

METASTASE CERVICALE D'UN ADENOME PLEOMORPHE

CERVICAL METASTASIS OF PLEOMORPHIC ADENOMA

A. Belghith, H. Njah, H. Touil, M. Bouzaiene

Service de stomatologie et chirurgie maxillo-faciale ; CHU de Mahdia ; TUNISIE

RESUME

Introduction : L'adénome pléomorphe est la tumeur la plus fréquente des glandes salivaires. Malgré son caractère bénin, de rares cas de métastases à distance ont été rapportés, touchant plus fréquemment l'os, les poumons et les ganglions lymphatiques. La localisation sous-cutanée, que nous rapportons dans ce travail, est exceptionnelle.

Observation : Il s'agit d'une patiente de 41 ans, qui a eu une parotidectomie exofaciale gauche, par voie de lifting, pour un adénome pléomorphe, et qui a consulté, neuf ans plus tard, pour un nodule sous-cutané cervical moyen gauche. Une exérèse sous anesthésie locale a été réalisée. L'examen histologique de la pièce d'exérèse a conclu à une localisation secondaire d'un adénome pléomorphe. Aucune récurrence locale ni à distance n'a été détectée, après trois ans de recul.

Conclusion : L'adénome pléomorphe métastasant (APM), décrit depuis 1953, est rare. Aucune particularité clinique ni histologique ne permet de distinguer les formes métastatiques des formes classiques non métastatiques. Le mécanisme exact des métastases reste incertain mais semble être lié à une dissémination intra-vasculaire de cellules tumorales, lors de la manipulation chirurgicale de la tumeur primitive ou des récurrences. Si la métastase est accessible, le pronostic est excellent après une exérèse complète.

Mots-clés : adénome pléomorphe, métastase, peau, cou

ABSTRACT

Introduction : Pleomorphic adenoma is the most common salivary tumor. Although clinically and histologically known as a benign tumor, there are rare reports of metastasis to distant sites, most commonly in bone, lungs, and lymph nodes. The subcutaneous site, reported in this case, is exceptional.

Case-report : A 41 year-old patient, with history of left exofacial parotidectomy with a lifting incision, consulted after nine years for a left cervical subcutaneous nodule. An excision was performed under local anesthesia. The histological exam concluded in a secondary localization of pleomorphic adenoma. No local or distant recurrence was detected after three years.

Conclusion : Metastatic pleomorphic adenoma, described since 1953, is uncommon. There are no known clinical or histological features that distinguish metastatic from non metastatic forms. The metastasis mechanism is uncertain, but seems to be related to vascular dissemination of tumoral cells, while surgical manipulation of the primary tumor or the recurrences. If metastasis is accessible, the prognosis is excellent after a complete excision.

Keywords : pleomorphic adenoma, metastasis, skin, neck.

INTRODUCTION

L'adénome pléomorphe (AP) représente la pathologie la plus fréquente des glandes salivaires. L'adénome pléomorphe métastasant (APM) est une variété rare, distinguée de l'adénome pléomorphe bénin classique. Aucune particularité clinique ni histologique ne permet de distinguer les formes métastatiques des formes classiques non métastatiques. Les os, les poumons, les ganglions cervicaux et les reins font le lit le plus fréquent des métastases.

Dans ce travail, nous rapportons un cas de métastase sous-cutanée cervicale moyenne, qui s'est révélée neuf ans après le traitement chirurgical de la tumeur primitive. Il s'agit d'une localisation exceptionnelle, très peu rapportée dans la littérature.

OBSERVATION

Il s'agit d'une patiente âgée de 41 ans, sans antécédents pathologiques notables, qui a été opérée en 2000 pour une tumeur parotidienne gauche. Une parotidectomie exofaciale gauche, par voie de lifting, lui a été pratiquée. L'examen histologique de la pièce opératoire a conclu à un adénome pléomorphe, sans effraction capsulaire. Aucun signe de malignité ni d'atypie n'a été détecté.

Neuf ans plus tard, la patiente a consulté pour un nodule sous-cutané cervical moyen gauche. Le diagnostic d'un

kyste sébacé a été évoqué et une exérèse sous anesthésie locale a été faite. L'examen anatomopathologique de la pièce d'exérèse a conclu à une localisation secondaire d'un adénome pléomorphe avec la présence d'éléments fusiformes groupés en nappe, et un contingent myxoïde lâche, par places fibreux, sans effraction capsulaire (Figure 1). Une radiographie du thorax, réalisée dans le cadre du bilan d'extension a été normale. Aucune récurrence locale ni à distance n'a été détectée, après trois ans de recul.

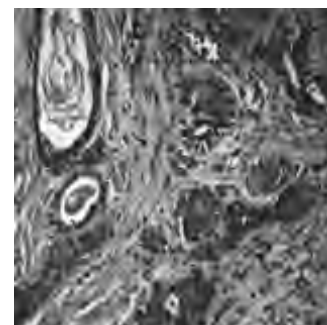


Figure 1

Figure 1: Coupe histologique de la tumeur secondaire montrant des éléments fusiformes en nappe (flèche inférieure) avec un contingent myxoïde lâche (flèche supérieure).



DISCUSSION

L'APM est une tumeur rare, histologiquement bénigne, mais qui fait paradoxalement l'objet d'une évolution cliniquement métastatique (1,2). Cette entité est controversée, mais dans la littérature récente, elle est distinguée de l'adénome pléomorphe bénin classique et représente 1% de l'ensemble des adénomes pléomorphes malins (carcinosarcome, carcinome ex-adénome pléomorphe et APM) (3,4,5). Chez notre patiente, la tumeur parotidienne primitive a été abordée par une voie de lifting, épargnant la région cervicale, ce qui écarte la possibilité d'une récurrence locorégionale. De ce fait, nous avons considéré la localisation secondaire cervicale moyenne de l'adénome pléomorphe comme métastatique, et non une récurrence locorégionale.

D'après une revue de la littérature anglo-saxonne, l'APM a été décrit depuis 1953, et depuis, 62 cas ont été rapportés (3,5). Comme dans notre cas, la tumeur primitive a été parotidienne dans 78,3% des cas (3). Les métastases ont été localisées surtout au niveau des os (28,75%), des poumons (26,25%) et des aires ganglionnaires (12,5%). La localisation sous cutanée est exceptionnelle et n'a été rapportée que dans 7 cas (3). Le mécanisme de ce comportement métastatique n'est pas encore clairement établi. La propagation intra-vasculaire de cellules tumorales semble être l'hypothèse la plus admise (1, 3, 6). La prédominance des localisations secondaires au niveau des os et des poumons en est une preuve. Cette dissémination serait favorisée par la manipulation chirurgicale de la tumeur primitive et/ou de ses récurrences (1,3,4,6,7,8). La dissémination par voie lymphatique (qui serait responsable des métastases ganglionnaires cervicales et sub-mandibulaires) semble être moins impliquée que la dissémination hématogène (1,3,6,7).

Plusieurs études ont tenté de définir des particularités cliniques et/ou histologiques prédictives du comportement métastasant d'un AP, mais aucun critère n'a été retenu. Cliniquement, aucun signe ne permet de distinguer entre une forme classique et une forme métastatique (1,3,6). Sur le plan histologique, les mitoses, le polymorphisme cellulaire, les embolus vasculaires et la rupture capsulaire sont certes

des marqueurs d'agressivité de l'AP primitif mais non retrouvés dans la quasi-totalité des cas d'APM rapportés, y compris notre cas (1,2,4). Le recours à l'immunohistochimie et à la biologie moléculaire n'a pas été contributif (3, 6, 8). C'est l'ancienneté de la tumeur primitive et surtout le nombre de récurrences locales antérieures qui constitueraient les principaux facteurs de risque (3). En effet, le délai d'apparition de ces métastases est souvent long, de 1 à 52 ans selon la littérature (9 ans dans notre cas) (1,3,6,7,9). Contrairement à notre cas, la récurrence locale préalable, unique ou multiple, est retrouvée dans 70 à 90% des adénomes pléomorphes métastasant (1,2,3,6,7,9). Cette récurrence serait due à une effraction capsulaire peropératoire, appuyant l'hypothèse de dissémination par voie vasculaire. Les métastases ont généralement une croissance lente et restent souvent solitaires (3,5,7). Lorsque la métastase est accessible, la chirurgie représente le traitement de choix (1,3,5,6,7). La radiothérapie est indiquée dans les formes disséminées ou chirurgicalement inaccessibles (1,2,5,6). Son rôle dans la prévention des récurrences est controversée (6). La place de la chimiothérapie est controversée (2,3). Le pronostic de l'APM est excellent, après une exérèse chirurgicale complète (1,6,7).

Cependant, un taux de mortalité de 20% est associée à cette pathologie, en rapport avec les formes disséminées avec atteinte neurologique (3,6,8).

CONCLUSION

L'APM est une entité distincte rare et non encore élucidée. Quand la métastase est localisée et accessible, le pronostic demeure bon. Cependant, les risques évolutifs de cette tumeur, avec un potentiel létal non négligeable, impose une surveillance régulière et prolongée des adénomes pléomorphes opérés, surtout en cas de récurrences locales. Un traitement initial adéquat de l'AP, consistant en une parotidectomie exofaciale ou totale et évitant toute effraction capsulaire, s'impose pour prévenir les récurrences et les métastases.

REFERENCES

- (1) Eladioui K, Ntima A, Noublanche P, Cucherousset N, Attar A. Metastasis of a pleomorphic adenoma]. *Rev Stomatol Chirur Maxillofac* 2008;109:191-3.
- (2) Muthusami JC, Jesudason MR, Jesudason SR, Subashini J, Ramakrishna B. Histologically benign pleomorphic adenoma of parotid with subcutaneous metastases. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2005; 133:985-6.
- (3) Reiland MD, Koutlas IG, Gopalakrishnan R, Pearson AG, Basi DL. Metastasizing pleomorphic adenoma presents intraorally: a case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 2012;70:e531-40.
- (4) Yamaguchi T, Ashizawa K, Nagaoki K, Abiru H, Uetani M, Tagawa T, et al. Metastasizing pleomorphic adenoma of the submandibular gland with metastasis to the lung and sternum: CT and MR imaging findings. *Eur J Radiol Extra* 2009; 72:e69-e72.
- (5) Myers EN, Chen IH, Tu HY. Pleomorphic adenoma of the parotid gland metastasizing to the cervical lymph node. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2000;122:455-7.
- (6) Steele NP, Wenig BM, Sessions RB. A case of pleomorphic adenoma of the parotid gland metastasizing to a mediastinal lymph node. *Am J Otolaryngol* 2007;28:130-3.
- (7) Sabesan T, Ramchandani PL, Hussein K. Metastasizing pleomorphic adenoma of the parotid gland. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2007;45:65-7.
- (8) Bhutta MF, Dunk L, Molyneux AJ, Tewary A. Parotid pleomorphic adenoma with solitary renal metastasis. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2010;48:61-3.
- (9) Vivian MA, Sahni VA, Lowe AC, Silverman SG. Benign metastasizing pleomorphic adenoma presenting as a solitary kidney mass: imaging features. *Urology* 2012;80:e17-8.