

Adenoma pleomorfo intra-óseo: presentación de un caso y revisión bibliográfica

AUTORES/AUTHORS

Lenita Maria Aver de Araújo (1), Sandra Beatriz Chaves Tarquinio (2), Ana Paula Neutzling Gomes (2), Adriana Etges (3).

- (1) Master en Patología Bucal, cursando el Doctorado en Odontología en la Universidad de Granada, España. Responsable del Centro de Diagnóstico e Histopatología. Facultad de Odontología -UFPEL- Brasil.
- (2) Doctora en Patología Bucal por la USP. Patóloga del Centro de Diagnóstico e Histopatología. Facultad de Odontología -UFPEL- Brasil.
- (3) Cursando el Doctorado en Patología Bucal por la USP. Patóloga del Centro de Diagnóstico e Histopatología. Facultad de Odontología -UFPEL- Brasil.

Aver LM, Chaves SB, Neutzling AP, Etges A. Adenoma pleomorfo intra-óseo: presentación de un caso y revisión bibliográfica. *Medicina Oral* 2002; 7: 164-70.
© Medicina Oral. B-96689336
ISSN 1137-2834.

RESUMEN

Se presenta un caso de adenoma pleomorfo intra-óseo, localizado en el maxilar superior (región paramediana izquierda), con una evolución de aproximadamente un año, en un paciente del sexo femenino, de 31 años de edad. El adenoma pleomorfo es el tumor más común de las glándulas salivales, afectando principalmente a la parótida. La ubicación intraoral más frecuente de este tumor es en el paladar. En el presente caso está situado intra-óseamente, (localización rara) con un posible origen a partir de restos epiteliales glandulares atrapados en la embriogénesis. La revisión bibliográfica permitió identificar 142 casos de localización intra-ósea, (24% en el maxilar superior). Fue observada una pequeña predilección por el sexo femenino (56%), estando el 55% de los casos en edades comprendidas entre la 5ª y 7ª décadas de vida, siendo el 94% de estos tumores, malignos, con especial preferencia del carcinoma mucoepidermoide (65%). Los adenomas pleomorfos intra-óseos son raros, ocupando el 6°. Dentro de estos, el que afecta al maxilar superior ocupa el 2º lugar, según la biblio-

Recibido: 18/02/01. Aceptado: 28/10/01.

Received: 18/02/01. Accepted: 28/10/01.

grafía revisada. De los 5 casos previamente presentados la media de edad fue de 58,8 años.

Palabras clave: glándulas salivales, tumor glandular salival, adenoma pleomorfo intra-óseo.

INTRODUCCIÓN

Las neoplasias salivales constituyen 3% de todos los tumores (1) y son responsables al menos del 7% de los cánceres que afectan la región de cabeza y cuello (2). A pesar de las diferencias demográficas observadas en las diferentes series estudiadas de tumores de glándulas salivales (3-12), es aceptado universalmente que la ubicación preferencial de esta neoplasia es la parótida para las glándulas principales y el paladar para las glándulas accesorias, y que el adenoma pleomorfo es de todos el más común.

El adenoma pleomorfo tiene, generalmente, un crecimiento lento, indoloro y persistente. No teniendo tratamiento quirúrgico puede alcanzar gran volumen. Es más común en el sexo femenino en una proporción de 3:1 a 4:1, y a unas edades comprendidas entre 30 y 50 años (12). No obstante ha sido encontrado en individuos de todas las edades.

Tejido glandular salival ectópico ha sido identificado en innumerables localizaciones, incluyendo la piel, el cuello, la hipófisis, el mediastino, la próstata, el recto, la vulva, la glándula tiroidea, el hueso mastoideo, el oído medio, el maxilar superior y la mandíbula (13, 14). La localización heterotópica de tumores de glándulas salivales más frecuente es el triángulo anterior del cuello, especialmente en el borde anterior del músculo esternocleidomastoideo (15). El desarrollo de neoplasias glandulares intra-óseas es bastante raro y necesita de criterios de evaluación para que no sea interpretado equivocadamente su origen central.

CASO CLÍNICO

Paciente del sexo femenino, de 31 años de edad, leucoderma, desdentada, buscó atención profesional por presentar pérdida de estabilidad de la prótesis total que portaba, observada hacía aproximadamente un año. Revelaba, también, sensación de presión local.

Al examen clínico se observó tumefacción en la región palatina paramediana izquierda. A la palpación, la consistencia era dura y la mucosa de recubrimiento se presentaba íntegra y de coloración idéntica a la región vecina contralateral. Fueron realizadas proyecciones radiográficas de Watters (para senos maxilares) y de perfil, donde se identificó una lesión radiolúcida unilocular, bien delimitada por un fino borde esclerótico que contorneaba un área de aproximadamente 2,0 cm x 1,0 cm de diámetro (Figuras 1 y 2). También fue observada en el seno maxilar izquierdo una imagen radiopaca de contorno liso y uniforme, en forma de cúpula, que había sido diagnosticada como quiste mucoso del seno maxilar, del cual la paciente no presentaba queja y que por lo tanto no hubo indicación de tratamiento.



Fig. 1.
Examen radiográfico con proyección de Watters.
Radiographic examination using Waters projection.

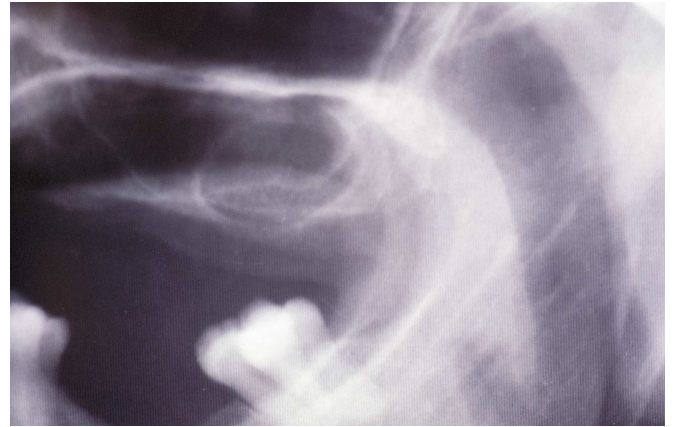


Fig. 2.
Examen radiográfico con proyección lateral oblicua.
Radiographic examination using Lateral Oblique projection.

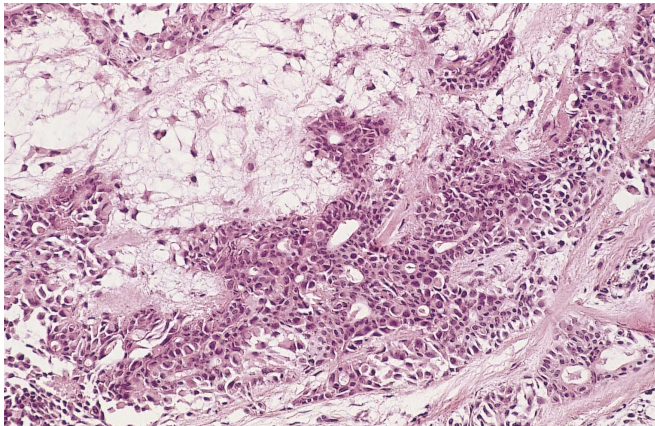


Fig. 3.
Examen histopatológico-ductos y tejido mixoide.
Histopathological examination-ducts and myxoid tissue.

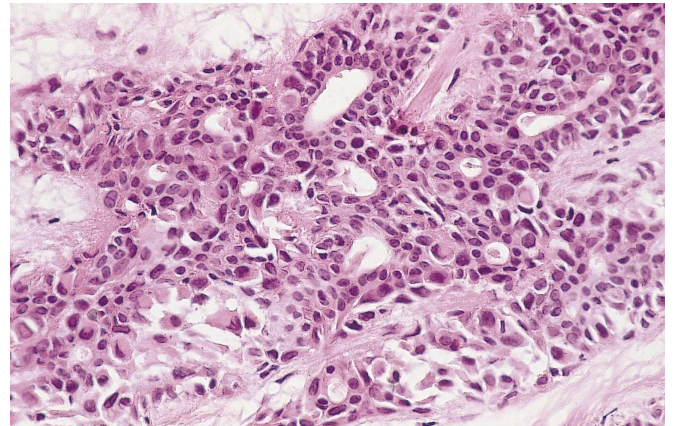


Fig. 4.
Examen histopatológico-mayor aumento que en la figura anterior presentando estructuras conductiformes.
Histopathological examination-increased magnitude of anterior figure presenting duct-like structures.

Con el diagnóstico de presunción de quiste residual, el cirujano procedió a la punción de la lesión. Una vez obtenida la punción blanca se prosiguió con el abordaje quirúrgico de la misma a partir de una osteotomía del área. Fue retirada una masa tumoral de fácil remoción, que estaba delimitada por paredes óseas y sin comunicación con el seno maxilar.

El examen macroscópico permitió identificar una lesión sólida, encapsulada, de consistencia fibrosa y coloración blanco-grisácea.

Al examen microscópico se identificó una franja de tejido conjuntivo fibroso denso rodeando a una masa epitelial neoplásica, intercalado con un componente de origen mesenquimal de gran diversidad morfológica. El componente epitelial formaba estructuras cribiformes, cordones anastomosados y conductiformes semejantes a

los conductos intercalados de las glándulas salivales, con espacios quísticos (Figura 4) delineados por una única capa de células y contorneados por células mioepiteliales angulares y hiper cromáticas. Algunos de esos espacios estaban ocupados de un material eosinófilo (Figura 5). En otras áreas más sólidas del tumor se observaban células mioepiteliales con apariencia plasmocitoide y células con diferenciación escamosa conteniendo perlas de queratina. Aparecían áreas mesenquimales de aspecto mixoide (Figuras 3 y 4) o condroide, y también tejido adiposo y fibroso denso formando colecciones focales que se intercalaban con el componente neoplásico epitelial. Con este cuadro histopatológico fue realizado el diagnóstico de adenoma pleomórfico. No fueron identificadas células epiteliales neoplásicas en la porción externa de la cápsula tumoral.

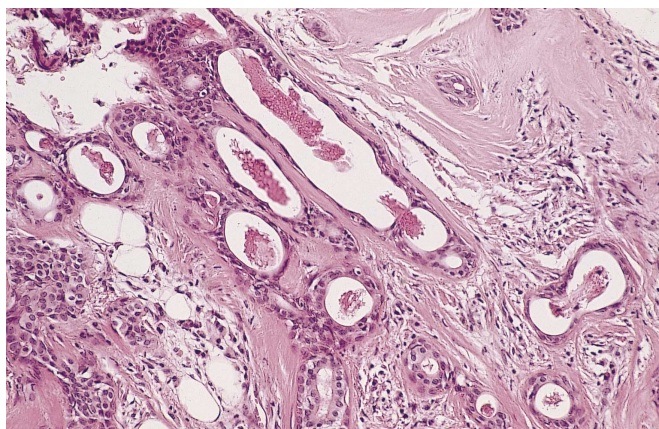


Fig. 5.
Examen histopatológico-conductos con coágulo eosinófilo, material hialino y epitelio en cordones e islas.

Histopathological examination-ducts with eosinophilic material, hyaline material and epithelium in cords and islets.

DISCUSIÓN

Menos del 20% (1,7) de los procesos tumorales glandulares de naturaleza salival están localizados en las glándulas salivales accesorias. El paladar es la localización más frecuente, seguido por el labio superior (3, 5, 6).

Las neoplasias salivales de localización intra-ósea son extremadamente raras, siendo el Carcinoma Mucoepidermoide el que con más frecuencia se presenta (2, 16, 17), aunque nos podemos encontrar con cualquier otro tumor derivado del epitelio de glándulas salivales (16).

Podemos proponer dos posibles orígenes para estas neoplasias, no excluyentes entre ellos: enclavamiento de tejido salival y metaplasia del revestimiento epitelial de quistes odontogénicos (17, 18). La elevada asociación de esos tumores con quistes odontogénicos o con dientes incluidos, observada por Brookstone & Huvos (2) en 30%

de los 127 casos de la literatura por ellos revisada, sugiere la potencialidad neoplásica del epitelio odontogénico. Es conocida la capacidad de este epitelio de originar células mucosecretoras y que éstas puedan servir como las progenitoras para los tumores de glándulas salivales centrales de los maxilares, lo que es fuertemente evidenciado por la elevada asociación de 48% de los carcinomas mucoepidermoides intra-óseos con dientes incluidos o con quistes odontogénicos (18).

Los criterios que se establecieron para que una lesión pudiera ser considerada de origen central de los maxilares (18-20) fueron:

- Ausencia de cualquier lesión primaria dentro de glándulas salivales o de otros tejidos que se asemejen a la arquitectura histológica de tumores glandulares.
- Evidencias de osteólisis con integridad de las corticales óseas.
- Diagnóstico histológico positivo para neoplasia de glándulas salivales.

La localización heterotópica más común de glándulas salivales encontrada en estrecha asociación con la mandíbula por invaginación en la superficie lingual, conocida como quiste de Stafne, no sería por lo tanto, considerada de localización intra-ósea, salvo que se desarrolle allí una neoplasia. Así, la revisión de la literatura de Miller & Winnick (13) agrupando tumores de localización ectópica, inclusive en depresiones óseas mandibulares, no corresponde en su totalidad a verdaderos casos de neoplasias intra-óseas.

Waldron & Kohn (21) enfatizan que los tumores de glándulas salivales ubicadas en el maxilar superior son más cuestionables que los de la mandíbula, porque pueden originarse en las glándulas mucosecretoras de la submucosa antral, o representar una extensión intra-ósea de tumores de glándulas salivales menores de la mucosa del seno maxilar.

El presente relato comprende los criterios exigidos pues estaba contorneado por corticales óseas bien definidas e intactas, y no presentaba comunicación directa con el seno maxilar.

TABLA 1

Casos reportados de Tumores de Glándulas Salivales de localización intra-ósea de los maxilares

Tipo histológico	Brookstone & Huvos (2) -revisión de la literatura* -casos propios**	Breton <i>et al.</i> (16)	Kovalik (24)	TOTAL
Carcinoma mucoepidermoide	81* 8**	3		92
Carcinoma adenoide quístico	23* 2**			25
Adenoma pleomorfo maligno	6*			6
Adenocarcinoma	5* 1**			6
Carcinoma de células acinosas	5*			5
Adenoma pleomorfo	5*		1	6
Adenoma monomorfo	2*			2
TOTAL	127 11	3	1	142

Brookstone & Huvos (2) reportaron 11 casos de neoplasias de glándulas salivales de localización intra-ósea e hicieron una revisión bibliográfica encontrando otros 127 relatos. Nuestra revisión permitió detectar otros 4 casos (Tabla 1). De ese total analizado, el 75% se presentó en la mandíbula, y el 25% en el maxilar, siendo en 4 casos imposible de identificar su ubicación exacta. La mayoría de los casos (56%) ocurrieron en el sexo femenino. La edad de presentación de las lesiones osciló entre la 5ª y 7ª década, que corresponden en conjunto al 55% de los casos. Considerándose solamente los casos de adenoma pleomorfo, la media de edad fue de 58,8 años, la más alta cuando comparamos con los demás tipos de neoplasias. Las principales evidencias clínicas de la presencia de neoplasia en la totalidad de los casos fueron el aumento de volumen (68%), seguido del dolor (39%).

Es interesante observar la diferencia radical en la naturaleza de los tumores, cuando comparamos los que se presentan en tejidos blandos con los localizados dentro de los huesos maxilares. En estos últimos existe un predominio de tumores malignos en el 94% de los casos revisados (Tabla 1), con elevada frecuencia del carcinoma mucoepidermoide (65%), mientras que en todas las series presentadas de localización no ectópica de esos tumores, el adenoma pleomorfo es el más común, sea en glándulas salivales principales, como en las accesorias. Para algunos autores (22) la rareza de relatos de ese último en la literatura es inconspicua y puede ocurrir por la tendencia de los patólogos en clasificar esos casos como adenomas pleomorfos intra-óseos.

Nosotros sin embargo no creemos en esa hipótesis, pues la resistencia en clasificar como un tumor intra-óseo sería observada también para los demás tumores intra-óseos de origen glandular. De otra forma, existe la posibilidad de que exista un cambio real de comportamiento biológico cuando se desarrollan lesiones intra-óseas. Aunque ese cambio de comportamiento no fue comprobado, es probable que ocurra lo mismo que en los tumores de glándulas salivales localizados ectópicamente en tejidos blandos, considerándose que también ahí es más común el carcinoma mucoepidermoide.

Por estar localizadas en estructuras óseas de soporte de los elementos dentarios, y muchas veces guardando estrecha relación con los mismos, clínica y radiológicamente estas lesiones mimetizan quistes odontogénicos y consecuentemente su diagnóstico es insospechado. Debido al comportamiento agresivo y tendencia a la detección tardía, el pronóstico de estas neoplasias, con recubrimiento óseo es reservado en la mayoría de los casos.

Nuestro caso, dadas las características de benignidad de la lesión, tiene un buen pronóstico, con tiempo de control de 5 años, sin evidencias de recurrencia de la lesión. Considerándose la posibilidad de recidiva del adenoma pleomorfo, igual que en un período tardío de observación (23, 24), se hace necesario la continuidad de ese control clínico radiológico.

A pesar de la rareza de las neoplasias de glándulas salivales intra-óseas, tal posibilidad de diagnóstico debe ser del conocimiento del cirujano dentista, y enfatiza la necesidad de investigación histopatológica, definidora y orientadora del tratamiento, y tiempo de control necesario.

Intraosseous pleomorphic adenoma: case report and review of the literature central pleomorphic adenoma of the maxilla

SUMMARY

Pleomorphic adenoma is the most common neoplasm of the salivary glands, affecting mainly the parotid gland. The preferential intraoral site of this tumor is the palate. A case of a 31-year-old woman with an intraosseous pleomorphic adenoma located in the maxilla (left paramedian region), showing an approximate evolution of one year is reported. The present intraosseous case represents a rare location, with the tumor probably originating from glandular epithelial remnants captured during embryogenesis. In a review of the literature of 142 cases of intragnathic localization (24% in the maxilla) are identified. A slight predominance of women was observed (56%), with 55% of the patients being affected during the 5th to 7th decade of life. The tumors were malignant in 94% of the cases, with special predominance of mucopidermoid carcinoma (65%). Intraosseous pleomorphic adenomas are rare, with the present patient being the 6th case reported in the literature and the second found in the maxilla. Mean age of the 5 previously reported cases was 58.8 years.

Key words: salivary glands, glandular neoplasm, intraosseous pleomorphic adenoma.

INTRODUCTION

Neoplasms of the salivary glands account for 3% of all tumors (1) and less than 7% of cancers occurring in the head and neck region (2). Despite demographic differences observed among different series of salivary gland tumors (3-12), it is generally accepted that of the major salivary glands, the parotid gland is the preferred site of these neoplasms. Of the minor salivary glands, the palatal region is the preferred site, with pleomorphic adenoma being the most prevalent among them.

Usually, pleomorphic adenoma is a painless, slowly growing and insidious tumor, which can reach great proportions if not treated surgically. Women are more commonly affected at a proportion of 1:3 to 1:4, and at the age range of 30 to 50 years (12), although occurrence of the tumor among other age groups has been reported.

Ectopic salivary gland tissue has been identified at various sites, including the skin, neck, hypophysis, mediastinum,

prostate, rectum, vulva, thyroid gland, mastoid bone, middle ear, maxilla, and mandible (13, 14). Heterotopic localization of salivary gland tumors is mainly observed in the anterior triangle of the neck, especially in the anterior border of the sternocleidomastoid muscle (15). Development of intraosseous glandular neoplasms is extremely rare and evaluation criteria are required to prevent a false interpretation regarding their central origin.

CASE REPORT

A female patient of 31 years of age, vitiligo and edentulous sought professional help complaining of instability of complete dentures being worn. The complaint started one year before, and it was accompanied by a sensation of pressure at the affected site.

Clinical examination revealed a firm tumor mass in the left paramedian posterior region of the palate. The lining mucosa was found to be intact and was of the same color as the neighboring contralateral area. Profile Water radiographs and radiographs of the maxillary sinus showed a unilocular radiolucent lesion, well delineated by a fine sclerotic border comprising an area of approximately 2.0 x 1.0 cm in diameter (Figures 1 and 2). In addition, a radiopaque, smooth and uniform dome-shaped lesion was observed in the left maxillary sinus, which was diagnosed as a mucous cyst of the maxillary sinus. Since the patient did not report any complaint on this particular lesion, no treatment was indicated in this case.

On the basis of the presumptive diagnosis of a residual cyst on the symptomatic lesion, the surgeon punctured the mass, obtaining white fluid, followed by excision of the lesion through osteotomy of the area. The tumor mass was easily removed which, was found to be delimited by bony walls without any communication to the maxillary sinus.

Macroscopic examination permitted the identification of a solid, encapsulated lesion of fibrous consistency and greyish-white in color.

Microscopic examination revealed a well-circumscribed, encapsulated tumor. It is composed of neoplastic epithelial mass within a mesenchyme-like background demonstrating high morphological diversity. The epithelial component formed cribriform arrangements of anastomosing cords and duct-like structures similar to the intercalated ducts of the salivary glands, with the lumen lined by a single layer of cells and surrounded by angular and hyperchromatic myoepithelial cells (Figure 4). Eosinophilic material was observed in some of the luminal space (Figure 5). In other more solid areas of the tumor, plasmocytoid myoepithelial cells and keratinizing squamous cells were also seen. Mesenchymal areas of a myxoid or chondroid aspect (Figures 3 and 4), in addition to adipose and dense fibrous tissue, formed focal collections intercalated with the neoplastic epithelial component. Based on this histopathological feature, a diagnosis of pleomorphic adenoma was made. No neoplastic epithelial cells were identified in the external portion of the tumor capsule.

TABLE 1

Reported cases of Salivary Gland Tumors of the Maxillas of intraosseous location

Histological type	Brookstone & Huvos (2) -review of the literature* -own cases**		Breton et al. (16)	Kovalik (24)	TOTAL
Mucoepidermoid carcinoma	81*	8**	3		92
Adenoid cystic carcinoma	23*	2**			25
Malignant pleomorphic adenoma	6*				6
Adenocarcinoma	5*	1**			6
Acinar cell carcinoma	5*				5
Pleomorphic adenoma	5*			1	6
Monomorphic adenoma	2*				2
TOTAL	127	11	3	1	142

DISCUSSION

Accessory salivary glands usually account for less than 20% (1, 7) of the sites affected by salivary gland tumors, with the palate being the most common site, followed by the upper lip (3, 5, 6).

Intraosseous glandular neoplasms are extremely rare and they are most commonly represented by mucoepidermoid carcinomas (2, 16, 17), although other salivary tumors have been reported to develop within the jaws (16).

Two not mutually excluding hypothesis for these neoplasms can be proposed: one suggests that the salivary tissue may developmentally be entrapped within the jaws, and the other suggests metaplasia of the epithelial lining of odontogenic cysts (17, 18). The close association of these tumors with odontogenic cysts or impacted teeth observed by Brookstone & Huvos (2) in 30% of 127 reviewed literature cases points to the neoplastic potential of odontogenic epithelium. This epithelium is known for its capacity to present mucus-secreting cells, which most likely serve as progenitors for central salivary gland tumors of the maxilla, as strongly indicated by the close association (48%) between intraosseous mucoepidermoid carcinomas and impacted teeth or odontogenic cysts (18).

The following criteria have been established to classify a lesion as being of central maxillary origin (18-20).

- Absence of any primary lesion within the salivary glands or within other tissues resembling the histological architecture of glandular tumors;
- Evidence of osteolysis with integrity of the cortical bones;
- Positive histological diagnosis of salivary gland neoplasm.

Thus, the most common heterotopic location for salivary glands, found in close association with the mandible, due to invagination of the lingual surface, known as Stafne cyst, is not considered to be of intraosseous localization. In a literature related to tumors with ectopic location, Miller & Winnick (13) included not only intraosseous neoplasms, but also bone mandibular defects.

Waldron & Kohn (21) emphasized that salivary gland tumors of the maxilla are more questionable than those of the mandible, since they can originate from the mucus-secreting glands of the antral submucosa or can represent an intraosseous extension of minor salivary gland tumors of the maxillary sinus mucosa.

The present case meets the required criteria since the lesion was found to be surrounded by well-defined and intact cortical bone and did not show direct communication with the maxillary sinus.

Brookstone & Huvos (2) reported 11 cases of intraosseous salivary gland neoplasms and a review of the literature carried out by the authors revealing a further 127 cases. We identified 4 other cases in the literature (Table 1). Of the total number of cases analyzed, 75% occurred in the mandible and 25% in the maxilla. While in the 4 cases the precise site was not identified. In majority of the cases (56%), women were affected. Presented at an age ranging from the 1st to 9th decade of life, majority of which (55%) is observed from the 5th to the 7th decade. Considering only cases of pleomorphic adenoma, the mean age was 58.8 years, which was higher than that observed for the other types of neoplasms. The main clinical sign of neoplasia in all the cases was swelling (68%), followed by pain (39%).

It is interesting to note the radical change in the prevalence of the nature of the tumors when comparing those occurring in soft tissues with central tumors of the gnathic bones. In the latter case, malignant neoplasms predominated in 94% of the reported series (Table 1), with a high incidence of mucoepidermoid carcinoma (65%). While in all series reporting non-ectopic localization of the tumor, pleomorphic adenoma represented the most common tumor both in the major and minor salivary glands. According to some authors (22), the rarity of the latter cases in the literature is inconspicuous and may be due to the fact that pathologists hesitate to classify these cases as intraosseous pleomorphic adenoma.

However, we do not support this hypothesis since resistance to classification of these neoplasms as intraosseous tumors

should be also observed for other intraosseous tumors of glandular origin. Moreover, we contemplate the possibility of a true change in behavior upon the development of intraosseous lesions. Although still unexplained, this change may be related to the same behavior observed in cases of tumors that develop in ectopic locations of salivary gland soft tissue, considering that in this case mucoepidermoid carcinoma is also more common.

Since these lesions occur in tooth supporting bone structures and often show a close relationship with teeth, clinically and radiographically they mimic odontogenic cysts and, consequently, their diagnosis is unsuspected. Due to their aggressive behavior and the fact that they tend to be detected late, the prognosis of these neoplasms, with involvement of bone tissue is poor in the majority of the cases.

In the present report, due to the benign characteristics of the lesion, the prognosis was good, with a 5-year follow-up without evidence of recurrences. However, based on the pos-

sibility of recurrence of pleomorphic adenoma even after long-term follow-up (23, 24), continued clinical and radiographic control is required.

Despite the rarity of intraosseous salivary gland neoplasms, the dental surgeon should be aware of this diagnostic possibility, emphasizing the need for histopathological analysis, defined and guided treatment, and adequate follow-up.

CORRESPONDENCIA/CORRESPONDENCE

Dra. Lenita María Aver de Araújo
 Rua Gonçalves Chaves 704
 Apto. 1001
 CEP - 96015 - 560
 Pelotas - RS
 Brasil

BIBLIOGRAFÍA/REFERENCES

- Rivera-Bastidas H, Ocanto RA, Acevedo AM. Intraoral minor salivary gland tumors: a retrospective study of 62 cases in a Venezuelan population. *J Oral Pathol Med* 1996; 25: 1-4.
- Brookstone MS, Huvos AG. Central salivary gland tumors of the maxilla and mandibula: a clinicopathologic study of 11 cases with an analysis of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 1992; 50: 229-36.
- Loyola AM, de Araujo VC, de Sousa SO, de Araujo NS. Minor salivary gland tumours. A retrospective study of 164 cases in a Brazilian population. *Eur J Cancer B Oral Oncol* 1995; 31: 197-201.
- Brocheriou C, Crepy C, Guilbert F, Lartigau G, Payen J, Recoing J. Tumeurs des glandes salivaires accessoires de la cavite buccale. Etude de 296 cas. *Bull Cancer* 1980; 67: 29-37.
- Waldron CA, el-Mofty SK, Gnepp DR. Tumors of the intraoral minor salivary glands: a demographic and histologic study of 426 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1988; 66: 323-33.
- Neely MM, Rohrer MD, Young SK. Tumors of minor salivary glands and the analysis of the 106 cases. *J Okla Dent Assoc* 1996; 86: 50-2.
- Ma'aitha JK, Al-Kaisi N, Al-Tamimi S, Wraikat A. Salivary gland tumors in Jordan: a retrospective study of 221 patients. *Croat Med J* 1999; 40: 539-42.
- Lopes MA, Kowalsky LP, da Cunha Santos G, Paes de Almeida O. A clinicopathologic study of 196 intraoral minor salivary gland tumours. *J Oral Pathol Med* 1999; 28: 264-7.
- Kusama K, Iwanari S, Aisaki K, Wada M, Ohtani J, Itoi K, *et al.* Intraoral minor salivary gland tumors: a retrospective study of 129 cases. *J Nihon Univ Sch Dent* 1997; 39: 128-32.
- Chau MN, Radden BG. Intra-oral salivary gland neoplasms: a retrospective study of 98 cases. *J Oral Pathol* 1986; 15: 339-42.
- Chidzonga MM, López Pérez VM, Portilla-Álvarez AL. A clinicopathologic study of parotid gland tumors. *J Oral Maxillofac Surg* 1994; 52: 1253-6.
- Waldron CA. Mixed Tumor (Pleomorphic Adenoma) and Myoepithelioma. En: Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR, eds. *Surgical Pathology of the Salivary Glands*. W.B. Saunders Company editores; 1991. p. 165-86.
- Miller AS, Winnick M. Salivary gland inclusion in the anterior mandible. Report of a case with a review of the literature on aberrant salivary gland tissue and neoplasms. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1971; 31: 790-7.
- Warnock GR, Jensen JL, Kratochvil FJ. En: Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR, eds. *Surgical Pathology of the Salivary Glands*. W.B. Saunders Company editores; 1991. p.10-25.
- Tay HL, Howitt RJ. Heterotopic pleomorphic adenoma in the neck. *J Laryngol Otol* 1995; 109: 445-8.
- Breton P, Paulus C, Bancel B, Bejui-Thivolet F, Patricot LM, Freidel M. Intra-mandibular salivary tumors. Apropos of 3 cases of malignant tumor. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 1990; 9: 266-70.
- Bruner JM, Batsakis JG. Salivary neoplasms of the jaw bones with particular reference to central mucoepidermoid carcinomas. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1991; 100: 954-5.
- Eversole LR, Sabes WR, Rovin S. Aggressive growth and neoplastic potential of odontogenic cysts. *Cancer* 1975; 35: 270-84.
- Smith RL, Dahlin DC, Waite DE. Mucoepidermoid carcinoma of the jawbones. *J Oral Surg* 1968; 26: 387-92.
- Ebling H. do Valle JC, Brasil AT. Mucoepidermoid tumor of the mandible. *Revista da Faculdade de Odontologia de Porto Alegre* 1970; 12: 69.
- Waldron CA, Kohn ML. Central mucoepidermoid carcinoma of the jaws: report of four cases with analysis of the literature and discussion of the relationship to mucoepidermoid sialo-odontogenic, and glandular odontogenic cysts. *J Oral Maxillofac Surg* 1990; 48: 870.
- Freedman SI, Van de Velde, RL. Primary malignant mixed tumor of the mandible. *Cancer* 1972; 30: 167-73.
- Renahan A, Gleave EN, Hancock BD, Smith P, McGurk M. Long-term follow-up of over 1000 patients with salivary gland tumours treated in a single center. *Br J Surg* 1996; 83: 1750-4.
- Kovalik S. Mixed tumor starting from the jaw bone. *Otolaryngol Pol* 1966; 20: 563-4.