

CASO CLÍNICO

MUCINOSIS ORAL FOCAL DE LENGUA: REPORTE DE UN CASO.

Aviles, Daymar ¹  (Od.dagmarleal@gmail.com); Guzmán, Jorge ²  (Jorgembucal@gmail.com) ; Surmay, Valentina ²  (od.valentinasmurmay@gmail.com) ; Sifontes, Andreína ²  (Andreinasifontes90@gmail.com) ; Sánchez, Carlos ²  (odcalossanchez@gmail.com) ; Flores, Mercedes ²  (mecheff7@gmail.com) ; Romero, Yulis ³  (yromeron0276@gmail.com) ; Villarroel, Mariana ⁴  (reportesvillarroel@gmail.com)

1 Presidenta de la Sociedad Venezolana de Medicina Bucal

2 Residente de la Maestría de Medicina Estomatológica. Facultad de Odontología U.C.V.

3 Docente colaboradora de la Maestría de Medicina Bucal. Facultad de Odontología U.C.V.

3 PhD Patología Bucal y Maxilofacial, MSc Medicina Estomatológica, MSc Bioética, Especialista tratamiento del tabaquismo

Autor de contacto: Jorge Guzmán

e-mail: jorgembucal@gmail.com

Cómo citar este artículo:

Vancouver: Aviles D, Guzmán J, Surmay V, Sifontes A, Sánchez C, Flores M, Romero Y, Villarroel M. Mucinosi oral focal de lengua: reporte de caso. *IDEULA*. 2023;(11): 29-39.

APA: Aviles, D., Guzmán, J., Surmay, V., Sifontes, A., Sánchez, C., Flores, M., Romero, Y., Villarroel, M. Mucinosi oral focal de lengua: reporte de caso. *IDEULA*, (11): 29-39.

Recibido: 24/3/2023

Aceptado: 16/5/23

RESUMEN

La mucinosi oral focal (MOF) es una entidad poco frecuente de carácter benigno descrita por primera vez por Tomich E en 1974. La etiopatogenia no se comprende bien, sin embargo, se postula la idea de que se desarrolla a consecuencia de la sobreproducción de ácido hialurónico por parte de los fibroblastos. Clínicamente se presenta como tumores de coloración similar a la mucosa circundante; debido a la falta de características patognomónicas es indispensable el estudio histopatológico para confirmar su diagnóstico. Presentamos un caso de MOF en una paciente femenina de 54 años de edad que presentó lesión nodular en la cara lateral izquierda de la lengua la cual desconocía el tiempo de evolución de la misma con diagnóstico provisional de lipoma. El diagnóstico se realizó mediante el estudio histopatológico el cual reveló una lesión benigna, no encapsulada, ubicada por debajo del epitelio de revestimiento, donde está conformada por células ahusadas de aspecto delicado, las cuales se entremezclan con algunas fibras colágenas y tejido mixoide que muestra material de aspecto mucoide donde no se observaron atipias con diagnóstico definitivo de mucinosi oral focal. En este artículo se presenta un caso raro de MOF de características clínicas similares a otras lesiones de tejido blando donde el estudio histopatológico fue clave para esclarecer el diagnóstico. Un año después de la escisión quirúrgica no se ha observado recidiva de la lesión.

Palabras clave: Mucinosi, oral, histopatología, fibroblastos.



FOCAL ORAL MUCINOSIS OF THE TONGUE: CASE REPORT.

ABSTRACT

Focal oral mucinosis (MOF) is a rare benign entity first described by Tomich E in 1974. The etiopathogenesis is not well understood, however, the idea is postulated that it develops as a result of acid overproduction hyaluronic by fibroblasts. Clinically it presents as tumors with a similar coloration to the surrounding mucosa; Due to the similarity with other clinical lesions, a histopathological study is essential to confirm its diagnosis. We present a case of MOF in a 54-year-old female patient who presented a nodular lesion on the left lateral aspect of the tongue whose evolution time was unknown, with a provisional diagnosis of lipoma. The diagnosis was made by histopathological study, which revealed a benign, non-encapsulated lesion located below the lining epithelium, where it is made up of tapering cells with a delicate appearance, which are intermingled with some collagen fibers and myxoid tissue showing material mucoid appearance where no atypia was observed with a definitive diagnosis of focal oral mucinosis. This article presents a rare case of MOF with clinical characteristics similar to other soft tissue lesions where the histopathological study was key to clarify the diagnosis. After one year of surgical excision, no recurrence of the lesion has been observed.

Key words: Oral, mucinosis, histopathology, fibroblasts.



INTRODUCCIÓN

Las mucinosis comprenden un grupo de patologías tanto oral como cutáneas que se originan por la acumulación de mucina en diferentes estratos del tejido conectivo ¹, la mucina acumulada está constituida por mucopolisacáridos como: ácido hialurónico y sulfato de condroitina, segregada por fibroblastos que se ubican en el tejido conjuntivo teniendo como función protección y lubricación de las mucosas ^{2,3}.

La Mucinosiis oral focal (MOF) es un tumor infrecuente siendo la contraparte de la mucinosiis focal cutánea ^{4,5}. Fue Tomich en 1974 quien reportó la lesión a través de una serie de casos ^{6,7}. Desde el 2005 en la tercera edición de la clasificación de los Tumores de la Cabeza y Cuello de la Organización Mundial de la Salud (OMS) se posiciona en la sección de tumores no epiteliales, sin embargo, este fue omitido en la cuarta edición de 2017 ⁸. Su etiología es desconocida, algunos autores como Gonzaga en el 2018, estipulan que se su aparición se debe a la sobreproducción de ácido hialurónico guiado por los fibroblastos asociado con traumas previos en la zona de origen ^{5,7,9}.

La MOF se presenta comúnmente en adultos entre la cuarta y quinta década de vida con escasos reportes en pacientes jóvenes, con una ligera predilección por el género femenino en una relación 3:1, siendo más común la mucosa queratinizada como encía, seguido de paladar duro, mucosa yugal, lengua, región retromolar y labio ^{6,7,10}.

En este artículo presentamos un caso raro de mucinosiis oral focal, el cual tuvo una presentación poco convencional en cara lateral de lengua donde el estudio histopatológico fue clave para su diagnóstico.



CONSIDERACIONES ÉTICAS

El manejo del caso, diagnóstico y tratamiento, además de su uso con fines académicos, fue aceptado por la paciente bajo un consentimiento informado, aprobado por el comité de Bioética de la Facultad de Odontología de la Universidad Central de Venezuela. En todo momento se preservaron los principios de beneficencia y no maleficencia del paciente. El principio de autonomía fue garantizado mediante el consentimiento informado. En el desarrollo de la investigación se veló por cumplir con lo establecido en la declaración de Helsinki promulgada por la Asociación Médica Mundial.

PRESENTACIÓN DE CASO

Paciente femenino de 54 años de edad que acude a consulta referida por su odontólogo tratante. Al momento de la evaluación, la paciente manifiesta no saber que tiene de la lesión, ni tiempo de evolución, sin sintomatología. Dentro de los antecedentes personales refiere dolores articulares, miastenia gravis ocular, artrosis, fascitis plantar en pie derecho, sin tomar medicación para el momento.

Al examen clínico de la cara ventral de lengua se observa de color rosado, en los bordes ligeros contornos de indentaciones y un aumento de volumen de aprox. 0.5 mm en el borde lateral derecho. En cara lateral derecha se observa una lesión nodular de aproximadamente 0,8 mm de diámetro del mismo color de la mucosa y en el centro se aprecia unas zonas blanquecinas y amarillentas (**Fig.1**).



Figura 1: A) Imagen clínica de borde lateral derecho de lengua, B) Imagen clínica de borde lateral derecho de lengua lesión nodular (flecha negra)

Se indican exámenes de laboratorio para toma de biopsia, se realiza la toma de biopsia excisional, se toman tres puntos y se envía a estudio histopatológico con diagnóstico provisional de lipoma (Fig. 2).

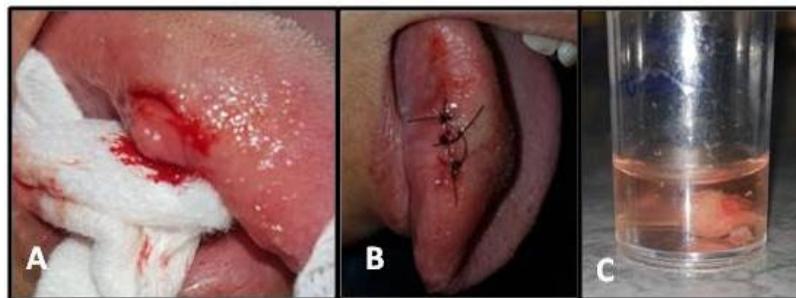


Figura 2: A) Imagen clínica de toma de biopsia, retiro de lesión, B) imagen clínica de tres puntos de sutura, C) imagen de la lesión en formol

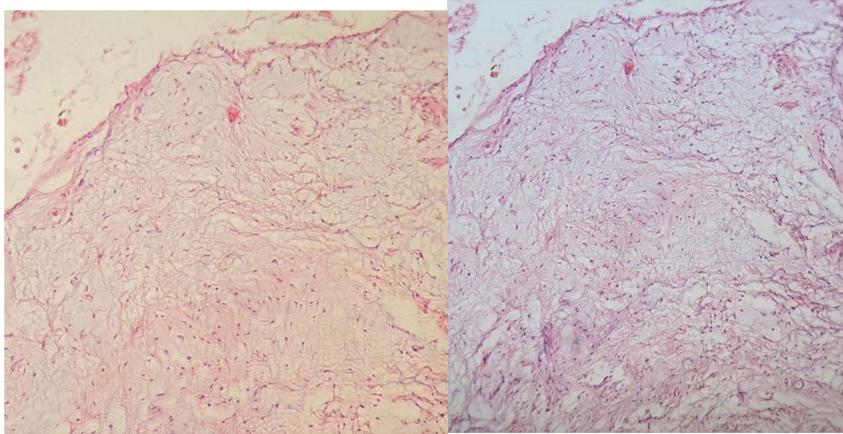


Figura 3: Microfotografía histopatológica A) se observan células ahusadas con fibras colágenas, B) se observa tejido mixoide de aspecto mucoide (H&E 10X)

El estudio histopatológico reveló lesión benigna, no encapsulada, ubicada por debajo del epitelio de revestimiento, donde está conformada por células ahusadas de aspecto delicado, las cuales se entremezclan con algunas fibras colágenas y tejido mixoide que muestra material de aspecto mucoide, no se observan atipias (**Fig. 3 H&E 10X**).

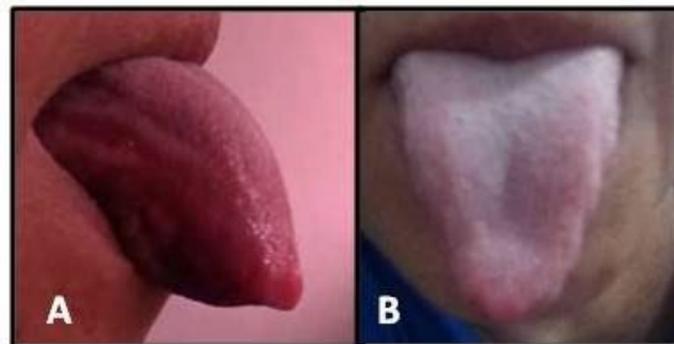


Figura 4: Control (a un año) sin evidencia de lesión



Sin evidencia de recurrencia en un periodo de 1 año aproximadamente (**Fig. 4**).

DISCUSIÓN

La MOF es una patología infrecuente de tejidos blandos que se define como la contraparte oral de la Mucinosi s focal cutánea (MFC) o quiste mixoide cutáneo ². La patogenia de la MOF es desconocida, sin embargo, se cree que hay una sobreproducción de ácido hialurónico por parte de los fibroblastos y su consiguiente acumulación entre las fibras de colágeno que puede estar mediada por un factor traumático o reactivo ^{3,5}. Estudios anteriores han mencionado que MFC se presenta más en masculinos en comparación a la MOF que se presenta más en el género femenino ¹¹⁻¹³. Hasta la fecha solo existen aproximadamente 70 casos de MOF reportados en la literatura, donde solo 1 de ellos ha sido reportado en Venezuela ¹⁴, lo que significa que este es un aporte importante para la región. En cuanto a la epidemiología un estudio realizado por Gonzaga et al, reveló que esta suele afectar mayormente al género femenino con una proporción 4:1 en relación al género masculino, entra la cuarta y quinta década de la vida ^{5, 11, 15}, lo que concuerda con nuestro reporte.

Se ha encontrado que la MFC tiene predilección por extremidades como cabeza, cuello y tronco, en comparación a la MOF tiene afectación, específicamente en encía, paladar y rara vez en lengua ³.

Con respecto a las manifestaciones clínicas orales, esta se puede presentar cómo lesión tumoral o nodular con elevación asintomática del mismo color de la mucosa circundante y cuando este tiene sobrecrecimiento en la mucosa puede presentarse con base sésil o pediculada siendo indistinguibles con otras lesiones que afectan tejidos blandos ^{5, 10, 15-17}. Hay una predilección de aparición en mucosa subyacente adherida a hueso y mucosa queratinizada donde casi exclusivamente; el 80 % de las lesiones se desarrollan en la encía seguido de paladar ¹³; en nuestro caso se presentó como una lesión nodular de aproximadamente 0,8 mm de diámetro del mismo



color de la mucosa con ubicación inusual que se localizaba en borde lateral derecho de la lengua¹⁴.

^{15,18}.

Pueden parecerse clínicamente a otras entidades diagnósticas. Los casos publicados generalmente recibieron diagnósticos provisionales como fibroma traumático, granuloma periférico de células gigantes, lipoma, tumor de células granulares ¹⁵ lo que concuerda con nuestro caso siendo lipoma el primer diagnóstico provisional tomado.

Debido a la similitud clínica con otras lesiones y las escasas características imagenológicas, el diagnóstico se establece principalmente mediante el estudio histopatológico ¹⁶⁻¹⁹.

Histológicamente es reconocible por presentar áreas bien delimitadas de tejido conectivo mixomatoso que contiene material mucinoso, rodeada por tejido conectivo colágeno más denso

^{4,5,10,16}.

El manejo actual de la MOF comprende la escisión quirúrgica y se considera curativo. No se ha informado recurrencia de lesiones ⁵, sin embargo, se ha reportado un caso de MOF bilateral en paladar en un paciente infantil con presencia de un linfoma lo que se asemeja a su contraparte cutánea que se ha reportado asociada a linfomas, alopecia mucinosa, amiloidosis sistémica primaria y otras entidades, lo que recalca el diagnóstico y vigilancia de la patología oral ^{1,11}. El período de seguimiento varía entre los casos informados con un ejemplo de no evidencia de recurrencia después de 19 años ^{7,18,19}.

CONCLUSIONES

La mucinosis es una patología benigna de los tejidos blandos que suele ser mal diagnosticada, que en cuanto a su etiología presenta como hipótesis más aceptada un aumento en la producción de ácido hialurónico por parte de los fibroblastos que la componen, provocando una degradación del tejido mixoide a nivel de tejido conjuntivo; cursa como una lesión tumoral asintomática cuyo



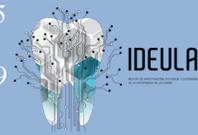
manejo se basa en la escisión quirúrgica. Presentar este reporte de caso tiene como finalidad reconocer esta patología a pesar de su poca frecuencia, para que pueda ser tomada en consideración dentro de los diagnósticos diferenciales de lesiones tumorales benignas, sin dejar de mencionar la importancia que tiene el estudio histopatológico para establecer de manera definitiva el diagnóstico, ya que en él se evidencian las características propias de dicha entidad.

REFERENCIAS

1. Fernández M, Dopico A, Véliz L, Mesa N, Valdés A, Martín M. Mucinosi. Presentación de caso. Rev Med Electrón. 2017;39(5). Disponible en: http://scielo.sld.cu/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1684-18242017000500014&lng=es .
2. Matczuk J, Żendzian-Piotrowska M, Maciejczyk M, Kurek K. Salivary lipids: A review. Adv Clin Exp Med. 2017; 26(6):1021-1029. doi: 10.17219/acem/63030. PMID: 29068606.
3. Nilesh K, Kothi H, Patil R, Pramod RC. Oal focal mucinosi of posteior maxilla. J Oral Maxillofac Pathol. 2017; 21(2):273-276. doi: 10.4103/jomfp.JOMFP_242_15. PMID: 28932039; IDPM: PMC5596680.
4. Joshi C, Dani N, Mahale S, Patel N. A case of oral focal mucinosi of gingiva: Lesion in disguise. J Indian Soc Periodontol. 2015; 19(5):586-8. doi: 10.4103/0972-124X.157874. PMID: 26644729; PMCID: PMC4645549.
5. Gonzaga A, De Oliveira D, Lopes M, Filho T, Queiroz L, Da Silveira É. Clinicopathological study of oral focal mucinosi: a retrospective case series. Med Oral Patol Oral Cir Bucal. 2018; 23(4):401-405. doi: 10.4317/medoral.22291. PMID: 29924755; PMCID: PMC6051680.
6. Tomich CE. Oral focal mucinosi. A clinicopathologic and histochemical study of eight cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1974; 38(5):714-24. doi: 10.1016/0030-4220(74)90392-2. PMID: 4140487.
7. Cho J, Shupak R, Michaels C. Oral focal mucinosi of the mandible in an adolescent patient. BMJ Case Rep. 2019 Dec 17; 12(12): e232671. doi: 10.1136/bcr-2019-232671. PMID: 31852693; PMCID: PMC6936386.



8. Müller S. Update from the 4th Edition of the World Health Organization of Head and Neck Tumours: Tumours of the Oral Cavity and Mobile Tongue. *Head Neck Pathol.* 2017; 11(1):33-40. doi: 10.1007/s12105-017-0792-3. PMID: 28247230; PMCID: PMC5340733.
9. Neto J, Sendyk M, Uchida L, Nunes F, De Paiva J. Oral focal mucinosis associated with surgically assisted rapid maxillary expansion. *Am J Orthod Dentofacial Orthop.* 2014;145(4):534-8. doi: 10.1016/j.ajodo.2013.02.035. PMID: 24703292.
10. Ena S, Nadellamanjari, Chatterjeeanirban, Ramesh A. Oral focal mucinosis: a rare case report of two cases. *Ethiop J Health Sci.* 2013; 23(2):178-82. PMID: 23950635; PMCID: PMC3742896.
11. Cameron A, Webster J, Wicks C, Colbert S. Oral focal mucinosis of the palate: a rare disease entity. *BMJ Case Rep.* 2020; 13(3):230233. doi: 10.1136/bcr-2019-230233.
12. Silva J, Leite A, De Castro T, Vervloet L, De Lima T, De Oliveira G, Kimura T, Ferreira S, De Albuquerque-Júnior R, Correa A, Romañach M, Benevenuto B, De Almeida O, Soares C. Oral focal mucinosis: A multi-institutional study and literature review. *J Cutan Pathol.* 2021; 48(1):24-33. doi: 10.1111/cup.13813.
13. Bharti V, Singh J. Oral focal mucinosis of palatal mucosa: A rare case report. *Contemp Clin Dent.* 2012;3: 214-218. doi:10.4103/0976-237X.101098.
14. Dávila L, Arteaga S, Quiñónez B, Molina M, Castillo L. Mucinosis oral focal - Reporte de caso. *Acta Odontológica.* 2009; 47(4). Disponible en: <https://www.actaodontologica.com/ediciones/2009/4/art-14/>
15. Mattsson, Ulf & Lindberg, Pia. Oral focal mucinosis of the tongue: A rare clinical entity? *Oral and Maxillofac Surg Cases.* 2017; 3(1):1-4. doi: 3. 10.1016/j.omsc.2017.01.006.
16. Higuchi Y, Tsushima F, Sumikura K, Sato Y, Harada H, Kayamori K, Ikeda T. Diagnosis and treatment of oral focal mucinosis: a case series. *J Med Case Rep.* 2019; 13(1):108. doi: 10.1186/s13256-019-2033-8. PMID: 31023388; PMCID: PMC6485166.
17. Sowmya G, Manjunatha B, Nahar P, Aggarwal H. Oral focal mucinosis: a rare case with literature review. *BMJ Case Rep.* 2015. doi: 10.1136/bcr-2014-208321.
18. Lee J, Allen G, Moore L, Gue S. Oral focal mucinosis in an adolescent: a case report. *Aust Dent J.* 2012; 57(1):90-2. doi: 10.1111/j.1834-7819.2011.01649.x. PMID: 22369564.



19. Tobouti P, Horikawa F, Matuck B, de Sousa S, Alves F. Oral focal mucinosis of the hard palate and gingiva. *Autops Case Rep.* 2018;26;8(4): e2018044. doi: 10.4322/acr.2018.044. PMID: 30775321; PMCID: PMC6360821.