

Ránula, enfermedad infrecuente de las glándulas salivales

Ranula, a rare disease of salivary glands

Odalys Hernández Peña^{1*} <https://orcid.org/0000-0001-9369-5582>

Gisel Hernández Montero² <https://orcid.org/0000-0001-5393-3793>

Bárbaro Hernández Peña¹ <https://orcid.org/0000-0001-8538-379X>

¹Policlínico “Cristóbal Labra”. La Habana, Cuba.

²Hospital Militar Central “Dr. Carlos J. Finlay”. La Habana, Cuba.

*Autor para la correspondencia: odalys.hdez@infomed.sld.cu

RESUMEN

Introducción: Las ránulas son enfermedades de las glándulas salivales mayores poco frecuentes. Su nombre se debe a que simula el vientre de la rana por su distensión y su aspecto finamente vascularizado. Es más conocida como un mucocele a nivel del piso de la boca y se considera como una extravasación de *mucus* que aparece en las glándulas submaxilares y sublinguales generalmente, representa el 45 % de todas las lesiones en estas regiones.

Objetivo: Describir las características clínicas e histopatológicas de la ránula de glándulas salivales.

Métodos: Se revisaron 32 estudios publicados en los últimos 5 años, de los cuales se referenciaron 16 artículos. Se utilizaron descriptores en inglés, español y portugués relacionados con el tema de estudio. Se consultaron las bases de datos MEDLINE, PsycInfo, OVID, AgeLine, PubMed y SciELO.

Análisis y síntesis de la información: Las ránulas de glándulas salivales pueden producirse por lesión del conducto de Rivinus de la glándula sublingual, o estar asociadas con anomalías congénitas, traumas, cirugías previas y enfermedades a nivel de la glándula. Su prevalencia es de 0,2 casos por cada 1000 personas y representan el 6 % de todos los sialocitos orales.

Conclusiones: Las ránulas son enfermedades infrecuentes, por lo que no existen muchas publicaciones de estudios realizados en Latinoamérica con respecto a sus características clínicas e histopatológicas o asociaciones de factores demográficos. Sin embargo, es una entidad a tener presente en esta región anatómica, porque las causas que las anteceden aparecen con relativa frecuencia.

Palabras clave: ránula; glándulas salivales; mucocele.

ABSTRACT

Introduction: Ranula is a rare disease of the major salivary glands. It is named after the frog's belly due to the bloating and finely vascularized appearance. It is better known as a mucocele at the level of the mouth floor, which is considered as a mucus extravasation that generally appears in the submaxillary and sublingual glands, accounting for 45% of all lesions in these regions.

Objective: To describe the clinical and histopathological characteristics of the salivary gland ranula.

Methods: Thirty-two studies published in the last 5 years were reviewed, of which sixteen articles were referenced. Descriptors in English, Spanish and Portuguese related to the study topic were used. MEDLINE, PsycInfo, OVID, AgeLine, PubMed and SciELO databases were consulted.

Information analysis and synthesis: Salivary gland ranulas can be produced by injury to the duct of Rivinus the sublingual gland, or they are associated with congenital anomalies, trauma, previous surgeries and diseases at the level of the gland. The occur in 0.2 cases per 1000 persons and they represent 6% of all oral sialocytes.

Conclusions: Ranulas are rare diseases, so there are not many publications of studies in Latin America regarding their clinical and histopathological characteristics or associations of demographic factors. However, it is an entity to consider in this anatomical region, because the preceding causes appear relatively frequently.

Keywords: ranula; salivary glands; mucocele.

Recibido: 14/01/2020

Aceptado: 18/02/2020

Introducción

Las glándulas salivales son las productoras de la saliva. Sus funciones son mantener la humedad de la mucosa oral y humedecer los alimentos para facilitar su masticación y deglución. Sus acinos son túbulo-alveolares y merocrina y de acuerdo al tipo de secreción se divide en: serosos, mucosos, y mixtos.⁽¹⁾

Se clasifican en dos grupos, de acuerdo con el tamaño:

1. Glándulas menores: Están situadas en las paredes de la boca y de acuerdo con su ubicación se denominan: labiales, bucales, palatinas, linguales.
2. Glándulas mayores: Se presentan en forma de par y están constituidas por la parótida, la submandibular y la sublingual. Se encuentran en la proximidad de la cavidad bucal y siguen una curva abierta hacia delante y arriba.

Las enfermedades de las glándulas salivales son consideradas trastornos fuera de lo común y pueden ser representadas con más frecuencia por los cálculos salivales, que afectan cerca de seis por cada 100 000 habitantes. Las ránulas intraorales son aún más raras que la sialolitiasis.⁽²⁾

Descrita desde la época de Hipócrates y Celcius, la ránula representa un pseudoquistes, oriundo de un fenómeno de extravasación de la mucosa de la glándula sublingual. El término ránula se deriva de la palabra latina rana, debido a la semejanza con el dispositivo vocal de los sapos.⁽¹⁾

Según algunos autores^(3,4) una ránula es un tipo especial de mucocele, es decir, una tumefacción de tejido conjuntivo, encontrado específicamente en el piso de la boca en su región antero lateral que consiste en una colección de mucina proveniente de la ruptura del conducto de una glándula salival, por lo general causada por un previo trauma local; representa el 45 % de todas las lesiones de las glándulas salivales. Aunque aparecen en cualquier lugar donde existan glándulas salivales, las glándulas parótidas y submandibulares raramente presentan esta lesión.

Su etiología es desconocida, pero está asociada a anomalías congénitas, trauma o lesiones de la glándula sublingual, la ránula afecta principalmente niños y adultos jóvenes y, en dependencia de su tamaño y ubicación, interfiere en el habla, masticación y deglución. Aunque haya pocos informes, las ránulas orales congénitas pueden ser

diagnosticadas incluso en la vida intrauterina mediante el empleo de ecografía y de resonancia magnética.⁽³⁾

El aspecto clínico depende de su localización. Los mucocelos superficiales suelen ser masas fluctuantes de aspecto azulado translúcido, rosa o amarillentos por su contenido salival y rojizo por congestión vascular y cianosis; cuando se mezcla con eritrocitos por hemorragia, son de color azul oscuro o morado rojizo. A mayor profundidad, se manifiestan como nódulos submucosos blandos o fluctuantes de color normal a la mucosa que los recubre. El tamaño de los mucocelos varía entre 0,2-1 cm sin ser mayores de 1,5 cm, en el caso del piso de boca (ránula) es el de mayor tamaño.

Existen dos variedades de ránulas: una oral (superficial) y una cervical (“plunging” o hundida). La ránula cervical está localizada por debajo del músculo milohioideo y se puede presentar con inflamación en la parte superior del cuello. Se reporta que de 2 a 61 años es el rango de edad de aparición de la ránula plunging, se presenta con mayor frecuencia en los adultos jóvenes.^(4,5)

El área más afectada puede estar relacionada al hiato milohioideo que es poco común. Se sabe que estas lesiones de ránula cervical son masas de crecimiento rápido en cualquier región relacionada al cuello y tienen siempre una sintomatología alarmante, con compromiso de las vías respiratorias. Sin embargo, esto no suele ser muy común y cuando ocurre, tiene potencial de convertirse en una urgencia médica.

Las ránulas orales son más comunes en niños y adultos jóvenes; sin embargo, el de tipo cervical al igual que los mucocelos superficiales por lo general tiende a aparecer a partir de la tercera década en adelante.⁽⁶⁾

A pesar de que esta afección es bastante rara, pero por su formación y ubicación cae en el campo de la Otorrinolaringología, se decidió realizar una revisión bibliográfica con el objetivo de describir las características clínicas e histopatológicas de la ránula de glándulas salivales.

Métodos

Se revisaron 32 estudios publicados en los últimos 5 años, de los cuales se referenciaron 16 artículos. Se utilizaron descriptores en inglés, español y portugués relacionados con el tema de estudio que por su contenido se ajustaron a los intereses de los autores. Se consultaron las bases de datos MEDLINE, PsycInfo, OVID, AgeLine, PubMed y SciELO.

Análisis y síntesis de la información

La ránula es un término que se utiliza para denominar a los eventos de extravasación o retención que se presentan en el piso de la boca, siendo esta la mejor palabra explicada a los fenómenos de extravasación mucosa de las glándulas mayores sublingual y submandibular.

Ozturk y colaboradores⁽⁷⁾ en un periodo de 10 años estudiaron 2200 pacientes, los cuales fueron atendidos en una clínica de patología de las glándulas salivales y se obtuvo un pequeño número de 570 pacientes portadores de cálculos salivales, mientras sólo 11 presentaron ránulas intraorales, aproximadamente un caso por año.

Según un informe de caso en la India, la prevalencia de las ránulas es de 0,2 casos por cada 1000 personas, lo que representa el 6 % de todos los quistes de la glándula salival.⁽⁸⁾

Nathanson⁽⁹⁾ menciona a la ránula como una extravasación de moco pseudoquística en el piso de la boca asociada con la glándula sublingual, refuta que la aparición de dicha identidad está relacionada con una obstrucción del conducto excretor de la glándula sublingual (conducto de Bartholin) o el bloqueo de dicho conducto más el de los conductos menores como son los de Rivinus.

Galloway⁽¹⁰⁾ plantea que esta enfermedad es más frecuente en las tres primeras décadas de la vida, afecta por igual a hombres y mujeres. La incidencia de una ránula congénita está estimada en un 0,74 % y su diagnóstico prenatal es poco común.

Kinoshita⁽¹¹⁾ expresa que en la patogénesis pueden estar involucradas la disrupción ductal y la obstrucción total o parcial excretora. El desarrollo de los mucocelos y ránulas depende de la suspensión del flujo salival desde el aparato secretor de las glándulas salivales.

Estas lesiones incluyen las de tipo compresivo o antecedente de ruptura del conducto secretor de la glándula salival menor y resultan en la extravasación de saliva en los tejidos vecinos. Por otro lado, la ruptura de una estructura acinar causada por hipertensión de la obstrucción ductal, es otro posible mecanismo para la formación de estas lesiones. El conducto puede ser obstruido por un sialolito, malformación congénita, estenosis, fibrosis o cicatriz periductal por trauma previo, agenesia del conducto excretor incluso, por un tumor. Si bien muchas ránulas se originan de la secreción de la glándula sublingual, estas pueden desarrollarse de las secreciones del conducto submandibular o de las glándulas salivales menores en el piso de boca.⁽¹²⁾

Características histológicas

Histológicamente una ránula está compuesta por un espacio pseudoquístico central que contiene mucina y una pared de tejido conectivo vascularizado. Existe un desacuerdo considerable en la literatura respecto a si la ránula es un fenómeno de extravasación (pseudoquiste) o de retención, que exhibe un revestimiento epitelial.

Ozturk y otros⁽⁷⁾ también describen dos tipos de ránula: la sencilla que es un pseudoquiste de retención mucosa que se limita al piso de la boca, y la ránula cervical, la cual es una extravasación de moco que tiene su origen en la glándula sublingual y traspasa el piso cervical atravesando la línea del músculo milohioideo, o incluso a través de fenestraciones que posee dicho músculo.

Diagnóstico diferencial

Las lesiones a nivel oral no presentan mayor complicación en el diagnóstico, a diferencia de las de tipo cervical. Los procesos que se asemejan en apariencia, localización y pueden considerarse en el diagnóstico diferencial son los siguientes: malformaciones vasculares (linfáticas o venosas), quistes del tracto tirogloso, quiste dermoide, quiste de seno cervical, quistes de la hendidura braquial, quiste hidatídico, lipomas y hemangioma. Es indispensable la toma de biopsia, utilizando diferentes herramientas diagnósticas como aspiración con aguja fina (BAFF), biopsia incisional, punción exploratoria, con el fin de obtener el diagnóstico definitivo y elegir el adecuado.^(7,8)

Tratamiento de la ránula

Existen distintos tipos de tratamientos para la ránula, algunos conservadores y otros radicales, con enfoque quirúrgico y no quirúrgico. Entre los tratamientos de la ránula se han descrito: la observación, OK-432, la escleroterapia, la ablación con láser,

crioterapia, marsupialización y la escisión de la lesión con o sin extirpación de la glándula sublingual.⁽¹²⁾

El manejo de las rínulas depende de numerosos factores, fundamentalmente del tamaño y posición. Cada tratamiento presenta diversas técnicas para lograr el menor porcentaje de recidiva, inconveniente más frecuente. Una pequeña rínula oral puede recurrir como una de tipo plunging de mayor tamaño.

La tasa de recurrencia es del 70,5 % después de incisión y drenaje, 52,6 % después de marsupialización, 84,8 % después de la escisión de la lesión en el cuello, 3,8 % después de la escisión de la lesión cervical combinado con escisión de la glándula sublingual, y 0 % después de la escisión intraoral de la glándula sublingual y drenaje de la lesión.

Por su parte, *Oriol*⁽¹³⁾ informa un 67 % de recurrencia posterior a la marsupialización y un 1,2 % al aplicar resección de la glándula. Se deben considerar tratamientos conservadores en primera opción (marsupialización y empaquetamiento) y en el caso de que se presente recidiva, optar por un tratamiento más agresivo. Varias técnicas más conservadoras han sido cuestionadas, tales como “laser de-roofing”, crioterapia, ligadura, etc.

La extirpación de la glándula sublingual es considerada el método más fiable de tratamiento, aunque presenta riesgos como la lesión del nervio lingual y el conducto submandibular.

Alternativas de tratamiento no quirúrgico

Hills⁽²⁾ describe los tratamientos no quirúrgicos como menos invasivos, no requieren hospitalización de los pacientes o anestesia general, además, el costo es menor que una intervención quirúrgica y las secuelas en comparación con el tratamiento quirúrgico son mínimas.

Las anestésicas transitorias o permanentes, lesiones del conducto submandibular, infecciones de la herida y hematomas pueden reducirse a aproximadamente un 0 %, incluidos los problemas estéticos en los casos que sean tratados de manera cervical.

El OK 432 fue descrito por primera vez en 1987 como tratamiento alternativo. Se ha usado para tratar casos de lesiones quísticas benignas y se ha informado como un tratamiento primario seguro y altamente efectivo de la rínula. Se inyecta en la cavidad quística, así se induce la esclerosis. Además del mecanismo esclerosante, tiene un efecto inmuno-modulador. La respuesta adecuada es mayor al 60 % y su recurrencia es menor

al 20 %. En caso de ser insatisfactorio el resultado del tratamiento, el OK-432 puede ser reinyectado nuevamente de 3-4 semanas posterior a la primera inyección.⁽¹³⁾

En un estudio aplicando esta técnica, *Redpath*⁽¹⁴⁾ demostró una respuesta al tratamiento de un 66,7 %, con una tasa de recurrencia de 16,7 %.

Hassan⁽¹⁵⁾ también realizó un reporte de caso en el cual utilizó 0,1 mg de OK-432, en un paciente cuya lesión desapareció por completo 6 semanas posterior a la inyección y sin recurrencia durante 10 meses de observación.

Criocirugía

Consiste en la destrucción de los tejidos vivos por medio de la citotoxicidad del frío mediante la aplicación de temperaturas extremadamente bajas, lo cual produce la atrofia y la fibrosis de la glándula salival.^(4,6)

Kinoshita y otros⁽¹¹⁾ realizaron un estudio comparativo sobre el uso de la criocirugía y el láser de dióxido de carbono, en el cual relatan que la utilización de la criocirugía para el tratamiento de rínulas presenta una destrucción de tejido mayor, además, mayor edema y dolor posprocedimiento en comparación con el uso del láser de dióxido de carbono.

Gluconato de níquel

Es una sustancia usada en el tratamiento de la rínula; en bajas dosis promueve la fibrosis del tejido glandular y formación de colágeno. En su estudio, *Miranda* y otros⁽³⁾ obtuvieron un 89 % de efectividad en el tratamiento de las rínulas.

Moreno⁽¹⁾ en su estudio sobre el tratamiento de la rínula expone que el uso de láser de dióxido de carbono es aceptable para dichas lesiones, sin embargo, en comparación con el OK-432, la criocirugía y el gluconato de níquel, el equipo necesario para su aplicación es más costoso.

Toxina botulínica

Es secretada por la bacteria *Clostridium botulinum*. Provoca la denervación de las terminaciones nerviosas parasimpáticas secreto-motoras responsables de salivación. Según *Galloway*⁽¹⁰⁾ una inyección de la toxina cerca de la glándula tiene como resultado el bloqueo de la salivación de la misma, produce una disminución en el flujo salival y consecuentemente atrofia de la glándula, lo que evita la recurrencia de la rínula. Entre los efectos adversos del uso de la toxina botulínica están la disfagia, leve xerostomía transitoria, edema y dolor leve en la zona de la inyección, eritema, desarrollo de tolerancia y dificultad para tragar.

Alternativas de tratamiento quirúrgico

Fenestración y presión

Es un procedimiento simple, poco invasivo, efectivo y sin signos posoperatorios.

Marsupialización

Es una de las técnicas de abordaje de rínulas más antigua, pero debido a que los bordes de la herida tienden a estar en contacto uno con el otro, la lesión tiende a volver a formarse. Habitualmente se reportan recidivas de un 61 % a un 89 % de los casos, de 6 a 12 meses después del tratamiento.

Micromarsupialización

Raju y otros⁽¹⁶⁾ mencionan una modificación de la técnica anterior, llamada micro marsupialización, la cual fue aplicada en nueve pacientes. Menciona que esta técnica es simple, de bajo costo, efectiva, poco dolorosa, no invasiva, no presenta recidiva, por lo que se recomienda para rínulas simples.

Incisión y drenaje

En técnicas como la incisión y drenaje de la rínula, el 100 % de los casos presentó recidiva. La incisión libera la saliva acumulada pero no elimina la fuente de producción de la saliva, lo cual forma parte del tratamiento ideal. Por esta razón, el uso de la incisión solamente como tratamiento no debería aplicarse por el rápido cierre de la herida y recurrencia de la rínula.⁽⁴⁾

Escisión de la lesión con extirpación de la glándula sublingual

Teóricamente, el método más predecible de erradicación de una rínula es removiendo la glándula sublingual asociada. Este no es un procedimiento necesariamente fácil, pero puede ser el más satisfactorio, los resultados demuestran que está asociada con el porcentaje más bajo de recurrencia (aproximadamente 1 %). Sin embargo, será la técnica con mayor morbilidad, ya que es un procedimiento más invasivo. Se recomienda que las rínulas mayores a 1 cm deben ser tratadas por este método.^(1,6)

Complicaciones de tratamiento quirúrgico

La perforación, sangrado, infección, parestesia del nervio lingual y daño al conducto de Wharton, los hematomas y el sangrado pueden surgir por lesiones de la rama de la arteria lingual, obstrucción de la vía aérea superior atribuible al desplazamiento posterior de la lengua, dehiscencia de la herida y edema importante. El conducto submandibular está en íntimo contacto con la superficie medial de la glándula sublingual, por lo que puede ser dañado al remover dicha glándula.⁽²⁾

Como consecuencia de la injuria del conducto se puede producir sialoadenitis crónica o una inflamación recurrente dolorosa. En ránulas cervicales en las que se practique incisión de la glándula submandibular sería la lesión de la rama marginal mandibular del nervio facial.

Se concluye que las ránulas son enfermedades infrecuentes, por lo que no existen muchas publicaciones de estudios de realizados en Latinoamérica con respecto a sus características clínicas e histopatológicas o asociaciones de factores demográficos. Sin embargo, es una entidad a tener presente en esta región anatómica, porque las causas que las anteceden aparecen con relativa frecuencia.

Referencias bibliográficas

- 1-Moreno P, Hernanz P, Bello C. Ránula sublingual buceadora. Form Med Contin Aten Prim Mex. 2016;23(4):77-8.
2. Hills A, Holden A. Evolution of the management of ranulas change in a single surgeon's practice 2001-2014. J Oral Maxillo Fac Surg Med Pathol (Philadelphia). 2016;54(9):992-6.
3. Miranda J, Wong G, Vargas L, Carrillo E. Ránula plunging: reporte de caso. Asoc Mex Cir Bucal Maxilofac. 2014;10(2):7-82.
4. Santana J. Atlas de patologías del complejo bucal. 2.ed. La Habana: Editorial Ciencias Médicas; 2010.
5. Jiménez D, Porras I, Zamora A. Ránula, alternativas de tratamiento quirúrgico versus no quirúrgico. Internac J Dental Scienc. 2016;18(1):14-21.
6. Oriol S, Hernández C, Rodríguez A, Luna R. Manejo de la vía aérea en ránula gigante. Rev Mex Anestesiol. 2013;36(3):202-8.
7. Ozturk K, Yaman H., Arbag H., Koroglu D., Toy H., Turkey K. Submandibular gland mucocele: Report of two cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod Belgic. 2005;100(5):732-5.
8. Kamalakaran A, Javaraman B, Balasobramaniam S, Thirunavulkkarasu R, Ramakrishnan B. Plunging ranula in a 78 years old male a rare Case Report. J Clinic Exp Dent Indian. 2018;10(1):92-5.
9. Nathanson N, Quinn T. Ránula. A Review of the literature and report of three cases. Oral Surg Pathol Stokolm. 2016;5(3):250-5.

10. Galloway R., Dwayne P., Thompson S. Pathogenesis and Treatment Report of Three Cases of Ranula. *J Oral Maxillofac Surg (Pennsylvania)*. 2016;47(3):299-302.
11. Kinoshita M, Kida W, Nakahara H. Plunging ranula intruding into the parapharyngeal space treated with OK-432. *Am J Otolaryngol–Head Neck Med Surg*. 2012;33(3):345-8.
12. Peral B, Serrat A, Calero H, Verrier H. OK-432 Therapy for Cervicofacial Lymphangioma in Adults. *Acta Otorrinolaringol Esp*. 2017;58(5):222-4.
13. Oriol S, Hernández C, Rodríguez A, Luna R. Manejo de la vía aérea en ránula gigante. *Rev Mex Anestesiol*. 2013;36(3):202-8.
14. Redpath W. Enfermedades de las glándulas salivales. *Rev Perú Estomatol*. 2018;16(2):202-12.
15. Hassan K, Hammed H., Sadinne L. Fenómeno de extravasación de glándulas salivales. Escuela de Medicina de Paraguay. *Rev Cir Bucal*. 2016;10(2):158-66.
16. Raju K., Digoy H. Ránula cérvico facial. Report of Three Cases. *Esc Mex Odontol*. 2017;58(5):222-24.

Conflicto de intereses

Los autores refieren no tener conflicto de intereses.

Contribuciones de los autores

- Odalys Hernández Peña: Idea original, revisión de la bibliografía y redacción del texto.
- Gisel Hernández Montero: Revisión de la bibliografía y redacción del texto.
- Bárbaro Hernández Peña: Revisión de la bibliografía y del texto