

METASTASE PULMONAIRE D'UN ADENOME PLEOMORPHE PTERYGO-MAXILLAIRE PULMONARY METASTASIS OF PTRYGOMAXILLARY PLEOMORPHIC ADENOMA

DR₁, Sanae El Mourabit^{1*}, DR₁, Redallah Zrarqi², DR₁, Zahra Sayad³; Pr₁, Salma Benazzou⁴; Pr₁ Malik Boulaadas⁵

^{*1,2,3,4,5}Department of Oral & Maxillofacial surgery, hospital des specialties, CHU IBN SINA, Rabat

^{*}Institut Madinat Al Irfane, BP6626, Rabat, Maroc, Rabat 200011, Morocco

Corresponding author:

E-mail: sanaelmourabit@gmail.com Tel.: 00212672891312,

Resume:

Introduction: L'adénome métastatique pléomorphe (AMP) était décrit en 1942. Il est distingué des tumeurs pleomorphes vraiment malignes (comme Carcinomes découlant d'adénomes pleomorphes, et Carcinosarcomas) par ses caractéristiques histologiques bénigne. Cependant, il n'existe pas de paramètres histopathologiques convenus qui peuvent différencier un adénome pléomorphe non métastatique d'adénome pléomorphe métastatique. Le mécanisme qui sous-tend le comportement métastatique de l'AMP n'est toujours pas certain. Les métastases hématogènes sont plus répandues que celles de la voie lymphatique. Les Métastases pléomorphes adénome reste identique à l'adénome pléomorphe primaire.

Observation: IL s'agit d'une patiente de 66 ans a eu une exérèse d'un adénome pléomorphe de la région ptérygo-maxillaire gauche en 2014. Deux ans après la patiente a développé une récurrence locorégionale étendue avec des métastases pulmonaires en lâchés de ballon. La patiente a bénéficié d'une exérèse chirurgicale et fut adresser pour complément thérapeutique.

Discussion: L'adénome pléomorphe est la tumeur la plus fréquente de la glande salivaire. Il s'agit généralement d'une tumeur bénigne bien circonscrite et à croissance lente. Dans de rares cas, les adénomes pléomorphes bénins peuvent se métastaser et se propager à des sites éloignés, auquel cas ils sont décrits comme métastases adénomes pléomorphes. Jusqu'à présent, il n'y a eu aucun rapport de cas d'adénome pléomorphe métastasants se concentrant sur les caractéristiques radiologiques de la tumeur en utilisant plusieurs outils d'imagerie différents. De plus, seuls quelques cas d'adénomes pléomorphes avec métastases pulmonaires ont été rapportés, qui se présentent habituellement sous forme de nodules pulmonaires multiples.

Motcle : Adénome pléomorphe, Glande salivaire, Métastases pulmonaires.

Summery:

A 66-year-old woman underwent an excision of a recurrent pleomorphic adenoma in the left pterygo-maxillary region in 2015. A year later, a new locoregional recurrence objectivated with pulmonary metastases. The patient received a parotidectomy with conservation of the facial nerve and address for radiotherapy. Discussion: Pleomorphic adenoma is the most common neoplasm of the salivary gland. It is usually a well-circumscribed and slow-growing benign tumor. In rare instances, benign pleomorphic adenomas may metastasize and spread to distant sites in which case they are described as metastasizing pleomorphic adenomas. So far, there has been no case report of metastasizing pleomorphic adenoma focusing on radiologic features of the tumor using several different imaging tools. Furthermore, only a few cases of pleomorphic adenoma with metastasis to pulmonary sites have been reported, which usually present as multiple lung nodules.

Index terms: Pleomorphic Adenoma, salivary Gland, Metastasis Pulmonary.

INTRODUCTION:

Les tumeurs mixtes malignes des glandes salivaires englobant les entités, Carcinome ex adénome pléomorphe, carcinosarcome, et l'adénome pléomorphe métastatique (APM), sont rares et représentent de 2% à 6% des tumeurs des glandes salivaires. [1] L'APM est le sous-type le moins fréquent des tumeurs mixtes, et présente les mêmes caractéristiques histologiques de l'adénome pléomorphe du site initial. Les sites métastatiques sont semblables aux sites métastatiques d'autres tumeurs malignes des glandes salivaires. La propagation est plus fréquente par voie hématogène que lymphatique. [2-3] Nous rapportons le premier cas d'adénome pléomorphe de la région ptérygo-maxillaire avec des métastases pulmonaires en lâchés de ballon.

Observation clinique :

Une femme de 66 ans sans antécédents médicaux ou chirurgicaux particuliers ayant bénéficié dans une autre structure hospitalière d'une exérèse d'une tumeur de la région ptérygomaxillaire gauche par voie endo-buccale en 2014 dont l'étude anatomo-pathologique de la pièce opératoire concluait à un adénome pléomorphe avec effraction capsulaire. Deux ans plus tard, la patiente fut admise dans notre service pour une récurrence locorégionale.

L'examen clinique trouvait une énorme masse jugale gauche de 12 centimètres de grand d'axe comblant le sillon nasogénien et refoulant l'orifice narinaire gauche associée à un nodule de perméation jugale de 2 cm. La tumeur est mobile par rapport au plan superficiel et fixe par rapport le plan profond, sans paralysie faciale. La patiente présentait une bonne ouverture buccale avec une expression tumorale vestibulaire supérieure sans infiltration muqueuse. L'orifice du sténon était libre. **(Figure 1)**

Sur l'imagerie par résonance magnétique faciale, il s'agit d'un processus tumoral de la fosse infra-temporale mesurant 10.3cm X 7.6cm X 7.9cm, en hyposignal T1, hypersignal T2, multiloculé, rehaussé après injection du Gadolinium. Il infiltre la parotide, la région massétérine ainsi que la région temporale gauche. Il s'étend en avant vers la lèvre supérieure avec infiltration de l'os du maxillaire associée à une effraction de la paroi antérieure et latérale du sinus maxillaire qui est occupé dans sa totalité par le processus nettement visible sur la tomographie du massif facial. **(Figure 2).**

Dans le cadre du bilan pré-anesthésique, la radiographie pulmonaire standard a révélé des images pulmonaires lacunaires en lâchés de ballon **(Figure 3).**

La patiente a bénéficié d'un bilan d'extension, la tomographie thoracique et abdominopélvienne, a révélé la présence des nodules pulmonaires au moins une trentaine à droite et à gauche de taille variable allant de 5 mm à 30 mm en lâchés de ballon. **(Figure 4)**

sans autre atteinte osseuse sur la scintigraphie osseuse corporelle. La biopsie pulmonaire s'est avérée être des métastases d'adénome pléomorphe. Une exérèse tumorale carcinologique a été réalisée par la voie pré auriculaire transtemporale, elle consistait en une parotidectomie totale élargie à la peau avec conservation du nerf facial suivie d'une maxillectomie gauche subtotalaire ce qui nous a permis d'avoir un accès à la fosse infra-temporale et d'effectuer une exérèse en morcellement du reste de la tumeur. **(Figure 5)**

L'examen histologique de la pièce opératoire a confirmé le diagnostic d'adénome pléomorphe avec des embolus tumoraux intra vasculaires. Les suites opératoires ont été marquées par une paralysie faciale gauche complète mais transitoire. L'examen histologique de la pièce opératoire a confirmé le diagnostic d'adénome pléomorphe avec des embolus tumoraux intra vasculaires. La patiente a été adressée pour complément thérapeutique, radiothérapie externe pour la tumeur initiale et chimiothérapie pour les métastases pulmonaires. Sur un recul de 5 mois aucune récurrence n'a été notée.



Figure 1 : (A) Masse jugale gauche comblant le sillon nasogénien, (B) Post-opératoire .

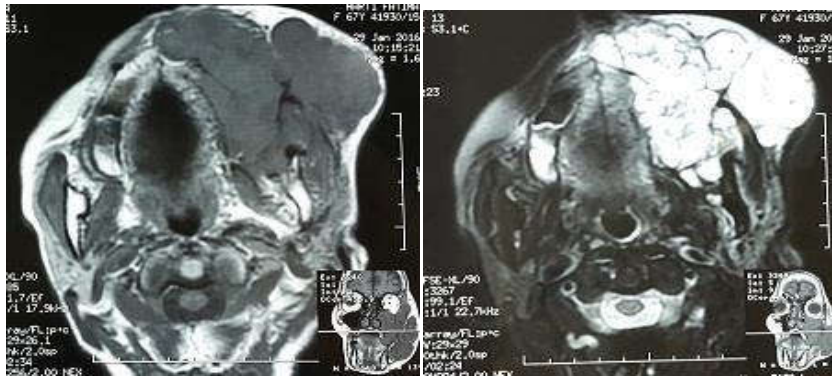


Figure 2: Imagerie par résonance magnétique faciale objective le processus tumoral.

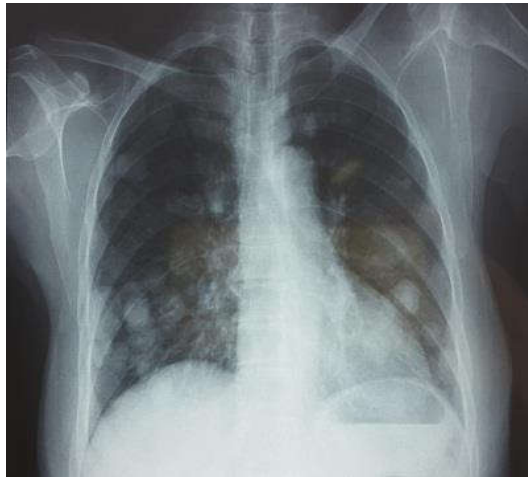


Figure 3: Radiographie pulmonaire standard révèle des images pulmonaires lacunaires en lâchés de ballon.

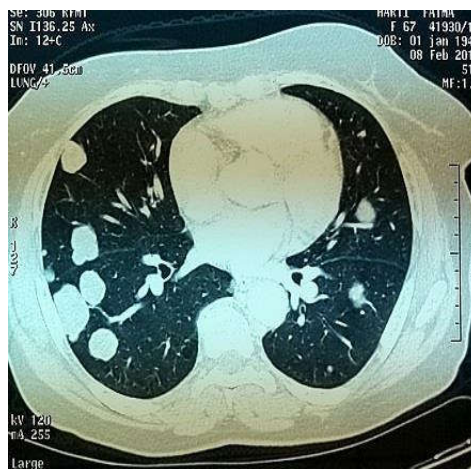


Figure 4 : Tomodensitométrie thoracique révèle des nodules pulmonaires en lâchés de ballon.



Figure 5 : Parotidectomie totale élargie à la peau avec conservation du nerf facial

DISCUSSION:

L'Organisation Mondiale de la Santé définit l'adénome pléomorphe métastatique comme un «adénome pléomorphe histologiquement bénin qui manifeste inexplicablement des métastases locales ou à distance» [1] La plupart des patients (72, 8%) atteints d'un adénome pléomorphe métastatique ont une histoire d'au moins une incidence unique de récurrence locale de l'adénome pléomorphe avant la détection des métastases à distance [3]. L'intervalle entre le diagnostic de la tumeur primitive ET la survenue des métastases est souvent long (deux ans chez notre patiente). Le mécanisme de métastases n'est pas encore clairement élucidé. Les manipulations chirurgicales avec effraction capsulaire favoriseraient une propagation intra vasculaire de cellules tumorales. La diffusion hématogène serait plus probable que la diffusion lymphatique, puisque les os et les poumons sont les plus souvent atteints [4-5]. Chez notre patiente, la présence de lésions pulmonaires a fait naître un doute sur la nature bénigne de la lésion initiale. La relecture histologique des lames n'a retrouvé aucun foyer carcinomateux, confirmant ainsi le caractère bénin de la lésion primitive. La similitude histologique entre la lésion initiale et la lésion pulmonaire nous a permis de retenir le diagnostic de métastase. Chez notre patiente, la présence d'embolies tumorales intra vasculaires observés lors du dernier examen histologique ainsi que la présence de lésions pulmonaires sont autant d'arguments en faveur d'un essaimage par voie hématogène. L'aspect à l'IRM dépend de la composition cellulaire et myxoïde de la tumeur. Cette tumeur est souvent lobulée, bien limitée, en hyposignal T1 et hypersignal T2, elle montre une intensité de signal hétérogène élevée sur les images pondérées en T2 [1]. Ces résultats sont corroborés par les résultats histologiques d'un mélange de tissu épithélial entremêlé avec le stroma chondromyxoïde. La zone chondroïde avec interstitium myxoïde présentait une intensité de signal élevée, alors que le tissu épithélial avait une intensité de signal relativement faible. L'IRM reste meilleure que la tomodensitométrie dans la caractérisation des tissus. [1-6] Afin d'éviter d'éventuelles récurrences locales et des métastases à distance, Le gold standard du traitement est la chirurgie. L'exérèse doit se faire en totalité permettant une résection carcinologique. Les limites de la pièce opératoire doivent être saines à l'examen Histopathologique . [4-5] D'autre part, La chimiothérapie ou La radiothérapie ne sont pas encore démontrées comme moyen utile pour La gestion de lésions primaires de l'adénome pléomorphe, non plus pour empêcher la récurrence de cette tumeur plus loin ou son potentiel métastatique [5]. L'adénome pléomorphe métastatique a une survie à 5 ans de 58%, avec un taux de mortalité d'environ 20% [2]. En raison du nombre limité de cas rapportés, il est difficile d'établir un protocole de suivi spécifique.

REFERENCE:

- [1]. Seo Young Choi, Woocheol Kwon, In Soo Hong, Soon Hee Jung, J Korean Soc Radiol. 2016; 74(3):204-209.
- [2]. Knight J, Ratnasingham K. Metastasising pleomorphic adenoma systematic review. Int J Surg. 2015; 19:137-145.
- [3]. Skalova A, Altemani A, Di Palma S et al. Pleomorphic adenoma of the salivary glands with intravascular tumor deposits: a diagnostic pitfall. Am. J. Surg. Pathol. 2012; 36; 167– 182.
- [4]. Akiba J, Harada H, Kawahara A et al. A case of metastasizing pleomorphic adenoma in the maxillary bone appearing twenty years after initial resection of pleomorphic adenoma of the hard palate. Pathol. Int. 2013; 63; 463–468.
- [5]. Giuditta Mannelli, Lucio Rucci, Oreste Gallo. Unusual Metastases from a Pleomorphic Adenoma of the Parotid Gland: A Case and Literature's Review. International Journal of Otolaryngology and Head & Neck Surgery. 2013; 2, 232-235.
- [6]. Tresoldi S, Magnani R, Sbaraini S, Leporati A, Baisi A, et al. (2017) Occasional Diagnosis of Metastatic Pleomorphic Adenoma. Int J Radiol Radiat Ther 2(4): 00034. DOI: 10.15406/ijrrt.2017.02.00034.