

## ABSTRACT

**BAGGRUND** - Det pleomorfe adenom er den hyppigst forekommende spytkirteltumor og udgør størstedelen af de benigne spytkirteltumorer. Tumoren optræder fortrinsvis i glandula parotis, men kan ligeledes ses i mundhulen, hvor ganen er den hyppigste lokalisation. Det pleomorfe adenom præsenterer sig almindeligvis i mundhulen som en asymptomatisk, langsomt voksende, fast og afrundet hævelse, som er dækket af normalt udseende slimhinde.

**PATIENTTILFÆLDE** - En 81-årig tandløs kvinde blev henvist fra egen tandlæge til Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, med henblik på diagnostik og behandling af en asymptomatisk slimhindeforandring i ganen, som var debuterende for mere end 10 år siden. På henvisningstidspunktet oplevede patienten gener med retention af overmundsprotesen som følge af slimhindeforandringen. I ganens højre side fandtes en 4 x 3 cm flad, bredbaset og blød slimhindeforandring med normalt udseende slimhinde. Slimhindeforandringen blev eksstirperet på mistanke om slimhindehyperplasi som følge af den dårligt tilpassede overmundsprotese. Histologisk undersøgelse viste et pleomorft adenom uden frie resektionsrande. Klinisk fandtes tilfredsstillende heling, og patienten ønskede ikke yderligere behandling. Kontrol efter et år viste ikke tegn på recidiv af slimhindeforandringen.

**KONKLUSION** - Nærværende patienttilfælde illustrerer vigtigheden af histologisk undersøgelse ved fjernelse af slimhindeforandringer eller tumorer i mundhulen med henblik på at kunne stille den korrekte diagnose og behandling.

**EMNEORD** Adenoma | biopsy | palate | pathology | salivary gland neoplasms



Korrespondanceansvarlig førsteforfatter:  
**ÖZLEM KESMEZ**  
o.kesmez@rn.dk

## Pleomorft adenom i ganen. Præsentation af et ukarakteristisk patienttilfælde

**ÖZLEM KESMEZ**, uddannelsestandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital

**DAIVA ERENTAITE**, overlæge, Patologisk Institut, Aalborg Universitetshospital

**THOMAS STARCH-JENSEN**, klinisk professor, overtandlæge, specialtandlæge, postgraduat klinisk lektor, ph.d., Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, og Klinisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet, Aalborg Universitet

► Accepteret til publikation den 23. juni 2020

Tandlægebladet 2020:124:xxx-xxx

**P**LEOMORFT ADENOM (PA) er den hyppigst forekommende benigne spytkirteltumor og kendetegnes ved at indeholde både epiteli-ale komponenter og mesenkymalt væv (1). Tumoren blev oprindeligt beskrevet som en blandingstumor i 1866, men først endeligt karakteriseret og navngivet som PA i 1948 (2). WHO-klassifikation fra 2017 kategoriserer PA som en benign spytkirteltumor (Tabel 1) (1).

PA forekommer fortrinsvis i glandula parotis, men kan ligeledes ses i mundhulen, hvor ganen, overlæben og kindslimhinden er de hyppigste lokalisationer (3). Tumoren kan forekomme i alle aldersgrupper, men optræder hyppigst i 30-60-årsalderen, med større hyppighed hos kvinder og meget sjældent hos børn (4,5). Ætiologien og patogenesen er ukendt (1). PA kendetegnes i mundhulen ved en asymptomatisk, langsomt voksende, fast og afrundet hævelse, som sædvanligvis er dækket af normalt udseende slimhinde (1). Tumoren behandles med kirurgisk fjernelse, eventuelt forudgået af finnålsbiopsi eller konventionel vævsprøve ved større tumorer eller usikker diagnostik (6), og recidivfrekvensen er generelt lav i de små spytkirtler (7). Ubehandlet kan PA vokse til grotesk størrelse (8). Histologisk kendetegnes epiteli-ale tumorer og PA ved at indeholde varierende mængder af epiteli-ale komponenter og

WHO klassifikation af benigne spytkirteltumorer
Pleomorft adenom
Myoepitheliom
Basalcelleadenom
Warthin tumor
Onkocytom
Lymfadenom
Cystadenoma
Papilliferet sialoadenom
Duktalt papillom
Sebaceøst adenom
Kanalikulært adenom

Tabel 1

mesenkymalt væv (1). I de store spytkirtler omgives PA af en bindevævs-kapsel med satellitceller strækkende sig ud i det omliggende væv, hvilket nødvendiggør komplet fjernelse af tumor inklusiv omkringliggende væv for at mindske risikoen for recidiv (6). I de mindre intraorale spytkirtler omgives PA oftest af en tynd eller ufuldstændig bindevævs-kapsel (6). PA kan undergå malign transformation, hyppigst i de store spytkirtler og meget sjældent i de mindre intraorale spytkirtler (7). Den potentielle risiko for malign transformation af PA angives i lit-

teraturen med en incidens på 6 % (6). Smerte, sårdannelse og accelereret vækst kan være kliniske symptomer på malign transformation (1,9).

I nærværende artikel præsenteres en 81-årig tandløs kvinde med en ukarakteristisk præsentation af et PA i ganen, og de behandlingsmæssige overvejelser diskuteres.

#### PATIENTTILFÆLDE

En 81-årig tandløs kvinde blev henvist fra egen tandlæge til Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, med henblik på diagnostik og behandling af slimhindeforandring i ganen.

#### Anamnese

Patienten havde for mere end 10 år siden observeret en mindre, asymptomatisk og fast hævelse i højre side af ganen. I det seneste år var hævelsen langsomt tiltaget i størrelse, således overmundsprotesen på nuværende tidspunkt manglede retention.

#### Objektiv undersøgelse

I højre side af ganen fandtes en 4 x 3 cm flad, bredbaset og blød slimhindeforandring med normalt udseende slimhinde involverende overgangen mellem den hårde og bløde ganeslimhinde (Fig. 1).

#### Tentativ diagnose og behandling

På baggrund af ovenstående anamnese og kliniske undersøgelse stilles følgende tentative diagnose: hyperplasia mucosa oris, palati. Til verificering af den kliniske diagnose fandtes indikation for excisionsbiopsi. I lokalanalgesi blev slimhindeforandringen fjernet med elektrokauterisation og sendt til ▶

## Klinisk foto af pleomorft adenom i ganen

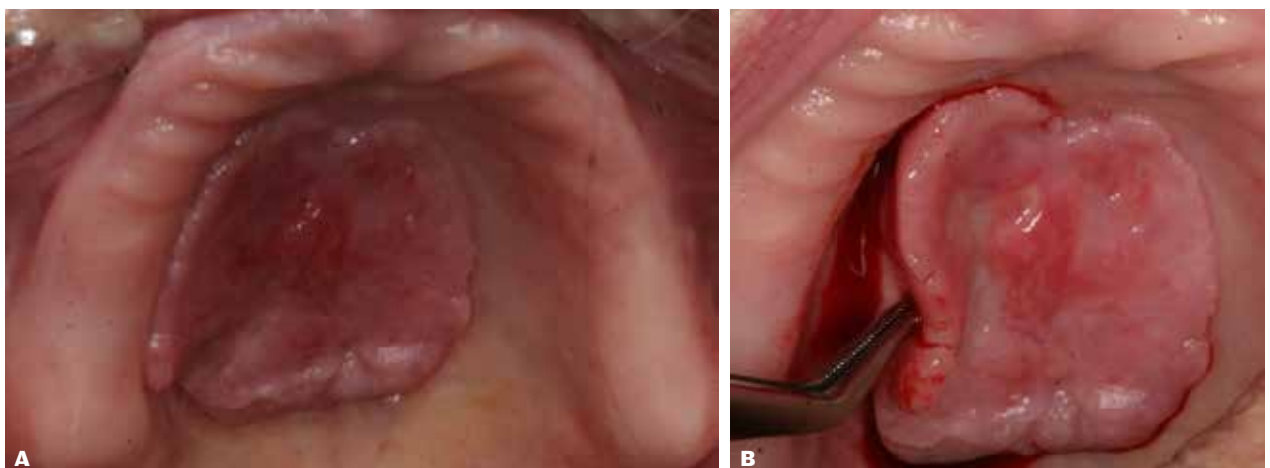


Fig. 1. Ukarakteristisk præsentation af et pleomorft adenom i ganen. **A.** Præoperativt klinisk foto. **B.** Bredbaset tilhæftning af tumoren.  
Fig. 1. Unusual presentation of a pleomorphic adenoma in the palate. **A.** Preoperative clinical photo. **B.** Broad-based attachment of the tumour.

## Biopsi af pleomorft adenom



**Fig. 2.** Excisionsbiopsi af tumoren.  
**Fig. 2.** Excision biopsy of the tumour.

histologisk undersøgelse på Patologisk Institut, Aalborg Universitetshospital (Fig. 2).

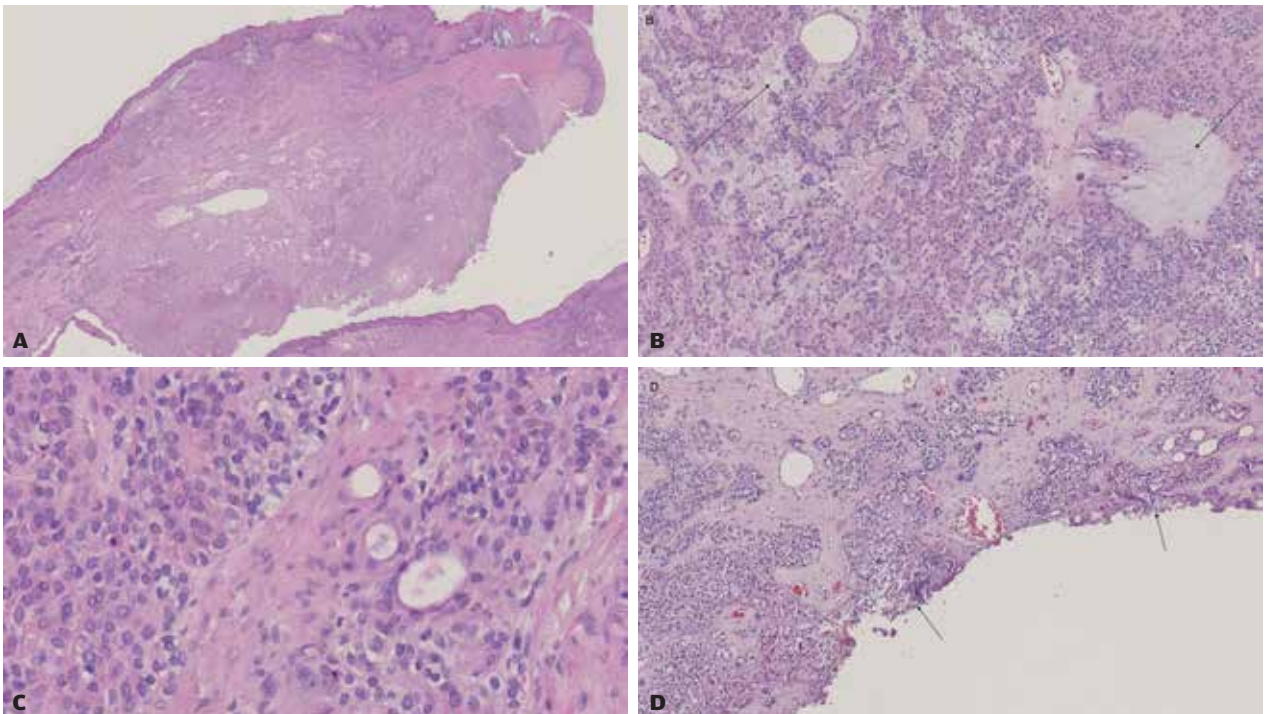
### Histologisk undersøgelse og endelig diagnose

Underliggende tumorvæv (35 x 33 x 9 mm) var uden kapsel og indeholdt epitelceller, der dels var diffust lejrede, dels dannede ductuli omgivet af myksoidt bindevævsstroma (Fig. 3). Der var ikke tegn på malignitet, men resektionsrandene var ikke frie i enkelte områder. Det histologiske billede var således foreneligt med et PA.

### Kontrol og viderebehandling

Det postoperative forløb var komplikationsfrit, og klinisk fandtes tilfredsstillende heling uden tegn på persisterende tumorvæv (Fig. 4). Den histologiske undersøgelse havde ikke vist tegn på malignitet, men resektionsrandene var ikke frie i enkelte områder. I samråd med patienten besluttes at indkalde til supplerende kontrol før stillingtagen til videre behandling, idet patienten ikke umiddelbart var indstillet på supplerende kirurgi eller yderligere udredning. Kontrol efter

## Histologiske billeder af pleomorft adenom



**Fig. 3.** Histologisk undersøgelse af excisionsbiopsien **A.** Pleomorft adenom uden kapsel. **B.** Epiteliale/myoepiteliale celler og myksomatøs grundsubstans (sorte pile). **C.** Enkelte tubuli, opbygget af epiteliale celler, omgivet af myoepiteliale celler stedvis med clear cytoplasma. **D.** Enkelte steder ses manglende frie resektionsrande (sorte pile).  
**Fig. 3.** Histologic examination of the excision biopsy **A.** Pleomorphic adenoma without capsule. **B.** Cellular pleomorphic adenoma with focal myxoid stroma (black arrows) that contains scattered spindle myoepithelial cells. **C.** Scattered ducts and cytologically bland-appearing epithelial and myoepithelial cells. Some of myoepithelial cells with clear cytoplasm. **D.** Tumour without free resection margins in some areas (black arrows).

et år viste ikke tegn på recidiv af tumoren eller malign transformation (Fig. 5).

### DISKUSSION

I nærværende artikel beskrives et ukarakteristisk patienttilfælde med PA i ganen. Tumoren ses som en flad, bredbaset og blød slimhindeforandring beliggende under en dårligt passende protese hos en 81-årig tandløs patient. Det kliniske billede og patientens alder var således ikke patognomonisk for et PA, og den dårligt passende overmundsprotese gav mistanke om irritationshyperplasi. Imidlertid skal det flade, bløde og bredbaserede udseende af tumoren sandsynligvis relateres til et permanent pres fra overmundsprotesen gennem en periode på 10 år.

PA klassificeres som en benign spytkirteltumor med høj recidivfrekvens og risiko for malign transformation (7,10,11). Prædisponerende faktorer involverer utilstrækkelig fjernelse, manglende behandling, tidligere tumorrecidiv, yngre individer og ruptur af tumorkapsel ved primær behandling (7,10,11). Recidivfrekvensen og evnen til malign transformation er imidlertid signifikant lavere i de mindre intraorale spytkirtler sammenlignet med de store spytkirtler (7,10,11). Malign transformation og recidiv efter kirurgisk fjernelse af PA i ganen forekommer sjældent og er overvejende beskrevet ved kasuistiske patienttilfælde (12-14). Malign transformation af PA kan medføre smerte, sårdannelse og accelereret vækst (1,9).

Aktuelle patienttilfælde fremviste ikke karakteristiske kliniske tegn på malign transformation, men histologisk undersøgelse viste manglende frie resektionsrande efter kirurgisk fjernelse af et PA i ganen hos en 81-årig tandløs patient. Histo-

## klinisk relevans

Sygdomme i mundslimhinden præsenterer sig med forskellige kliniske og histologiske karakteristika, og diagnosen stilles almindeligvis på baggrund af en samlet vurdering involverende anamnesen, den kliniske og histologiske undersøgelse. Aktuelle patienttilfælde illustrerer en ukarakteristisk slimhindeforandring med manglende kongruens mellem de kliniske fund og den histologiske diagnose, hvilket understreger vigtigheden af histologisk undersøgelse ved fjernelse af slimhindeforandringer eller tumorer i mundhulen.

logisk var tumoren uden kapsel, og klinisk fandtes ikke tegn på efterladt tumorvæv ved postoperativ kontrol. Radikal kirurgisk fjernelse ville have involveret supplerende kirurgi med fjernelse af en større del af ganeslimhinden og eventuelt underliggende knogle. Patienten var ikke interesseret i supplerende kirurgi, og efterfølgende etårs kontrol viste ikke tegn på recidiv eller malign transformation. Aktuelle patienttilfælde vil blive indkaldt til regelmæssige kontroller, idet den generelle recidivfrekvens af PA angives som 7 % efter 20 år i både de store og små spytkirtler (7).

Aktuelle patienttilfælde illustrerer en ukarakteristisk slimhindeforandring med manglende kongruens mellem de kliniske fund og den histologiske diagnose, hvilket understreger vigtigheden af histologisk undersøgelse ved fjernelse af slimhindeforandringer eller tumorer i mundhulen. ♦

### Heling 3 uger postoperativt



Fig. 4. Klinisk foto af ganeslimhinden 3 uger efter kirurgisk fjernelse af tumoren.  
Fig. 4. Clinical photo of the palate mucosa, 3 weeks after surgical removal of the tumour.

### Ganeslimhinde 1 år postoperativt



Fig. 5. Ingen tegn på recidiv efter 1 år.  
Fig. 5. No signs of recurrence after one year.



## ABSTRACT (ENGLISH)

**PLEOMORPHIC ADENOMA. AN UNCHARACTERISTIC PATIENT CASE**

**BACKGROUND** - Pleomorphic adenoma is the most common benign salivary gland tumor and represent the majority of all benign salivary gland tumors. Most frequently the tumor occurs in the parotid gland but is also seen in oral cavity where the palate is the most frequent location. The pleomorphic adenoma commonly presents as an asymptomatic, slow-growing firm and rounded tumor which is covered by normal mucosa.

**CASE STUDY** - An 81-year-old edentulous woman was referred to The Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Aalborg University Hospital by her own dentist for diagnosis and treatment of an asymptomatic mucosal swelling in the palate, which first appeared more than 10 years ago. At the

time of referral, the patient experienced poor retention of the upper denture due to mucosal swelling. On the right side of the palate a 4 x 3 cm flat, broad-based mucosal swelling with normal covering mucosa was present. The mucosal swelling was extirpated on suspicion of mucosal hyperplasia as a result of the poorly adapted upper denture. Histological examination revealed a pleomorphic adenoma without free resection margins. Clinically, satisfactory healing was achieved and the patient did not want further treatment. No signs of recurrence of the mucosal swelling was observed after one year.

**CONCLUSION** - The present case illustrates the importance of histologic examination of the removed mucosal swelling of the oral cavity in order to provide the correct diagnosis and treatment.

## LITTERATUR

1. El-Naggar AK, Grandis JR, Takata T et al. WHO Classification of Head and Neck Tumours. 4th ed. Lyon: International Agency for Research on Cancer (IARC), 2017.
2. Clauser L, Mandrioli S, Dallera V et al. Pleomorphic adenoma of the palate. *J Craniofac Surg* 2004;15:1026-9.
3. Pires FR, Pringle GA, de Almeida OP et al. Intra-oral minor salivary gland tumors: a clinicopathological study of 546 cases. *Oral Oncol* 2007;43:463-70.
4. Krolls SO, Trodahl JN, Boyers RC. Salivary gland lesions in children. A survey of 430 cases. *Cancer* 1972;30:459-69.
5. Luna MA, Batsakis JG, el-Naggar AK. Salivary gland tumors in children. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1991;100:869-71.
6. Moon SY. Surgical management of the palatal pleomorphic adenoma. *J Craniofac Surg* 2019;30:e580-2.
7. 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.
8. Passi D, Ram H, Dutta SR et al. Pleomorphic adenoma of soft palate: Unusual Occurrence of the major tumor in minor salivary gland - a case report and literature review. *J Maxillofac Oral Surg* 2017;16:500-5.
9. Olsen KD, Lewis JE. Carcinoma ex pleomorphic adenoma: a clinicopathologic review. *Head Neck* 2001;23:705-12.
10. Abu-Ghanem Y, Mizrachi A, Popovtzer A et al. Recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland: Institutional experience and review of the literature. *J Surg Oncol* 2016;114:714-8.
11. Andreasen S, Therkildsen MH, Bjørndal K et al. Pleomorphic adenoma of the parotid gland 1985-2010: A Danish nationwide study of incidence, recurrence rate, and malignant transformation. *Head Neck* 2016;38:E1364-9.
12. Boneu F, González-Lagunas J, Huguet P et al. Massive malignant pleomorphic adenoma of the palate. *J Oral Maxillofac Surg* 1998;56:91-6.
13. Chen HH, Lee LY, Chin SC et al. Carcinoma ex pleomorphic adenoma of soft palate with cavernous sinus invasion. *World J Surg Oncol* 2010;8:24.
14. Sasaki T, Imai Y, Iwase H et al. Massive tumour arising from the hard palate after excision of a pleomorphic adenoma. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2003;41:360-2.