

SIALOLIPOME PAROTIDIEN : RAPPORT D'UN CAS CLINIQUE

PAROTID SIALOLIPOMA: A CASE REPORT

S. KHAROUBI

SERVICE ORL ET CHIRURGIE DE LA FACE ET DU COU.
FACULTE DE MEDECINE. UNIVERSITE BADJI MOKHTAR ANNABA. ALGERIE.

RÉSUMÉ

BUT : Présenter une observation clinique d'une tumeur bénigne rare de la parotide.

OBSERVATION : Patient âgé de 47 ans présentant une tumeur d'évolution progressive de la parotide gauche isolée sans caractère invasif après bilan clinique et para clinique. Une parotidectomie exofaciale a été réalisée. Les suites opératoires étaient simples. L'étude anatomopathologique de la pièce opératoire était en faveur d'un sialolipome parotidien.

CONCLUSION : Les tumeurs parotidiennes bénignes sont fréquentes, dominées par l'adénome pléiomorphe mais pouvant révéler des variétés rares identifiables qu'après étude anatomopathologique.

MOTS CLES :

Sialolipome, lipomes de la parotide, IRM salivaire.

ABSTRACT

PURPOSE: Report of a clinical observation with a rare benign parotid tumor.

OBSERVATION: 47-year-old patient with a progressive tumor of the left parotid gland isolated without invasive nature after clinical and paraclinical assessment. A sub and lateral facial parotidectomy was performed. The post operative evolution was simple. Pleomorphic adenoma is the most frequent benign tumors of parotid gland. Many other tumors can be seen and recognized after histopathological exam.

CONCLUSION: The pathological examination was in favor of a sialolipoma, a rare benign parotid tumor.

KEYWORDS:

Sialolipoma, parotid lipomas, salivary MRI.

INTRODUCTION :

Les tumeurs de la parotide sont dominées pour les variétés bénignes par l'adénome pleiomorphe. Par ailleurs la coexistence anatomique de tissu graisseux et salivaire peut donner naissance (tumorigénèse) à des formes anatomopathologiques particulières, soit isolées de type graisseux (lipomes proprement dits, lipomes interstitiels, fibrolipomes), associées ou le tissu graisseux est minime (adénome pleiomorphe, myoépithéliome avec lipométaplasie) voire des formes intriquées tissu graisseux dominant et tissu salivaire (normal) (sialolipome, lipoadénome oncocytique, lipoadénomatose polycyclique inclassable) [1]. Le sialolipome représente 0,6 à 4,4% des lipomes de la glande parotide [2]. Ce sont des tumeurs circonscrites réalisant une prolifération des cellules adipocytaires dans (invagination) le tissu salivaire. C'est une variante histologique rare, qui intéresse surtout la parotide essentiellement chez l'adulte de

sexe masculin [3]. La traduction clinique n'est pas spécifique réalisant une tumeur progressive isolée et son approche diagnostique est identique à celle des tumeurs salivaires (imagerie, cytoponction).

La problématique posée par cette tumeur en plus de sa pathogénèse est de la reconnaître ou l'évoquer devant une sémilogie clinique et radiologique suggestive et surtout proposer un protocole chirurgical adapté sans morbidité importante vis-à-vis de cette variété tumorale.

OBSERVATION CLINIQUE :

Mr K.K âgé de 47 ans, sans antécédents pathologiques notables, consulte pour une tuméfaction parotidienne gauche isolée évoluant depuis six semaines. Le patient ayant rapporté l'apparition d'une tuméfaction diffuse de la loge parotidienne gauche sans symptomatologie associée.

L'examen cervical note une augmentation diffuse de la parotide avec palpation d'un nodule de 25x15mm



ferme et indolore. Il n'y a pas d'adénopathies cervicales palpables et l'examen du nerf facial est sans particularités de même que le reste de l'examen ORL. L'échographie cervicale (à l'aide d'une sonde 15Mhz) avait montré une image hypoéchogène, inhomogène mal délimitée de la face profonde du pôle inférieur de la glande parotide gauche (27X17X18mm) sans anomalies au Doppler (figure 1) sans visualisation d'adénopathies cervicales. L'imagerie par résonance magnétique (IRM) avait objectivé une image arrondie en hypo signal du lobe superficiel de la parotide en séquence T1 et T2, iso intense en mode saturation de graisse sans prise de gadolinium.



Figure 1: Echographie parotidienne montrant une tumeur arrondie hypoéchogène circonscrite enchâssée au sein d'un tissu salivaire normal.

La cytoponction, réalisée devant la présentation clinique et les données de l'imagerie avait retrouvé quelques cellules épithéliales régulières sans éléments suspects associés.

Sur le plan biologique on avait noté un groupage sanguin de type A rhésus (+), le taux de globules blancs était de 5,71 10³/UI, globules rouges 6,80 X 10⁶/UI, hémoglobine 12,7g/dl, créatinine 76 Umo/l et la glycémie 4,26 mmol/l.

Le tableau clinique et paraclinique était en faveur d'une tumeur bénigne de la parotide, le patient avait bénéficié d'une parotidectomie exofaciale par voie de Redon après identification et dissection du nerf facial (sans monitoring). Le lobe superficiel était globalement augmenté de volume avec une masse de 25 X 20 mm noyée dans le tissu salivaire. L'exérèse était sans grandes difficultés avec des suites postopératoires favorables notamment sans paralysie faciale et une sortie à J3.

L'examen anatomopathologique de la pièce opératoire était en faveur d'un sialolipome parotidien (figure 2).

L'évolution était favorable après 14 mois de recul sans récurrence.

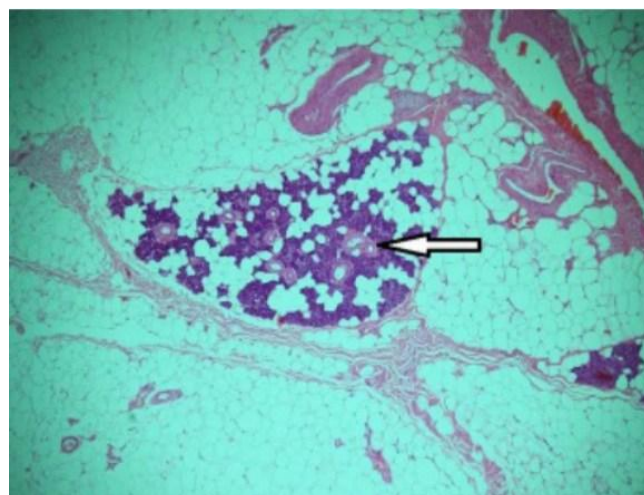


Figure 2: Lame d'anatomopathologie montrant un tissu salivaire normal (flèche) entouré par des adipocytes (hématoxyline, éosine - grossissement 100).

DISCUSSION :

Le sialolipome, entité décrite par Nagao en 2001, est une tumeur bénigne réalisant une excroissance tumorale composée de tissu glandulaire salivaire et d'adipocytes matures [3]. Il représente 0,3% des tumeurs salivaires de l'adulte et a été reconnu par l'OMS sous sa nomination actuelle en 2005 [1].

C'est une entité rare. En 2019 Ergad et al ont colligé 40 cas de sialolipomes salivaires (essentiellement parotidiens) publiés dans la littérature anglo-saxonne [4].

Nos recherches bibliographiques ont permis de porter ce chiffre à 42 observations.

Nous avons par ailleurs recensé 19 cas de sialolipomes extra salivaires (tableau I).

Tableau I: Incidence des sialolipomes salivaires et extra-salivaires dans la littérature

Auteurs	Année	Observations
Localisations salivaires		
Ergad[4].	2019	40 cas de sialolipomes (adultes) Dont: 05 cas de sialolipomes congénitaux
Subramanjam[7].	2020	01 sialolipome sub mandibulaire
Localisations extra salivaires		
Binmadi[8].	2012	01 sialolipome lèvre supérieure
Teo[9].	2015	01 sialolipome base de langue
Cunha. [10].	2020	03 lèvres supérieures 02 langues
Zahrani[11].	2021	11 cas de sialolipomes du plancher buccal
Tachibana[12].	2021	01 sialolipome laryngé (supra glottique)
Sialolipomes récidivants		
Lee [13].	2014	01 sialolipome récurrent parotide
Salama [14].	2021	01 sialolipome récurrent parotide



Sur le plan topographique, il s'agit essentiellement de localisations parotidiennes (50%) suivis des atteintes des glandes sous mandibulaires et glandes salivaires accessoires (palatines). D'autres localisations ont été rapportées: base de langue, laryngées (supra glottiques), plancher buccal et labiales [1,2,3].

Les sialolipomes intéressent essentiellement les adultes âgés 50 à 60 ans avec une médiane de 42 ans [1]. Quelques observations pédiatriques ont été rapportées.

En effet Hornigold en 2005 avait publié un sialolipome congénital de la parotide chez un nouveau-né de 7 semaines. Depuis 5 autres cas de sialolipomes congénitaux ont été rapportés (2005-2019) [4,5]. La répartition selon le sexe montre une nette prédominance masculine (10 fois plus que chez la femme) [3,4].

Sur le plan pathogénique, Akrish avance l'hypothèse d'un dysfonctionnement de la glande salivaire aboutissant à une altération de l'architecture glandulaire et la croissance des adipocytes [6]. Nous pensons que le mécanisme principal et déclenchant étant l'hypertrophie et l'excroissance accélérée des adipocytes intra parotidiens (génétiques, prise de poids, dysmétabolisme lipidique, hormonal ou par vecteur viral-inducteur, parotidite virale) qui s'organise en tumeur à croissance progressive entraînant une compression du tissu salivaire aboutissant à un dysfonctionnement et une atrophie. Les formes congénitales résultent d'un dysfonctionnement embryonnaire et génétique des adipocytes intra salivaires.

La symptomatologie clinique est assez pauvre et se résume à une tuméfaction cervicale (parotidienne) d'apparition rapide indolore sans traduction fonctionnelle.

La palpation retrouve une masse ferme, limitée, indolore du lobe inférieur ou profond de la parotide. Une paralysie faciale associée (compression) a été rapportée dans 14% des cas [3,5]. Les adénopathies cervicales sont généralement absentes.

L'échographie cervicale, premier niveau d'exploration, montre une lésion hypo dense bien circonscrite au sein d'un tissu salivaire normal. Au scanner, le sialolipome, apparaît comme une lésion homogène, de densité variant de 50 à 150 HU (hypo dense) avec quelques septas qui prennent le contraste au milieu du tissu salivaire.

L'IRM sensibilise le diagnostic en comparant l'intensité du signal en T1 puis T2 (hyperdense). La cytologie diagnostique peut reconnaître 50% des lipomes parotidiens mais ne permet pas le diagnostic d'un sialolipome.

Elle doit être écho guidée. La biopsie à minima à visée diagnostique a été utilisée dans certaines situations difficiles. En effet Ergad avait eu recours à une biopsie à minima chez un nourrisson porteur d'une tuméfaction parotidienne étiquetée bénigne et traitée par le propanolol mais sans résultats. Cette biopsie avait permis de redresser le diagnostic d'un sialolipome opéré secondairement par parotidectomie

[4]. Sur le plan histologique le sialolipome réalise une tumeur bien circonscrite composée de tissu glandulaire et d'adipocytes matures plus abondants que dans les sialolipomes des glandes salivaires mineurs. La composante adipeuse représente jusqu'à 65% du contenu de la tumeur [1]. Le tissu glandulaire salivaire comporte des cellules acineuses, ductales, basales et épithéliales. On note par ailleurs une ectasie canaliculaire, une fibrose diffuse et des foyers de métaplasie oncocytaire sans atypies cellulaires. L'activité proliférative cellulaire au Ki67 est faible [1,2]. Il est difficile de poser un diagnostic de certitude pré opératoire. Le diagnostic différentiel se pose avec les tumeurs bénignes de la parotide: adénome pléomorphe, lipome, lipoadénome.

L'évolution est favorable après une exérèse chirurgicale et les récidives sont rares.

Deux observations de sialolipomes récidivants ont été colligées soit par développement d'une nouvelle tumeur sialolipomateuse ou une possible multifocalité des lésions causales [6,13,14]. Aucune dégénérescence maligne d'un sialolipome n'a été rapportée [13,14].

Les sialolipomes relèvent d'un traitement chirurgical adapté à la topographie de la lésion : parotidectomie sous et latéro faciale (localisations superficielles) ou totale (lobe profond). Certains auteurs recommandent une surveillance post opératoire prolongée en raison du risque hypothétique de récurrence.

CONCLUSION :

Le protocole de prise en charge d'une tumeur de la glande parotide comporte un examen clinique, une IRM avec cytoponction permettant de répondre aux questions tumeur superficielle ou du lobe profond, mensurations, avec potentiel malin ou pas.

Bien que l'adénome pleiomorphe soit le plus fréquent, l'examen anatomopathologique de la pièce opératoire peut identifier des variétés rares avec autant de questions sur la pathogénie et le devenir. Notre observation d'un sialolipome parotidien illustre bien les difficultés et surprises des tumeurs salivaires.

Conflits d'intérêts :

L'auteur déclare qu'il n'y a aucun conflit d'intérêt en rapport avec ce travail.



REFERENCES:

1. Barnes.L, Eveson.JW, Reichart.P, Sidransky.D. Editors. World Health Organization Classification of Tumors. Pathology and genetics of head and neck tumours. Lyon IARC Press, 2005:275.
2. EL Monem.MH, Gaafar.AH, Magdy.EA. Lipomas of the head and neck, presentation, variability and diagnostic workup. *J LaryngolOtol*,2006(120): 45-57.
3. Nagao. T, Sugano. I, Ishida. Y, Asoh. A, Munakata. S, Yamazaki. K, Konno. A, Kondo. Y, Nagao. K. Sialolipoma: a report of seven cases of a new variant of salivary gland lipoma.*Histopathology*. 2001 Jan;38(1):30-6. doi: 10.1046/j.1365-2559.2001.01054.
4. Erdağ.TK, Olgun.Y, Közen.MA, GülerYüz.H, Özer.E. Giant Congenital Sialolipoma of Parotid Gland with Parapharyngeal Extension.*Iran J Otorhinolaryngol*. 2019 Mar;31(103):119- 22.
5. Hornigold.R, Morgan.PR, Pearce.A, Gleeson.MJ. Congenital sialolipoma of the parotid gland first reported case and review of the literature.*Int J PediatrOtorhinolaryngol*. 2005 Mar;69(3):429-34. doi: 10.1016/j.ijporl.2004.10.014.
6. Akrish. S, Leiser. Y, Shamira. D, Peled .M.J. Sialolipoma of the salivary gland: two new cases, literature review, and histogenetic hypothesis.*Oral Maxillofac Surg*. 2011 May;69(5):1380-4. doi: 10.1016/j.joms.2010.05.010.
7. Subramaniam .S, Johan .S, Hayati. F, Ng .CY, Azizan. N, Chuah. JA, Mohamad. I. Giant submandibular sialolipoma masquerading as huge goitre: a case report.*BMC Surg*. 2020 Jun 11;20(1):130. doi: 10.1186/s12893-020-00787-8.
8. Binmadi.NO ,Chaisuparat R, Levy BA, Nikitakis NG. Sialolipoma of the lower lip: case report and literature review. *Open Dent J*. 2012; Dec 28 (6):208-11. doi: 10.2174/ PMID: 23304246 2012.
9. Teo.DT, Johnson.RF, Mac Cay.JE. An unusual tongue base mass in an infant: tongue base sialolipoma. *Ear Nose Throat J*. 2015 Dec 94 (12) E 14 -16. PMID: 26670759.
10. .Cunha JLS, de Sousa SF, Mota CP, Rocha Silva JV, Cavalcante IL, Marinho.EB, and Al. Sialolipomas of minor salivary glands: A multi-institutional study and literature review.*J Oral PatholMed* 2021 Feb; 50 (2) : 210-19. doi: 10.1111/jop.13124.
11. Zahrani AA, Qannam A, Al Sadhan R, Bello IO. Sialolipoma of the Floor of the Mouth with Immunohistological Analysis.*Case Rep Dent*. 2021 Apr(5):6623045. doi: 10.1155/2021/6623045.
12. Tachibana T, Kariya S, Wani Y, Komatsubara Y, Naoi Y, Kuroda K, Fushimi S, Hotta M, Haruna K, Nagatani T, Makino T, Kataoka Y, Nishizaki K. Supraglottic sub epithelial benign mass lesions: Focus on clinical features of sialolipoma-like lesion. *Auris Nasus Larynx*. 2021 Feb;48(1):154-60. doi: 10.1016/j.anl.2020.07.017.
13. Lee PH, Chen JJ, Tsou YA. A recurrent sialolipoma of the parotid gland: A case report.*OncolLett*. 2014 Jun;7(6):1981-3. doi: 10.3892/ol.2014.2026.
14. Salama K, Lahjaouj M, Merzouqi B, Oukessou Y, Rouadi S, Abada R, Roubal M, Mahtar M, Jamaa D, Karkouri M.A rare case of recurrent congenital sialolipoma of parotid gland in a 3yearold child: A case report and review of literature.
15. *Int J Surg Case Rep*. 2021 Apr(8)1:105784. doi: 10.1016/j.ijscr.2021.105784.