

Trattamento dell'adenoma pleomorfo delle ghiandole salivari: nostra esperienza

G. ASCANI, M. MESSI, P. BALERCIA

RIASSUNTO: Trattamento dell'adenoma pleomorfo delle ghiandole salivari: nostra esperienza.

G. ASCANI, M. MESSI, P. BALERCIA.

Premessa. L'adenoma pleomorfo è un tumore epiteliale benigno delle strutture ghiandolari che si localizza prevalentemente nella ghiandola parotide.

Scopo. Analizzare i dati dei pazienti trattati per adenoma pleomorfo delle ghiandole salivari presso la nostra struttura al fine di valutare la strategia chirurgica.

Pazienti e metodi. Studio retrospettivo di un periodo di 15 anni durante il quale sono stati trattati 347 pazienti affetti da adenoma pleomorfo delle ghiandole salivari. Di tutti i pazienti sono stati presi in considerazione: sesso, età, sede del tumore, procedura chirurgica, complicanze postoperatorie, recidive.

Risultati. L'adenoma pleomorfo originava prevalentemente nella parotide (89,1%), raramente nelle altre ghiandole salivari. Il tumore era più frequente nelle donne che negli uomini (F:M = 1,5). L'età media era 43,43 anni. L'enucleazione pericapsulare dei tumori parotidici è risultata essere la procedura chirurgica più utilizzata. Le altre procedure utilizzate sono state: parotidectomia superficiale, parotidectomia totale conservativa, escresi completa della ghiandola sottomandibolare e asportazione radicale dei tumori del palato. Le complicanze postoperatorie sono state: paralisi facciale transitoria in 18 pazienti e sindrome di Frey in 2 pazienti. In nessun paziente sono state riscontrate recidive nel periodo di follow-up (25-177 mesi).

Conclusioni. Gli aspetti epidemiologici dell'adenoma pleomorfo delle ghiandole salivari osservati nel nostro studio sono sovrapponibili a quelli riportati in letteratura; lo studio dimostra inoltre che l'enucleazione pericapsulare è una valida alternativa alla parotidectomia superficiale per la maggior parte delle localizzazioni parotidiche, essendo associata ad una minore morbilità senza che sia compromessa la radicalità oncologica.

SUMMARY: Surgical management of pleomorphic adenoma of the salivary glands: our experience.

G. ASCANI, M. MESSI, P. BALERCIA.

Background. Pleomorphic adenoma is a benign epithelial tumour of adenoid structure preferentially arising from the parotid gland.

Aim. To analyse the outcome of patients with pleomorphic adenoma from salivary glands in order to evaluate the surgical strategy.

Patients and methods. This is an audit of a 15-year period where 347 pleomorphic adenomas of the salivary glands were treated by the authors. Data was collected and reviewed from the records of all the patients in order to analyze gender, age, site, operative procedure, postoperative complications and recurrences.

Results. The pleomorphic adenoma preferentially originated in the parotid gland (89,1%), and rarely in other glands. The tumour occurred more often in females than in males (F:M = 1,5). Average age was 43,43 years. Pericapsular enucleation of parotid neoplasms was the commonest operation performed. Other procedures were: superficial parotidectomy, total conservative parotidectomy, submandibular total sialoadenectomy and radical surgery for lesions of the palate. Postoperative complication was temporary facial weakness in 18 patients; 2 patients developed the Frey's syndrome. No recurrences were developed in follow-up period (25-177 months).

Conclusion. The epidemiological aspects of pleomorphic adenoma of salivary glands retrieved in our study are similar to those reported in literature; moreover this study demonstrates that pericapsular enucleation is a viable alternative to superficial parotidectomy for the majority of parotid localizations, associated with reduced morbidity without oncological compromise.

KEY WORDS: Adenoma pleomorfo - Ghiandole salivari - Enucleazione - Tumori parotidici.
Pleomorphic adenoma - Salivary glands - Enucleation - Parotid neoplasms.

Azienda Ospedaliero-Universitaria "Ospedali Riuniti", Ancona
Unità Operativa di Chirurgia Maxillo-Facciale
(Direttore: Prof. P. Balercia)

Presentato come comunicazione al XV Congresso Nazionale
della Società Italiana di Chirurgia Maxillo-Facciale
Bologna, 20-23 giugno 2007

© Copyright 2008, CIC Edizioni Internazionali, Roma

Introduzione

L'adenoma pleomorfo o tumore misto è la più frequente neoplasia primitiva delle ghiandole salivari. Costituisce, infatti, dal 60 al 70% di tutte le neoplasie della parotide, dal 40 al 60% delle neoplasie della

sottomandibolare e dal 40 al 70% dei tumori delle ghiandole salivari minori. La ghiandola sottolinguale è raramente interessata da tumori di origine salivare (1-4). Occasionalmente si possono osservare localizzazioni inusuali: sono stati descritti alcuni casi nella guancia, lungo il decorso del dotto di Stenone, in tessuto ghiandolare accessorio. L'adenoma pleomorfo può anche svilupparsi da inclusioni di tessuto ghiandolare nei linfonodi cervicali e sono stati riportati anche casi a localizzazione intraossea (mascellare o mandibolare) (1, 5).

Il tumore misto è più comunemente diagnosticato nel range di età tra i 30 e i 50 anni ed è infrequente nelle prime due decadi di vita, sebbene possa manifestarsi anche in età molto precoce.

È generalmente riconosciuta una maggior frequenza di incidenza nelle donne, con un rapporto M:F compreso tra 1:3 e 1:4 (1-3, 6).

Generalmente si presenta come una massa non dolente, a lenta crescita, di consistenza duro-elastica. Nella parotide molto spesso si localizza al polo inferiore del cosiddetto lobo superficiale, come una massa al di sopra e dietro l'angolo mandibolare, al di sotto e davanti il lobo auricolare. Circa il 10% degli adenomi pleomorfi parotidici si sviluppa nella porzione più profonda della ghiandola. In questi casi possono estendersi tra il ramo ascendente della mandibola e il legamento stilomandibolare, assumendo una conformazione "a clessidra" ed occupando lo spazio parafaringeo, manifestandosi come una massa della fossa tonsillare, del palato molle o della parete laterale del faringe. Inizialmente la neoplasia è generalmente mobile, ma nello sviluppo può diventare nodulare e fissa. Le recidive sono generalmente multinodulari ed appaiono clinicamente come molteplici piccoli noduli per lo più fissi alla palpazione. Il tumore misto della ghiandola sottomandibolare tipicamente si presenta come una massa fissa nel contesto ghiandolare. Sebbene possa svilupparsi in tutti i siti dove sono presenti ghiandole salivari minori, il palato (54%), il labbro superiore (18%) e la mucosa geniena (11%) sono le localizzazioni intraorali più frequenti (1, 2). Clinicamente si manifestano come neoformazioni sottomucose, a lenta crescita, non dolenti. La mucosa raramente è ulcerata, a meno di traumatismi secondari.

L'adenoma pleomorfo delle ghiandole salivari è uno dei pochi tumori benigni che possono andare incontro a trasformazione maligna; la probabilità di trasformazione aumenta con l'età del paziente e la durata della malattia (1, 2, 7).

La terapia è chirurgica: un'adeguata escissione garantisce una prognosi eccellente (1, 2, 8, 9).

Pazienti e metodi

Abbiamo condotto uno studio retrospettivo sui pazienti trattati chirurgicamente presso l'Unità Operativa di Chirurgia Maxillo-Facciale degli "Ospedali Riuniti" di Ancona nel periodo compreso tra il 1° gennaio 1990 ed il 31 dicembre 2004. La diagnosi istologica di adenoma pleomorfo è stata stabilita sulla base della classificazione della WHO. Sono stati presi in considerazione l'età ed il sesso dei pazienti, la localizzazione della neoplasia, il tipo di trattamento chirurgico, la comparsa di complicanze e di recidive. Il periodo di follow-up è stato compreso tra un minimo di 25 ed un massimo di 177 mesi.

Risultati

Nel periodo in studio sono stati trattati chirurgicamente per adenoma pleomorfo delle ghiandole salivari 347 pazienti. L'età media era di 43.43 anni (range 14-81, DS 16.38); 133 (40.4%) erano uomini con un'età media di 42 anni (range 15-68, DS 15.16) e 204 donne (59.6%) con un'età media di 44.4 anni (range 14-81, DS 17.31).

Ventisette pazienti presentavano una recidiva di adenoma pleomorfo trattato chirurgicamente in altri centri. Nei casi primitivi la neoplasia era localizzata nella parotide in 285 casi (89,1%), nella sottomandibolare in 26 casi (8,1%) e nelle ghiandole salivari minori del palato in 9 casi (2,8%); le recidive interessavano la parotide in 21 casi e le ghiandole salivari minori del palato in 6 casi, con un tempo di insorgenza medio dopo il primo intervento di 8.3 anni (range 2-15 anni) (Tab. 1).

Le procedure chirurgiche attuate sono state:

- asportazione della ghiandola nei casi a localizzazione sottomandibolare;
- asportazione con margine di tessuto sano nei casi a localizzazione palatale;
- enucleazione pericapsulare (extracapsulare), con margine di tessuto ghiandolare normale, senza preparazione del nervo facciale, nelle neoplasie parotidiche di piccole dimensioni e situate superficialmente (169 casi);
- parotidectomia superficiale, con preparazione del nervo facciale, in 96 casi;
- parotidectomia totale conservativa nelle neoplasie localizzate nel "lobo" profondo (20 casi) e nelle recidive (21 casi).

In nessun caso di chirurgia parotidea si è verificata paralisi permanente del nervo facciale, mentre 9 pazienti sottoposti a parotidectomia superficiale e 9 sottoposti a parotidectomia totale hanno riportato un deficit transitorio (Tab. 2). In due casi è comparsa sindrome di Frey a distanza, rispettivamente, di 1 e 2 anni dall'intervento di parotidectomia totale.

Durante il periodo di follow-up nessun paziente ha presentato recidive.

TABELLA 1 - DISTRIBUZIONE PER SEDE DELL'ADENOMA PLEOMORFO NELLA NOSTRA CASISTICA.

	Parotide	Sottomandibolare	Sottolinguale	Ghiandole salivari minori (palato)
Neoplasie primitive (320 casi)	285 (89,1%)	26 (8,1%)	0	9 (palato) (2,8%)
Recidive (27 casi)	21	0	0	6 (palato)

Discussione e conclusione

Nella nostra casistica l'incidenza media dei tumori delle ghiandole salivari è di 34,92 pazienti per anno (3,49 casi/100.000 abitanti per anno); l'adenoma pleomorfo rappresenta il 62,66% di tutte le neoplasie delle ghiandole salivari ed il 70,86 dei tumori benigni (3). I dati clinici (età, sesso, localizzazione del tumore) del nostro studio sono essenzialmente sovrapponibili a quelli riportati in letteratura (1, 2, 4).

Rappresentando il nostro un centro di riferimento di secondo livello, in buona parte dei casi i pazienti giungono alla nostra osservazione con uno studio diagnostico appropriato.

L'iter diagnostico dai noi seguito si avvale, oltre che dell'esame clinico, di ecotomografia e TC, mentre riserviamo la RM a casi particolari. Non riteniamo utile eseguire routinariamente l'esame citologico mediante agoaspirato (FNAB) mentre utilizziamo in ogni intervento l'esame istologico estemporaneo al congelatore. In mani esperte, l'accuratezza della diagnosi mediante FNAB è stimata superiore al 90% per i tumori benigni, ma questa metodica è meno accurata per la diagnosi dei tumori maligni. L'accuratezza della diagnosi mediante FNAB appare paragonabile a quella dell'esame istologico estemporaneo se confrontata con la diagnosi istologica definitiva. Per l'esame estemporaneo è riportata una accuratezza diagnostica del 96% per i tumori benigni e dell'86% per i tumori maligni.

L'alta percentuale di falsi negativi per tumori maligni rende la FNAB inaffidabile, se usata da sola, ed inoltre la decisione terapeutica non viene significativamente influenzata dal risultato della FNAB, anche qualora si ottenga una diagnosi corretta (1, 2, 10).

Il trattamento chirurgico dei tumori misti delle ghiandole salivari minori consiste nella totale asportazione in tessuto sano, mentre nei casi a localizzazione sottomandibolare vi è generale consenso ad effettuare la scialoadenectomia totale (1, 2, 4, 8).

In letteratura è tuttora discusso il trattamento chirurgico dell'adenoma pleomorfo della parotide (11-15). Nella nostra esperienza l'enucleazione extracapsulare rappresenta una tecnica sicura ed efficace, al pari della parotidectomia superficiale, nei casi di ridotte dimensioni e a localizzazione superficiale. Questa tecnica presenta numerosi vantaggi: minor tempo operatorio, minor incidenza di paresi facciale transitoria o permanente, miglior risultato estetico, minor incidenza della sindrome di Frey, migliore preservazione della funzionalità ghiandolare (16, 17). Le percentuali di recidiva sono sovrapponibili nelle due tecniche essendo condizionate più dall'esperienza e dall'accuratezza tecnica del chirurgo che dalle caratteristiche intrinseche del tumore (18-20). L'origine primaria multicentrica dell'adenoma pleomorfo è, infatti, estremamente rara (0.5%) tanto da non giustificare, a nostro avviso, l'esecuzione routinaria della parotidectomia superficiale.

TABELLA 2 - COMPLICANZE DELLA CHIRURGIA PAROTIDEA NELLA NOSTRA ESPERIENZA.

	Paresi facciale transitoria	Paresi facciale permanente	Sindrome di Frey	Recidive
Enucleazione pericapsulare (169 casi)	0	0	0	0
Parotidectomia superficiale (96 casi)	9 (9,4%)	0	0	0
Parotidectomia totale conservativa (41 casi)	9 (22%)	0	2	0

Bibliografia

1. GL Ellis, PL Auclair, DR Gnepp. Surgical pathology of the salivary glands. WB Saunders company, Philadelphia, 1991.
2. Spiro RG. Salivary neoplasms: overview of a 35-year experience with 2,807 patients. *Head Neck Surg* 1986;8:177-184.
3. Ascani G, Pieramici T, Messi M, Lupi E, Rubini C, Balercia P. Salivary glands tumours: a retrospective study of 454 patients. *Minerva Stomatol.* 2006;55(4):209-14.
4. Liu FF, Rotstein L, Davison AJ, Pintilie M, O'Sullivan B, Payne DG, Warde P, Cummings B. Benign parotid adenomas: a review of the Princess Margaret Hospital experience. *Head Neck* 1995; 17:177-183.
5. Nardone M, Ferrara G, Nappi O, Di Maria D, Villari G. Pleomorphic adenoma in unusual anatomic sites: case reports and review of literature. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2002;22(3): 158-63.
6. Ribeiro Kde C, Kowalski LP, Saba LM, de Camargo B. Epithelial salivary glands neoplasms in children and adolescents: a forty-four-year experience. *Med Pediatr Oncol.* 2002;39(6): 594-600.
7. Olsen KD, Lewis JE. Carcinoma ex pleomorphic adenoma: a clinicopathologic review. *Head Neck.* 2001;23(9):705-12.
8. Carlson ER, Schimmele SR. The management of minor salivary gland tumors of the oral cavity. *Atlas Oral Maxillofac Surg Clin North Am.* 1998;6(1):75-98.
9. Obaid MA, Yusuf A. Surgical management of epithelial parotid tumours. *J Coll Physicians Surg Pak.* 2004;14(7):394-399.
10. Que Hee CG, Perry CF. Fine-needle aspiration cytology of parotid tumours: is it useful? *ANZ J Surg.* 2001;71(6):345-8.
11. Bradley PJ. Pleomorphic salivary adenoma of the parotid gland: which operation to perform? *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* 2004;12(2):69-70.
12. O'Brien CJ. Current management of benign parotid tumors. The role of limited superficial parotidectomy. *Head Neck.* 2003;25(11):946-52.
13. McGurk M, Thomas BL, Renehan AG. Extracapsular dissection for clinically benign parotid lumps: reduced morbidity without oncological compromise. *Br J Cancer.* 2003;89(9): 1610-3.
14. Hancock BD. Clinically benign parotid tumours: local dissection as an alternative to superficial parotidectomy in selected cases. *Ann R Coll Surg Engl.* 1999;81(5):299-301.
15. Shemen LJ. Conservative vs superficial parotidectomy. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1999;125(10):1166.
16. Prichard AJ, Barton RP, Narula AA. Complications of superficial parotidectomy versus extracapsular lumpectomy in the treatment of benign parotid lesions. *J R Coll Surg Edinb.* 1992;37(3):155-8.
17. Sood S, Bradley PJ. Parotid surgery and Frey syndrome. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000;126(9):1168.
18. Phillips PP, Olsen KD. Recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland: report of 126 cases and a review of the literature. *Ann Otol Laryngol* 1995;104:100-104.
19. Natvig K, Soberg R. Relationship of intraoperative rupture of pleomorphic adenomas to recurrence: an 11-25 year follow-up study. *Head Neck* 1994;16:213-217.
20. Webb AJ, Eveson JW. Pleomorphic adenomas of the major salivary glands: a study of the capsular form in relation to surgical management. *Clin Otolaryngol.* 2001;26(2):134-42.