

Une masse cervicale géante révélant un adénome pleomorphe de la glande submandibulaire

A giant cervical mass revealing a pleomorphic adenoma of the submandibular gland

K. Diarra, N. Konaté, Y. Sidibé, O. Kamil Abdi, D. Bagayoko, B. Guindo, F.I. Koné, K. Timbo Samba, MA. Keita.
Service ORL et Chirurgie cervico-faciale, CHU Gabriel TOURE BP: 267 Bamako. Mali
Reçu: 23 Decembre 2019; accepté: 01 Fevrier 2020; Publié en ligne: 20 juin 2020

RÉSUMÉ

Objectif: Discuter les difficultés diagnostiques et thérapeutiques d'une masse cervicale géante révélant un adénome pléomorphe submandibulaire.

Observation: Il s'agissait d'une patiente âgée de 87 ans, hospitalisée pour une masse cervicale géante sous angulo-mandibulaire droite évoluant depuis 25 ans. La patiente n'a pas rapporté de notion de fièvre, de douleur cervicale, ni de signes pharyngo-laryngés. L'examen ORL a relevé une tuméfaction sous mento-mandibulaire étendue à toute la région cervicale, polylobée plus accentuée à droite, ferme, non douloureuse à la palpation. La tomodensitométrie orientait vers une lésion maligne. L'exérèse chirurgicale a ramené une masse de 2,5 kg. L'examen anatomopathologique a conclu à un adénome pléomorphe géant. La patiente se porte bien avec un recul de 8 mois.

Conclusion: L'adénome pléomorphe de la glande sub-mandibulaire est très rare dans la littérature. Une exérèse chirurgicale complète de la masse sans effraction capsulaire serait le garant d'une guérison avec un risque de récurrence minimalisée. Toutefois, dans les formes géantes longuement évolutives une dégénérescence maligne doit être systématiquement recherchée et une surveillance au long court s'impose

Mots clés: Glande submandibulaire, Chirurgie, Adénome pléomorphe.

ABSTRACT

Objective: To discuss the diagnostic and histological issues face to a giant cervical mass revealing a submandibular pleomorphic adenoma.

Observation: An 87-year-old female was admitted to an ENT hospital for a giant isolated swelling under the right angular mandibular for more than 25 years without any fever, neck pain, pharyngolaryngeal signs. The ENT examination revealed a submandibular polylobed, firm and painless swelling extended to the entire cervical region. The CT scan pointed to a malignant lesion. The surgical excision brought a 2.5 kg weighted mass. The anatomopathologic examination concluded to a giant pleomorphic adenoma. The patient was doing well with an 8-months follow-up.

Conclusion: The pleomorphic adenoma of the submandibular gland is very rare in the literature. A complete surgical excision of the mass without capsular breach would guarantee healing with a risk of minimized recurrence. However, in long-evolving giant forms malignant degeneration must be systematically sought and long-term monitoring is required.

Keywords: Submandibular gland, Surgery, Pleomorphic adenoma.

INTRODUCTION

L'adénome pléomorphe est la tumeur la plus fréquente des glandes salivaires principales et accessoires. Elle représente 60 à 80% de toutes les tumeurs bénignes des glandes salivaires principales [1]. Son taux d'incidence varie de 2 à 3.5 cas pour 100 000 habitants et est le plus souvent prévalente chez le femme [2, 3]. La localisation au niveau de la glande submandibulaire est rare environ 8 à 10% des cas seulement. Nous rapportons un cas d'adénome pléomorphe géant de la glande submandibulaire évoluant depuis plus de

25 ans chez une patiente de 87 ans à travers lequel on essaiera de décrire les particularités de prise en charge de cette entité rare et d'en discuter la problématique diagnostique et thérapeutique.

OBSERVATION:

Il s'agissait d'une patiente âgée de 87 ans, ménagère, résidente à Bandiagara (Mali) qui a été admise dans le service ORL pour une masse cervicale géante évoluant depuis 25 ans. Il s'agissait d'une tuméfaction sous angulo-mandibulaire droite s'étendant à la région



antéro-cervicale, d'installation progressive. Aucune notion de fièvre, de douleur cervicale, de dyspnée, de dysphagie et de dysphonie n'ont été relevées.

A L'examen général son indice d'activité d'OMS était coté à 1, sa température était de 36.96 oC, la tension artérielle était de 130/80mmHg et la fréquence cardiaque était à 94/mn. A l'admission, l'examen ORL a retrouvé une tuméfaction sous mento-mandibulaire étendu à toute la région antéro-cervicale jusqu'à la fourchette sternale, polylobée, de consistance ferme, non douloureuse à la palpation, de contours irréguliers, mobile par rapport aux plans profonds, la peau en regard était saine (Figure 1). Elle n'avait pas d'adénopathies cervicales palpables ni de signes de paralysie faciale et sans signes d'atteinte d'autres paires crâniennes.



Figure 1: Vue de face de la patiente en pré-opératoire: Volumineuse tuméfaction cervicale s'étendant à la région basicervicale

La Tomodensitométrie cervico-thoracique a objectivé une volumineuse masse tumorale de densité tissulaire et hétérogène, bien limitée mesurant 16,5 cm de diamètre au dépens de la glande sub mandibulaire avec envahissement régionale associée à des adénopathies latéro-cervicales bilatérales (Figure 2a et 2b).

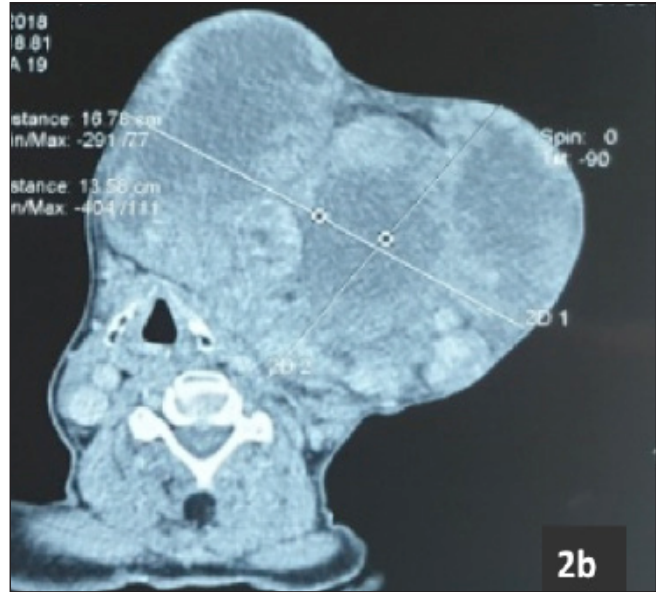
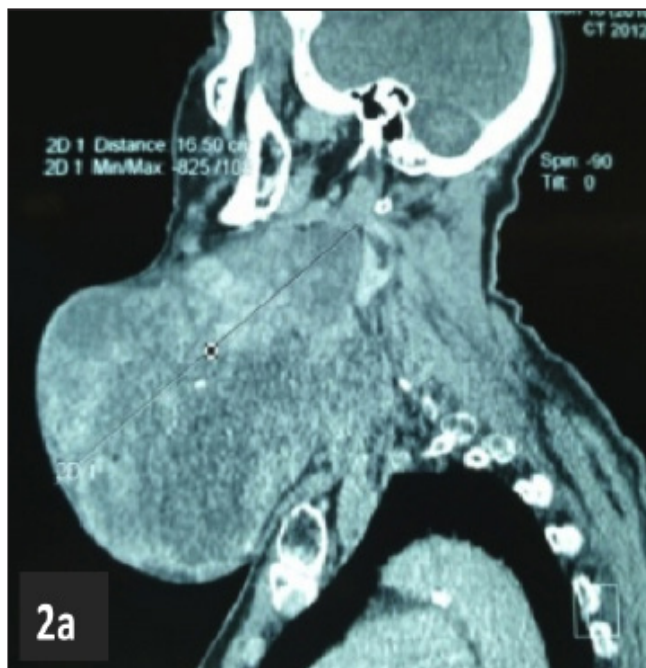


Figure 2a et 2b: Tomodensitométrie cervicale en coupe sagittale et axiale avec injection de produit de contraste, montrant une formation de densité tissulaire hétérogène polylobée de contours réguliers, occupant toute la région cervicale antérolatérale gauche mesurant 16,5 cm de diamètre.

La prise en charge thérapeutique a consisté, après le consentement éclairé de la famille, en une cervicotomie sous anesthésie générale. Nous avons procédé à une sous-maxillectomie droite avec exérèse complète de la masse sans effraction capsulaire. La pièce opératoire pesait environ 2 kg 500 (figure 3).

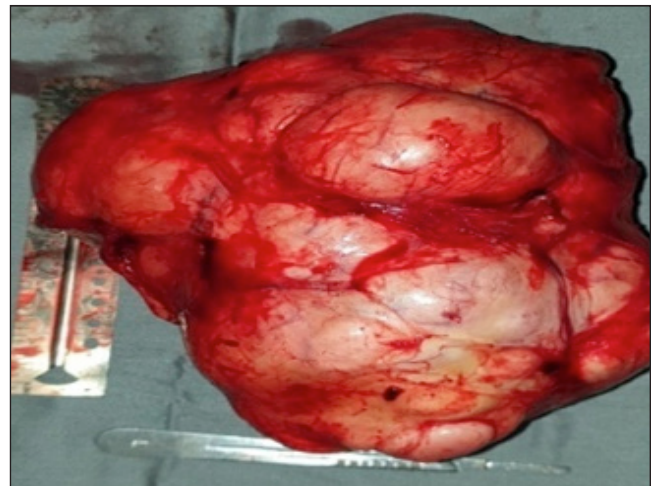


Figure 3: Aspect macroscopique de la Pièce opératoire. Poids: 2kg 500.

L'examen histopathologique a retrouvé deux populations cellulaires à composante épithéliale et composante conjonctive de type myxoïde concluant ainsi un adénome pléomorphe de la glande sous-maxillaire droite sans signe de malignité. Les suites opératoires ont été simples. la patiente se portait bien sans aucun signe de récurrence avec un recul de 8 mois (figure 4).



Figure 4: Vue de face de la Patiente à 8 mois postopératoire.

DISCUSSION

L'adénome pléomorphe géant dans sa localisation submandibulaire est une entité rare des tumeurs cervico-faciales [1, 2, 4]. Sur les 1720 chirurgies cervico-faciales réalisées dans le service au cours des cinq dernières années, c'est le seul cas soit 0,05%. Telle que notre patiente, il s'agissait d'une pathologie tumorale qui prédominait chez la femme avec un âge moyen qui se situait entre 50 ans et 70 ans [1,2 5-8]. Par contre quelques cas survenus chez le sexe masculin ont été rapportés par TARITANO [5]. Différents facteurs favorisants ont été rapportés dans la littérature tels que l'exposition aux radiations, les facteurs génétiques, le tabac et l'exposition aux produits chimiques [9,10]. Dans une étude réalisée par Bokhari MR et al en Island, le virus simien oncogène (SV40) a été incriminé comme facteur pouvant jouer un rôle dans l'apparition ou la progression de l'adénome pléomorphe [10]. Dans notre cas, le tabac à chiquer a été le seul facteur retrouvé.

Cliniquement l'adénome pléomorphe géant est une tumeur bénigne qui évolue lentement sous forme d'une masse indolore, mobile, ferme évoluant depuis plusieurs années [2,5]. Ils ne sont pas généralement accompagnés par aucun signe de compression du larynx, de la trachée ni de l'œsophage [6,8]. Ceux-ci associés à l'absence de signes d'alerte concourent à la réticence thérapeutique des patients. Dans notre cas, il s'agissait d'une masse qui mesurait 16,5 cm de diamètre. Cette taille géante pourrait s'expliquer par plusieurs facteurs tels que l'ignorance, la pauvreté, la crainte d'une intervention chirurgicale, la distance d'une structure sanitaire et les rituels culturels (mauvais-sors). L'imagerie est indispensable dans le bilan du diagnostic topographique et préopératoire, elle repose essentiellement sur la tomодensitométrie (TDM), l'imagerie par résonnance magnétique (IRM). Dans la

littérature, la TDM est l'examen de première intention le plus pratiqué [8]. Notre cas est paru à la TDM, telle que rapporté dans la littérature, comme une volumineuse masse tumorale de densité tissulaire et hétérogène, bien limitée au dépens de la glande submandibulaire d'allure maligne avec envahissement régionale. Toutefois, l'imagerie par résonnance magnétique est l'examen le plus performant pour l'exploration des tumeurs des glandes salivaires, elle évalue le mieux les limites de la lésion ainsi que sa structure. Elle constitue l'examen de choix par certains auteurs [11]. Elle n'a pas été réalisée dans notre cas parce que nous n'en disposons pas.

La chirurgie est le traitement de choix, elle consiste à réaliser une cervicotomie avec une exérèse totale de la tumeur ainsi que de la glande sub mandibulaire sous anesthésie générale [6,8]. Sur le plan histopathologique: Macroscopiquement, l'adénome pléomorphe est très ferme, arrondi, lobulé et blanchâtre, luisant. Parfois la possibilité de protrusions périphériques (pseudopodes), responsables de la moitié des récives, de remaniements hémorragiques, de calcifications et nécrose [10]. Microscopiquement, il se caractérise par une double composante: composante cellulaire épithéliale et composante mésenchymateuse ou stroma en proportions très variables selon les auteurs. [12].

Dans la littérature l'adénome pléomorphe géant subit rarement une dégénérescence maligne. L'incidence est plus élevée que l'évolution est longue [13,14]. Elle varie de 1,6 % avant 5 ans à 9,4% après 15 ans [2, 14,15].

En l'absence de signes de dégénérescence, ces tumeurs sont de bon pronostic mais parfois émaillé de récive en cas effraction capsulaire au cours de la chirurgie. Les récives sont décrites dans 2% des cas après chirurgie radicale et dans plus de 20% des cas après énucléation [14,15]. La hantise de la récive impose une surveillance régulière. Dans notre cas avec un recul de 8 mois, nous n'avons pas de signe de récive tumorale.

CONCLUSION:

L'adénome pléomorphe de la glande submandibulaire est très rare. La tumeur peut prendre des tailles gigantesques et parfois disgracieuses en raison de la négligence, de l'absence d'une structure sanitaire proche et de la peur de la chirurgie. Les risques de récive tumorale et de dégénérescence maligne ont été rapportés par certains auteurs. Une exérèse chirurgicale complète de la masse sans effraction capsulaire serait le garant d'une guérison.

Considérations éthiques:

Déclaration d'intérêts: Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relation avec cet article.

Déclaration de financement: Les auteurs déclarent ne pas avoir reçu de financement particulier pour ce travail.



REFERENCES:

1. Perumal CJ, Meyer M, Mohamed A. Giant pleomorphic Adenoma of Salivary Gland. *Cranio maxillo facial Trauma and Reconstruction*. 2012 ;5:185-188.
2. Baharudin NN, et al. Giant Pleomorphic Adenoma of a submandibular Gland: A Case Report. *Surg Chron*, 2017 ;22 (3):142-144.
3. Becerril-Ramirez PB, Bravo-Escobar GA, Prado-Calleros HM, Castillo-Ventura BB, Pombo-Nava A. Histology of submandibular gland tumors, 10 years experience. *Acta Otorrinolaringol Esp*, 2011 ;62:432-434,
4. Farhat F, Asnir RA, Yudhistira A, Daulay ER, Sagala IP. An Uncommon Occurrence of Pleomorphic Adenoma in the Submandibular Salivary Gland: A Case Report. *Open Access Maced J Med Sci*, 2018 ; 20(6):1101-1103.
5. Tarsitano A, Pizzigallo A, Giorgini F, Marchetti C. Giant pleomorphic adenoma of the parotid gland: an unusual case presentation and literature review. *ACTA otorhinolaryngologica italic*, 2015 ; 35:293-296.
6. Omeje KU, Efunkoya AA, Amole OI, Osunde OD, Akhiwu IB, Agbara RC. Giant pleomorphic adenoma of major salivary glands: A review of ten cases. *Afr J Med Health Sci*, 2016 ;15:92-6.
7. Essobozou P et al. Tumeurs sub-mandibulaires: profils épidémiologiques et histologiques *Pan AfrMedJ*, 2014 ; 18(64):1-4,.
8. Gupta M, Chaudhary N, Gupta M. Giant presentation of pleomorphic adenoma in major salivary gland. *BMJ Case Reports*. 2011, doi:10.1136/bcr.04.2011.4098.
9. Gündüz AK, Yeşiltaş YS, Shields CL. Overview of benign and malignant lacrimal gland tumors. *Curr Opin Ophthalmol*. 2018; 29 (5): 458-68.
10. Bokhari MR, Greene J. Pleomorphic Adenoma. [Updated 2019 Jan 19]. In: StatPearls [pubMed]. Treasure Island (FL): Stat Pearls Publishing.
11. Kakimoto N et al. CT and MR images of pleomorphic adenoma in major and minor salivary glands. *European Journal of Radiology*, 2009 ;69:464-72.
12. Brocheriou C, d'Agay MF, de Roquancourt A. Histogenesis of tumors of the salivary glands. *Archives d'anatomie et de cytologie pathologiques*, 2006 ;34(2):69-78,.
13. Lingam RK, Dagher AA, Nigar E, Abbas SA, Kumar M. Pleomorphic adenoma (benign mixed tumour) of the salivary glands: its diverse clinical, radiological, and histopathological presentation. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*. 2011; 49:14-20.
14. Moussa M, Hy AK, Sa BP, Camara A, Samuila S, Sani R. Adénome Pléomorphe Géant à Localisation Submandibulaire: À Propos d'un Cas. *European Scientific Journal*. 2019 ; 15(9):185-191,.
15. Baharudin NN, et al. Giant Pleomorphic Adenoma of a submandibular Gland: A Case Report. *Surg Chron*, 2017 ; 22(3):142-144.