

# Le kyste bronchogénique parapharyngé: Une localisation exceptionnelle

## Parapharyngeal bronchogenic cyst: An exceptional localization

R. Ben Hammouda<sup>1</sup>, L. Najahi<sup>1</sup>, K. Charrada<sup>1</sup>, G. Kharrat<sup>1</sup>, S. Mansour<sup>1</sup>, E. Chelbi<sup>2</sup>

<sup>1</sup> Service ORL et chirurgie cervico-faciale, Hôpital Med Tahar Mâamouri, Nabeul, Tunisie

<sup>2</sup> Service cytologie anatomie pathologique. Hôpital Med Tahar Mâamouri, Nabeul, Tunisie

Reçu: 28 Octobre 2020; Accepté: 29 Janvier 2021; Publié en ligne: 30 Avril 2021

### RÉSUMÉ

**Objectif:** Décrire un cas original de kyste bronchogénique parapharyngé et préciser notre démarche diagnostique et notre attitude thérapeutique.

**Observation:** IL s'agit d'un enfant âgé de 3 ans, sans antécédents, qui s'est présenté pour un ronflement nocturne. L'examen a objectivé une formation oropharyngée droite bleutée rénitente refoulant le pilier antérieur de l'amygdale palatine droite en avant et en dedans. La nasofibroscope a révélé un bombement de cette formation au niveau de la choane droite. Une TDM du massif facial a retrouvé une formation kystique parapharyngée droite, ovulaire, uniloculaire, bien limitée à paroi fine et régulière, déformant le relief muqueux du cavum et bombant dans la lumière de l'oropharynx. Une exérèse complète de la formation a été réalisée par voie transorale. L'examen histologique a conclu à un kyste bronchogénique. L'évolution était favorable, sans récurrence après un recul de 6 mois.

**Conclusion:** Le kyste bronchogénique est une anomalie congénitale rare du développement de l'arbre trachéo-bronchique. La localisation cervico-faciale est extrêmement rare. Il faut y penser devant toute masse kystique de l'espace parapharyngé. Son diagnostic positif est histologique. Son exérèse par voie transorale paraît une alternative intéressante aux autres voies d'abord de l'espace parapharyngé.

**Mots-clés:** kyste bronchogénique, Espace parapharyngé, Chirurgie, Voie transorale.

### ABSTRACT

**Objective:** To describe an original case of parapharyngeal bronchogenic cyst and to determine its clinical characteristics and surgical treatment.

**Observation:** A 3 years-old child was admitted in consultation for snoring. ENT examination found a bluish and soft oropharyngeal swelling that is repressing the right tonsillar anterior pillar forward and to the inside. On nasofibroscope the right choane was obstructed by the same swelling. CT showed a well-rounded unilocular cystic formation including a homogeneous content with a regular wall that misshapes the nasopharyngeal wall and that comes down to oropharynx. Complete surgical excision was performed through a transoral approach. Histology concluded to a bronchogenic cyst. No recurrence was noticed after a follow-up of 6 months.

**Conclusion:** Bronchogenic cysts are rare congenital malformations of development of bronchial Buds. Cervicofacial localization is extremely rare. Bronchogenic cyst should be considered in the differential diagnosis of cystic masses of the parapharyngeal space. Its positive diagnosis is histological. Surgical removal via a transoral approach seems to be an interesting alternative compared to other approaches of parapharyngeal space.

**Keywords:** Bronchogenic cyst, Parapharyngeal space, Surgery, Transoral approach.

### INTRODUCTION:

Le kyste bronchogénique est une lésion congénitale rare dont la prévalence varie de 1/42000 à 1/68000 naissances [1]. Il s'intègre dans le cadre des malformations broncho-pulmonaires résultant d'un défaut d'embryogenèse au niveau de l'arbre trachéo-bronchique qui prend naissance de l'intestin primitif. Il siège le plus souvent au niveau du médiastin ou du parenchyme pulmonaire. La localisation cervico-faciale est extrêmement rare [2].

Nous rapportons le cas d'un kyste bronchogénique de localisation parapharyngée afin de discuter les particularités de cette entité à travers une revue de la littérature.

### OBSERVATION:

Un enfant âgé de 3ans, né à terme, sans antécédents, était vu en consultation pour un ronflement nocturne apparu depuis la naissance. A l'examen, les fosses nasales étaient libres. Le flux nasal était diminué du

**Auteur correspondant:** Rabii Ben Hammouda

**Adresse:** Service ORL et chirurgie cervico-faciale, Hôpital Med Tahar Mâamouri, Nabeul, Tunisie

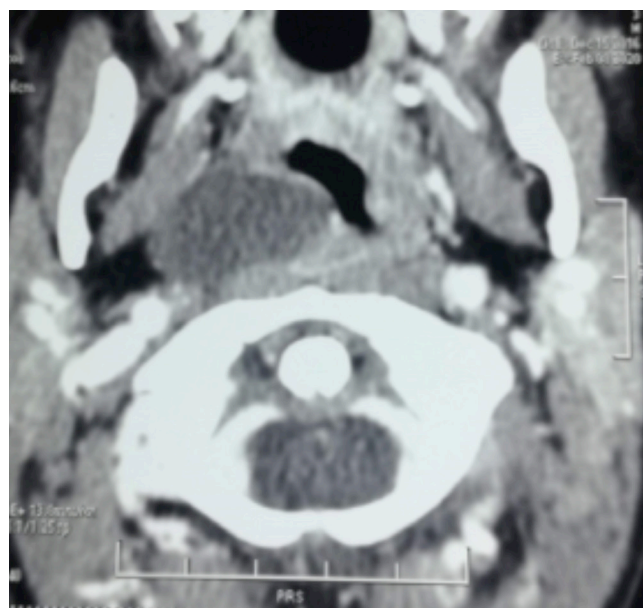
**Email:** bhrorl77@gmail.com



côté droit. L'examen de l'oropharynx révélait une formation bleutée rénitente refoulant le pilier antérieur et l'amygdale palatine droite en avant et en dedans (figure1). La nasofibroskopie montrait un comblement de la choane droite par la même formation. Aucun déficit des nerfs crâniens n'était noté. L'examen cervical ne montrait pas de tuméfactions ou d'adénopathies cervicales. Une TDM du massif facial injectée retrouvait une formation kystique parapharyngée droite, ovale, bien limitée à paroi fine et régulière, non cloisonnée, déformant le relief muqueux du cavum, bombant dans la lumière de l'oropharynx et mesurant 26 x16 mm en axial et étendue sur 18 mm de hauteur (figure2). Une ponction première de la masse ramenait un liquide marron inodore (figure3). Une exérèse chirurgicale était réalisée par voie transorale. Une incision à minima de la muqueuse et la sous muqueuse de la paroi pharyngée postérieure était réalisée en regard de la lésion après élévation du pilier antérieur. Une dissection précautionneuse au doigt était faite jusqu'à libération complète de la masse. L'examen anatomopathologique de cette formation a posé le diagnostic d'un kyste bronchogénique en montrant une cavité kystique bordée par un épithélium cylindrique pseudostratifié cilié, de type respiratoire renfermant par endroits des cellules musculaires lisses et des glandes séro-muqueuses. Les suites opératoires étaient simples. L'évolution était favorable sans récurrence, après un recul de 6 mois.



**Figure 1:** Tuméfaction oropharyngée arrondie, bleutée, rénitente, refoulant le pilier antérieur de l'amygdale droite en avant et en dedans.



**Figure 2:** TDM du massif facial en coupe axiale: Formation kystique parapharyngée droite, ovale, uniloculaire, bien limitée, à paroi fine et régulière.



**Figure 3:** Aspect macroscopique de la pièce opératoire et du liquide de la ponction.

## DISCUSSION:

Le kyste bronchogénique est une tumeur bénigne congénitale qui siège avec prédilection en intra-thoracique[1]. Les localisations ectopiques au niveau de la tête et du cou sont inhabituelles[2]. Elles siègent dans la région cervicale et la cavité orale[3,4]. Des localisations rares au niveau de la base de la langue, du palais mou, de la paroi postérieure du pharynx et de l'aryténoïde ont été décrites[5]. La localisation parapharyngée n'a jamais été rapportée dans la littérature.

La survenue d'un kyste bronchogénique est le résultat d'une anomalie de développement foetal de l'arbre trachéo-bronchique. Il survient au stade pseudo-glandulaire du développement du poumon par détachement anormal d'un bourgeon pulmonaire accessoire entre les 5ème



et 16ème semaines de vie intra-utérine[5–7]. Plusieurs hypothèses ont été avancées pour expliquer l'origine du kyste bronchogénique. Pour certains auteurs, il serait dû à un bourgeon bronchique surnuméraire, en position caudale par rapport au bourgeon normal, qui migrerait avec la croissance en longueur de l'œsophage [8,9]. Ceci explique les situations anatomiques inhabituelles, cervicales ou intra-abdominales[8]. Pour d'autres, l'origine serait une division anormale du bourgeon primitif puis une évolution aberrante de ce néo-bourgeon sous forme de kyste bronchogénique [9]. Ainsi, la situation ectopique du kyste bronchogénique s'explique par la migration du bourgeon aberrant après la perte de ses attaches avec l'arbre trachéo-bronchique[9]. L'étape du développement embryonnaire à laquelle survient l'anomalie embryonnaire détermine probablement la localisation définitive du kyste.

Le diagnostic est posé généralement chez l'enfant à un âge moyen de 6 ans et 75% des patients ont moins de 4 ans. Une nette prédominance masculine était rapportée avec un sex-ratio de 5[1].

Cliniquement, les kystes bronchogéniques sont habituellement asymptomatiques.

Les symptômes, quand ils existent, sont peu spécifiques, dus aux effets compressifs d'un kyste en croissance ou d'une surinfection de son contenu[2,3]. A cause de sa rareté, le kyste bronchogénique est pris pour une autre pathologie plus commune.

Le caractère kystique de la tumeur est affirmé par l'examen tomographique. Il montre typiquement une lésion bien limitée, à paroi fine ou épaisse, de densité liquidienne et qui ne prend pas le produit de contraste. La survenue de complications infectieuses ou hémorragiques entraîne une modification de sa taille mais également une augmentation de la densité intralésionnelle, voire un rehaussement pariétal. Il précise par ailleurs le volume, l'extension et les rapports avec les structures de voisinage du kyste permettant ainsi de guider la stratégie thérapeutique[3].

L'IRM n'apporte pas d'élément diagnostique déterminant et son intérêt dans le bilan topographique reste limité à des cas particuliers[10]. Lorsqu'elle est réalisée, elle montre habituellement une masse bien limitée arrondie fréquemment en hypersignal T1. Ce hypersignal s'explique probablement par la présence de matériel protéique dans ces kystes. En T2, la masse est en hypersignal[3].

Le diagnostic différentiel se pose avec toutes les formations kystiques de l'espace parapharyngé. Les principaux diagnostics à évoquer sont les lymphangiomes kystiques, les kystes branchiaux, les tumeurs des glandes salivaires accessoires, les schwannomes et les tumeurs du prolongement pharyngé de la parotide[1].

L'examen histologique du kyste permet d'en donner le diagnostic de certitude. Il retrouve une paroi kystique tapissée par un épithélium cylindrique pseudostratifié cilié de type respiratoire; le tissu conjonctif sous-jacent comporte des lobules de cartilage hyalin, des glandes muqueuses, et des faisceaux de muscle lisse.

Le traitement chirurgical des kystes bronchogéniques est la règle, tant à visée diagnostique que curative. Une exérèse systématique des kystes, même asymptomatiques, est préconisée. Cette attitude est justifiée par le risque de complications potentielles telles que l'infection, l'augmentation du volume du kyste et la compression des organes de voisinage. Par ailleurs, ce geste paraît indispensable devant la possibilité d'une éventuelle dégénérescence maligne du kyste en un carcinome mucoépidermoïde [11].

Plusieurs voies d'abord de l'espace parapharyngé sont utilisées: la voie transorale, la voie cervicale, la voie transmandibulaire et la voie transparotidienne. La voie cervicale pure permet une bonne visualisation des différents éléments vasculonerveux jusqu'au pôle supérieur de l'amygdale palatine avec une cicatrice en règle discrète. La voie transparotidienne est indiquée pour les tumeurs de l'espace pré stylien notamment celles développées aux dépens de lobe profond de la parotide. La voie transmandibulaire est réservée pour des tumeurs plus volumineuses. Si les deux dernières offrent un meilleur contrôle des éléments vasculaires et nerveux de la région, elles s'accompagnent d'une rançon cicatricielle voire fonctionnelle importante. La voie transorale permet un abord direct des tumeurs à expression oropharyngée. Cette approche est séduisante par l'absence de rançon esthétique, ses suites opératoires parfaitement simples en l'absence de morbidité post opératoire. Toutefois, elle expose à un risque de saignement et de lésion des nerfs crâniens en l'absence de contrôle des structures neurovasculaires[12]. Dans notre cas, il s'agissait d'une lésion sous muqueuse encapsulée dont l'exérèse était réalisée sous contrôle visuel sans incidents.

Les auteurs ont constaté que ces tumeurs ne sont pas agressives[3]. Ceci est vérifié chez notre patient après un recul de 6 mois. La récurrence peut être prévenue par une exérèse complète du kyste. Enfin, nous n'avons recensé aucun cas de récurrence dans la littérature.

## CONCLUSION:

Le kyste bronchogénique dans sa localisation parapharyngée est une entité très rare. La symptomatologie clinique est peu spécifique. Le kyste bronchogénique peut rester longtemps asymptomatique pour se révéler tardivement par une complication grave. Il doit être évoqué devant toute masse kystique de la région parapharyngée. Le diagnostic est histologique. Compte tenu du caractère imprévisible de son évolution, il est admis que la chirurgie constitue aujourd'hui le seul recours thérapeutique, tant à visée diagnostique que curative.

## 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 . He R, Gfa R, Fa R, Ns R. Localisation cervicale d'un kyste bronchogénique.: Rev. Malg. Ped. 2018;1(2):82-86 .
- 2 . Mattingly JK, Arganbright JM, Lovell MA, et al. Cervical bronchogenic cysts: case report and review of the literature. Am J Otolaryngol 2014;35:655–657.
- 3 . Ech-Cherif El Kettani N, Dafiri R. Le kyste bronchogénique de la langue : une localisation très rare. J Radiol. oct 2004;85(10):1736-8.
- 4 . Moz U, Gamba P, Pignatelli U, et al. Bronchogenic cysts of the neck: a rare localization and review of the literature. Acta Otorhinolaryngol Ital. 2009;29:36–40.
- 5 . Lee DH, Yoon TM, Lee JK, Lim SC. Bronchogenic Cyst in the Head and Neck Region: J Craniofac Surg. 2017;28(4):e303-5.
- 6 . Kim SH, Han MH, Park SW, Chang KH. Radiologic-pathologic correlation of unusual lingual masses : part I : congenital lesions. Korean Journal of Radiology. 2001;2: 37-41.
- 7 . Boue DR, Smith GA, Krous HF. Lingual bronchogenic cyst in a child: an unusual site of presentation. Pediatr Pathol. 1994; 14:201-5.
- 8 . Zaimi R, Fournel L, Chambon E, Gossot D. Double localisation d'un kyste bronchogénique. Rev Mal Respir. 2014;31(9):864-6.
- 9 . Borgnat F, Lupubratiloveanu P, Gyenes C, Le Bescond Y. Kyste bronchogénique cervical chez un enfant. Rev Stomatol Chir Maxillofac. 2011;112(1):54-6.
- 10 . Masson E. Les kystes bronchogéniques de l'adulte : histoire naturelle, revue générale, imagerie et actualités thérapeutiques [Internet]. EM-Consulte. [cité 21 oct 2020]. Disponible sur: <https://www.em-consulte.com/article/120345/les-kystes-bronchogeniques-de-l-adulte-histoire-na>
- 11 . Pujary K, Pujary P, Shetty R, Hazarika P, Rao L. Congenital cervical bronchogenic cyst. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. févr 2001;57(2):145-8.
- 12 . Laccourreye L. Contribution à l'étude des tumeurs de la tête et du cou: analyse critique de certaines voies d'abord chirurgicales des espaces rétro et latéro-pharyngés. 2008:123