www.medigraphic.org.mx

Revista Odontológica Mexicana
Facultad de Odontología
Vol. 15, Núm. 3 • Julio-Septiembre 2011
pp 189-192
CASO CLÍNICO

Carcinoma de células escamosas en lengua en un paciente con síndrome de Plummer-Vinson. Presentación de un caso

Squamous cell carcinoma in the tongue and Plummer-Vinson syndrome. A case report

Alejandro Donohue-Cornejo,* Dalia Abril Guzmán-Gastelum,* Daniel Constandse-Cortéz,*
Luis Alberto Gaitán-Cepeda,§ Carlos Reyes-Escalera§

RESUMEN

El síndrome de Plummer-Vinson, también llamado disfagia sideropénica, se caracteriza por disfagia, presencia de membranas esofágicas y anemia ferropénica crónica, así como un aumento en el riesgo de desarrollar carcinomas del tracto gastrointestinal alto. Los casos reportados de pacientes con síndrome de Plummer-Vinson con carcinomas de cavidad oral son muy raros. Se presenta el caso de una paciente de 45 años con diagnóstico de síndrome de Plummer-Vinson que desarrolló carcinoma de células escamosas de lengua. La paciente se presentó en la Clínica de Patología y Medicina Bucal de la Facultad de Odontología de la Universidad Autónoma de Ciudad Juárez por presentar disfagia de 8 meses de evolución, glosodinia y glosopirosis. Su archivo médico reveló antecedente de anemia crónica no especificada, transfundida en varias ocasiones de manera intrahospitalaria. La exploración intraoral mostró depapilación de los dos tercios anteriores del dorso lingual, así como un aumento de volumen, ulcerado, de bordes indurados, de evolución desconocida en el borde lateral izquierdo de lengua. Se realiza biopsia incisional emitiéndose un diagnóstico histopatológico de carcinoma de células escamosas. En nuestro conocimiento éste es el tercer caso reportado en la literatura científica de carcinoma de células escamosas lingual en una paciente que padece síndrome de Plummer-Vinson. Los tres casos son coincidentes en género, edad y depapilación del dorso de la lengua. Se discute la pertinencia de seguir incluyendo a la disfagia sideropénica como una condición que favorece la presencia de carcinomas intraorales.

ABSTRACT

The Plummer-Vinson syndrome, called sideropenic dysphagia, is characterized by dysphagia, iron deficiency, anemia and the presence of esophageal webs, and it has been identified as a risk factor for developing squamous cell carcinoma of the upper gastrointestinal tract. The cases of patients suffering Plummer-Vinson syndrome that develops intraoral carcinomas are very rare. We present one case of 45 years-female with diagnosis of sideropenic dysphagia who develops a squamous cell carcinoma of the tongue. The patient present at Oral Medicine and Oral pathology clinic at Dental School of the Autonomous University of Ciudad Juárez, México by glossodynia, glossopyrosis and dysphagia of 8 months of evolution. The medical file revealed antecedents of non-specified chronic anemia, with blood transfusions at medical institutions. The intraoral examination showed depapilation of two anterior thirds of the tongue. An ulcerated swallow with indurate borders site in the left lateral border of the tongue of unknown evolution was observes. An incisional biopsy was done and a histopathological diagnosis of squamous cell carcinoma of the tongue was emitted. In our knowledge this is the third case reported in the scientific literature of a lingual squamous cell carcinoma develops in a patient suffering Plummer-Vinson syndrome. The 3 reported cases are coincident in age, gender and oral features. The pertinence of to continue including to sideropenic dysphagia like a risk factor to develop intraoral carcinomas is discuses.

Palabras clave: Síndrome de Plummer-Vinson, disfagia sideropénica, carcinoma de células escamosas, lengua.
Key words: Plummer-Vinson syndrome, sideropenic dysphagia, squamous cell carcinoma, tongue.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de Plummer-Vinson es un síndrome poco frecuente caracterizado por disfagia, presencia de membranas esofágicas y anemia ferropénica crónica. Sus características orales incluyen glositis, glosopirosis, glosodinia y queilitis angular.[1] Su etología es desconocida aunque, se han propuesto factores autoinmunes, genéticos, infecciosos y nutricionales en su génesis.[2]

Aproximadamente el 10% de pacientes con síndrome de Plummer-Vinson desarrollan carcinoma de células escamosas principalmente en hipofaringe y esófago.[3] Los casos reportados de pacientes con síndrome de Plummer-Vinson que desarrollan carcinomas de células escamosas de cavidad oral son escasos, siendo aún más raros los casos específicos de carcinoma de células

www.medigraphic.org.mx

* Departamento de Estomatología, Instituto de Ciencias Biomédicas, Universidad Autónoma de Ciudad Juárez.
§ Laboratorio de Patología Clínica y Experimental, División de Estudios de Postgrado e Investigación, Facultad de Odontología, Universidad Nacional Autónoma de México.

Fecha de recepción: 06 de mayo de 2010.
Fecha de aceptación: 29 de junio de 2010.

Este artículo puede ser consultado en versión completa en
http://**www.medigraphic.com/facultadodontologiaunam**

escamosas de lengua.[2] Con la finalidad de incrementar el conocimiento de la asociación entre el síndrome de Plummer-Vinson y carcinoma de células escamosas de cavidad oral se presenta un caso de una paciente con diagnóstico de síndrome de Plummer-Vinson que desarrolló carcinoma de células escamosas de lengua.

PRESENTACIÓN DEL CASO

En mayo de 2004 un paciente femenino de 45 años se presenta a la Clínica de Patología y Medicina Bucal de la Facultad de Odontología de la Universidad Autónoma de Ciudad Juárez por presentar disfagia, glosodinia y glosopirosis. La disfagia es referida de aproximadamente 8 meses de evolución, incrementándose en los últimos seis meses. La glosodinia y glosopirosis son constantes y se exacerban con los alimentos calientes y/o condimentados. A la anamnesis refiere antecedente de anemia crónica no especificada, transfundida en varias ocasiones de manera intrahospitalaria. También refiere pérdida de peso de origen inexplicable mayor al 10% del peso total. Se solicita endoscopia esofágica, la cual se realizó con facultativo particular identificándose la presencia de membranas esofágicas. Los valores de biometría hemática mostraron hematócrito y hemoglobina por debajo de lo normal con una importante anisocitosis y microcitosis hipocrómica. La prueba de cinética de hierro corroboró deficiencia, emitiéndose un diagnóstico de síndrome de Plummer-Vinson, por lo que se indicó tratamiento con terapia de hierro.

A la exploración física intraoral se observó atrofia de los dos tercios anteriores del dorso lingual. También se identificó un aumento de volumen, de evolución desconocida en el borde lateral izquierdo de lengua que se extendía hacia la región dorsal y ventral de la lengua. Clínicamente la lesión estaba compuesta por una úlcera de bordes irregulares, eritematosa con áreas blanquecinas *(Figura 1)*. A la palpación el aumento de volumen era de consistencia firme y dolorosa a la presión. La paciente negó antecedentes enólicos y tabáquicos. Con diagnóstico presuntivo de carcinoma de células escamosas se remite al Servicio de Cirugía Maxilofacial de la misma institución para toma de biopsia incisional. El espécimen quirúrgico fue fijado en formalina amortiguada al 10%, para ser embebida en parafina y cortado a 5 micrómetros, tiñéndose con la técnica de hematoxilina y eosina. Microscópicamente la lesión se caracterizó por presentar células neoplásicas de origen epitelial con queratinizaciones individuales y grupales; pleomorfismo celular y nuclear, hipercromatismo nuclear y mitosis incrementadas y anormales *(Figura 2)*. La membrana basal estaba perdida con infiltración del epitelio neoplásico hacia el tejido conjuntivo y muscular. Se emite un diagnóstico de carcinoma de células escamosas.

La paciente se refirió a un centro oncológico especializado donde se sometió a tratamiento especializado incluyendo cirugía y radioterapia. Después de cinco años se encuentra en remisión con revisiones periódicas.

DISCUSIÓN

Se ha propuesto que los pacientes con síndrome de Plummer-Vinson muestran una mayor predisposi-

Figura 1. Aspecto clínico. Observe la depapilación de los dos tercios anteriores de la lengua, así como el aumento de volumen ulcerado ubicado en el borde lateral izquierdo.

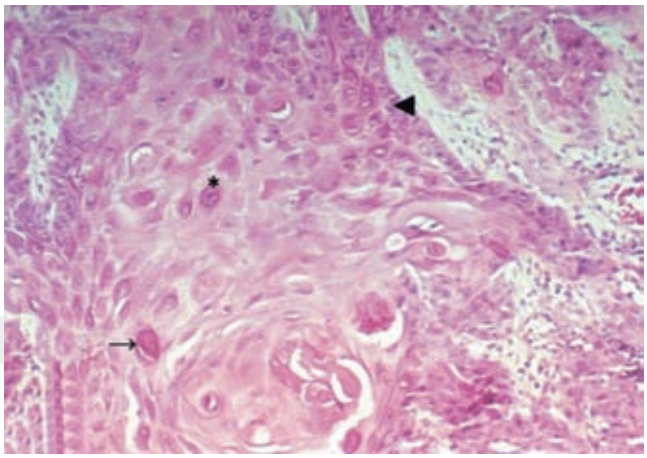

Figura 2. Características histopatológicas. Histológicamente se observa pleomorfismo nuclear y celular, algunas de las células presentan nucléolo evidente (*). La cabeza de flecha (◀) señala la hiperplasia basilar y la flecha (→) señala queratinizaciones individuales, todas éstas, características de carcinoma de células escamosas.

ción a desarrollar carcinoma de células escamosas, considerándose como una condición pre-cancerosa para el esófago y estómago.[4] Se le asocia una mayor incidencia de carcinoma de células escamosas post-cricoideo. También se ha sugerido la asociación entre este síndrome y la presencia de carcinoma sólido-pseudopapilar de páncreas.[5]

Aunque el origen del síndrome de Plummer-Vinson no se conoce, se ha sugerido que el principal factor en su génesis es la deficiencia de hierro. El epitelio del tracto digestivo superior es susceptible a la deficiencia de hierro, ya que su rápida tasa de intercambio hace que pierda rápidamente enzimas hierro-dependientes.[1] De tal forma los cambios epiteliales que se observan en los pacientes con síndrome de Plummer-Vinson pueden ser debidos a un agotamiento de las enzimas oxidadas de las células epiteliales. Estos cambios producen glositis atrófica, queilitis angular, coiloniquia, fragilidad y adelgazamiento de uñas, fragilidad del cabello, y de especial importancia para el presente artículo, promueven el desarrollo de carcinomas de células escamosas.[6] Sin embargo, en algunos casos el tratamiento con suplementos de hierro es insuficiente para revertir y mejorar los pacientes con disfagia sideropénica, por lo que se piensa que deben existir otros factores, además de la deficiencia de hierro en la etiopatogenia de este síndrome.[1]

En nuestro conocimiento sólo se han reportado en la literatura científica dos casos de carcinoma de células escamosas en la lengua de pacientes con diagnóstico de síndrome de Plummer-Vinson.[7,8] En 1967 se reportó un caso de una paciente femenina de 52 años con deficiencia de hierro que además presentaba una zona depapilada en la superficie dorsal de la lengua, confirmándose histopatológicamente el diagnóstico de carcinoma de células escamosas.[7] Posteriormente en 1970, Santoro et al[8] reportaron un caso de una paciente femenina de 42 años de edad con disfagia, anemia y astenia, que clínicamente presentó depapilación del dorso lingual y la presencia de una úlcera de bordes indurados. Histopatológicamente también se confirmó el diagnóstico de carcinoma de células escamosas. La descripción clínica de los únicos dos casos reportados de carcinoma de células escamosas en pacientes con síndrome de Plummer-Vinson es, coincidente con el caso presentado aquí, esto es mujer en la 5ª década de la vida que presenta un área depapilada del dorso de la lengua y una úlcera de bordes indurados.

El carcinoma de células escamosas de la lengua se ha asociado al consumo de tabaco y alcohol.[9-11] El expediente clínico del presente caso no mostró algún hábito tabáquico o alcohólico, lo que sugiere asociación con el síndrome de Plummer-Vinson. Sin embargo, el hecho de que en la última década se haya reportado la presencia de carcinoma de células escamosas de cavidad oral,[10] específicamente lengua,[11] en sujetos jóvenes y sin exposición a factores de riesgo, plantea la posibilidad de que en el presente caso se haya desarrollado de manera sincrónica ambas entidades.

Es de llamar la atención que tradicionalmente se ha incluido al síndrome de Plummer-Vinson como una condición de riesgo para el desarrollo de carcinoma, especialmente de células escamosas de cavidad oral. La revisión de la literatura muestra escasos reportes de casos de carcinoma de células escamosas de cavidad oral en pacientes que padecen síndrome de Plummer-Vinson. El más reciente es un reporte del 2003 de un paciente con enfermedad celíaca y síndrome de Plummer-Vinson que desarrolló carcinoma de células escamosas de lengua.[2] Los únicos dos reportes encontrados de pacientes con carcinoma de cavidad oral en sujetos que padecen síndrome de Plummer-Vinson tienen más de 30 años de haberse publicado. Una posible justificante para este hecho radica en que el síndrome de Plummer-Vinson se asocia con condiciones sociales de vulnerabilidad, específicamente pobreza y desnutrición, por lo que las mejoras en los cambios socioeconómicos de las diferentes sociedades traerán como consecuencia una disminución en la incidencia y prevalencia de este síndrome. Este panorama se había previsto de mediados de los años 70^3 del siglo pasado y confirmado posteriormente en una población Sueca.[12] Sin embargo, en países en vías de desarrollo o subdesarrollados donde la desnutrición puede ser un evento común, el cirujano dentista y en especial el médico o patólogo bucal deberán estar alerta ante cualquier lesión sospechosa de malignidad sobre todo en mujeres con desnutrición (anemia) que presenten depapilación lingual.

REFERENCIAS

1. Novacek G. Plummer-Vinson syndrome. *Orphanet J Rare Diseases* 2006; 1: 36. doi. 10.1186/1750-1172-1-36.
2. Jessner W, Vogelsang H, Püspök A, Ferenci P, Gangl A, Novacek G, Bodisch A, Wenzl E. Plummer-Vinson syndrome associate with celiac disease and complicated by postcricoid carcinoma and carcinoma of the tongue. *Am J Gastroenterol* 2003; 98 (5): 1208-9.
3. Larsson LG, Sandström A, Westling P. Relationship of Plummer-Vinson disease to cancer of the upper alimentary tract in sweden. *Cancer Res* 1975; 35(11 pt2): 3308-16.
4. Kim KH, Kim MC, Jung GJ. Gastric cancer occurring in a patient with Plummer-Vinson syndrome. *World J Gastroenterol* 2005; 11 (44): 7048-50.
5. Khan FY, EL-Hiday AH, Morad NA. Plummer-Vinson syndrome associated with solid pseudopapillary tumor of the pancreas. *Chin Med J* 2007; 120 (17): 1553-5.

6. Rincón SRA, Hani AA, Alvarado BJ. Síndrome de Plummer-Vinson. *Rev Col Gastroenterol* [online]. 2004; 19 (4): 288-29.
7. La Grassa M, Tamburo De Bella A, Beltrame A. The Plummer-Vinson syndrome within the general pictures of precancerous condition of the tongue. *Riv Ital Stomatol* 1967; 22 (12): 1458-71.
8. Santoro E, Gambardella P, Piscicelli I. On the Plummer-Vinson syndrome with precancerous lesion of tongue. *Rass Int Clin Ter* 1970; 50 (12): 753-61.
9. Just-Sarobé M. Smoking and skin. *Actas Dermosifilogr* 2008; 99 (3): 173-84.
10. de Moura CMJR, Alves HH, de Souza L, Livingstone D, Hardy MD, Costa TR, Mamede RCM. Prognostic factors in squamous cell carcinoma of the oral cavity. *Rev Bras Otorrinolaringol* 2008; 74: 861-6.
11. Wang YH, Chen YF, Guo ZM, Zhang Q, Liu TR, Chen FJ. Reason for recurrence and prognostic analysis of early stage squamous cell carcinoma of the oral tongue. *Chin J Can* 2009; 28 (5): http://www.cjcsysu.cn/cn/article.asp?id=15334
12. Wahlberg PC, Andersson KE, Biörklund AT, Möller TR. Carcinoma of the hypopharynx: analysis of incidence and survival in Sweden over a 30-year period. *Head Neck* 1998; 20 (8): 714-9.

Dirección para correspondencia:
Dr. Luis Alberto Gaitán Cepeda
Laboratorio de Patología Clínica y Experimental,
División de Estudios de Postgrado e Investigación,
Facultad de Odontología, Universidad Nacional
Autónoma de México.
Circuito Institutos s/n Ciudad Universitaria,
Coyoacán 04510,
Distrito Federal, México
Teléfono/Fax:(52) 55-56-22-55-59
E-mail: lgaitan@servidor.unam.mx

www.medigraphic.org.mx