



Disponible en ligne sur

ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France

EM|consulte
www.em-consulte.com



Recommandations de la SFORL

Recommandations de la Société française d'ORL et de chirurgie cervico-faciale (SFORL), partie I : prise en charge initiale des adénomes pléomorphes[☆]



S. Vergez^{a,*,1}, N. Fakhry^{b,1}, C. Cartier^c, T. Kennel^c, M. Courtade-Saidi^d, E. Uro-Coste^d, A. Varoquaux^{e,f}, C.-A. Righini^g, O. Malard^h, P. Mogultay^c, J. Thariat^{i,j}, S. Tronche^k, R. Garrel^{c,2}, D. Chevalier^{l,2}

^a Service d'ORL et de chirurgie de la face et du cou, CHU Toulouse-Larrey, institut universitaire du cancer de Toulouse Oncopole, Toulouse, France

^b Service d'ORL et chirurgie de la face et du cou, hôpital de la Conception, Aix-Marseille université, AP-HM, Marseille, France

^c Service d'ORL et de chirurgie de la face et du cou, CHU de Montpellier, France

^d Inserm CRCT – équipe 11, service d'anatomie et cytologie pathologiques, institut universitaire du cancer de Toulouse Oncopole, Toulouse, France

^e Service de radiologie, hôpital de la Conception, AP-HM, Marseille, France

^f AMU, faculté de médecine Timone CNRS – Center for magnetic resonance in biology and medicine, Marseille, France

^g Service d'ORL et de chirurgie de la face et du cou, CHU de Grenoble Alpes (CHUGA), Grenoble, France

^h Service d'ORL et de chirurgie de la face et du cou, CHU Hôtel-Dieu, Nantes, France

ⁱ Département de radiothérapie, centre François-Baclesse, Caen, France

^j Laboratoire de physique corpusculaire IN2P3/ENSICAEN – UMR6534 – Unicaen – Normandie université, Caen, France

^k Société française d'ORL et chirurgie cervico-faciale, France

^l Service d'ORL et de chirurgie de la face et du cou, CHU de Lille, France

INFO ARTICLE

Mots clés :

Adénome pléomorphe
Glandes salivaires
Parotide
Glande submandibulaire

RÉSUMÉ

Introduction. – Les auteurs exposent les recommandations de la Société française d'oto-rhino-laryngologie et de chirurgie cervicofaciale (SFORL) concernant la stratégie de prise en charge primaire diagnostique et thérapeutique des adénomes pléomorphes (AP) des glandes salivaires.

Méthode. – Ces recommandations ont été rédigées à partir d'une revue de la littérature scientifique et de l'expérience du groupe de travail puis classées en grade A, B, C ou accord professionnel selon un niveau scientifique décroissant.

Résultats. – Il est recommandé de réaliser une IRM comprenant les aires ganglionnaires cervicofaciales. La cytoponction est particulièrement recommandée lorsque le signal IRM n'est pas parfaitement typique d'AP. Il est recommandé d'effectuer un examen histologique extemporané afin de confirmer ou d'infirmer le diagnostic d'AP et éventuellement d'adapter le geste chirurgical en cas de découverte de malignité. Il est recommandé, d'effectuer l'exérèse complète d'une suspicion préopératoire d'AP parotidien en monobloc avec des marges de tissu sain, lorsque cela est possible en fonction de la situation anatomique de la tumeur, tout en respectant le nerf facial. Il est recommandé de ne pas se limiter à l'exérèse au contact de la tumeur (énucléation simple). Pour les glandes salivaires accessoires et la submandibulaire, il est recommandé d'effectuer une chirurgie d'exérèse complète en monobloc.

© 2020 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

DOI de l'article original : <https://doi.org/10.1016/j.anorl.2020.09.002>.

[☆] Ne pas utiliser pour citation la référence française de cet article mais celle de l'article original paru dans *European Annals of Otorhinolaryngology Head and Neck Diseases* en utilisant le DOI ci-dessus.

* Auteur correspondant. Service d'ORL et de chirurgie de la face et du cou, CHU Toulouse-Larrey, 24, chemin de Pouvoirville, Toulouse, France.

Adresse e-mail : vergez.s@chu-toulouse.fr (S. Vergez).

¹ Contribution égale et doivent être considérés tous les 2 comme 1^{er} auteur.

² Contribution égale et doivent être considérés tous les 2 comme dernier auteur.

<https://doi.org/10.1016/j.aforl.2020.06.010>

1879-7261/© 2020 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

1. Introduction

L'adénome pléomorphe (AP) est la plus fréquente des tumeurs bénignes de la glande parotide. Sa fréquence est d'environ 4,5 pour 100 000 personnes en Europe [1] (niveau de preuve 4). Sa bénignité, rassurante pour les patients, ne doit pas cacher l'enjeu thérapeutique de cette entité tumorale, caractérisée par ses rapports étroits avec le nerf facial lorsqu'il est situé dans la glande parotide, par son risque de récurrence [2] (niveau de preuve 4) et par son évolution rare mais possible vers une transformation maligne

[3] (niveau de preuve 4). L'objectif principal de ce travail est de définir des recommandations concernant la stratégie de prise en charge initiale diagnostique et thérapeutique de l'AP. Les objectifs secondaires sont la description de l'imagerie de diagnostic et de caractérisation d'une suspicion clinique AP de la parotide ; la définition de la place de la cytologie dans le bilan d'un AP ; la définition de la place de l'examen extemporané lors de la chirurgie d'exérèse d'une tumeur suspecte d'adénome pléomorphe ; la description des stratégies chirurgicales des suspicions d'AP parotidiens et non-parotidiens.

2. Matériel et méthode

Un groupe de travail multidisciplinaire a été chargé de définir la stratégie de prise en charge de l'AP, depuis le bilan initial devant une suspicion clinique d'AP (bilan radiologique, cytologique) jusqu'à sa prise en charge thérapeutique (stratégie de prise en charge chirurgicale). Ces recommandations ont été rédigées à partir d'une revue de la littérature scientifique (Base de données Medline avec les recherches combinant les mots-clés suivants : pleomorphic adenoma, salivary tumor, parotid, submandibular, accessory salivary glands, diagnosis, MRI, ultra-sound, CTscan, PET-CT, Fine needle aspiration cytology, pathology, Frozen section, surgery, parotidectomy, extra-capsular dissection). La synthèse de cette revue a été confrontée à l'expérience du groupe de travail puis classées en grade A, B, C ou accord professionnel selon un niveau scientifique décroissant.

3. Imagerie de diagnostic et de caractérisation d'une suspicion clinique d'adénome pléomorphe de la parotide

Les objectifs de l'imagerie en cas de suspicion clinique d'AP sont multiples. Il conviendra de renforcer ou d'atténuer la présomption clinique d'AP, d'établir l'étendue et la taille de la tumeur, d'infirmier la présence de ganglions suspects de métastases, d'infirmier la présence d'extension péri-neurale, de guider si nécessaire une cytoponction et éventuellement de distinguer les tumeurs récurrentes des remaniements post-thérapeutiques.

3.1. Formation parotidienne infracentimétrique : dépistage/caractérisation

La limite de taille en imagerie (imagerie par résonance magnétique [IRM], tomodensitométrie [TDM], échographie) étant de l'ordre du centimètre, aucun examen d'imagerie n'est suffisamment sensible et spécifique pour le dépistage et la caractérisation de lésions salivaires infracentimétriques. Sous réserve que la lésion soit située dans une localisation analysable en échographie, celle-ci est l'examen de choix pour éliminer les lésions non tumorales telles que les ganglions normaux, les adénites inflammatoires, les nodules de sialadénite chronique [4] (niveau de preuve 3). Lorsque la lésion est accessible, l'échographie est l'examen de première ligne pour juger de la non-évolutivité de cette formation après 4 à 6 semaines (avis d'expert).

3.2. Formation parotidienne supracentimétrique – dépistage et caractérisation

L'IRM est l'examen de choix pour déterminer l'extension locale et la caractérisation d'une masse tumorale parotidienne comportant idéalement une séquence coronale à la recherche d'adénopathies cervicales concomitantes ainsi que des séquences de diffusion et de perfusion qui permettront d'augmenter la spécificité de la caractérisation lésionnelle.

Un AP se présente sous forme d'une lésion intraparotidienne en hypersignal T2 sans adénopathie satellite [5] (niveau de preuve 4).

Habituellement une fine capsule fibreuse est visible en hyposignal T2, et le rehaussement est hétérogène, après injection de produit de contraste. Une lésion en isosignal ou hyposignal T2 par rapport à la glande n'est probablement pas en rapport avec un AP. Les signes d'envahissement péri-neural du nerf facial (épaississement et prise de contraste en T1 gadolinium) ne sont pas compatibles avec le diagnostic d'AP. Une restriction en imagerie de diffusion ($ADC < 1 \times 10^{-3} \text{ mm}^2/\text{s}$) n'est pas non plus compatible avec ce diagnostic [6] (niveau de preuve 3). En perfusion (DCE), un rehaussement progressif dans le temps est le plus habituel [7] (niveau de preuve 3). Un rehaussement rapide ($< 110 \text{ s}$) avec faible lavage lésionnel ($< 30 \%$) est moins fréquent [8] (niveau de preuve 4). Un lavage $> 30 \%$ ne semble pas compatible avec le diagnostic d'AP [8] (niveau de preuve 4).

La TDM n'est pas recommandée en première intention. De façon moins spécifique qu'à l'IRM, elle montre une lésion intraparotidienne, bien limitée, rehaussée de façon hétérogène [9] (niveau de preuve 4). Un élargissement du foramen stylomastoïdien (évoquant un envahissement du nerf facial) ou la présence d'adénopathies ne sont a priori pas compatibles avec le diagnostic d'AP. La TEP-TDM au 18 FDG n'est pas un examen recommandé. Une hyperfixation n'est a priori pas compatible avec un AP [10] (niveau de preuve 4).

Recommandation

- Il est recommandé de réaliser une IRM morphologique comprenant les aires ganglionnaires cervicofaciales (idéalement avec des séquences de diffusion et de perfusion) pour la caractérisation et le bilan d'extension des lésions supracentimétriques parotidiennes. (Grade B).
- La TDM injectée peut être proposée comme alternative à l'IRM en cas de contre-indication. (Accord professionnel).
- Pour les petites lésions parotidiennes (infracentimétriques), une échographie est recommandée en première intention. (Accord professionnel).
- Il n'est pas recommandé de réaliser une TEP-TDM au 18FDG de première intention pour une suspicion d'adénome pléomorphe. (Grade C).

3.3. Stratégie de surveillance radiologique des adénomes pléomorphes opérés

Les récurrences d'adénomes pléomorphes peuvent être uniques ou multiples (jusqu'à 100 éléments nodulaires), habituellement dans la loge de parotidectomie et parfois sur tout le trajet de la cicatrice [11] (niveau de preuve 3).

L'IRM est l'examen de choix pour le dépistage des récurrences d'AP et l'analyse de leur extension. Les récurrences présentent habituellement un aspect semblable à la tumeur primitive, en hypersignal T2. Une séquence T2 en saturation de graisse pourrait aider à les dépister [10] (niveau de preuve 3).

Recommandation

- L'IRM est l'examen de référence pour surveiller les patients à haut risque de récurrence. (Grade C).
- Il n'est pas recommandé de réaliser une IRM avant au minimum 6 mois, après le geste chirurgical. (Accord professionnel).

4. Place de la cytologie dans le bilan d'un adénome pléomorphe

La cytoponction à l'aiguille fine est communément pratiquée dans le bilan préopératoire des lésions des glandes salivaires. Il s'agit d'un geste simple à réaliser avec très peu de complications rapportées (hématomes 0,1 %, infection ou inflammation 0,16 %, douleur 0,1 %). Le risque de lésion du nerf facial est pratiquement nul [12] (niveau de preuve 2). La publication récente du système de Milan permet une classification de la cytopathologie des glandes salivaires (Tableau 1) [13].

4.1. Technique de prélèvement

La cytoponction doit être pratiquée par un opérateur entraîné (clinicien, radiologue ou cytopathologiste). Une ponction est réalisée à l'aiguille 23 à 27 G, de préférence sans aspiration. Le matériel est ensuite soit étalé sur lames et séché rapidement à l'air, soit recueilli en milieu liquide (nature variable selon le fournisseur).

Dans une méta-analyse, Liu [12] (niveau de preuve 2) montre que les études avec ponction sous échoguidage ont une meilleure sensibilité (0,85 ; intervalle de confiance [IC] 95 %, 0,76–0,91) et une meilleure spécificité (0,98 ; IC 95 %, 0,95–0,99) que celles réalisées sans échoguidage (sensibilité : 0,78 ; IC 95 %, 0,74–0,82, et spécificité : 0,97 ; IC 95 %, 0,96–0,98). Pour les lésions cervico-faciales en général (glandes salivaires, ganglions cervicaux, thyroïde), les ponctions réalisées par des cytopathologistes sous échoguidage montrent significativement moins de ponctions non contributives que celles guidées par la palpation (17,1 % versus 6,2 %), ce d'autant que la lésion est infracentimétrique (38,6 % versus 2,9 %). Le taux de discordance entre la cytologie et l'histologie postopératoire est significativement plus bas avec la ponction échoguidée (5,4 %) comparée à la ponction guidée par la palpation (12,8 %) [14] (niveau de preuve 4).

4.2. Intérêt de la cytoponction dans le bilan de l'adénome pléomorphe

La concordance cytologique/histologique est de 97 % pour l'AP [15] (niveau de preuve 4) ; le même niveau de valeur est retrouvé par Klijanienko J et al. [16] (niveau de preuve 3). En utilisant le système de Milan [16], le risque de malignité pour les diagnostics cytologiques de tumeurs bénignes est de 3,4 % ± 1,3 %, la sensibilité de 95 % et la spécificité de 93 % [17] (niveau de preuve 2). Des résultats similaires sont retrouvés par Farahani et Baloch [18] (niveau de preuve 2), avec un risque de malignité de 4 % pour le groupe des tumeurs bénignes. La performance diagnostique pour l'AP est de 97,5 % pour Choy et al. [19] (niveau de preuve 4) et le risque de malignité des cytologies bénignes est de 2,7 %. Stanek et Khariwala [20] (niveau de preuve 4) considèrent que la cytoponction est d'une aide importante au diagnostic et notent que sa performance est augmentée sous échoguidage. Les pièges pour le diagnostic cytologique d'AP sont représentés par le carcinome adénoïde kystique, le carcinome ex-AP, le carcinome muco-épidermoïde et les tumeurs à cellules myoépithéliales [21] (niveau de preuve 4), [22] (niveau de preuve 2). Le système de Milan recommande de classer en tumeur de malignité indéterminée (*salivary tumors of uncertain malignant potential* [SUMP]) les adénomes pléomorphes qui n'ont pas un aspect « classique », ce qui devrait limiter le risque d'erreur de diagnostic [13].

4.3. Comparaison des performances diagnostiques de la cytologie et de l'IRM

Pour différencier les tumeurs bénignes des tumeurs malignes, dans une étude rétrospective menée sur 543 patients,

Tryggvason et al. [23] (niveau de preuve 3) montrent une sensibilité et une spécificité de la cytologie de respectivement 85,7 % et 99,5 % comparativement à celles de l'IRM de 81,8 % et 67,3 %. En ce qui concerne plus spécifiquement l'AP, il n'y avait pas de faux positif sur les 186 cas analysés en cytologie. Sur 71 cas de tumeurs bénignes, 7 d'entre elles ont été diagnostiquées comme malignes en IRM. Heaton et al. [21] (niveau de preuve 4) ont évalué l'utilité de la cytoponction et de l'IRM dans les adénomes pléomorphes. La valeur prédictive positive (VPP) de la cytologie était de 97,8 % et celle de l'IRM de 96,2 %, sans différence significative. Ils recommandent l'association des deux examens afin d'augmenter la pertinence diagnostique. Zaghi et al. [24] (niveau de preuve 4) ont proposé un algorithme en IRM pour affiner le diagnostic des adénomes pléomorphes. Ils rapportent une sensibilité de 44 % (IC 95 % : 0,29–0,60), une spécificité de 95,1 % (IC 95 % : 0,86–0,99), une VPP de 85,7 % (IC 95 % : 0,70–1) et une valeur prédictive négative (VPN) de 71,9 % (IC 95 % : 0,62–0,82). La performance diagnostique est de 74,8 % (IC 95 % : 0,66–0,83).

L'association de l'IRM et de la cytologie offre le meilleur taux de performance diagnostique préopératoire pour l'AP.

Recommandation

- La cytoponction a une très bonne pertinence diagnostique pour les tumeurs bénignes en général et l'adénome pléomorphe en particulier. (Grade B).
- La cytoponction est particulièrement recommandée pour les tumeurs difficilement caractérisables en IRM (lésion infracentimétrique, ou signal atypique) ou si le patient refuse la chirurgie. (Grade B).
- Il est recommandé de pratiquer la cytoponction après l'IRM ou à distance pour éviter les artefacts d'interprétation de l'imagerie. (Accord professionnel).

4.4. Place de la microbiopsie échoguidée dans le bilan de l'adénome pléomorphe

La microbiopsie échoguidée est apparue comme une alternative à la biopsie chirurgicale. Elle est réalisée avec une aiguille de 16 à 19 G, le plus souvent sous anesthésie locale. Les performances diagnostiques de la microbiopsie à l'aiguille échoguidée ont été revues dans une méta-analyse par Kim et Kim [25] (niveau de preuve 3) et montrent une excellente sensibilité (94 % ; IC 95 % : 0,92–0,96) et spécificité (98 % ; IC 95 % : 0,97–0,99). Le taux de microbiopsies non diagnostiques est faible, de 3,26 %. Les complications rapportées sont essentiellement à type d'hématome (0,5 %). Il n'a pas été rapporté de dissémination tumorale (mais le recul dans le suivi des patients est insuffisant), ni de paralysie faciale. Sa performance n'est pas liée à l'expérience du préleveur, comme l'est celle de la cytoponction à l'aiguille fine. Dans la méta-analyse de Witt et Schmidt [26] (niveau de preuve 3), la sensibilité et la spécificité de la microbiopsie des glandes salivaires sont respectivement de 96 % (IC 95 % : 87–99) et de 100 % (IC 95 % : 84–100). Le risque de survenue d'hématomes est évalué à 1,6 %. Il n'est pas montré d'hétérogénéité concernant la pertinence diagnostique entre les études, contrairement à ce qui pouvait être observé pour la cytoponction. Nova et al. [27] (niveau de preuve 2) ne recommandent pas la microbiopsie comme une alternative à la cytologie, mais la recommandent soit en cas d'échecs répétés de la cytoponction, soit lorsqu'un traitement conservateur est envisagé ou si le patient refuse la chirurgie.

Tableau 1

Classification de la cytopathologie des glandes salivaires selon le système de Milan (adaptée de Faquin et al. [13]).

Catégorie diagnostique	Risque de malignité	Recommandations de prise en charge	Exemples
I. Non diagnostique	25 %	Corrélation avec les données cliniques et d'imagerie Répéter la ponction	Parenchyme salivaire normal, prélèvement kystique non mucineux
II. Non néoplasique	10 %	Corrélation avec les données cliniques et d'imagerie Surveillance	Sialadénite chronique Ganglion réactionnel intraparotidien
III. Atypies de signification indéterminée	20 %	Répéter la ponction Chirurgie	Matériel kystique mucineux, étalements à dominante oncocytaire, métaplasie bénigne versus néoplasme
IV. Néoplasmes			
a. Bénin	< 5 %	Chirurgie ou surveillance	Adénome pléomorphe, tumeur de Warthin
b. Néoplasme salivaire à potentiel de malignité incertain (SUMP)	35 %	Chirurgie	Néoplasmes à cellules basaloïdes, adénome pléomorphe avec atypies
V. Suspect de malignité	60 %	Chirurgie	
VI. Malin	90 %	Chirurgie	Carcinome canalaire salivaire, carcinome adénoïde kystique

Tableau 2

Performances de l'examen histologique extemporané dans la prise en charge des tumeurs des glandes salivaires [28–30].

	Sensibilité pour toutes les tumeurs	Sensibilité pour le diagnostic d'adénome pléomorphe	Sensibilité dans le groupe des tumeurs malignes
Wang et al. 2012 [28]	86,9 % (1019 cas)	99,4 % (551 cas)	79,7 % (148 cas)
Tew et al. 1997 [29]	87,4 % (159 cas)	96,3 % (82 cas)	70 % (34 cas)
Ogawa et al. 2018 [30]	91,7 % (48 cas)	100 % (27cas)	77,7 % (18 cas)

Recommandation

- La microbiopsie n'est pas recommandée en première intention en remplacement de la cytoponction. (Grade C).
- Elle peut présenter un intérêt lors de cytoponctions non contributives, si le traitement chirurgical doit être différé ou s'il est refusé par le patient. (Grade C).

5. Place de l'examen extemporané lors de la chirurgie d'exérèse d'une tumeur suspecte d'adénome pléomorphe

Les performances de l'examen histologique extemporané dans la prise en charge des tumeurs des glandes salivaires ont été rapportées dans cinq études rétrospectives monocentriques. Ces séries comportaient une majorité d'adénomes pléomorphes [28–30] (niveau de preuve 4). Elles sont résumées dans le [Tableau 2](#). La sensibilité pour le diagnostic d'AP était comprise entre 88,8 et 100 %, avec une sensibilité à 99,4 % dans une série de plus de 1000 patients dont 551 cas d'AP [28] (niveau de preuve 4). La spécificité pour l'AP était toujours supérieure à 95 %. L'examen histologique extemporané vise à confirmer la nature bénigne ou maligne de la tumeur, et à préciser, si cela est possible, le grade en cas de tumeur maligne. Grâce à cette information obtenue avant le réveil du patient, le chirurgien pourra adapter l'étendue de son geste chirurgical et éviter dans la mesure du possible une reprise chirurgicale. Il faudra cependant toujours attendre le contrôle histologique définitif de l'examen extemporané pour discuter de la prise en charge ultérieure du patient car la qualité des coupes congelées est inférieure à celles des coupes en paraffine (qui permettent aussi la réalisation d'examens immunohistochimiques ou moléculaires). Il existe un accord professionnel pour indiquer que les erreurs lors de l'examen

extemporané sont minimisées lorsque le pathologiste dispose de la pièce d'exérèse entière (non fragmentée). En effet, un des signes de malignité les plus fiables est la mauvaise limitation de la tumeur et l'invasion du tissu péri-tumoral. Ce critère n'est évaluable que si l'interface tumeur-tissu sain peut être échantillonnée par le pathologiste. L'énucléation de la tumeur et la fragmentation de la pièce qui compromettent l'analyse de ce critère sont à proscrire. Elles risquent d'entraîner un diagnostic bénin/malin non tranché formellement, même sur l'examen définitif. Elles peuvent également empêcher de préciser la qualité de l'exérèse (marges non visibles, pièce non repérable).

Recommandation

- En cas de suspicion préopératoire d'adénome pléomorphe, il est recommandé d'effectuer un examen histologique extemporané sur l'ensemble de la tumeur, incluant le tissu adjacent, afin de confirmer ou d'infirmer le diagnostic et éventuellement d'adapter le geste chirurgical en cas de découverte de malignité. (Accord professionnel).

6. Stratégie de prise en charge**6.1. Stratégie chirurgicale en cas de suspicion d'AP de la parotide**

Le traitement est exclusivement chirurgical. La discussion historique entre parotidectomie totale et superficielle a peu à peu évolué vers celle entre parotidectomie et tumorectomie en dehors de la capsule tumorale en enlevant du tissu glandulaire sain (parotidectomie extracapsulaire), ce qui l'oppose à l'énucléation et à

la parotidectomie totale [31–33] (niveau de preuve 4). La parotidectomie extracapsulaire est une approche très limitée de l'aire parotidienne avec ou sans dissection du nerf facial qui vise à l'exérèse de la tumeur en conservant la capsule tumorale et en enlevant si possible du tissu glandulaire sain. Exceptionnellement, entre des mains expertes, elle peut avoir une place, mais sa pratique ne saurait être recommandée comme un standard de chirurgie de l'AP parotidien, compte tenu des risques chirurgicaux (lésion du nerf facial et du conduit salivaire) et du risque de récurrence [34] (niveau de preuve 4).

Le traitement chirurgical doit réaliser l'exérèse de la tumeur et de la totalité de sa capsule avec une marge de tissu parotidien adjacent en évitant l'effraction capsulaire. Le risque de récurrence augmente en cas de marges positives, d'ouverture de la capsule ou s'il s'agit d'une forme myxoïde (hypocellulaire), mais cette information n'est obtenue qu'après analyse définitive [35] (niveau de preuve 4). Kadletz et al., à propos d'une série de 894 tumeurs, ne préconisent pas de réaliser une parotidectomie extracapsulaire en raison d'un taux significativement plus élevé de récurrence et de paralysie faciale [36] (niveau de preuve 4). De telles conclusions ne sont pas confirmées dans la série de 2465 patients publiée par Mantsopoulos et al. [37] (niveau de preuve 4). De même, Grosheva et al. [38] (niveau de preuve 2), dans une étude prospective, objectivent un lien entre l'importance de la paralysie faciale postopératoire et le nombre de branches du nerf facial qui ont été disséquées.

Lorsque l'hypothèse préopératoire d'un AP n'est pas confirmée en analyse extemporanée et qu'un cancer est affirmé ou suspecté, une parotidectomie totale en un temps est préconisée car une résection insuffisante dégrade le pronostic [39] (niveau de preuve 4). Lorsque l'analyse extemporanée évoque un carcinome, un évidement ganglionnaire des niveaux IIA, IIB, III et IV peut être réalisé [40,41] (niveau de preuve 4) dans le même temps ou différé, sans majoration de la morbidité, dans l'attente de l'analyse anatomopathologique définitive et de la confirmation de son indication. Lorsque l'analyse extemporanée est douteuse (grade, type), l'indication de totalisation parotidienne existe, mais il n'y a pas d'obligation à réaliser le curage dans le même temps.

Il n'y a pas de consensus sur l'utilisation du neuromoniteur en chirurgie primaire de l'AP parotidien ; il est en revanche recommandé dans la chirurgie de reprise par le groupe de travail (publication spécifique sur la prise en charge des récurrences d'AP).

Après le traitement chirurgical de l'AP, la surveillance est essentiellement clinique sans que l'on puisse en préciser les modalités, en l'absence de données bibliographiques (accord professionnel). L'IRM est réservée aux suspicions de récurrences ou aux situations à risque.

6.2. Prise en charge des adénomes pléomorphes hors parotide

6.2.1. AP de la glande submandibulaire (GSM)

La fréquence des tumeurs bénignes dans la GSM est la même que dans la parotide, autour de 80 % [42] (niveau de preuve 4). L'AP est la tumeur bénigne la plus fréquente [42] (niveau de preuve 4). Le diagnostic est évoqué par l'IRM et la cytoponction. [43] (niveau de preuve 4). Le traitement de choix de l'AP de la GSM est la résection « en bloc » de la tumeur et de la glande sans effraction de la capsule tumorale [44] (niveau de preuve 4). L'existence d'erreurs de diagnostic préopératoire et d'associations d'AP avec des pathologies malignes justifie la réalisation d'une analyse anatomopathologique extemporanée. En cas de malignité, un curage de principe, au minimum, du niveau ganglionnaire I est réalisé [45] (niveau de preuve 4).

Recommandation

- Il est recommandé, devant une suspicion préopératoire d'adénome pléomorphe de la glande parotide, d'effectuer une exérèse complète de la tumeur en monobloc avec des marges de tissu sain, lorsque cela est possible, en fonction de la situation anatomique de la tumeur, tout en respectant le nerf facial. (Grade C).
- Il est recommandé de ne pas se limiter à l'exérèse au seul contact de la tumeur (énucléation simple). (Grade C).
- Il n'est pas recommandé, devant un adénome pléomorphe (confirmé en extemporanée), de réaliser systématiquement une parotidectomie totale. Celle-ci peut toutefois être nécessaire pour l'obtention de marges suffisantes. (Grade C).
- Si l'analyse histologique extemporanée réalisée émet un doute sur une lésion carcinomateuse, il est recommandé de totaliser la parotidectomie dans le même temps opératoire. (Accord professionnel).
- Si l'analyse histologique extemporanée confirme la présence d'un carcinome, il est recommandé de réaliser une parotidectomie totale éventuellement associée au traitement des aires ganglionnaires. Le patient doit, au préalable, être informé de cette éventualité. (Grade C).

Recommandation

- Pour évoquer le diagnostic d'adénome pléomorphe de la glande submandibulaire, il est recommandé de faire un bilan préopératoire par IRM dédiée (cf idem protocole technique de la parotide), éventuellement associée à une cytoponction échoguidée. (Grade C).
- Devant une suspicion préopératoire d'adénome pléomorphe de la glande submandibulaire, il est recommandé de réaliser une submandibulectomie totale. (Grade C).
- Devant une suspicion préopératoire d'adénome pléomorphe de la glande submandibulaire, il est recommandé de réaliser une analyse anatomopathologique extemporanée et, si besoin, un curage ganglionnaire de principe au minimum du niveau I chez un patient dûment informé. (Grade C).

6.2.2. Adénome pléomorphe sur glande salivaire annexe, accessoire et sur hétérotopie salivaire

La distinction entre le tissu salivaire annexe, accessoire et hétérotopique est cliniquement importante. Une glande salivaire annexe est une structure glandulaire détachée d'une glande salivaire principale développée le long des systèmes canaux externes. La glande salivaire accessoire (*minor salivary gland*) est par définition une glande salivaire normale sous-muqueuse de la cavité orale, au niveau de la muqueuse des lèvres, de la face interne des joues, du palais, du voile et de la langue. Enfin, le tissu salivaire hétérotopique est retrouvé en dehors des localisations anatomiques précédemment décrites. C'est le résultat d'une malposition embryonnaire [46] (niveau de preuve 4). Les tumeurs sur hétérotopie salivaire sont observées dans le larynx, la cavité nasale, les sinus paranasaux et sont principalement répertoriées sous forme de cas cliniques à l'exception de la série de Kuo et al. qui en ont colligé 38 cas [47] (niveau de preuve 4). L'AP est le néoplasme le plus commun des glandes salivaires non principales, avec un taux de 56 % pour Yih et al. [48] (niveau de preuve 4). Il est principalement rapporté au niveau du palais, suivi de la lèvre supérieure [49] (niveau de preuve 4). Le couple TDM-IRM est intéressant pour le bilan d'extension local et le diagnostic différentiel (signes de malignité tels que le caractère infiltrant, l'iso- ou l'hyposignal T2, la présence d'adénopathie et d'infiltration péri-neurale, et l'envahissement osseux) [50] (niveau de preuve 4). Le

diagnostic préopératoire doit être réalisé par ponction ou biopsie, afin de prévoir une chirurgie adaptée [47] (niveau de preuve 4). En cas de biopsie chirurgicale, celle-ci doit être limitée et placée de telle façon que la voie d'abord puisse être emportée lors de la chirurgie d'exérèse pour limiter le risque de récurrence locale par essaimage. Le traitement est uniquement chirurgical, avec une résection complète en monobloc [47] (niveau de preuve 4). Dans la cavité orale, il est fréquent de réaliser une reconstruction du palais ou de la lèvre par lambeau locorégional en cas de faible perte de substance. En cas de perte de substance plus importante, un lambeau pédiculé ou libre peut être nécessaire [47] (niveau de preuve 4). Les récurrences sont observées principalement dans les glandes salivaires accessoires et les hétérotopies, dans 10 % des cas à cause d'une insuffisance de chirurgie initiale [47] (niveau de preuve 4). La surveillance doit être prolongée [47] (niveau de preuve 4).

Recommandation

- En cas de suspicion d'adénome pléomorphe sur glande salivaire annexe, accessoire ou sur hétérotopie, il est recommandé d'associer une IRM à la TDM pour préciser le bilan d'extension et rechercher des diagnostics différentiels de malignité. (Grade C).
- En cas de suspicion d'adénome pléomorphe sur glande salivaire annexe, accessoire ou sur hétérotopie, il est recommandé pour les tumeurs volumineuses de faire un diagnostic histologique préopératoire afin de garantir la qualité de l'exérèse et la reconstruction éventuelle. (Grade C).
- Il est recommandé pour les petites tumeurs superficielles de réaliser une exérèse d'emblée en monobloc et une analyse anatomopathologique. (Grade C).
- En cas d'adénome pléomorphe sur glande salivaire annexe, accessoire ou sur hétérotopie, il est recommandé une chirurgie d'exérèse complète en monobloc. (Grade C).
- En cas de résection étendue d'adénome pléomorphe de glande salivaire accessoire ou sur hétérotopie, une chirurgie de reconstruction est recommandée. (Grade C).

Déclaration de liens d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de liens d'intérêts.

Remerciements

Les auteurs remercient le groupe de relecture : Cécile Badoual, Claude Bigorgne, Alexandre Bozec, Philippe Céruse, Jean-Paul Cuttoli, Erwan de Mones del Pujol, Florent Espitalier, Bruno Guelfucci, Florian Jalbert, Franck Jegoux, Muriel Kany, Jerzy Klijanienko, Jérôme Le Bourdon, Marc Makeieff, Dominique Notte, Arnaud Paganelli, Gaël Potard, Nicolas Saroul, Philippe Schultz.

Références

- [1] Valstar MH, de Ridder M, van den Broek EC, et al. Salivary gland pleomorphic adenoma in the Netherlands: a nationwide observational study of primary tumor incidence, malignant transformation, recurrence, and risk factors for recurrence. *Oral Oncol* 2017;66:93–9.
- [2] Wittekindt C, Streubel K, Arnold G, et al. Recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland: analysis of 108 consecutive patients. *Head Neck* 2007;29:822–8.
- [3] Chen CP, Wang SJ, van Zante A, et al. Stepwise regional and distant progression of recurrent pleomorphic adenoma. *J Otolaryngol Head Neck Surg* 2011;40:E5–10.
- [4] Desmots F, Fakhry N, Mancini J, et al. Shear wave elastography in head and neck lymph node assessment: image quality and diagnostic impact compared with B-mode and Doppler ultrasonography. *Ultrasound Med Biol* 2016;42:387–98.
- [5] Ikeda K, Katoh T, Ha-Kawa SK, et al. The usefulness of MR in establishing the diagnosis of parotid pleomorphic adenoma. *Am J Neuroradiol* 1996;17:555–9.
- [6] Habermann CR, Arndt C, Graessner J, et al. Diffusion-weighted echo-planar MR imaging of primary parotid gland tumors: Is a prediction of different histologic subtypes possible? *Am J Neuroradiol* 2009;30:591–6.
- [7] Hisatomi M, Asaumi JI, Yanagi Y, et al. Assessment of pleomorphic adenomas using MRI and dynamic contrast enhanced MRI. *Oral Oncol* 2003;39:574–9.
- [8] Yabuuchi H, Matsuo Y, Kamitani T, et al. Parotid gland tumors: can addition of diffusion-weighted MR imaging to dynamic contrast-enhanced MR imaging improve diagnostic accuracy in characterization? *Radiology* 2008;249:909–16.
- [9] Kakimoto N, Gamoh S, Tamaki J, et al. CT and MR images of pleomorphic adenoma in major and minor salivary glands. *Eur J Radiol* 2009;69:464–72.
- [10] Moonis G, Patel P, Koshkareva Y, et al. Imaging characteristics of recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland. *Am J Neuroradiol* 2007;28:1532–6.
- [11] Seo YL, Yoon DY, Baek S, et al. Incidental focal FDG uptake in the parotid glands on PET/CT in patients with head and neck malignancy. *Eur Radiol* 2015;25:171–7.
- [12] Liu CC, Jethwa AR, Khariwala SS, et al. Sensitivity, specificity, and posttest probability of parotid fine-needle aspiration: a systematic review and meta-analysis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2016;154:9–23.
- [13] Faquin WC, Rossi ED. *The Milan System for reporting salivary gland cytopathology*. New York: Springer; 2018.
- [14] Conrad R, Yang SE, Chang S, et al. Comparison of cytopathologist-performed ultrasound-guided fine-needle aspiration with cytopathologist-performed palpation-guided fine-needle aspiration. A single institutional experience. *Arch Pathol Lab Med* 2018;142:1260–7.
- [15] Consamus EN, Smith D, Pina Oviedo S, et al. Diagnostic accuracy of fine-needle aspiration cytology of salivary gland lesions: a 6-year retrospective review. *J Am Soc Cytopathol* 2015;4:63–73.
- [16] Klijanienko J, Vielh P. Fine-needle sampling of salivary gland lesions. I. Cytology and histology correlation of 412 cases of pleomorphic adenoma. *Diagn Cytopathol* 1996;14:195–200.
- [17] Wei S, Layfield LJ, LiVolsi VA, et al. Reporting of fine needle aspiration (FNA) specimens of salivary gland lesions: a comprehensive review. *Diagn Cytopathol* 2017;45:820–7.
- [18] Farahani SJ, Baloch Z. Retrospective assessment of the effectiveness of the Milan system for reporting salivary gland cytology: a systematic review and meta-analysis of published literature. *Diagn Cytopathol* 2019;47:67–87.
- [19] Choy KCC, Bundele MM, Li H, et al. Risk stratification of fine-needle aspiration cytology of parotid neoplasms based on the Milan system — Experience from a tertiary center in Asia. *Head Neck* 2019;41:3125–32.
- [20] Stanek JJ, Khariwala SS. What is the utility of fine-needle aspiration in parotid gland neoplasms? *Laryngoscope* 2019;129:1255–6.
- [21] Heaton CM, Chazen JL, van Zante A, et al. Pleomorphic adenoma of the major salivary glands: diagnostic utility of FNAB and MRI. *Laryngoscope* 2013;123:3056–60.
- [22] Ahn S, Kim Y, Oh YL. Fine needle aspiration cytology of benign salivary gland tumors with myoepithelial cell participation: an institutional experience of 575 cases. *Acta Cytol* 2013;57:567–74.
- [23] Tryggvason G, Gailey MP, Hulstein SL, et al. Accuracy of fine-needle aspiration and imaging in the preoperative workup of salivary gland mass lesions treated surgically. *Laryngoscope* 2013;123:158–63.
- [24] Zaghi S, Hendizadeh L, Hung T, et al. MRI criteria for the diagnosis of pleomorphic adenoma: a validation study. *Am J Otolaryngol* 2014;35:713–8.
- [25] Kim HJ, Kim JS. Ultrasound-guided core needle biopsy in salivary glands: a meta-analysis. *Laryngoscope* 2018;128:118–25.
- [26] Witt BL, Schmidt RL. Ultrasound-guided core needle biopsy of salivary gland lesions: a systematic review and meta-analysis. *Laryngoscope* 2014;124:695–700.
- [27] Novoa E, Gürtler N, Arnoux A, et al. Role of ultrasound-guided core-needle biopsy in the assessment of head and neck lesions: a meta-analysis and systematic review of the literature. *Head Neck* 2012;34:1497–503.
- [28] Wang YL, Zhu YX, Chen TZ, et al. Clinicopathologic study of 1176 salivary gland tumors in a Chinese population: experience of one cancer center 1997–2007. *Acta Otolaryngol* 2012;132:879–86.
- [29] Tew S, Poole AG, Phillips J. Fine-needle aspiration biopsy of parotid lesions: comparison with frozen section. *Aust N Z J Surg* 1997;67:438–41.
- [30] Ogawa T, Kojima I, Ishii R, et al. Clinical utility of dynamic-enhanced MRI in salivary gland tumors: retrospective study and literature review. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2018;275:1613–21.
- [31] Quer M, Guntinas-Lichius O, Marchal F, et al. Classification of parotidectomies: a proposal of the European Salivary Gland Society. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2016;273:3307–12.
- [32] McGurk M, Thomas BL, Renehan AG. Extracapsular dissection for clinically benign parotid lumps: reduced morbidity without oncological compromise. *Br J Cancer* 2003;89:1610–3.
- [33] Zbaren P, Vander Poorten V, Witt RL, et al. Pleomorphic adenoma of the parotid: formal parotidectomy or limited surgery? *Am J Surg* 2013;109–18.
- [34] Xie S, Wang K, Xu H, et al. PRISMA-extracapsular dissection versus superficial parotidectomy in treatment of benign parotid tumors: evidence from 3194 patients. *Medicine (Baltimore)* 2015;94:e1237.
- [35] Dulguerov P, Todic J, Pusztaszeri M, et al. Why do parotid pleomorphic adenomas recur? A systematic review of pathological and surgical variables. *Front Surg* 2017;4:1–8.
- [36] Kadletz L, Grasi S, Grasi MC, et al. Extracapsular dissection versus superficial parotidectomy in benign parotid gland tumors: the Vienna medical school experience. *Head Neck* 2017;39:356–60.

- [37] Mantsopoulos K, Mueller SK, Goncalves M, et al. Does increasing the incidence of extracapsular dissection for benign tumors of the parotid correlate with an increased need for revision surgery. *Oral Oncol* 2019;94:111–4.
- [38] Grosheva M, Pick C, Granitzka T, et al. Impact of extent of parotidectomy on early and long term complications: a prospective multicenter cohort study. *Head Neck* 2019;41:1943–51.
- [39] Tam S, Sandulache VC, Metwalli KA, et al. Incompletely treated malignancies of the major salivary gland: toward evidence based care. *Head Neck* 2018;40:1630–8.
- [40] Zbaren P, Schupbach J, Nuyens M, et al. Elective neck dissection versus observation in primary parotid carcinoma. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2005;132:387–91.
- [41] Stennert E, Jungehuelsing M, Guntinas-Lichius O, et al. High incidence of lymph node metastasis in major salivary gland cancer. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;129:720–3.
- [42] Spiro RH. Salivary neoplasms: overview of a 35-year experience with 2807 patients. *Head Neck Surg* 1986;8:177–84.
- [43] Covinsky M, Cai Z, Ambelil M, et al. Low grade carcinoma ex-pleomorphic adenoma: diagnosis and diagnostic challenges caused by fine needle aspiration: report of three cases and review of literature. *Head Neck Pathol* 2018;12:82–8.
- [44] Molina EJ, Mayer K, Khurana J, et al. Pleomorphic adenoma of the submandibular gland. *J Pediatr Surg* 2008;43:1224–6.
- [45] Lombardi D, Accorona R, Lambert A, et al. Long-term outcomes and prognosis in submandibular gland malignant tumors: a multicenter study. *Laryngoscope* 2018;128:2745–50.
- [46] Ghannam MG, Singh P. *Anatomy, head and neck, salivary glands*. StatPearls, Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2019.
- [47] Kuo YL, Tu TY, Chang CF, et al. Extra-major salivary gland pleomorphic adenoma of the head and neck: a 10-year experience and review of the literature. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2011;268:1035–40.
- [48] Yih WY, Kratochvil FJ, Stewart JCB. Intraoral minor salivary gland neoplasms: review of 213 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 2005;63:805–10.
- [49] Bergman F. Tumors of the minor salivary glands. A report of 46 cases. *Cancer* 1969;23:538–43.
- [50] Abdel Razeq AAK, Mukherji SK. Imaging of minor salivary glands. *Neuroimaging Clin N Am* 2018;28:295–302.