

CAS CLINIQUES

LE CARCINOME ONCOCYTAIRE DE LA PAROTIDE : A PROPOS D'UN CAS

M. MNEJJA*, A. CHAKROUN*, M. SELLAMI*, S. MAKNI**, B. HAMMAMI*,
I. CHARFEDDINE*, T. BOUDAWARA**, A. GHORBEL*

*SERVICE ORL ET CHIRURGIE CERVICO-FACIALE, CHU HABIB BOURGUIBA SFAX TUNISIE

**SERVICE D'ANATOMIE PATHOLOGIQUE, CHU HABIB BOURGUIBA SFAX TUNISIE

RESUME

Introduction : Le carcinome oncocytaire est une tumeur salivaire rare. Sa prise en charge est non codifiée et son pronostic semble être mauvais. Le but est d'étudier les caractéristiques épidémiocliniques et thérapeutiques des carcinomes oncocytaires de la parotide.

Observation : Homme de 79 ans a consulté pour une tuméfaction parotidienne gauche évoluant depuis 2 mois. L'examen a montré une masse dure mal limitée de la région parotidienne gauche associée à des nodules cutanéocervicaux, des adénopathies cervicales et axillaires homolatérales. L'examen du cavuma montra une asymétrie de la paroi latérale gauche dont la biopsie a conclu à carcinome oncocytaire. La biopsie ganglionnaire axillaire a confirmé la métastase d'un carcinome oncocytaire.

L'échographie abdominale révélait des métastases hépatiques.

Le malade était en dehors de toute ressource thérapeutique et il est décédé après un recul de 3 mois.

Conclusion : Le carcinome oncocytaire salivaire est caractérisé par un potentiel élevé d'extension locale, régionale et de métastases à distance. Son diagnostic est basé sur une combinaison des éléments cliniques et immuno-histo-chimiques. L'exérèse chirurgicale large est le traitement de choix. Après chirurgie, les récurrences sont fréquentes. Le rôle de la radiothérapie et de chimiothérapie est toujours controversé. Le pronostic est mauvais.

Mots clés : Carcinome oncocytaire, parotide, chirurgie, radiothérapie

SUMMARY

Introduction : Oncocytic carcinoma is a rare salivary gland tumor. Its management is not codified and its prognosis is worse. Objective: study of epidemiological and therapeutic characteristics.

Case report : 79 year old man presented with a left parotid swelling lasting for 2 months. The examination revealed a hard mass of left parotid region associated with cutaneous nodules, ipsilateral cervical and axillary adenopathy. An examination of the nasopharynx showed an asymmetry of the left side wall whose biopsy concluded oncocytic carcinoma. Axillary lymph node biopsy confirmed metastasis of carcinoma oncocytic.

Abdominal ultrasound revealed multiple liver metastases.

The patient was without any therapeutic resource and he died after falling three months.

Salivary oncocytic carcinoma is a rare tumor characterized by a high potential for local extension, regional and distant metastases. Its diagnosis is based on a combination of clinical and immuno-histo-chemical. Wide surgical excision is the treatment of choice. After surgery, recurrences are common. The role of radiotherapy and chemotherapy is still controversial. The prognosis is bad.

Keywords : oncocytic carcinoma, parotid, surgery

INTRODUCTION

Le carcinome oncocytaire (oncocytome malin ou adénome exophytique malin), a été décrit pour la première fois par Bauer en 1953(1). Contrairement à l'oncocytome bénin, le carcinome oncocytaire est extrêmement rare au niveau des glandes salivaires. Il représente moins de 1% des tumeurs malignes salivaires (2). C'est une tumeur douée d'un haut potentiel d'extension locale, régionale et à distance touchant préférentiellement la glande parotide (3). Le traitement est non codifié, basé essentiellement sur la chirurgie. La place de la radiothérapie n'est pas encore claire.

A travers une observation rare, nous étudions les caractéristiques épidémiologiques, cliniques et thérapeutiques de cette entité.

OBSERVATION

Patient âgé de 79 ans, sans antécédents pathologiques, a consulté pour une tuméfaction parotidienne gauche douloureuse rapidement progressive évoluant depuis 2 mois. L'examen clinique a montré une tuméfaction et un empatement douloureux, mal limité de la région parotidienne gauche infiltrant la peau en regard. Cette infiltration cutanée était étendue à la région spinale et occipitale. A distance de cette infiltration, plusieurs nodules cutanés parsemaient la région cervicale antérieure et thoracique supérieure. Plusieurs adénopathies cervicales et axillaires homolatérales ont été palpées (figure 1). Le reste de l'examen n'a pas montré de paralysie faciale mais a révélé une légère asymétrie du cavum qui a été biopsiée.



LE CARCINOME ONCOCYTAIRE DE LA PAROTIDE A PROPOS D'UN CAS



Figure 1 : Empatement de la région parotidienne gauche associée à des nodules sous cutanés cervicaux et infiltration cutanée se prolongeant vers les régions postérieures du cou.

L'examen histologique a mis en évidence une infiltration de la muqueuse nasopharyngée par une tumeur oncocytaire d'origine salivaire (figure 2). L'étude immuno-histochimique a montré une forte expression de la cytokératine 7.

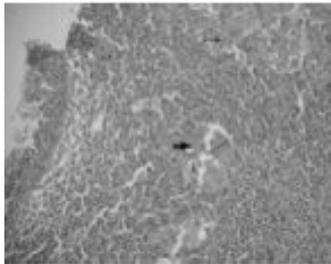


Figure 2 : Infiltration de la muqueuse nasopharyngée par des amas de cellules oncocytaires atypiques (→) avec des images de lymphangite (⇒) (HE X 200)

Le scanner de la région parotidienne et du cou a montré un processus tissulaire qui envahissait la loge parotidienne gauche et infiltrait la peau, les espaces parapharyngés, l'espace masticateur, le muscle sterno-cléido-mastoïdien et l'espace cervical postérieur (figure 3). Une prise de contraste pathologique a été observée au niveau des plans cutanés et sous cutanés de la région cervicale postérieure.

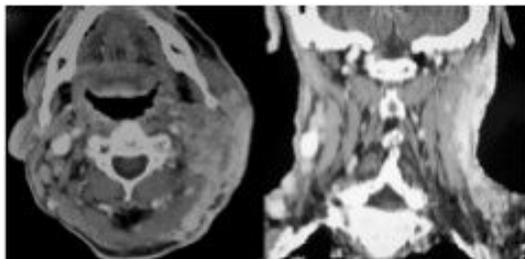


Figure 3 : TDM en coupe axiale et coronale avec injection de produit de contraste : tumeur parotidienne gauche infiltrant localement la peau, les espaces parapharyngés, l'espace masticateur, le muscle sterno-cléido-mastoïdien et l'espace cervical postérieur.

Devant la présence inhabituelle d'adénopathies axillaires gauches, nous avons complété par une adénectomie axillaire. L'examen anatomopathologique a montré une prolifération tumorale maligne faite de cellules rondes et globuleuses, à cytoplasme abondant éosinophile d'aspect oncocytaire et exprimant fortement la cytokératine 7 en immunohistochimie cadrant avec des métastases d'un carcinome oncocytaire.

Le scanner thoracique était normal alors que l'échographie abdominale a montré de multiples métastases hépatiques.

Devant ce tableau d'envahissement loco-régional important et de métastases à distance, le malade était en dehors de toute ressource thérapeutique. Un traitement palliatif a été préconisé. Le décès est survenu 3 mois plus tard.

DISCUSSION

Le carcinome oncocytaire est une tumeur extrêmement rarreprésentant 0,5% des tumeurs épithéliales malignes des glandes salivaires et 5% de toutes les tumeurs oncocytaires des glandes salivaires (2) (4). Il peut survenir soit de novo soit secondaire à un oncocytome préexistant(5). Il touche les hommes dans deux tiers des cas à un âge moyen de 60 ans (6) et il siège préférentiellement au niveau des glandes parotides mais l'atteinte des glandes sub-mandibulaires ou salivaires mineures du palais ont été également décrites(3)(2)(4). En dehors des glandes salivaires, le carcinome oncocytaire peut siéger dans les cavités nasales, le thorax, l'ovaire, le rein, la glande thyroïde, le sein et les glandes parathyroïdes (2)(4).

Sur le plan clinique, environ un tiers des patients atteints de carcinome oncocytaire de la glande parotide développent une masse douloureuse ou une paralysie faciale au moment du diagnostic. La peau recouvrant la glande est parfois décolorée ou ridée (7). Pour notre malade, la tuméfaction parotidienne était douloureuse mais il n'y avait ni paralysie faciale ni décoloration de la peau.

Les métastases ganglionnaires sont présentes, au moment du diagnostic, dans plus de la moitié des cas (5) et les métastases à distance dans seulement 2,7% des cas (8). Nakada (9) et Zhou (5) ont rapporté une atteinte ganglionnaire dans 54% des cas. Notre malade était âgé de 79 ans et présentait dès le diagnostic des métastases ganglionnaires et à distance.

Sur le plan histologique, le carcinome oncocytaire, comme l'oncocytome, est formé d'oncocytes mais avec des signes d'agressivité locale et à distance. En effet, selon la classification histologique de l'OMS des tumeurs des glandes salivaires de 2005(3), deux critères sont nécessaires pour établir le diagnostic de carcinome oncocytaire. Premièrement, les cellules tumorales doivent être identifiées comme étant des oncocytes qui sont des cellules caractérisées par un cytoplasme éosinophile par son abondance en mitochondries (10). Deuxièmement, le diagnostic de malignité doit être basé non seulement sur le



pléomorphisme cyto-nucléaire, mais aussi sur l'agressivité locale et les métastases. En effet, le diagnostic de malignité est porté sur plusieurs critères (10) : le défaut d'encapsulation, les mitoses fréquentes, le pléomorphisme cellulaire, l'invasion péri-nerveuse, l'invasion lymphatique et les métastases ganglionnaires cervicales ou à distance touchant préférentiellement les reins, le poumon et le médiastin.

En immun-histochimie, le carcinome oncocytaire exprime positivement les cytokératines 7, 8 et 19 (11).

L'imagerie par résonance magnétique est l'examen radiologique de référence pour étudier l'extension loco-régionale. La tumeur aurait souvent un aspect radiologique non spécifique, le plus souvent mal limitée, de grande taille, hétérogène avec des remaniements internes et avec une prise de contraste plus ou moins hétérogène (12) (13). Pour le bilan à distance, le scanner thoracique serait nécessaire pour détecter des métastases pulmonaires, une fois que le diagnostic a été établi (14) (15).

La valeur diagnostique de la cytoponction et de l'imagerie concernant le carcinome oncocytaire n'a pas été rapportée dans la littérature en dehors de quelques cas isolés ou de petites séries avec des résultats controversés. Une cytologie comportant des cellules clairement bénignes a été rapportée (16) (17).

La chirurgie particulièrement radicale est largement indiquée pour le traitement de cette tumeur avec sacrifice du nerf facial si celui-ci est envahi. La réparation par greffe

ou par transposition nerveuse sera associée autant que possible à la chirurgie d'exérèse (18). En l'absence de consensus, l'évidement ganglionnaire prophylactique est indiqué, par certains auteurs, lorsque la taille tumorale est supérieure à 2 cm (6).

Plusieurs auteurs (9) (18) recommandent la radiothérapie en postopératoire bien que son efficacité reste incertaine (4).

Bien que certains auteurs le considèrent comme une tumeur de haut grade (5) (4), le pronostic du carcinome oncocytaire reste incertain du fait de l'insuffisance des données de la littérature.

Goode et al (6) ont rapporté 4 observations de malades traités par la chirurgie conservatrice seule. Tous ces malades ont présenté une récurrence locale et trois parmi eux une récurrence à distance. Goode et Corio (6) ont rapporté que les tumeurs de moins de 2 cm de diamètre auraient un meilleur pronostic que celles de plus grande taille.

Le pronostic des carcinomes oncocytaires n'est pas bien établi. Il semble qu'il est bon à court terme, mais mauvais à long terme (8).

La survie moyenne des carcinomes oncocytaires métastatique est estimée à 3,8 ans (19).

REFERENCES

- (1) Wh. Bauer, Jd. Bauer. Classification of glandular tumors of salivary glands; study of one-hundred forty-three cases. *AMA Arch Pathol.* 1953; 4:328-46.
- (2) E. Guclu, F. Oghan, O. Ozturk, M. Alper, E. Egeli. A rare malignancy of the parotid gland: oncocytic carcinoma. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology*; 2005; 262:567-9.
- (3) J.J. Sciubba, M. Shimono. Oncocytic carcinoma. In: Barnes L, Eveson JW, Reichart D, Sidransky D, editors. *World Health Organization classification of tumours pathology and genetics head and neck tumours*. Lyon: IARC Press. 2005; 235.
- (4) L. Gallego, L. Garcia-Consuegra, E. Fuente, N. Calvo, L. Junquera. Oncocytic carcinoma of the parotid gland with late cervical lymph node metastases: a case report. *J Med Case Reports*. 2011; 5, 1: 11.
- (5) CX. Zhou, DY. Shi, DQ. Ma, JG. Zhang, GY. Yu, Y. Gao. Primary oncocytic carcinoma of the salivary glands: a clinicopathologic and immunohistochemical study of 12 cases. *Oral Oncol.* 2010; 46, 10: 773-8.
- (6) (6) RK. Goode, RL. Corio. Oncocytic adenocarcinoma of salivary glands. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1988; 65, 1: 61-6.
- (7) (7) GL. Ellis, PL. Auclair. Tumors of the salivary glands. *Atlas of Tumor Pathology*; 2008; 356-363.
- (8) L. Ardekian, R. Manor, M. Peled, D. Laufer. Malignant oncocytoma of the parotid gland: case report and analysis of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 1999; 57, 3: 325-8.
- (9) M. Nakada, K. Nishizaki, H. Akagi, Y. Masuda, T. Yoshino. Oncocytic carcinoma of the submandibular gland: a case report and literature review. *J Oral Pathol Med.* 1998; 27, 5: 225-8.
- (10) SR. Gray, JL. Cornog, IS. Seo. Oncocytic neoplasms of salivary glands: a report of fifteen cases including two malignant oncocytomas. *Cancer.* 1976; 38, 3: 1306-17.
- (11) T. Muramatsu, S. Hashimoto, MW. Lee, CK. Chung, and al. Oncocytic carcinoma arising in submandibular gland with immunohistochemical observations and review of the literature. *Oral Oncol.* 2003; 39, 2: 199-203.
- (12) T. Yoshihara, M. Satoh, Y. Yamamura, Y. Yaku. Ultrastructural study of oncocytoma and oncocytic carcinoma of the parotid gland. *J Clin Electron Microsc* 1997; 30:31-6.
- (13) H. Ozawa, M. Fujii, T. Matsunaga, and al. Oncocytic carcinoma of the parotid gland. *J Otolaryngol* 2006; 35: 189-92.
- (14) RJ. BENSADOUN, J. Lacau St Guily. *Recommandations du Réseau d'Expertise Français sur les Cancers ORL Rares (REFCOR) sur les tumeurs malignes primitives des glandes salivaires*. SFORL, 2009.
- (15) S. Bartels, Jrn. Talbot, J. Ditomasso, Ec. Everts, and al. The relative value of fine-needle aspiration and imaging in the preoperative evaluation of parotid masses. *Head Neck.* 2000; 22(8):781-6.
- (16) T. Pusioli, I. Franceschetti, I. Pisciole, MA. Beltrame, and al. Value of imaging and aspiration cytology in the diagnosis of oncocytic carcinoma. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2010; 30(2):110-4.
- (17) RF. Harrison, LA. Smallman, JA. Young, et al. Oncocytic carcinoma of the parotid gland: a problem in fine needle aspiration diagnosis. *Cytopathology* 1995; 6:54-8.
- (18) U. Cinar, C. Vural, T. Basak, S. Turgut. Oncocytic carcinoma of the parotid gland: report of a new case. *Ear Nose Throat J.* 2003; 82, 9: 699-701.
- (19) MS. Brandwein, AG. Huvos. Oncocytic tumors of major salivary glands. A study of 68 cases with follow-up of 44 patients. *Am J Surg Pathol* 1991; 15:514-28.