



RELATO DE CASO

## Synchronous parotid and nasopharyngeal Warthin's tumor: case report and literature review<sup>☆</sup>



### Tumores de Warthin simultâneos na nasofaringe e parótida: relato de caso e revisão da literatura

Tom Ben-Dov  <sup>a,b,\*</sup>, Evgeny Edelstein <sup>b,c</sup>, Ben I. Nageris <sup>a,b</sup> e Firas Kassem <sup>a,b</sup>

<sup>a</sup> Meir Medical Center, Department of Otolaryngology Head and Neck Surgery, Kfar Saba, Israel

<sup>b</sup> Tel Aviv University, Sackler Faculty of Medicine, Tel Aviv, Israel

<sup>c</sup> Meir Medical Center, Department of Pathology, Kfar Saba, Israel

Recebido em 6 de fevereiro de 2017; aceito em 31 de maio de 2017

Disponível na Internet em 27 de setembro de 2017

## Introdução

O tumor de Warthin, também conhecido como cistoadenoma papilar linfomatoso, foi descrito pela primeira vez em 1895, como uma variante de um cisto cervical lateral constituído dupla camada de células oncócicas e epitélio basal formando estruturas císticas, papilas e glândulas, que são acompanhadas por um estroma linfoide denso.<sup>1</sup> O epônimo Aldred Scott Warthin publicou dois relatos de casos em 1929, apresentando a mesma morfologia descrita por Hildebrand<sup>1</sup> 34 anos antes.<sup>2</sup>

Entre os tumores da glândula parótida, o tumor de Warthin é relativamente comum (~10%), sendo o segundo

mais comum, após o adenoma pleomórfico (~80%). O tumor de Warthin tem predominância no sexo masculino e geralmente ocorre na sexta à sétima décadas de vida, raramente surgindo antes dos 40 anos. Como está relacionado ao tabagismo, as tendências atuais mostram um declínio na incidência masculina, em paralelo com o aumento da incidência na população feminina, provavelmente devido ao declínio do tabagismo entre os homens e a uma tendência inversa entre as mulheres.<sup>3</sup> O tumor de Warthin é encontrado quase que exclusivamente na glândula parótida, e em 7% a 10% dos casos, está presente bilateralmente. Apresentamos um caso de tumores de Warthin simultâneos, na glândula parótida e na nasofaringe, bem como uma revisão da literatura atualizada.

## Relato de caso

Um eletricista aposentado de 65 anos foi encaminhado ao Departamento de Otorrinolaringologia do nosso centro médico afiliado à Universidade. Ele havia sido recentemente submetido a uma tomografia computadorizada de emissão de pósitrons (PET-TC) para reavaliar a extensão do câncer de células escamosas do pulmão em estágio avançado. Seu histórico médico era consistente com tabagismo intenso,

DOI se refere ao artigo:

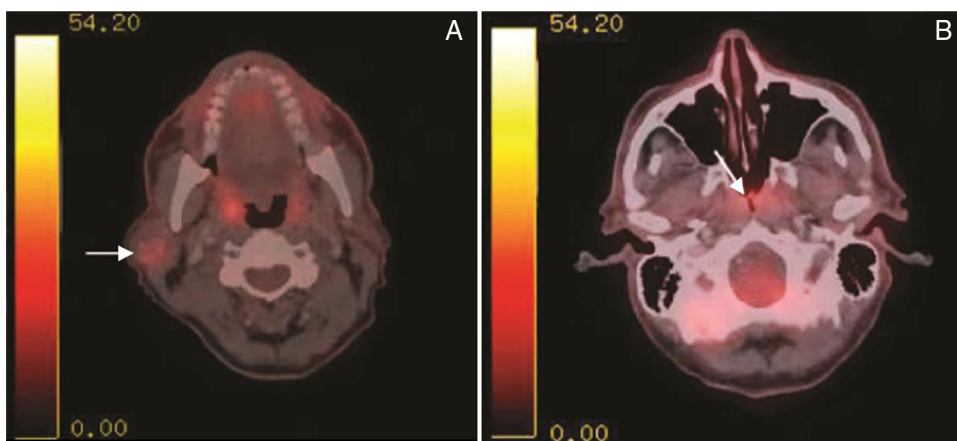
<http://dx.doi.org/10.1016/j.bjorl.2017.05.009>

<sup>☆</sup> Como citar este artigo: Ben-Dov T, Edelstein E, Nageris BI, Kassem F. Synchronous parotid and nasopharyngeal Warthin's tumor: case report and literature review. Braz J Otorhinolaryngol. 2020;86:S44–S47.

\* Autor para correspondência.

E-mail: [tombendov.tbd@gmail.com](mailto:tombendov.tbd@gmail.com) (T. Ben-Dov).

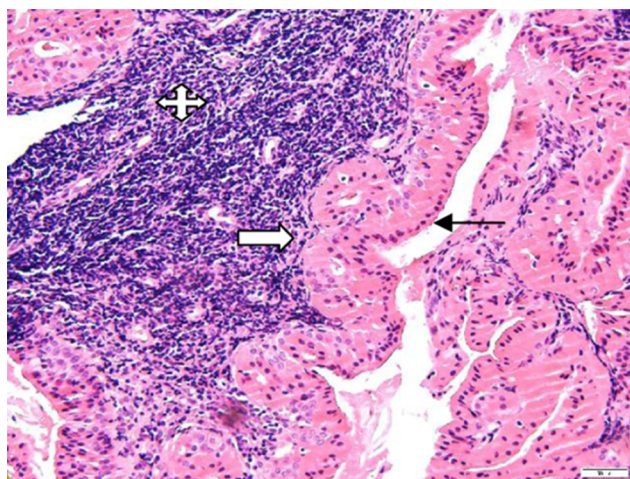
A revisão por pares é da responsabilidade da Associação Brasileira de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial.



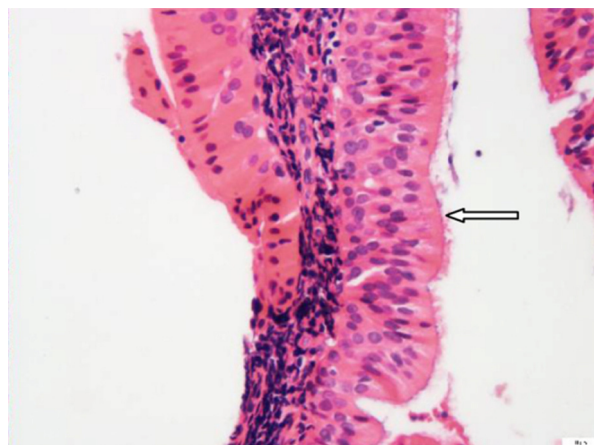
**Figura 1** PET-TC com injeção intravenosa de Flúor-18 Fluorodeoxiglicose (FDG-18F). A, seta branca - realce da tumor na glândula parótida direita. B, seta branca, realce nasofaríngeo.

hipercolesterolemia e trombose venosa profunda. Os resultados mostraram duas lesões inesperadas – uma ao nível do ângulo mandibular (fig. 1A) e outra na parte de trás da cavidade nasal (fig. 1B) –. O paciente foi submetido a biópsia nasofaríngea (figs. 2 e 3) e aspiração por agulha fina (AAF) da glândula parótida (fig. 4). Dois fragmentos pequenos de tecido mole marrom-acobreado, de 0,5 cm e 0,4 cm de diâmetro, foram enviados para exame histopatológico.

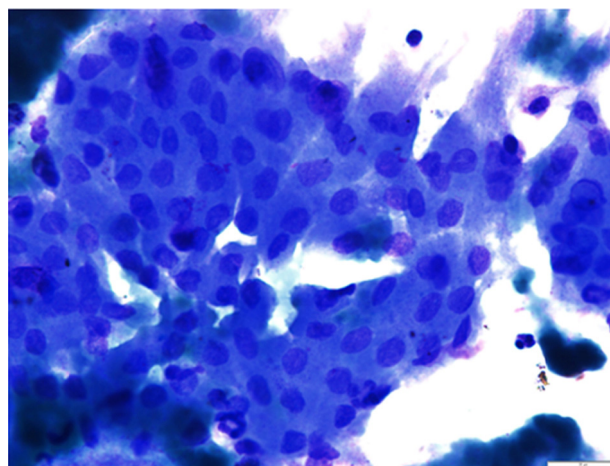
Verificou-se que ambos os incidentalomas eram tumores de Warthin, um tumor benigno das glândulas salivares não diretamente relacionado à morbidade subjacente do paciente. Considerando o histórico médico do paciente, ele não foi considerado elegível para um procedimento cirúrgico no momento do diagnóstico e permaneceu como tal até sua morte dois anos depois.



**Figura 2** O exame histológico revelou lesões papilares e císticas constituídas por células epiteliais e linfóides (coloração de H & E,  $\times 200$ ). O componente epitelial mostra uma camada dupla de células eosinofílicas / oncócicas granulares: células colunares não-ciliadas luminiais, com núcleos alinhados em direção ao lúmen (seta preta) e células basais redondas ou poligonais com núcleos vesiculares (seta branca). O componente linfóide era composto de linfócitos pequenos maduros (seta quadrangular) (Imagem 7883, coloração H&E,  $\times 200$ ).



**Figura 3** O epitélio ciliado colunar do revestimento nasofaríngeo (seta branca) não está envolvido (coloração H&E,  $\times 400$ ).



**Figura 4** Aspiração com agulha fina da lesão da glândula parótida mostra epitélio oncócico agrupado, em favo de mel, cercado por alguns linfócitos. As células epiteliais possuem núcleos redondos uniformes e citoplasma moderado finamente granular (coloração de Papanicolaou,  $\times 400$ ).

**Tabela 1** Tumores de Warthin simultâneos na nasofaringe e glândula parótida relatados na literatura

Nº	Sexo	Idade	Histórico médico	Tabagismo	Sintomas	Referência
1	M	77	SCA, HTN, DM	Sim	Tumor doloroso no lado esquerdo do pescoço, perda de peso, disфония	Yeh et al. <sup>4</sup>
2	M	55	ND	Sim	Tumor submandibular bilateral	Güçlü <sup>5</sup>
3	M	64	DCI, HTN	Sim	Tumor no ângulo mandibular	Hilton et al. <sup>6</sup>
4	M	63	DM	Sim	Tumor no ângulo mandibular	Yanez-Barraza et al. <sup>7</sup>
5	M	71	HTN, Gota, DPOC, IRC	N/D	Audiológico	Low and Ng <sup>8</sup>
6	M	52	ND	N/D	OMS, Tumor bilateral na região da parótida	Ory and Eran <sup>9</sup>
7	F	53	ND	N/D	Tumor na região cervical superior direita	Pelucchi et al. <sup>10</sup>
8	M	65	CCE pulmonar, dislipidemia	Sim	Nenhum	Current case

M, masculino; F, feminino; SCA, síndrome coronariana aguda; HTN, hipertensão; DM, diabetes mellitus; DCI, doença cardíaca isquêmica; DPOC, doença pulmonar obstrutiva crônica; IRC, insuficiência renal crônica; N / D, não disponível; OMS, otite média serosa; CCE, carcinoma de células escamosas.

Realizamos uma pesquisa bibliográfica sistemática de bancos de dados PubMed / Medline e Clinicalkey até outubro de 2016 usando os termos de busca "Warthin's, Nasopharyngeal Warthin's e Synchronous Warthin's Tumor". Quatorze artigos preencheram os critérios de inclusão, dentre os quais foram identificados sete casos documentados de tumores simultâneos da glândula parótida e nasofaríngeo de Warthin. Incluindo o relato do caso atual, revisamos oito pacientes.

O tumor de Warthin nasofaríngeo é muito raro e apenas alguns casos foram publicados até o momento. Tumores simultâneos de Warthin nasofaríngeos e parotídeos são ainda mais excepcionais, com apenas sete casos previamente documentados. Em nossa revisão, identificamos predominância no sexo masculino (7: 1) e idade média geral de 62,5 anos (tabela 1). Incluindo o relato atual, cinco dos pacientes avaliados apresentavam histórico de tabagismo.<sup>4-7</sup> Não havia documentação sobre os demais pacientes, exceto que um tinha DOPC.<sup>8</sup> Dois pacientes apresentavam queixas otológicas como sintoma na apresentação.<sup>8,9</sup> Dois pacientes apresentavam tumor de Warthin nasofaríngeo e nas glândulas parótidas bilateralmente.<sup>5,9</sup> Quatro pacientes exibiam um tumor unilateral no ângulo mandibular.<sup>4,6,7,10</sup> Devido à falta de documentação, não fomos capazes de identificar fatores sistêmicos comuns entre os pacientes.

## Discussão

Nesta revisão, descrevemos um paciente incidentalmente diagnosticado com tumor de Warthin quando foi submetido à avaliação para neoplasia pulmonar. Embora seja possível que o aparecimento simultâneo de dois tumores de Warthin e a malignidade pulmonar seja coincidente, é interessante considerar uma possível associação.

Várias disciplinas médicas, incluindo a cirurgia maxilo-facial, realizam parotidectomias. O exame físico realizado por um otorrinolaringologista inclui a avaliação do espaço nasofaríngeo com uma fibra óptica. O relato atual descreve oito pacientes com tumor de Warthin simultaneamente presente na glândula parótida e na nasofaringe. Sem a avaliação da nasofaringe por um otorrinolaringologista, o segundo tumor poderia não ter sido identificado. A transformação maligna do tumor de Warthin é muito rara (menos de 1% dos

casos) e nenhum dos casos analisados relatou esta condição. Os fatores de risco para o tumor de Warthin são conhecidos; no entanto, nenhum fator de risco isolado foi identificado para a doença multifocal.

## Conclusão

O diagnóstico de tumor de Warthin da glândula parótida e nasofaríngeo simultaneamente em nosso relato foi estabelecido com base nas imagens de PET-TC à qual nosso paciente foi submetido devido à presença da doença sistêmica. No relato atual, é provável que, sem esta imagem, o diagnóstico não tivesse sido realizado. Tumores na glândula parótida são facilmente observados devido à localização superficial da glândula, entretanto, os tumores nasofaríngeos são caracteristicamente mais insidiosos em sua natureza. Uma vez que a parotidectomia é realizada por várias disciplinas cirúrgicas, sugerimos que todos os pacientes sejam submetidos a exame nasofaríngeo com fibra óptica por um otorrinolaringologista antes da cirurgia de parótida.

## Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

## Referências

- Hildebrand O. Über angeborene epitheliale Cysten und Fisteln des Halses [On congenital epithelial cysts and fistulas of the neck]. *Arch Klin Chir.* 1895;49:167-206.
- Warthin AS. Papillary cystadenoma lymphomatosum. *Cancer Res.* 1929;13:16-25.
- Monk JS, Church JS. Warthin's tumor. A high incidence and no sex predominance in central Pennsylvania. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1992;118:477.
- Yeh YA, Baker LL, Wang WJ, Fan K. Nasopharyngeal Warthin's tumor. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 1999;120:942.
- Güçlü O. Synchronized Warthin's tumor in bilateral parotid gland and nasopharynx. *Turk J Ear Nose Throat.* 2012;236.
- Hilton JM, Phillips JS, Hellquist HB, Premachandra DJ. Multifocal multi-site Warthin tumour. *Eur Arch Oto-Rhino-Laryngology.* 2008;265:1573.

7. Yáñez-Barraza KL, Domínguez-Malagon HR, Mosqueda-Taylor A, Cano-Valdez AM, Luna-Ortiz K. Synchronic nasopharyngeal and intraparotid Warthin tumors: a case report and literature review. *J Clin Exp Dent*. 2014;6:e435.
8. Low W-K, Ng SB. Synchronous parotid and nasopharyngeal Warthin's tumors: first report of a case. *Ear Nose Throat J*. 2002;81:839.
9. Ory M, Eran A. Synchronous parotid and nasopharyngeal Warthin tumor. *Head Neck*. 2016;38:E71.
10. Pelucchi S, Bianchini C, Ciorba A, Stomeo F, Ferron A, Pastore A. Simultaneous nasopharyngeal and parotid gland Warthin's tumour: a case report. *Acta Otorhinolaryngol Ital*. 2015; 35:129.