encontrada na nossa doente, seja causada pela obstrução do ducto salivar principal da glândula, resultando em refluxo de material viscoso e ou semi-sólido para uma cavidade revestida de epitélio<sup>1,4</sup>. Clinicamente estas lesões apresentam-se como tumefacções indolores de crescimento muito indolente, sem qualquer adesão aos

planos mais profundos ou predisposição infecciosa/inflamatória<sup>4</sup>. De referir que não está descrito que haja infiltração perineural/vascular<sup>4</sup>. Atinge igualmente ambos os sexos entre a 5ª e a 7ª década de idade<sup>4</sup>.

Relativamente às lesões tumorais das glândulas salivares que se podem apresentar como quistos, temos: tumor benigno misto, tumor de Whartin, carcinoma mucoepidermóide, carcinoma adenóide cístico e carcinoma das células acinares<sup>4</sup>. A suspeição de lesões malignas deve ser colocada sobretudo quando a tumefacção tem crescimento muito rápido, com linfadenopatia associada e parésia do marginal da mandíbula<sup>4</sup>. O abscesso é outra possível entidade que cursa com uma tumefacção submandibular de causa glândular ou odontogénica<sup>5</sup>. Nestes casos, a rapidez de instalação do quadro clínico e os sinais inflamatórios são elucidativos.

Em conclusão, a abordagem de uma tumefacção submandibular é um desafio diagnóstico, tornando-se imperativo complementar o exame físico com o estudo imagiológico e, quando possível, biópsia por aspiração<sup>4</sup>. A excisão cirúrgica é o único meio definitivo de obter o diagnóstico. Durante a cirurgia, deve ser preservado o nervo marginal da mandíbula, do facial, o nervo lingual e o nervo hipoglosso<sup>1</sup>.

**Declaración de conflicto de intereses** Sem conflito de interesses a declarar.

### **Bibliografía**

- 1 – Prepageran N, Rahmat O, Kuljit S. Epidermal Cyst of Submandibular Gland. Med J Malaysia. 2005; 60:483-4.
- 2 – Menon S, Pujary K, Valiathan M. Dual pathology of the submandibular gland: plasmacytoma and pleomorphic adenoma. BMJ Case Rep. 2014. doi:10.1136/bcr-2013-202463.
- 3 – Ganesan A, Nandakumar GK. Epidermal Cyst of Parotid Gland: A Rarity and Diagnostic Dilemma. Case Rep Dent. 2015. 2015:856170.
- 4 – Panna N, Hegde et al. A Rare Case of an Epidermoid Cyst in the Parotid Gland – which was Diagnosed by Fine Needle Aspiration Cytology. J Clin Diagn Res. 2013; 7:550-2.
- 5 – Dutt SN, Hock YL, Bhat N, East DM. Epidermoid Cyst of the submandibular gland. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg. 2000; 52: 378-9.