

Diagnóstico y tratamiento de extravasación salival asociado a glándulas salivales Blandin-Nuhn: Reporte de caso clínico y revisión de la literatura

Diagnosis and treatment of salivary extravasation associated with Blandin-Nuhn salivary glands: Clinical case report and literature review

Hernán Castilla-Canseco¹, María Fernanda Cabrera del Cid¹, Fabiola Salgado-Chavarría¹

¹ Universidad Nacional Autónoma de México, Facultad de Odontología, Especialidad de Cirugía Oral y Maxilofacial, División de Estudios de Posgrado e Investigación, Ciudad de México, México.

Correspondencia:

María Fernanda Cabrera del Cid: mfcid1607@gmail.com
Universidad Nacional Autónoma de México, Ciudad de México, México.

Dirección: Copilco Universidad, Cerro Culiacán 19, Coyoacán, Ciudad de México, México
ORCID: 0009-0000-1165-7495

Coautores:

Hernán Castilla-Canseco: castilla_hernan@yahoo.com.mx
ORCID: 0000-0001-5742-0944

Fabiola Salgado Chavarría: coor.inv.esp-depei@fo.odonto.unam.mx
ORCID: 0000-0002-8507-8346

Conflictos de intereses: Los autores declaran no tener ningún conflicto de interés.

Fuente de financiamiento: Autofinanciado.

Recibido: 23/09/2023

Aceptado: 11/02/2024

Publicado: 28/03/2024

Resumen

Los mucocelos son lesiones de extravasación salival asociados a la ruptura de los conductos que generalmente se asocian con trauma. Son azuláceos, con aspecto traslúcido, fluctuantes a la palpación, expansivos y de crecimiento rápido. Mayoritariamente se manifiestan en población joven. El sitio más común de localización es la mucosa de labio inferior, sin embargo, pueden presentarse en cualquier zona que contenga glándulas salivales menores, como vientre de lengua, donde se encuentran las glándulas Blandin-Nuhn. La frecuencia de las lesiones asociadas a éstas glándulas es del 2.25% reportándose aproximadamente 400 casos hasta la fecha. La finalidad de ésta publicación es la descripción de una patología infrecuente, así como realizar una revisión a la literatura. Se presenta el caso de una niña de tres años con historia de aumento de volumen congénito en el dorso de la lengua sin síntomas compatibles con mucocelo, se realiza biopsia excisional bajo anestesia general. El resultado del estudio histopatológico reporta: fenómeno de extravasación de mucosa. Paciente evoluciona satisfactoriamente. Estas lesiones expansivas pueden repercutir en el desenvolvimiento normal de la vida de las personas causando dislalia, disfagia y disnea. El tratamiento de este tipo de lesiones en la infancia favorece a un adecuado desarrollo del habla y mejora las condiciones de alimentación.

Palabras clave: Mucocelo; Glándulas Salivales Menores; Conductos Salivales (fuente: DeCS BIREME)

Abstract

Mucocels are salivary extravasation lesions associated with rupture of ducts that are generally associated with trauma. They are bluish, translucent in appearance, fluctuating on palpation, expansive and fast growing. They mostly occur in young people. The most common site of location is the mucosa of the lower lip, however, they can occur in any area that contains minor salivary glands, such as the belly of the tongue, where the Blandin-Nuhn glands are located. The frequency of lesions associated with Blandin-Nuhn's glands is 2.25%, with approximately 400 cases reported to date. The purpose of this publication is the description of an uncommon pathology, as well as a review of the literature. The case of a three-year-old female with a history of congenital volume increase at the dorsum of the tongue without symptoms compatible with mucocelo is reported,

an excisional biopsy was performed under general anesthesia. The result of the histopathological study reports: extravasation mucus phenomenon. Patient evolves satisfactorily. These expansive lesions can affect the normal development of people's lives, causing dyslalia, dysphagia and dyspnea. Treatment of this type of injuries in childhood favors adequate speech development and improves feeding conditions.

Keywords: Mucocèle; Salivary Glands, Minor; Salivary Ducts (source: MeSH NLM)

Introducción

El mucocèle es una patología benigna que se presenta en las glándulas salivales, con mayor frecuencia en las menores. Esta tumefacción de apariencia vesículo-ampollosa o nodular de aspecto traslúcido o color azulado se produce por extravasación o retención de moco, asociada a trauma (92%) u obstrucción del conducto glandular (8%). El mucocèle es frecuente en las glándulas salivales menores del labio inferior en jóvenes¹. La lengua, por otro lado, tiene tres juegos de glándulas salivales menores ubicadas en diferentes regiones: las glándulas de Weber en el borde lateral de la lengua, las glándulas de von Ebner alrededor de las papilas circunvaladas y foliadas. Finalmente las glándulas salivales menores de Blandin-Nuhn, localizadas en el segmento profundo del vientre lingual^{2,3}. Éstas glándulas habían sido mencionadas primariamente por Blandin; pero Nuhn fue el primero que descubrió sus conductos excretores, que son aproximadamente 4 a 5. Estos se abren perpendicularmente en la cara ventral de la lengua, de aquí es de donde provienen los nombres de las glándulas Blandin-Nuhn²⁰.

Los mucocèles de Blandin-Nuhn (MBN) son lesiones benignas raras que se desarrollan en el lado ventral de la lengua en recién nacidos así como en pacientes pediátricos y adultos. Estas lesiones son frecuentemente mal diagnosticadas como mucocèles o ránulas convencionales que se encuentran en el piso de boca y se extienden a la porción ventral de la lengua^{4,16}. A pesar del pequeño tamaño de las glándulas, cuyas dimensiones varían entre 8 mm de extensión, así como, 12-25 mm en su profundidad; estos MBN a veces pueden tener grandes

dimensiones⁵. La rotura del conducto glandular por traumatismo es el principal factor causal del MBN⁶.

Se han propuesto tratamientos para el MBN según el tamaño de la lesión. Los mucocèles pequeños se eliminan junto con las glándulas vecinas y los mucocèles grandes pueden tratarse mediante marsupialización o micromarsupialización. La escisión quirúrgica convencional realizada con bisturí o electrocauterio es la principal opción de tratamiento⁷. Se han utilizado láseres de diferentes longitudes de onda (810-830nm, 940nm y 980nm) para tratar el mucocèle en la región del labio^{8,9}.

En este reporte describe el caso de un paciente con MBN tratado con escisión quirúrgica, la cual se encontraba ubicada en la superficie ventral de la lengua, obteniendo los resultados muy satisfactorios en el transoperatorio y en el seguimiento. El objeto de ésta publicación es la exposición de una patología infrecuente y realizar una revisión a la literatura.

Reporte de caso

Fémica de tres años de edad, no refiere antecedentes médico-patológicos acudió al Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial del Hospital de Peralvillo, por presentar incremento de volumen en lengua desde los primeros días de vida sin sintomatología asociada, sin antecedente traumático o quirúrgico durante el nacimiento o en la infancia. Se inicia evaluación extraoral, donde se observan y palpan tejidos sin alteraciones. Sin embargo, al examen intraoral se observa en vientre y dorso de lengua un aumento de volumen, azulado, de superficie lisa, fluctuante a la palpación, de aproximadamente 3 cm de diámetro (Fig. 1 y 2); sin alteración en la función



Fig. 1. Vista frontal, obsérvese punta lingual deformada a expensas del aumento de volumen por la extravasación salival.



Fig. 2. Vista lateral, se observa aumento de volumen en porción dorsal y ventral lingual.

motora lingual y cuyo diagnóstico clínico de sospecha es una extravasación salival. La paciente presenta alteración al deglutir alimentos, así como ligera discrepancia fonética. Por lo que, se decide tomar una biopsia por aspiración para evaluar el contenido de la lesión y descartar posibles diagnósticos diferenciales; el aspecto del contenido es un líquido incoloro ligeramente turbio que se asemeja a fluido salival.

Bajo anestesia general, se realiza biopsia escisional; se procede a realizar infiltraciones perilesionales de anestésico local con fines hemostáticos (Fig. 3). Se realiza una incisión en forma de huso en el eje longitudinal del vientre de lengua (Fig. 4), una vez accediendo a la lesión se disecciona cuidadosamente. Se obtiene completamente la lesión (Fig. 5); se inspecciona el lecho quirúrgico, eliminando las glándulas salivales de la base para evitar recurrencia (Fig. 6). Se asegura hemostasia y se sutura con Vycril® 4-0 para cierre primario de la incisión (Fig. 7).

Se envía a estudio histopatológico, el resultado reporta: fenómeno de extravasación de mucosa; la descripción microscópica indica espécimen formado por una cavidad llena de moco, rodeada por una cápsula de tejido conectivo fibroso denso, bien vascularizado con infiltrado inflamatorio crónico leve difuso con macrófagos espumosos acinos de glándulas salivales mixtas, conductos glandulares, músculo estriado y nervios.

Se brindan citas de seguimiento a los 7, 14 y 21 días, se da de alta por evolución satisfactoria; sin embargo, se manda interconsulta a terapia del lenguaje por discrepancias en el habla. Finalmente 6 meses después del evento quirúrgico, se observa correcto proceso de cicatrización, sin recurrencia de la lesión, correcta función motora de la lengua, mejoría en cuanto a la deglución y fonética (Fig. 8).

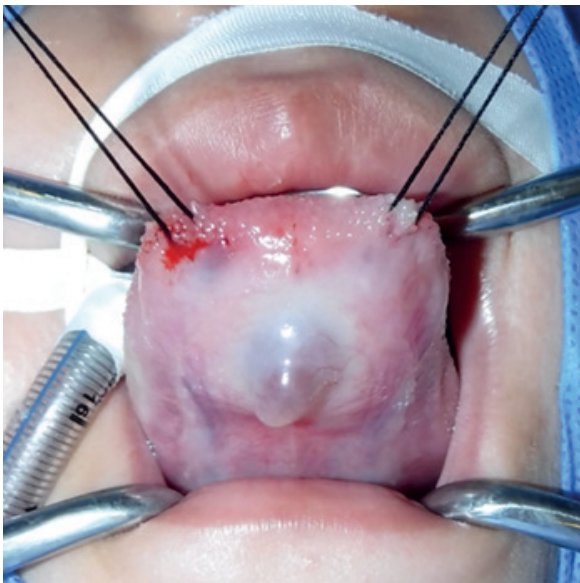


Fig. 3. Vista ventral lingual previo a biopsia escisional.

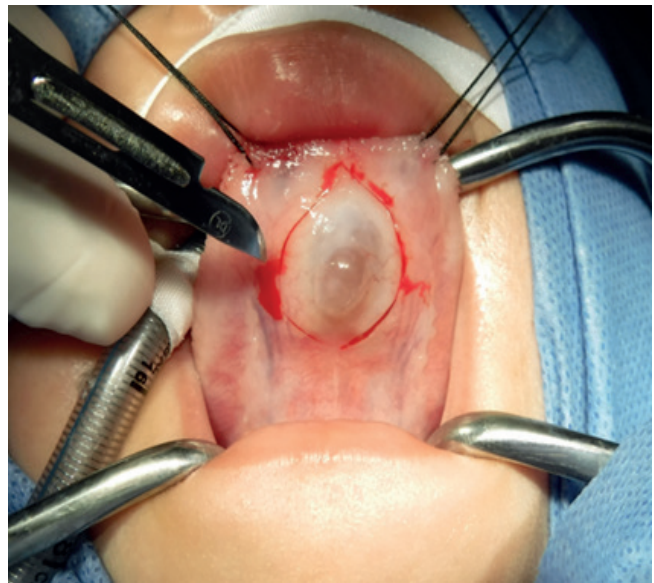


Fig. 4. Vista ventral lingual, delimitación de incisión en forma de huso.

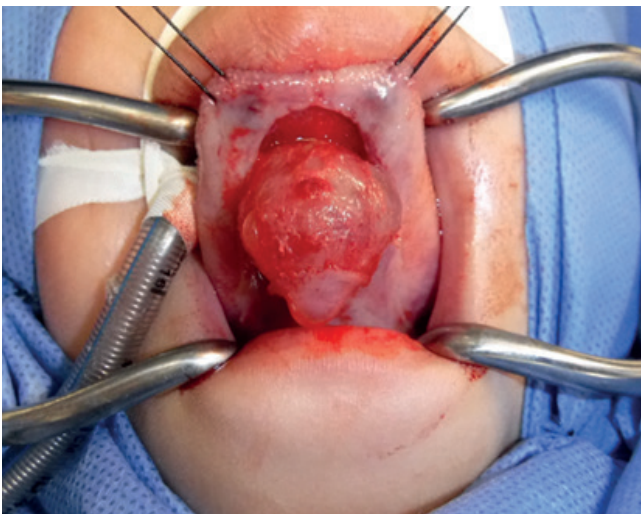


Fig. 5. Disección de la lesión.

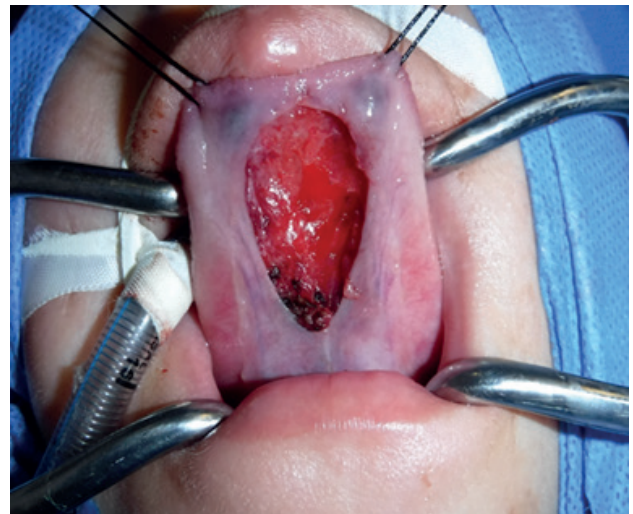


Fig. 6. Lecho quirúrgico posterior a la eliminación de glándulas salivales de la base.

Discusión

El MBN se describe como una lesión relativamente rara, compone solo el 2.5% de los mucocelos que ocurren en la cavidad oral^{10,11}. Sin embargo, la baja prevalencia de MBN también puede deberse a un descuido o diagnóstico no concluyente, principalmente debido a que el mucocelo tiene paredes delgadas, haciéndola susceptible a la ruptura¹² y pasando desapercibido.

Las glándulas de Blandin-Nuhn son glándulas sero-mucosas, ubicadas lateral a la línea media en el vientre de la lengua, insertadas en el plano muscular de la lengua, cubierto por una delgada capa de mucosa¹³. En general, MBN puede darse como el resultado de algún trauma o como iatrogenia en una frenectomía lingual¹¹. También se ha descrito un origen congénito de la lesión con una resolución espontáneamente después de 6 meses¹⁴. La ubicación de éstas glándulas salivales menores, dentro de la estructura muscular, conduce a la formación de mucocelos que requieren un tratamiento más invasivo como la escisión quirúrgica con riesgo de un posible daño a otras estructuras anatómicas, especialmente vasos sanguíneos, incluso otras glándulas salivales⁹. El tratamiento quirúrgico debe ser invasivo ya que los MBN deben ser removidos hasta la superficie muscular, incluyendo las glándulas de menor tamaño más profundas que se encuentran en el lecho quirúrgico para prevenir la reaparición de la lesión¹⁵.

La examinación clínica es relevante para el diagnóstico, lesiones como lipoma o carcinoma mucoepidermoide pueden ser clínicamente similar a un MBN¹⁶. El examen histopatológico es importante para confirmar el diagnóstico ya que los MBN comparten características clínicas similares con anomalías vasculares, granulomas piógenos e hiperplasias fibrosas, según el nivel de vasculatura y atrofia de acinos¹⁵. El MBN al formarse como resultado de un traumatismo en vientre de la lengua, rompe el conducto de drenaje, esto da como resultado la extravasación de secreciones en los tejidos conectivos lo que provoca una respuesta inflamatoria y de reparación tisular variable. Los elementos del tejido vascular y de granulación pueden ser pronunciados como se encuentra en los granulomas piógenos².

En las últimas tres décadas han surgido técnicas alternativas para el tratamiento de MBN como la inyección de etanol⁶. El etanol absoluto actúa como agente esclerosante y demostró ser seguro y eficaz en tratamientos para tumores renales, quistes y malformaciones vasculares⁶. El mecanismo de acción del etanol absoluto es hacer que las células epiteliales cerca de la brecha de un túbulo mucoso se deshidraten y necrosen, lo que conduce a una reacción inflamatoria y desarrollo de cicatriz que cierra la brecha que provoca el desbordamiento de la mucosidad⁶. Ésta técnica es simple, menos invasiva, efectiva y económica. Sin embargo, sus efectos secundarios no han sido evaluados todavía.

Otra técnica que también se considera para el tratamiento de MBN es la micromarsupialización que ha probado ser simple, no invasiva, indolora, efectiva y de baja

recurrencia para tratar ránulas y mucocelos. Sin embargo posee de desventajas el trauma, dolor, disfunción labial, daño a estructuras vitales adyacentes y formación de lesiones satélite. Por otro lado la técnica de infiltración de corticoesteroides también posee beneficios sobre MBN. Los corticoesteroides actúan como potente agente antiinflamatorio inhibiendo la presentación de una variedad de factores de inflamación (citoquinas, quimiocinas, enzimas, proteínas, entre otros). Por otro lado, participan al transcribir genes que posteriormente formarán proteínas antiinflamatorias como lipocortina-1, interleucina-1 y antagonista del receptor de interleucina 10. También actúan como agente esclerosante causando contracción en los ductos salivares dilatados²².

Cuando se considera la escisión quirúrgica convencional, la lesión se puede rellenar con material de impresión fluida o con alginato antes de la cirugía para mejorar la visualización de la zona durante el procedimiento quirúrgico, lo que permite al cirujano tener la lesión mejor delimitada¹⁷.

Las lesiones provocadas por extravasación salival pueden interferir en el habla y en la alimentación²³. También, son áreas que pueden traumatizarse fácilmente y son una fuente de irritación e incomodidad para el paciente, por lo que se debe de realizar el tratamiento quirúrgico²⁴.

Conclusión

La extravasación salival asociada a glándulas menores Blandin-Nuhn, se presenta de forma infrecuente de todos los mucocelos orales. Estas lesiones son benignas y de tamaño variable. Por esta razón, es importante valorar todas las características de la lesión de esta forma realizar un diagnóstico certero y un tratamiento efectivo.

Estas lesiones son expansivas pueden repercutir en el diario vivir de las personas afectadas causando dislalia, disfagia y hasta disnea, como se presentó en el caso. El tratamiento por excelencia es la eliminación quirúrgica de la lesión, es importante conocer los límites de la lesión y eliminar posibles glándulas que se encuentren en el lecho quirúrgico para evitar recurrencias.

Referencias bibliográficas

1. Kato RB, Jácome-Santos H, Couto APGR, Abreu LG, Mesquita RA, et al. Management of Mucocele of the Glands of Blandin-Nuhn With a High-Intensity Laser: A Case Report. *J Lasers Med Sci*. 2021;12:1–4. DOI: <https://doi.org/10.34172/JLMS.2021.27>
2. Sugerman PB, Savage NW, Young WG. Mucocele 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(4):478–82. DOI: <https://doi.org/10.1067/MOE.2000.108805>
3. Adachi P, Soubhia AMP, Horikawa FK, Shinohara EH. Mucocele of the glands of Blandin-Nuhn-clinical, pathological, and therapeutical aspects. Vol. 15, *Oral and Maxillofac Surg*. Springer Verlag. 2011;11–3. DOI: <https://doi.org/10.1007/S10006-010-0221-1>

4. De Falco D, Di Venere D, Maiorano E. Diode Laser Excision of Blandin-Nuhn Mucocele. *Cureus*. 2020;12(3):1-4. DOI: <https://doi.org/10.7759/CUREUS.7441>
5. De Camargo Moraes P, Bönecker M, Furuse C, Thomaz LA, Teixeira RG, et al. Mucocele of the gland of Blandin-Nuhn: Histological and clinical findings. *Clin Oral Investig*. 2009;13(3):351-3. DOI: <https://doi.org/10.1007/S00784-009-0252-X>
6. Zhang J, Wang C. The Application of Absolute Ethanol in the Treatment of Mucocele of the Glands of Blandin-Nuhn. *J Craniofac Surg*. 2016;27(7):1-2. DOI: <https://doi.org/10.1097/SCS.0000000000002993>
7. Kennedy Silva Santos I, Melo de Matos JD, Martins Pereira Lucena Franco J, Cavalcante-Pereira N, Eversong Lucena de Vasconcelos J, et al. Mucocele In Blandin-Nuhn Glands: Case Report And Integrative Review. *Int Arch Med*. 2016;392(9):1-7. DOI: <https://doi.org/10.3823/2263>
8. Ramkumar S, Ramkumar L, Malathi N, Suganya R. Excision of mucocele using diode laser in lower lip. *Case Rep Dent*. 2016;2016:1-4. DOI: <https://doi.org/10.1155/2016/1746316>
9. Bagher SM, Sulimany AM, Kaplan M, Loo CY. Treating mucocele in pediatric patients using a diode laser: Three case reports. *Dent J (Basel)*. 2018;6(2):1-6. DOI: <https://doi.org/10.3390/DJ6020013>
10. Adachi P, Soubhia AMP, Horikawa FK, Shinohara EH. Mucocele of the glands of Blandin-Nuhn-clinical, pathological, and therapeutical aspects. *Oral and Maxillofac Surg*. Springer Verlag; 2011;15: 11-3. DOI: <https://doi.org/10.1007/S10006-010-0221-1>
11. Said M, Walby JA, Senders C, Aizenberg D. Mucocele of the Glands of Blandin-Nuhn, a rare complication following lingual frenectomy: Case report. *Intern J Pediatr Otorhinolaryng Case Reports*. 2018;21:3-5. DOI: <https://doi.org/10.1016/J.PEDEO.2018.05.002>
12. de Camargo Moraes P, Bönecker M, Furuse C, Thomaz LA, Teixeira RG, et al. Mucocele of the gland of Blandin-Nuhn: Histological and clinical findings. *Clin Oral Investig*. 2009;13(3):351-3. DOI: <https://doi.org/10.1007/S00784-009-0252-X>
13. Sugerman PB, Savage NW, Young WG. Mucocele 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(4):478-82. DOI: <https://doi.org/10.1067/MOE.2000.108805>
14. Ochiai A, Nakayama M. Congenital mucocele of the gland of Blandin-Nuhn. *Oxf Med Case Reports*. 2015;2015(12):374-5. DOI: <https://doi.org/10.1093/OMCR/OMV066>
15. 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):379-83. DOI: <https://doi.org/10.4103/1947-2714.100977>
16. Graillon N, Mage C, Le Roux MK, Scemama U, Chossegros C, et al. Mucoceles of the anterior ventral surface of the tongue and the glands of Blandin-Nuhn: 5 cases. *J Stomatol Oral Maxillofac Surg*. 2019;120(6):509-12. DOI: <https://doi.org/10.1016/J.JORMAS.2019.04.005>
17. Kumaresan R, Karthikeyan P, Mohammed F, Arishiya TF. A Novel Technique for the Management of Blandin-Nuhn Mucocele: A Case Report. *Int J Clin Pediatr Dent*. 2013;6(3):201-4. DOI: <https://doi.org/10.5005/IP-JOURNALS-10005-1219>
18. Jinbu Y, Kusama M, Itoh H, Matsumoto K, Wang J, et al. Mucocele of the glands of Blandin-Nuhn: clinical and histopathologic analysis of 26 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2003;95:467-70. DOI: <https://doi.org/10.1067/MOE.2003.51>
19. Baurmash HD. Mucoceles and ranulas. *J Oral Maxillofac Surg* 2003;61:369-78. DOI: <https://doi.org/10.1053/JOMS.2003.50074>
20. Sappey PC, Santana F. *Tratado de anatomía descriptiva*. 2ª edición. Madrid. Librería Extranjera y Nacional Científica y Literaria; 1855.
21. Sugerman PB, Savage NW, Young WG. Mucocele 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(4):478-82. DOI: <https://doi.org/10.1067/MOE.2000.108805>
22. Sinha R, Sarkar S, Khaitan T, Kabiraj A, Maji A. Non-surgical Management of Oral Mucocele by Intralesional Corticosteroid Therapy. *Int J Dent*. 2016;2016:1-5. DOI: <https://doi.org/10.1155/2016/2896748>
23. Martínez HP, Aguilar FEG, Gutiérrez RJF. Lesiones orales del recién nacido. *Oral*. 2015;16(52):1283-1286.
24. 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):379-83. DOI: <https://doi.org/10.4103/1947-2714.100977>

Contribuciones de los autores

HC: Brindar información del artículo, redacción del artículo, aprobación del artículo, aceptación de ser responsable de todos los aspectos del trabajo.

FS: Redacción del artículo, revisión crítica del artículo, aprobación del artículo, aceptación de ser responsable de todos los aspectos del trabajo.

MFC: Elaboración y redacción del artículo, revisión crítica del artículo, aprobación del artículo, aceptación de ser responsable de todos los aspectos del trabajo.