Les localisations rares de l'adénome pléomorphe : à propos de quatre cas cliniques

*Rare localizations of the pleomorphic adenoma:
four case report*

Résumé

MOTS-CLEFS :

■ Adénome
pléomorphe, palais,
traitement, glande
submandibulaire,
glande salivaire
accessoire

KEYWORDS:

■ *Pleomorphic adenoma,
palate, treatment,
submandibular gland,
minor salivary gland*

AOS n° 285 – 2017

L'adénome pléomorphe ou tumeur mixte se définit comme une tumeur bénigne hétérogène des glandes salivaires.

Le siège le plus fréquent est la glande parotide. Il est rare au niveau des glandes salivaires accessoires, localisé de préférence au niveau de la muqueuse buccale (voûte ou voile du palais, plancher de la bouche, joues et lèvres).

Le diagnostic de l'adénome pléomorphe du palais ne peut être retenu que sur un prélèvement biopsique, tout en restant vigilant sur l'existence possible d'autres foyers néoplasiques en son sein. L'anatomopathologie définitive après exérèse est obligatoire.

À propos de quatre cas clinique d'adénome pléomorphe (du palais, joues, lèvres et tubérosité), nous nous proposons de préciser les particularités épidémiologiques, diagnostiques et thérapeutiques de ces tumeurs ainsi que leurs caractéristiques évolutives.

Abstract

The pleomorphic adenoma or mixed tumor is defined as a heterogeneous benign tumor of salivary glands.

The parotid gland is its principal localisation. It is rare in accessory salivary glands, with a preferential localisation on the oral mucosa (palate, cheeks and lips). A biopsy may diagnose this tumor but can't eliminate the possibility of another neoplasical location in its center. The anatomopathology examination is mandatory after excision.

The authors present a case of four pleomorph adenoma (of the palate, play, lips and tuberosity), and review the epidemiological, clinical and therapeutic characteristics of these tumors.

► **Khadija MUKRAM**, Médecin résidente, service d'odontologie chirurgicale, CHU Casablanca. Adresse : Rue alaa ibn zaher, faculté de médecine dentaire de Casablanca – Tel : +212 0694826932.

Mounia EL BOUHAIRI, Médecin spécialiste, service d'odontologie chirurgicale, CHU Casablanca.

Ihsane BEN YAHYA, Professeur de l'enseignement supérieur, chef de service d'odontologie chirurgicale, CHU Casablanca.

INTRODUCTION

L'adénome pléomorphe anciennement appelé tumeur mixte du fait de sa double composante épithéliale et mésenchymateuse, est une tumeur bénigne qui se développe lentement, à bas bruit, pendant plusieurs années. Ses localisations extra-parotidiennes sont rares (1, 2).

Elles se distinguent de la parotide par leurs caractéristiques cliniques, histologiques et thérapeutiques (2). Elles sont réparties entre la glande submandibulaire et les glandes salivaires accessoires (palais, lèvres, tubérosité et joue).

Cliniquement, il s'agit d'une lésion à croissance lente, qui se présente sous forme d'un nodule bien limité, ferme et indolore à la palpation, refoulant la muqueuse sans l'ulcérer.

Le site préférentiel de la tumeur est le palais, et l'âge moyen de survenue est de 43 ans avec une prédominance féminine.

L'examen radiologique permet de caractériser la tumeur en évaluant son extension aux tissus avoisinants et de rechercher une lyse osseuse.

Le traitement passe par l'exérèse totale de la tumeur. L'examen anatomopathologique permet de confirmer le diagnostic (3, 4).

L'objectif de ce travail est de faire le point sur les localisations rares extra-parotidiennes de l'adénome

pléomorphe des glandes salivaires accessoires à travers quatre cas cliniques pris en charge au CCTD, CHU de Casablanca, Maroc.

OBSERVATION N° 1

Mme O. S, 36 ans, sans antécédents pathologiques particuliers, a consulté en décembre 2016 pour une gêne au niveau de la lèvre inférieure évoluant depuis 1 an.

À l'examen clinique exo-buccal, on note une légère voussure de la lèvre inférieure droite, correspondant à un nodule au niveau de la face interne muqueuse. Ce nodule est ferme, asymptomatique et mesure 1 cm de plus grand diamètre. Il est bien délimité, et non fixé, ni sur les plans profonds ni sur la muqueuse labiale, dont l'aspect est semblable à celui de la muqueuse saine (Fig. 1).

Il n'y avait pas d'adénopathie cervicale ni d'autre masse cervico-faciale palpable.

L'exérèse chirurgicale de la tumeur a été réalisée par voie endobuccale, sous anesthésie locale. L'intervention consiste en une simple incision superficielle de la muqueuse de 1,5 cm de long, permettant d'extérioriser le nodule par pression puis de le disséquer facilement des glandes salivaires accessoires avoisinantes. Deux points de suture sont réalisés (Fig. 2, 3).

▲ Fig. 1 : Une légère voussure de la lèvre inférieure droite, correspondant à un nodule au niveau de la face interne muqueuse.

▲ Fig. 2 : Aspect per opératoire de la tumeur après exérèse chirurgicale par voie endobuccale.

► Fig. 3 : Pièce opératoire.

L'analyse histologique précise qu'il s'agit d'une lésion nodulaire bien limitée, correspondant à une prolifération mixte épithéliale et mésenchymateuse avec une fine capsule qui ne présente pas d'effraction. L'examen conclut à la confirmation histologique d'un adénome pléomorphe, encapsulé dont l'exérèse est complète. À ce jour, 3 ans après, aucune récurrence n'a été signalée chez ce patient.

OBSERVATION N° 2

Il s'agit d'un patient de 45 ans, qui est venu consulter au service d'odontologie chirurgicale pour une lésion au niveau de la face interne de la joue gauche évoluant depuis 2 ans.

À l'interrogatoire, le patient rapporte qu'il est tabagique avec un bon état général apparent.

L'examen clinique endobuccal a permis de noter la présence d'une lésion nodulaire au niveau de la face interne de la joue, bien limitée, et recouverte par une muqueuse d'aspect sain.

Par ailleurs, la lésion est indolore et dure à la palpation (Fig. 1).

La palpation des aires ganglionnaires n'a relevé aucunes adénopathies.

Une biopsie-exérèse de la lésion a été réalisée par voie endobuccale sous anesthésie locale (Fig. 2, 3) dont l'examen anatomopathologique a mis en évidence un adénome pléomorphe.

Les soins postopératoires ont consisté en une antibiothérapie et des soins locaux à la Betadine®. Les suites postopératoires ont été simples.

Le contrôle à trois mois d'évolution n'a pas objectivé de récurrence locale.

◀ Fig. 1 : Vue endo-buccale : lésion nodulaire au niveau de la face interne de la joue.

◀ Fig. 2 : Aspect de la tumeur en peropératoire : nodule extériorisé par pression après une simple incision superficielle de la muqueuse.

▲ Fig. 3 : Pièce opératoire.

OBSERVATION N° 3

Il s'agit d'un patient âgé de 50 ans, sans antécédent pathologique particulier en dehors d'un tabagisme actif à 38 paquets/années, qui a consulté pour une tumeur du palais évoluant depuis 10 ans et augmentant lentement de volume sans altération de l'état général.

L'examen a mis en évidence une tumeur bosselée, recouverte d'une muqueuse saine, appendue à la partie droite du palais dur (Fig. 1), mesurant 6 cm x 4 cm x 4 cm.

Cette tumeur refoule le voile du palais en haut et en arrière. Il n'y avait pas d'adénopathies cervicales associées.

Un mordu occlusal et une tomodensitométrie ont objectivé une tumeur iso-dense, légèrement hétérogène et bien circonscrite (Fig. 2) aux dépens du palais dur, avec de multiples foyers de lyses osseuses.

Le patient a bénéficié d'une exérèse chirurgicale totale de la tumeur sous anesthésie locale (Fig. 3).

Les suites post opératoires ont été simples. L'examen anatomo-pathologique de la pièce opératoire (Fig. 4) a confirmé le diagnostic de l'adénome pléomorphe. Le contrôle clinique, après un recul de quatre années, n'a pas montré de récurrence (Fig. 5).

▲ Fig. 1 : Tuméfaction au niveau du palais dur.

▲ Fig. 2 : Mordu occlusal et TDM montrant un processus ovalaire de 45 mm x 35 mm bien limité.

▲ Fig. 3 : Aspect per-opératoire de la tumeur.

▲ Fig. 4 : Examen anatomopathologique de la pièce opératoire.

◀ Fig. 5 : Contrôle après 6 mois montrant une bonne cicatrisation muqueuse.

OBSERVATION N° 4

Mr B. H, âgé de 24 ans, présentait une tuméfaction au niveau de la tubérosité gauche de 16 mm sur 11 mm, indolore, dure à la palpation et ne saignant pas au contact, avec une ulcération centrale sèche.

Tout a commencé huit ans auparavant par l'apparition d'un petit nodule qui a augmenté progressivement de volume pour combler toute la tubérosité et qui s'est ulcéré par la suite (Fig 1).

L'examen radiologique montrait une lésion kystique de 16 mm au niveau du maxillaire gauche érodant l'os en rapport avec les structures dentaires et sans extension au niveau du palais mou (Fig. 2).

Après exérèse d'une masse clivable par rapport aux plans muqueux et osseux, l'examen anatomo-pathologique avait conclu à un adénome pléomorphe des glandes salivaires (Fig. 3).

L'exérèse a été jugée totale en peropératoire. Le contrôle à trois mois d'évolution n'a pas objectivé de récurrence locale (Fig. 4).

DISCUSSION

L'adénome pléomorphe est une tumeur bénigne hétérogène et la plus fréquente des glandes salivaires, longtemps dénommée tumeur mixte du fait de sa double composante épithéliale et mésenchymateuse (1, 3, 5). C'est la tumeur la plus fréquente de la glande parotide (65 %). Ses localisations extra-parotidiennes sont rares. Elles se distinguent de la parotide par leurs caractéristiques cliniques, histologiques et thérapeutiques. Elles sont réparties entre la glande submandibulaire et les glandes salivaires accessoires (3, 6).

Chez nos quatre patients, les tumeurs étaient à développement intra-oral et siégeaient au niveau du palais, de la joue, de la lèvre et de la tubérosité. D'autres localisations plus rares d'adénome pléomorphe des glandes salivaires accessoires étaient rapportées dans la littérature comme le septum nasal, le vestibule narinaires, la lèvre et la base de la langue (1, 7).

Les glandes salivaires accessoires, disséminées dans l'ensemble des voies aérodigestives supérieures,

▲ Fig. 1 : Vue endobuccale : lésion nodulaire au niveau de la tubérosité gauche avec une ulcération centrale sèche.

▲ Fig. 2 : vue endobuccale de l'exérèse chirurgicale sous anesthésie locale.

▲ Fig. 3 : Pièce opératoire.

▲ Fig. 4 : contrôle après 15 jours.

peuvent être le siège de tumeurs rares et réputées bénignes dans la majorité des cas, principalement au niveau de la muqueuse de la bouche (voûte ou voile du palais, plancher de la bouche, joues, lèvres), plus rarement du larynx ou des fosses nasales. Les variétés tumorales sont nombreuses ; la plus courante est l'adénome pléomorphe (anciennement dénommé tumeur mixte), qui demeure un souci majeur pour tout médecin dentiste à cause de son risque de dégénérescence maligne et qui peut se transformer en carcinome après une longue évolution (3, 4, 8, 9).

Elle était plus fréquente chez la femme avec un maximum de survenue à 40 ans, l'âge approximatif de nos patients (6, 10).

Elle siégeait souvent dans les glandes principales, essentiellement la parotide, mais atteignait également les glandes salivaires accessoires (le palais, la lèvre, la tubérosité et la joue) (11).

Le palais renferme la plus grande concentration de glandes salivaires accessoires contenues dans le tractus aéro-digestifs supérieur. Il était de ce fait le site le plus commun d'adénome pléomorphe des glandes salivaires accessoires, suivi de la lèvre supérieure, le plancher buccal, la joue, la tubérosité et l'oropharynx (8, 12).

La richesse de la sous muqueuse du palais en glandes salivaires accessoires explique la fréquence élevée des tumeurs bénignes et malignes dans ce site anatomique (5, 13).

Quel que soit son siège, l'adénome pléomorphe évolue habituellement selon un mode très lent et asymptomatique. Chez nos quatre patients l'adénome était découvert après 1 à 8 ans d'évolution, sous la forme d'une tuméfaction bien limitée (7, 14).

Cependant des observations d'adénome pléomorphe géant, évoluant sur plusieurs années, ont été décrites notamment au Japon (15).

Ces formes géantes sont responsables d'un syndrome obstructif des voies aéro-digestives supérieures avec dysphagie, dyspnée, ronflement et rhinolalie. Leur exérèse complète devient délicate et le risque de récurrence et de dégénérescence carcinomateuse devient grand (15, 16).

La symptomatologie clinique dépendait de la taille et de la localisation tumorale (17).

Au niveau de la cavité orale, nous décrivons souvent une tuméfaction indolore évoluant sous une muqueuse normale (2, 7, 18).

L'adénome pléomorphe du palais était souvent de siège le plus souvent en postérolatéral, bridé entre la voûte osseuse et la fibromuqueuse palatine épaisse et saine, la ligne médiane et le voile sont exceptionnellement atteints, contrairement à la tumeur maligne qui

déforme la région en « verre de montre » (19) (Cas de notre 3^e patient).

L'adénome pléomorphe de la joue est une lésion qui se présente sous forme d'un nodule bien limité, ferme et indolore à la palpation, refoulant la muqueuse sans l'ulcérer (3, 20) (Cas de notre 3^e patient).

L'adénome pléomorphe de la tubérosité se manifeste par un nodule, induré, bien limité et recouvert d'une muqueuse fine (5, 21) (Cas de notre 3^e patient).

L'adénome pléomorphe de la lèvre est une tumeur sous muqueuse de petite taille, indolore, bosselée et recouverte d'une muqueuse normale sans inflammation péri-tumorale (4, 22) (Cas de notre 3^e patient).

La cytoponction à l'aiguille fine doit être réalisée au préalable, elle permet une orientation diagnostique avant l'acte opératoire (23).

L'imagerie était indispensable quel que soit la localisation, dans le bilan pré opératoire de l'adénome pléomorphe. Elle repose essentiellement sur la radiographie panoramique, la tomодensitométrie et l'imagerie par résonnance magnétique (1, 24).

Elle permettait d'évaluer l'extension de la tumeur par rapport aux tissus avoisinants, de rechercher une lyse osseuse, de mettre en évidence les érosions osseuses et d'établir un bilan d'extension local et locorégional. Elles doivent être réalisées avant toute intervention chirurgicale d'autant plus que la tumeur est volumineuse (7).

Macroscopiquement, la tumeur est nodulaire, bien circonscrite voire encapsulée par une gangue conjonctive, elle est habituellement de couleur grise blanchâtre, par endroit translucide à la coupe. Sa consistance est variable, ferme ou molle et gélatiniforme. Le caractère pléomorphe fait référence à une grande richesse architecturale contrastant avec le monomorphisme des cellules épithéliales et myoépithéliales qui la composent. Celles-ci sont en effet le plus souvent régulières et « rassurantes » sur le plan cytologique. Un des éléments importants du diagnostic est l'observation d'un stroma particulier qui, de façon très caractéristique, prend un aspect myxoïde, avec parfois une différenciation cartilagineuse ou osseuse (9, 11).

Histologiquement, l'adénome pléomorphe se caractérise par un polymorphisme cellulaire avec présence de cellules myoépithéliales, épithéliales et stromales, d'où le nom de tumeur mixte (3).

Au niveau de la cavité buccale, cette tumeur a pour particularité de ne pas être encapsulée et le contact des cellules tumorales avec les cellules adipeuses ou musculaires ne doit pas en imposer pour un carcinome infiltrant (5, 8).

Le traitement est essentiellement chirurgical.

Enfin, l'exérèse chirurgicale complète avec excision de la muqueuse de recouvrement et coagulation du lit tumoral fournira le diagnostic définitif et permettra le traitement de cette remarquable tumeur des glandes salivaires. Cette exérèse complète est rendue difficile, quand il s'agit de tumeurs volumineuses, par l'absence de capsule et l'infiltration des glandes salivaires accessoires entre les fibres musculaires et les pannicules adipeux. Elle peut nécessiter le recours à des lambeaux de reconstruction en cas d'excision muqueuse importante (3, 18).

Au stade clinique, le diagnostic différentiel se pose avec toutes les tumeurs bénignes de la muqueuse buccale ayant un aspect nodulaire.

Son pronostic est généralement bon, mais reste marqué par un risque élevé de récurrence après chirurgie et de dégénérescence carcinomateuse imposant une prise en charge chirurgicale précoce et une surveillance régulière (25).

CONCLUSION

L'adénome pléomorphe est une tumeur bénigne hétérogène des glandes salivaires. Ses localisations extra-parotidiennes sont rares (15).

Ses localisations extra-parotidiennes sont dominées par la glande submandibulaire et les glandes salivaires accessoires du palais et des lèvres.

Chaque localisation est distincte par ses particularités cliniques, par les moyens de diagnostic et par la prise en charge chirurgicale (2, 8).

La revue de la littérature confirme à propos de cette tumeur d'une part son caractère évolutif et invasif en cas d'abstention chirurgicale, et, d'autre part, sa tendance à la récurrence locorégionale. L'exérèse complète est impérative (11).

La surveillance régulière locorégionale après exérèse doit être systématique pendant plusieurs années (7).

Bibliographie

- [1] Mortuaire G, Bounafos G, Wacrenier A, Darras JA, Chevalier D, Desautly A. Adénome pléomorphe endonasal. *J Fr Otorhinolaryngol* 2002 ; 4 : 180-4.
- [2] Boumdini H, Lebbar K, Chaouir S. Adénome pléomorphe de l'espace parapharyngé : à propos d'un cas. *Rev Med du Maghreb* 2003 ; 112 : 5-9.
- [3] Nouri H, Raji A, Elhattab Y, Rochdi Y, Ait M'barek B. Adénome pléomorphe de la voûte palatine : à propos d'un cas. *Rev d'Oto-rhino-laryngologie et de chirurgie cervico-faciale* 2006 ; 302 : 22-23.
- [4] Gzssab E, Berkaoui A, Kedous S, Korbi A, Khairredine N, Harrathi K. Adénome pléomorphe à localisation extra parotidienne. *J Tun ORL* 2009 ; 22 : 36-37.
- [5] Oueslati Z, Naji R, et al. Adénome pléomorphe de la glande submandibulaire. *J Tun ORL* 2003 ; 11 : 19-22.
- [6] Simon M, et al. Pleomorphic adenoma of a molar salivary gland. *Oral Oncology extra* 2005 ; 42 : 170-2.
- [7] Lowry TR, Heichel DJ. Pleomorphic adenoma of the hard palate. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2004 ; 131 : 793.
- [8] El Kohen A, Essakali L, et al. Adénome pléomorphe de la base de la langue. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 2007 ; 108 : 215-17.
- [9] Maamouri M, B Hamouda R, et al. Adénome pléomorphe du septum nasal à propos d'un cas. *J Tun ORL* 2008 ; 21 : 68-72.
- [10] Alves FA, Perez DE, Lopes MA, Kowalski LP. Pleomorphic adenoma of the submandibular gland. Clinicopathological and immunohistochemical features of 60 cases in Brazil. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2002 ; 128 : 1400-3.
- [11] Baek BJ, Bae CH, Kang EG, Cho HD. Pleomorphic adenoma of the nasal vestibule. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2009 ; 141 : 535-6.
- [12] Lomeo P, Finneman J. Pleomorphic adenoma of the soft palate. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2001 ; 125 : 122.
- [13] Kumagai M, Endo S, Koizumi F, Kida A, Yamoto M. A case of pleomorphic adenoma of the nasal septum. *Auris Nasus Larynx* 2004 ; 31 : 439-42.
- [14] Ruis-Laza L, Infante-Cossio P, Garcia-Perla A, Hernandez-Guisalo JM, Gutierrez-Perez JL. Giant pleomorphic adenoma in the parapharyngeal space: report of 2 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 2006 ; 64 : 519-23.
- [15] Cwalina P, Skorek A, Narozny W, Stankiewicz C. Pleomorphic adenoma of minor salivary glands. *Otolaryngol Pol* 2002 ; 56 : 737-40.
- [16] Bablani D, Bansal S, Shetty SJ, Desai R, Kulkarni SR, Prasad P, Kayodkar FR. Pleomorphic adenoma of the cheek : a case report and review. *J Oral Maxillofac Surg* 2009 ; 67 : 1539-42.
- [17] Bonfils P. Tumeurs des glandes salivaires. *EMC ORL* 2007 ; 20-628-B-10.
- [18] Verma K, Kapila K. Role of fine needle aspiration cytology in diagnosis of peomorphic adenomas. *Cytopathology* 2002 ; 13 : 121-7.
- [19] Guerriero JO, Taborda G. Endoscopic excision of the submandibular gland by an intraoral approach. *J Craniofac Surg* 2001 ; 12 : 299-303.
- [20] Ayoub OM, Bhatia K, Mal RK. Pleomorphic adenoma of the parotid gland: is long term follow-up needed? *Auris Nasus Larynx* 2002 ; 29 : 283-5.
- [21] Bentz BG, Hughes CA, Ludemann JP, Maddalozzo J. Masses of the salivary gland region in children. *Arch Otolaryngol*.
- [22] Hamama J, Khayati S, Arroba A, Abouchadi A. Adénome pléomorphe des glandes salivaires accessoires. *AOS* 2015 ; 271 : 4-9.
- [23] Gleizal A, Merrot O, Bouletreau P. Affections vélopalatines. *EMC-Stomatologie*. 2005 ; 1 (2) : 141-161.
- [24] El Kohen A, Essakalli L, Kzadri M, Sefiani S, Seffar Andaloussi Z. Pleomorphic adenoma of the tongue base. *Rev Stomatol Chir Maxillofac*. 2007 ; 108 : 215-7.
- [25] Lowry T, Heichel D. Pleomorphic adenoma of the hard palate. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2004 ; 131 : 793.
- [26] Uro-Coste E. Particularités des tumeurs des glandes salivaires accessoires. *Ann Pathol*. 2007 ; 27 (1) : 76-78.
- [27] Sasaki T, Imai Y, Iwase H, Takimoto T. Massive tumour arising from the hard palate after excision of a pleomorphic adenoma. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2003 ; 41 : 360-2.
- [28] Lomeo P, Finneman J. Pleomorphic adenoma of the soft palate. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2001 ; 125 : 122.
- [29] Yilmaz A, Unlü E, Orbay H, Sensoz O. Giant pleomorphic adenoma of soft palate leading to obstruction of the nasopharyngeal port. *J Craniofac Surg*. 2006 ; 17 : 1001-4.