

Hospital Provincial Docente "Manuel Ascunce Domenech" Camagüey.

PLUNGING RÁNULA. A PROPÓSITO DE DOS CASOS Y REVISIÓN DE ALGUNOS ASPECTOS

Jorge L. Zequeira Peña*; **Dr. Clemente Merino López****; **Dr. Rafael Pila Pérez****; **Dr. Rafael Pila Peláez******; **Dra. Margarita Pila Peláez*******

- * *Especialista de I grado de Cirugía Máxilofacial. Hospital "Manuel Ascunce Domenech". Profesor Instructor del ISCM-Camagüey.*
- ** *Especialista de I grado de Cirugía Máxilofacial. Hospital "Manuel Ascunce Domenech".*
- *** *Especialista de II grado de Medicina Interna. Hospital "Manuel Ascunce Domenech". Profesor Titular del ISCM-Camagüey.*
- **** *Especialista de I grado de Medicina Interna. Hospital "Manuel Ascunce Domenech". Profesor Instructor del ISCM-Camagüey.*
- ***** *Estomatólogo General. Policlínico Previsora. Camagüey. Cuba.*

RESUMEN

Se presentaron dos casos con plunging ránula en pacientes jóvenes, masculinos y blancos. Este tipo de enfermedad es bastante rara, ya que su origen es expensa de las glándulas salivares en especial de la glándula sublingual. Señalamos las características clínicas, medio de diagnóstico y tratamiento de esta enfermedad, el cual siempre es quirúrgico, pero de diferentes formas, todo ello debido a que no existe uniformidad en su patogénesis.

DeCS: RÁNULA /diagnóstico/ terapia, INFORME DE CASO

INTRODUCCIÓN

La descripción del término plunging ránkula se refiere a un pseudoquiste que es usualmente el resultado de un fenómeno de extravasación de mucus.¹ Esta entidad se manifiesta clínicamente en el suelo de la boca, como inflamación de la región submandibular, cervical y extensión faríngea.² Este trabajo describe dos casos de plunging ránkula” muestra la clínica y diferentes aspectos adicionales en un esfuerzo de comunicar la historia natural de esta enfermedad, la cual todavía presenta múltiples aspectos oscuros.

REPORTE DE LOS CASOS

Primer Caso. Paciente masculino, blanco de 19 años que presenta desde hace cuatro años una tumoración sublingual con períodos de remitencia. Acudió al cuerpo de guardia por aumento de volumen en región submaxilar con síntomas de dolor discreto, trismo y dificultad al deglutir y al hablar, lo que se interpretó como una sialoadenitis. Se impuso tratamiento con antibióticos de forma ambulatoria, y desaparecieron los síntomas agudos al quinto día. Al concurrir a consulta se detectó que continuaba con tumefacción no tensa, fluctuante en espacios submandibular y triángulo anterior del cuello sin límites precisos (Fig. 1 y 2). Al examen intraoral: tumoración en suelo de la boca de 3 cm. de diámetro con aspecto clínico de una lesión quística, de coloración azulada que aumentaba de tamaño al realizar maniobra de compresión cervical; por lo que se diagnosticó clínicamente una ránkula cervical (Fig. 3).



Fig. 1. Se observa aumento de volumen en la región submaxilar izquierda (Lateral).

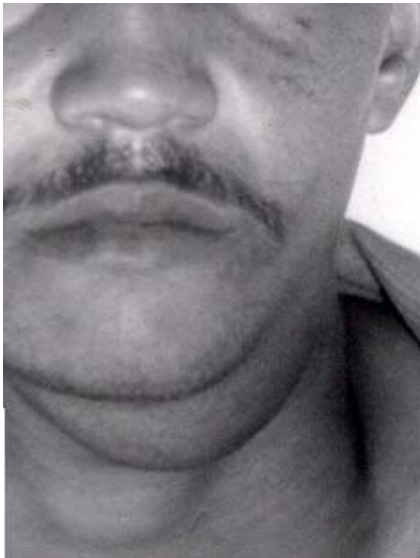


Fig. 2. Se aprecia aumento de volumen de la región submaxilar izquierda (Frontal).



Fig. 3. Se observa aumento de volumen en la glándula sublingual (intraoral).

Se ingresó y se ordenaron exámenes indispensables, todos normales. Radiografía de tórax: normal. ECG: normal. Ecografía de región submandibular y región cervical: aumento de volumen de partes blandas de baja ecogenicidad con imagen no bien definida. Se realizó radiografía contrastada con el objetivo de definir, delimitar y demostrar el proceso, lo cual arrojó un proceso tumoral de aspecto quístico. Se realizó punción y se extrajo contenido del quiste, el cual fue líquido, claro y viscoso que recuerda la saliva. El estudio anatomopatológico no mostró células neoplásicas. La determinación del valor del nivel de amilasa para el líquido quístico fue de 153 U/I, para la saliva mixta fue de 14 000 U/I y para el suero fue de 150 U/I. Estos valores demostraron que el nivel de amilasa en el líquido del quiste era muy bajo.

Se realizó tratamiento quirúrgico con la enucleación del proceso, con exéresis de las glándulas sublingual por vía intraoral, se comprobó el desplazamiento de dicha glándula hacia la profundidad del músculo milohioideo, aspiramos el contenido quístico de la región cervical. El examen histopatológico de la glándula sublingual demostró la existencia de una sialoadenitis inespecífica crónica con ruptura de los acinis y extravasación del contenido de algunas áreas. El paciente fue dado de alta a los tres días y se estudió en consulta durante cinco años, actualmente se mantiene asintomático.

Segundo caso. Paciente masculino de 18 años, blanco, con antecedentes de salud, el cual refiere que hace un año aproximadamente tuvo un “absceso en una

muela” y que a partir de ese momento comenzó a presentar aumento de volumen en la región lateral del cuello, de crecimiento gradual, molesto, acompañado de dificultad para deglutir, masticar e incluso hablar. Nota desde hace tres o cuatro días trismo, por lo que acudió al servicio de urgencias y fue ingresado. Examen intraoral: tumoración de 3.5 a 4 cm de diámetro de color azulado, que a la compresión fue fluctuante, no dolorosa y aumentó de tamaño al realizar compresión cervical, tenía aspecto de una lesión quística (Fig. 4).

Examen extraoral: aumento de volumen de aproximadamente 5 cm. de diámetro, consistencia blanda, fluctuante y no dolorosa en la región lateral del cuello y espacio submandibular izquierdo (Fig. 4, 5).



Figura 4. Observe en otro paciente aumento de volumen de región submaxilar derecha.



Figura 5. Aspecto intraoral de la ránula sublingual.

Exámenes indispensables: normales. Radiografía de tórax: normal. ECG: normal. Ecografía de región submandibular y región cervical: aumento de volumen de partes blandas de baja ecogenicidad con imagen de 40 a 50 mm. de aspecto quístico. El paciente presentaba un quiste de extravasación mucosa y se determina los niveles de amilasa en suero, saliva y líquido quístico. El valor del líquido quístico fue de 106 U/I, la saliva presentó una cifra de 12 315 U/I y en el suero fue de 130 U/I. Se sometió a intervención quirúrgica, con exéresis de la glándula sublingual por vía intraoral. En el acto transoperatorio se encontró que parte de la glándula estaba desplazada hacia la profundidad, y el músculo milohioideo estaba perforado. El examen histopatológico mostró una sialoadenitis inespecífica crónica. El paciente fue dado de alta a los tres días, han transcurrido cuatro años de su operación y se encuentra asintomático

DISCUSIÓN

Se han reportado dos tipos de ránulas, que se distinguen por sus diferentes comportamientos clínicos. La ránula simple, que se limita a la cavidad oral y ha sido considerada como un quiste de retención ³ la llamada plunging ránula”, que se extiende más allá de la boca, entra en los espacios faciales del cuello y puede llegar tan lejos como la clavícula en sentido caudal, ⁴ o la base del cráneo en sentido cefálico⁵ nuestros dos casos fueron de plunging ránula.

La ránula ha sido conocida durante siglos y se han propuesto múltiples teorías sobre su origen. ⁶ Lo cierto es que a pesar de los años transcurridos desde las primeras comunicaciones no se ha demostrado claramente ningún mecanismo patogénico claro para explicar la formación de la plunging ránula”, aunque si 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 de un conducto de secreción salival que produce una retención salival y que provoca la formación de un quiste, rodeado por una membrana epitelial,⁷ esto ha sido negado por otros

autores en base a la observación de que los mucocelos cervicales carecen de un límite epitelial.⁸ Finalmente, algunos autores dan un enfoque mixto a la patogenia y explican que una obstrucción del flujo parcial podría dar lugar a la dilatación de conductos y acinis, con rupturas de algunos de ellos y drenaje de saliva hacia el intersticio⁶

Se ha reportado que esta entidad es más frecuente en la segunda y tercera décadas de la vida con promedio de treinta años, aunque se han reportado en períodos de gestación en el feto y después del nacimiento a los dos o tres años⁹⁻

¹¹ Puede ocurrir en cualquier raza o país, pero es más frecuente en las Islas del Pacífico y en personas de descendencia Maoru.¹² Igualmente se ha señalado su asociación con enfermedades granulomatosas como la sarcoidosis que en ocasiones es la primera expresión de esta enfermedad.¹³

Respecto al diagnóstico de la plunging rínula hay que señalar que como en toda las enfermedades de baja incidencia se ve dificultado por las escasas sospechas del médico. En primer lugar se ha de basar en la clínica y se debe sospechar ante toda tumoración cervical blanda fluctuante donde no hay signos de inflamación aguda, no exista dolor a la palpación, aunque los enfermos pueden referir dificultad al hablar, masticar, deglutir o presentar trismo¹⁴ como lo presentaron nuestros enfermos. Si todo esto va asociado con antecedentes de sufrir una rínula 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,¹⁵ aunque hay autores⁹⁻¹¹ que reportan la presencia cervical aislada de la plunging rínula.

Se ha señalado la utilidad de la sialografía de la glándula sublingual, pero desafortunadamente esta prueba no puede realizarse en el hombre rutinariamente.

¹⁶ Algunos autores¹⁷ han conseguido sialogramas de la sublingual en humanos en casos en que esta glándula drene directamente al conducto de *Wharton*.³ El ultrasonido de la glándula y de la zona afectada ayuda al diagnóstico, pero no evidencia como tal, sino que puede señalar la naturaleza quística del proceso.¹⁸

Hoy en día el diagnóstico se basa en la tomografía axial computarizada la cual ofrece el signo del rabo que es patoneumónica y en la resonancia magnética

nuclear^{18,19} y se confirma con el estudio histopatológico de la lesión,¹⁻⁵ aunque existen otros exámenes encaminados a encontrar datos bioquímicos que ayuden al diagnóstico y a esclarecer el origen de esta lesión como es medir los niveles de amilasa y proteínas en el líquido quístico, encontrando valores más altos para la amilasa y más bajos para las proteínas en el líquido quístico respecto al suero.¹⁶

Los niveles de amilasa en la saliva submaxilar son mucho más altos que los de la saliva sublingual, lo que se traduce en que en la saliva mixta se hallan valores de amilasa más altos que en la sublingual como lo aprecian nuestros enfermos.

El diagnóstico diferencial se debe efectuar con todas las tumefacciones que pueden aparecer en la parte superior del cuello: celulitis, litiasis, quistes dermoides y epidermoides, quiste tirogloso, quistes braquiales, hemangiomas, linfangiomas, lipomas, adenomas y otras neoplasias,^{1-3, 8, 16}

Una amplia variedad de modalidades de tratamiento han sido referidas por diversos autores a lo largo de los últimos 50 años a causa de que esta problemática lesión tiene tendencia a recurrir después del drenaje quirúrgico simple o la marsupialización.²⁰ La diversidad de tratamientos propuestos tienen su origen en la falta de una explicación etiopatogénica clara.¹⁴⁻¹⁷

*Vanderakller y cols.*²¹ en 1988 señala cinco técnicas quirúrgicas utilizadas en esta enfermedad, mientras en la actualidad *Yoshimura y cols.*,²² reportan solo tres de los realizados por *Vanderakller*²¹ y que son: la exéresis de la ránula solamente, marsupialización y la eliminación de la glándula sublingual combinada con la exéresis de la ránula; de las tres técnicas quirúrgicas la última es la mejor pues no se reportan recurrencias del proceso.²⁰⁻²² Nuestros dos pacientes fueron intervenidos por la tercera técnica quirúrgica y después de varios años se encuentran asintomáticos.

Otros tratamientos consisten en utilizar drenaje de la afección y después introducir Aetoxysclerol⁶ o tratamiento con radiación previa aspiración del contenido quístico y de inyectar 2 ml. de oxícloruro de bismuto al 10 %, posteriormente se administra una única dosis de 300 rads a través de la piel submaxilar, se supone que las partículas del bismuto amplían la intensidad de la radiación 30 veces.¹⁶

Se concluye que esta entidad es infrecuente y de patogenia muy debatida, cuyo diagnóstico debe efectuarse por la clínica, la TAC, la resonancia magnética y en ocasiones por la determinación de amilasa del líquido del quiste. El proceder quirúrgico debe estar encaminado a la exéresis de la glándula sublingual.

ABSTRACT

Two cases with plunging ranula in young patients. Masculine and white were presented. This type disease is too rare, because its origin is in the salivary glands, specially the sublingual. We pointed out the clinical characteristics, diagnostic means and treatment of this disease, which is always surgical, but by different forms, because there is not uniformity in its pathogenesis.

DeCS: RÁNULA/diagnosis/ therapy; CASE REPORT

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Scouteris ch, Soterennos G. Plunging Ranura: report of a case. J Oral Maxillo Fac Surg 1997; 45: 1068- 72.
2. Ichimorak Ohta, Tayama N. Surgical management of the plunging ranula: a review of seven cases. J of Laryngology and Otology, 1996; 110: 554- 6.
3. Quick C, Lowell S. Ranula and the sublingual salivary glands. Arch Otolaryngol 1997; 103: 397- 401.
4. Crille G. Ranulas with extension in to the neck (So called plunging ranula). Surg 1957; 4: 819-21.
5. Lyall J. Plunging ranula: an unusual presentation. Br J Oral Maxillo Fac Surg 1992; 27: 60- 2.
6. De Coster D, Bossuyt M. The plunging ranula: a case report acta stomatol Belg 1996; 90: 157- 61.
7. Mizuno A, Yamaguchi K. The plunging ranula. Int J oral Maxillo Fac Surg, 1996; 22: 113- 5.
8. Langlois N, Kol he P. Plunging ranula: a case report and a literature review. Hum Pathol 1998; 23: 1306- 8.

9. Stellman R, Weisse M, Ramadam H. Congenital ranula. Clin Pediatr(Phila), 1998; 37: 205- 7.
10. Fernández Moya J, Cifuentes Sulzberger S, Diaz Recasens J, Ramos C, Sanz R, Perez Tejerizo G. Ante natal diagnosis and management of a ranula. Ultra sound. Obstet Gynecol 1998; 11: 147- 8.
11. Cataldo E, Santis H. A clinic- pathologic presentation. Ranula. J Mas Dent Soc 1996; 45: -7.
12. Davison M, Morton R, Mc Ivor N. Plunging ranula: clinical observations. N State Dent J, 1996; 62: 37- 9.
13. Vitay V, Newman R, Bebawi M, Godfrey H. Sarcoid ranula. ITS association with wide- spread sarcoidosis. Oral. Surg Med Oral Pathol Oral Radiol 1996; 79: 449- 51.
14. Vorpahl H, Schauss F. Diving ranula. a rare disease picture. H NO, 1997; 45: 563- 6.
15. Maloney P. Plunging ranula: report of a case. J oral Maxillo Fac Surg 1997; 45: 563- 6.
16. Garatea Crelgo J, Escoda Gay C. Ranula cervical: a proposito de un caso. Archivos de Odontoestomatología 1996; 6: 36- 42.
17. Von Hippel R. Über bau und wesen der ranula. Arch Klin Chir 1990; 55: 164.
18. Mandel L, Miremadir CT. Scanning of the plunging ranula. Case report. N y State Dent J 1997; 63: 38- 42.
19. Lomas D, Cararoll N, Jonhson G, Antoun N, freer C. MR. Domenechphy.- work in progress. Radiology 1996; 200: 129- 33.
20. Sorribes M, Jewsen R, Charabis, Balle V. Oral ranula. A follow- up study. Ugeskr Laeger 1999; 161: 1108- 11.
21. Van der Akker H, Bays R, Becher A. Plunging of cervical ranula. J Maxillo Fac Surg 1988; 6: 286- 93.
22. Yoshimura Y, Obara S, Kondoh T, Naitoh S. A comparison of three methods used for treatment of ranula. J oral Maxillo Fac Surg 1997; 53: 280- 2.

Correspondencia:

Dr. Jorge Luis Zequeira Peña

Dpto. Máxilo Facial

Hospital Provincial Docente “Manuel Ascunce Domenech”.

Camagüey. Cuba.