

Léiomyome de la cavité buccale: Une entité rare

Leiomyoma of oral cavity: A rare entity

K. Ayachi¹, A. Douggaz²

¹ Service d'ORL et de Chirurgie Maxillo-faciale - Hôpital Régional Mohamed Taher Maâmouri de Nabeul - Tunisie

² Service d'Anatomie et de Cytologie Pathologiques - Hôpital Régional Mohamed Taher Maâmouri de Nabeul – Tunisie

Reçu: 24 Mars 2020; Accepté: 25 Novembre 2020; Publié en ligne: 30 Avril 2021

RÉSUMÉ

Objectif: Le léiomyome est une tumeur bénigne du muscle lisse. Sa localisation orale est rare et représente 0,42% de toutes les tumeurs de la cavité buccale. Nous en présentons un cas localisé à la lèvre inférieure.

Observation: Une patiente de 34 ans, s'est présentée pour une formation labiale inférieure isolée, évoluant depuis deux mois. L'examen anatomopathologique sur pièce d'exérèse a conclu à un léiomyome. La surveillance postopératoire n'a pas montré de récurrence avec un recul de 4 ans.

Conclusion: Le léiomyome est une tumeur bénigne rare de la cavité buccale dont le traitement de choix reste chirurgical et le diagnostic positif est histologique.

Mots clés: Néoplasmes oraux, Néoplasmes des tissus mous, Léiomyomes oraux, Léiomyomes des lèvres.

ABSTRACT

Object: Leiomyoma is a benign tumor of smooth muscle. Its oral location is rare and represents 0.42% of all tumors of the oral cavity. We present a case localized to the lower lip.

Observation: A 34-year-old patient presented for an isolated lower lip formation, evolving for two months. The histopathological examination on excision specimen found a leiomyoma. Postoperative surveillance showed no recurrence with a 4-year follow-up.

Conclusion: Leiomyoma is a rare benign tumor of the oral cavity whose treatment of choice remains surgical and the positive diagnosis is histological.

Key words: Oral neoplasms, Soft tissue neoplasms, Oral leiomyomas, Lip leiomyomas

INTRODUCTION:

Le léiomyome est une tumeur bénigne du muscle lisse, qui se développe essentiellement au niveau de l'utérus (95%), secondairement au niveau de la peau (3%) et de l'appareil digestif (1,5%) [1, 2].

Sa localisation au niveau de la tête et du cou est rare et représente moins de 1% de toutes les localisations. Sa prévalence au niveau de la cavité buccale n'est que de 0,065% ce qui correspond à 0,42% de toutes les tumeurs de la cavité orale [1, 2, 3]. Cliniquement, il se présente sous forme de nodule bien limité de localisation sous muqueuse, rarement symptomatique. Son diagnostic positif est anatomopathologique. Son traitement de choix reste chirurgical évitant ainsi toute récurrence.

OBSERVATION:

Patiente de 34 ans, sans ATCD pathologiques particuliers et qui a consulté pour une formation labiale inférieure isolée évoluant depuis deux mois.

L'examen a mis en évidence une formation bien limitée, de 2 cm de grand axe, de consistance ferme, sensible

à la palpation, en pleine épaisseur de la lèvre, mobile par rapport aux deux plans et recouverte d'une peau et d'une muqueuse d'aspect normal (Figure.1).



Figure.1: Aspect clinique de la tuméfaction occasionnant une déformation de la lèvre blanche

Auteur correspondant: Ayachi Kaouther

Adresse: Hôpital Régional Mohamed Taher Maâmouri de Nabeul - Tunisie

Email: ayachi_kaouther@yahoo.fr



L'exérèse a été réalisée après infiltration à la xylocaïne adrénalinée, à travers une incision radiaire de la muqueuse humide labiale inférieure. La formation était oblongue en continuité avec le trajet du nerf mentonnier (Figure 2). La dissection était prudente jusqu'à la libération totale de la formation sans toucher à la continuité du nerf.



Figure 2: Aspect per-opératoire de la formation accolée au nerf mentonnier

L'analyse histologique a montré une prolifération tumorale faite de cellules fusiformes assez régulières agencées en faisceaux entrecroisés (Fig.3: A, B fort et faible grossissement). Ces faisceaux sont dissociés par du tissu fibreux. Les figures mitotiques étaient rares. Il n'a pas été objectivé de nécrose. L'immuno-marquage à l'Actine Muscle Lisse et à la H Caldesmone étaient positifs avec un marquage diffus (Fig.3.: C, D). L'immuno-marquage à la PS100 était négatif. Le diagnostic de léiomyome solide a été retenu.

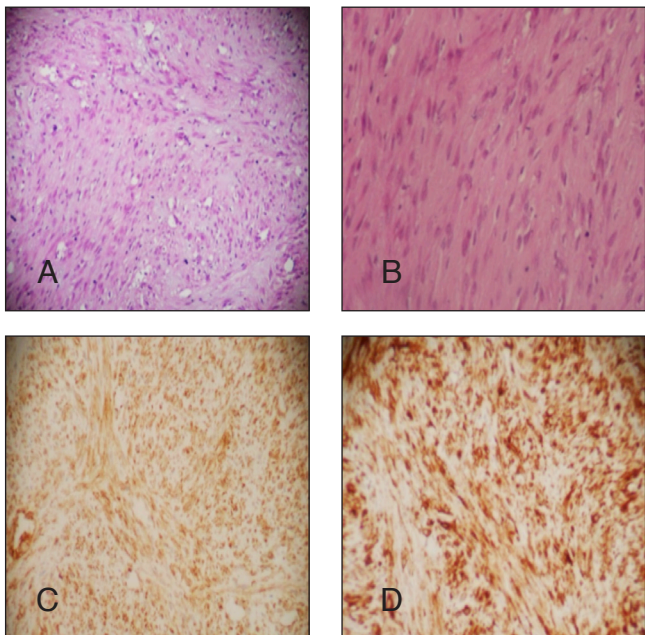


Figure 3: Aspect histologique

A: HEX5 faisceaux entrecroisés de cellules musculaires lisses
B: HEX10 prolifération de cellules musculaires régulières
C: (X10) Marquage diffus à la h caldesmone
D: (X10) Immuno-marquage diffus à l'actine muscle lisse

Les suites opératoires étaient simples avec en particulier absence d'hypoesthésie dans le territoire du V3 ipsilatéral. La surveillance n'a pas montré de signes de récurrence avec un recul de 4 ans.

DISCUSSION:

Le léiomyome est défini par l'OMS comme une tumeur bénigne circonscrite, souvent cutanée, composée de faisceaux entrecroisés de cellules musculaires lisses matures [4]. Sa localisation au niveau de la cavité buccale est excessivement rare, vue la pauvreté de cette région en fibres musculaires lisses. Ainsi une revue de la littérature faite en 1990 (Leung and Wong) a permis de révéler 124 cas colligés entre 1884 et 1987 [5]. À ce niveau, le point de départ serait les parois vasculaires, les parois des canaux excréteurs de glandes salivaires, les papilles circonvallées ou des cellules musculaires lisses hétérotopiques [1, 2, 5, 6, 7,].

Le premier cas était décrit par Virchow en 1854 mais le premier rapporté dans la littérature était celui de Blanc en 1884 [2, 3, 8].

C'est une tumeur de l'adulte qui se voit essentiellement entre la 4ème et la 5ème décennie. On parle de forme congénitale quand c'est décrit chez l'enfant [9]. Une légère prédominance féminine serait en rapport avec une hormono-dépendance tumorale [2]. Bien que certains auteurs ont rapporté une prédominance masculine avec un sexe ratio à 1,43/1 et même à 2/1 [6, 8, 9]. Le sexe ainsi que l'âge de notre patiente concordent avec la description la plus fréquente dans la littérature.

Cliniquement, le léiomyome de la cavité buccale se présente comme un nodule bien limité, de consistance ferme d'évolution lente depuis quelques mois à une année [6]. Sa taille varie généralement de quelques mm à 3 cm. La muqueuse de recouvrement est d'aspect normal rarement ulcérée, de couleur rouge pourpre grisâtre ou carrément normale comme c'est le cas chez notre patiente [3]. Dans 43% des cas il s'agit d'un nodule isolé, sinon quelques symptômes sont induits par la croissance tumorale à savoir une difficulté à l'élocution ou à la mastication, une mobilité dentaire en cas de localisation péri-dentaire [3, 6, 8]. La douleur aussi a été rapportée, comme c'est le cas de notre patiente. Elle serait due soit à l'ischémie locale par contraction des vaisseaux tumoraux ou thrombose de ces derniers, soit à l'irritation des terminaisons nerveuses en péri-tumorale [10].

Cette tumeur se localise préférentiellement au niveau des lèvres, la langue, le palais, la face interne de la joue, la gencive, le voile et moins fréquemment intra-osseuse au niveau des maxillaires [2, 3, 4]. Notre cas correspond à la localisation la plus fréquente au niveau de la cavité buccale.

La forme à des localisations multiples existe et a été décrite pour la première fois par Klopfer en 1958 mais rapporté dans la littérature par Efraïen A en 2012 [2, 11].

Le diagnostic différentiel se pose cliniquement avec les

tumeurs bénignes mésenchymateuses (myofibrome, neurofibrome, schwannome, lipome), les tumeurs bénignes salivaires (adénome pléomorphe) les tumeurs vasculaires (hémangiome, granulome pyogénique et lymphangiome) et les kystes des tissus mous (kyste mucoïde, kyste dermoïde) [2]. Dans les localisations palatines péri-dentaires, le diagnostic différentiel se pose également avec les lésions péri-dentaires [1].

Le diagnostic positif ne peut être que histologique en mettant en évidence une prolifération tumorale à différenciation musculaire lisse. La lésion est soit encapsulée soit souvent bien limitée par rapport au tissu avoisinant. Elle est composée de faisceaux entrecroisés de muscle lisse, entrecoupés de quantité variable de tissu conjonctif fibreux, avec quelques vaisseaux à endothélium simple. Fait important: il n'y a pas de signes histologiques de malignité [3, 5]. Sur le plan immuno-histochimique les léiomyomes sont réactifs avec la vimentine, la desmine, l'actine des muscles lisses α (SMA) et actine spécifique du muscle (H-caldesmon). L'immuno-marquage avec les anticorps actine muscle lisse, desmine en étant fortement positive permet de confirmer la nature musculaire lisse de la lésion et ainsi la différencier des autres proliférations fuso-cellulaires: neurofibrome, schwannome, fibrome [5]. Chez notre patiente et vu le rapport intime de la formation avec le nerf, on a pensé à une tumeur nerveuse seulement l'examen histologique ainsi que l'immuno-marquage ont permis de redresser le diagnostic.

On distingue trois sous type histologiques (WHO 2002): le léiomyome vasculaire ou angio-léiomyome le plus fréquent avec un pourcentage de 74% (Paroi vasculaire étant le siège de prédilection de muscles lisses au niveau de la cavité buccale), le léiomyome solide avec un pourcentage de 25%, c'est le type histologique de notre patiente et le léiomyome épithélioïde le moins fréquent avec un pourcentage de 1% [9].

La distinction du léiomyome de son homologue malin le léiomyosarcome est cruciale. Elle n'est pas facile et est essentiellement morphologique se basant sur la présence d'atypies et de pléomorphisme nucléaire, la densité cellulaire, la présence de nécrose et surtout d'activité mitotique. Pour Kumar et Cotran, sont considérées malignes les tumeurs musculaires lisses comportant plus que 10 mitoses/10 champs au fort grossissement (CFG) avec ou sans atypies cellulaires et les tumeurs renfermant 5-10 mitoses/10 CFG avec atypies. Les tumeurs renfermant 1-4 mitoses/10 CFG sont potentiellement malignes surtout si elles sont de grande taille et comportent des foyers nécrotiques et des atypies nucléaires marquées [2, 3].

Deux méthodes thérapeutiques ont été décrites dans la littérature: l'exérèse chirurgicale ou le laser CO2 [11]. Le traitement de choix reste l'exérèse chirurgicale en respectant une marge de tissu sain adéquate étant donnée que l'incidence de tumeurs musculaires lisses malignes est particulièrement élevée au niveau de la cavité buccale par rapport aux autres localisations [3, 8]. Ainsi il a été rapporté que 20% des tumeurs développées aux dépens du muscle lisse au niveau de la cavité buccale étaient malignes [8]. La récurrence est rare après exérèse complète [2, 6, 8].

CONCLUSION:

Le léiomyome de la cavité orale est une entité rare. Son traitement de choix reste chirurgical. L'examen anatomopathologique permet à la fois un diagnostic de nature et d'éliminer une éventuelle malignité.

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:

- Gianluca S., Marini R., Tonoli F., Cristalli MP., Leiomyoma of oral cavity: Case report and literature review. *Ann Stomatol.* 2011; 2: 9-12.
- Veeresh M., Sudhakara M., Girish G., Naik C. Leiomyoma: A rare tumor in the head and neck and oral cavity: Report of 3 cases with review. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2013; 17(2):281-7.
- González Sánchez MA., Colorado Bonnin M., Berini Aytés L., Gay Escoda C., Leiomyoma of the hard palate: A case report. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2007; 12(3):E221-4.
- Hassona Y., Sawair F., Scully C. Angioleiomyoma of the upper lip. *BMJ Case Rep.* 2017
- Neguyen AP., Frydrych AM. Oral Leiomyoma in an adult male: A case report. *Open Dent J.* 2017; 11:520-526.
- Kaur G., Gondal R., Oral leiomyoma. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2011; 15(3):361-2.
- De Souza Fonseca RR., Junior MAR., Baruchi D., Carvalho TRB., Soares AB., Menezes SAF., De Jesus Viana Pinheiro J., Fadul JNF. Case Rep Pathol. 2020
- Lloria-Benet M., Bagán JV., Lloria de Miguel E., Borja-Morant A., Alonso S., Oral leiomyoma: A case report. *Med Oral.* 2003;8(3):215-9.
- Matakis A., Karakostas P., Pavlou AM., Anagnostou E., Pouloupoulos A. Angioleiomyoma of the oral cavity: a case report and brief review of the literature. 2018; 44(3):136-9.
- Perić B., Vidaković B., Grgić N., Manojlović S., Cavka H. Angioleiomyoma of the upper lip-case report and review of the literature. *Acta Clin Croat.* 2019; 58:183-6.
- Alvarez E., Laberry MP., Ardila CM. Multiple oral leiomyomas in an infant: A rare case. *Case Rep Dent.* 2012;2012:804305.