

## ARTICLE ORIGINAL

# LA TUMEUR DE WARTHIN DE LA PAROTIDE : A PROPOS DE 11 CAS

M.MNEJJA, B.HAMMAMI, L.BOUGACHA, A. CHAKROUN, I.CHARFEDDINE, A.GHORBEL  
SERVICE ORL, CHU HABIB BOURGUIBA SFAX, TUNISIE

## RESUME

**Introduction :** La tumeur de Warthin (TW) représente la deuxième étiologie des tumeurs parotidiennes bénignes.

Le but de ce travail est d'étudier les caractéristiques épidémiologiques, cliniques et radiologiques de la TW parotidienne.

**Patients et méthodes :** 11 patients opérés pour une TW de la glande parotide ont été inclus dans une étude rétrospective sur une période de 10 ans.

**Résultats :** L'âge moyen était de 63 ans. lesex-ratio était 10. Le tabagisme était noté dans 82 %. Il s'agissait de gros fumeurs (>30 Paquet-année). La tuméfaction parotidienne était le seul symptôme présent au moment du diagnostic chez tous les patients. Le diamètre tumoral moyen était de 38 mm. A l'échographie, la tumeur était hypoéchogène dans 66,6%. A l'IRM, la tumeur était en hyposignal T1 prenant faiblement le contraste et en hypersignal T2 dans deux cas sur trois. La cytoponction était en faveur d'une lésion maligne dans les 3 cas où elle a été effectuée.

Le traitement a été chirurgical dans tous les cas. La tumeur était multifocale dans 2 cas. Aucun cas de récurrence ou de dégénérescence maligne n'a été noté, avec un recul moyen de 3 ans.

**Conclusion :** Une forte corrélation entre le développement d'une TW, un tabagisme et le sexe masculin a été rapportée. La cytoponction et l'IRM contribuent au diagnostic. La récurrence est faible après parotidectomie superficielle.

**Mots clés :** Tumeur de Warthin, parotide, tabac, IRM, parotidectomie.

## SUMMARY

**Objective :** Warthin tumor (WT) represents the second etiology of benign parotid tumors.

The aim of this work is to study the epidemiological, clinical, radiological and evolutive patterns of parotid Warthin tumor.

**Patients and methods :** A retrospective study of 11 patients operated on for parotid gland WT for over 10 years was conducted.

**Results:** Mean age was 63 years. Sex ratio was 10. Smoking was noted in 82 %. It was heavy smoking (>30 pack years in 82 %). Parotid swelling was the only symptom present at diagnosis. The mean tumor diameter was 38 mm. On ultrasonography, the tumor was hypoechoic in 66.6% of cases. On MRI, the tumor was hypo-intense in T1, taking low contrast, and hyper-intense in T2 in two out of three cases. Fine-needle aspiration (FNA) suspected malignancy in 3 cases, when it was performed.

Treatment was surgical in all cases. The tumor was multifocal in 2 cases. No case of recurrence or malignant degeneration was noted after a mean follow-up of 3 years.

**Conclusion:** A strong correlation between the development of Warthin's tumor, smoking and male sex is reported. FNA and MRI contribute significantly to the diagnosis. Recurrence is low after superficial parotidectomy. Malignant degeneration is rare.

**Keywords :** Warthin tumor, parotid, tobacco, parotidectomy

## INTRODUCTION

La tumeur de Warthin (TW), autrement appelée adénolymphome ou cystadénolymphome papillaire, est une tumeur épithéliale bénigne des glandes salivaires. Elle doit ce nom à l'anatomopathologiste américain A.S. Warthin qui l'a défini en 1929 (1). Elle comporte de façon caractéristique des structures glandulaires oncocytaires et un stroma lymphoïde. Elle est rencontrée presque exclusivement dans la glande parotide et les ganglions lymphatiques péri-parotidiens (2). Son étiopathogénie n'est pas encore bien établie (3). Elle prédomine classiquement chez l'homme tabagique de plus de 50 ans (1, 2, 4).

Le but de ce travail est d'étudier les caractéristiques épidémiologiques, cliniques, radiologiques et évolutives de la TW parotidienne.

## MATÉRIEL ET MÉTHODES

Il s'agit d'une analyse rétrospective des observations de 11

patients opérés pour TW parotidienne entre Janvier 2000 et Avril 2010.

Tous nos patients ont eu un examen clinique et une exploration radiologique comportant une échographie parotidienne.

## RÉSULTATS

Notre série a comporté 11 cas de TW soit 9,3% de toutes les tumeurs parotidiennes opérées dans notre service et 12,2% des tumeurs parotidiennes bénignes. Il s'agit de 10 hommes et une femme d'âge moyen au moment du diagnostic de 63 ans (52-79 ans). Neuf malades (82% des cas) étaient des fumeurs avec une consommation moyenne de 41 paquets-années (PA). La plupart (67% des malades) étaient de gros fumeurs ( $\geq 30$  PA). Deux malades seulement étaient en plus alcooliques.

Le délai moyen de consultation était de 31 mois (2-168 mois). Dans tous les cas, la tuméfaction parotidienne était



le seul symptôme au moment du diagnostic. Cette tumeur était toujours unilatérale, de consistance variable, indolore augmentant progressivement de volume. Le diamètre moyen au moment du diagnostic était de 38 mm (20 et 70 mm). Aucun signe inflammatoire n'a émaillé l'évolution de ces tumeurs. La topographie tumorale était sous-lobulaire dans 7 cas (63,6%), sous-angulo-mandibulaire dans 3 cas (27,2%) et pré-tragiennne dans 1 cas (10%). Aucune atteinte faciale n'a été retrouvée et le signe de Nélaton (bruit produit par le frottement de la tumeur sur la branche montante de la mandibule) était absent dans tous les cas. La glande controlatérale était saine dans tous les cas. Les caractéristiques cliniques ont été résumées dans le tableau n°1.

| Patients | Sexe | Âge | Tabac (PA) | Délai de consultation (mois) | Siège                    | Taille (cm) |
|----------|------|-----|------------|------------------------------|--------------------------|-------------|
| 1        | F    | 52  | -          | 12                           | Pré-tragiennne           | 5           |
| 2        | M    | 65  | 45         | 2                            | Sous-angulo-mandibulaire | 3           |
| 3        | M    | 62  | 40         | 168                          | Sous lobulaire           | 7           |
| 4        | M    | 61  | 20         | 18                           | Sous lobulaire           | 5           |
| 5        | M    | 70  | 20         | 4                            | Sous lobulaire           | 3           |
| 6        | M    | 60  | 80         | 84                           | Sous-angulo-mandibulaire | 2           |
| 7        | M    | 79  | -          | 2                            | Sous lobulaire           | 3           |
| 8        | M    | 72  | 40         | 3                            | Sous lobulaire           | 4           |
| 9        | M    | 52  | 60         | 6                            | Sous lobulaire           | 2,5         |
| 10       | M    | 57  | 40         | 18                           | Sous-angulo-mandibulaire | 3           |
| 11       | M    | 62  | 23         | 24                           | Sous lobulaire           | 4           |

F : Féminin ; M : Masculin ; PA : Paquet-année ;  
Tableau I : Caractéristiques cliniques de nos malades.

Les caractéristiques radiologiques ont été résumées dans le tableau n°II.

| Patients | Échographie  | TDM   | IRM   | Traitement                |
|----------|--------------|---|---|---------------------------|
| 1        | Anéchogène   |   |   | Parotidectomie exofaciale |
| 2        | -            | Tumeur solide hétérogène avec rehaussement périphérique |   | Parotidectomie inférieure |
| 3        | Hypoéchogène |   |   | Parotidectomie exofaciale |
| 4        | Hypoéchogène |   |   | Parotidectomie inférieure |
| 5        | Hypoéchogène |   | Hypo T1 Hyper T2, faible prise de contraste | Parotidectomie exofaciale |
| 6        | -            |   |   | Parotidectomie inférieure |
| 7        | Anéchogène   |   | Iso T1 Hypo T2, pas de prise de contraste   | Parotidectomie exofaciale |
| 8        | Hypoéchogène |   |   | Parotidectomie inférieure |
| 9        | Hypoéchogène |   |   | Parotidectomie exofaciale |
| 10       | Hypoéchogène | Tumeur solide homogène avec prise de contraste          |   | Parotidectomie inférieure |
| 11       | Hétérogène   |   | Hypo T1 Hyper T2, faible prise de contraste | Parotidectomie exofaciale |

Tableau II : Caractéristiques radiologiques et thérapeutiques de nos malades.

L'échographie pratiquée dans 9 cas a montré une masse anéchogène kystisée dans 22,2% (2 cas), mixte (solide et kystique) dans 11,1% (1 cas) et hypoéchogène dans 66,6% (6 cas). La TDM pratiquée dans 2 cas était en faveur de masses solides (fig.1).



Figure 1 : Aspect TDM de la tumeur de warthin : TDM en coupe axiale avec injection de produit de contraste : Nodule de densité tissulaire à contours nets du pôle inférieur de la glande parotide gauche avec prise de contraste hétérogène.

L'IRM réalisée pour 3 autres patients a posé le diagnostic de tumeur bénigne de la parotide dans tous les cas en montrant des tumeurs aux contours réguliers et bien définis. Le diagnostic de TW a été évoqué, par l'IRM, dans un seul cas en montrant une tumeur intra-parotidienne en isosignal T1, ne prenant pas le contraste, et en hyposignal T2. Dans les 2 autres cas la tumeur était moins évidente avec un hyposignal T1, une prise de contraste faible et un hypersignal T2 (fig.2).

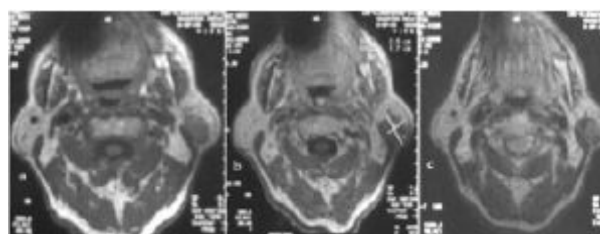


Figure 2 : Aspect IRM de la tumeur de warthin : IRM coupes axiales en séquence T1 (a), avec injection de Gadolinium (b) et en séquence T2 (c) : formation nodulaire au niveau du pôle inférieur de la glande parotide gauche bien limitée, en isosignal T1, hyposignal T2, non rehaussée après injection de Gadolinium.

La tumeur siégeait au niveau du lobe superficiel dans tous les cas. Quant à la cytoponction, elle a suspecté la malignité dans les 3 cas où elle a été réalisée.

Le traitement a consisté en une parotidectomie exofaciale complète dans 6 cas (54,5%) et exofaciale-inférieure dans les autres cas (45,5%) après repérage et dissection systématiques du nerf facial (tableau II). L'examen anatomopathologique extemporané ainsi que définitif a confirmé le diagnostic de TW et l'absence de malignité. La multifocalité a été notée dans 2 cas. Une paralysie faciale transitoire postopératoire a été notée dans un seul cas. Aucune récurrence n'a été observée avec un recul moyen de 5 ans.



## LA TUMEUR DE WARTHIN DE LA PAROTIDE A PROPOS DE 11 CAS

### DISCUSSION

LaTW dans ce travail représente 9,3% de l'ensemble des tumeurs de la parotide et 12,2% des tumeurs parotidiennes bénignes. Tous nos malades avaient un âge supérieur à 40 ans (âge moyen de 63 ans) avec une forte prédominance masculine (sex ratio de 10/1). Dans la littérature, la TW représente 6 à 13% de l'ensemble des tumeurs des glandes salivaires et 5 à 15% des tumeurs bénignes de la glande parotide (2, 5, 6). Elle représente la deuxième étiologie des tumeurs parotidiennes bénignes après l'adénome pléomorphe (AP) (2). Les localisations extra-parotidiennes (glande sub-mandibulaire, glandes accessoires) sont exceptionnelles (1).

Elle survient à la 5ème et la 6ème décennie de vie. L'atteinte est rare avant l'âge de 40 ans [3]. Une nette prédominance masculine a été notée dans la majorité des séries avec un sex ratio qui varie de 2,6/1 à 10/1 (2, 3). Ces données sont différentes des caractéristiques d'adénomes pléomorphes qui touchent plutôt les femmes à la 4ème décennie (3).

Une augmentation globale de l'incidence de cette tumeur dans la population féminine a été rapportée depuis les années 1950 ; celle-ci serait expliquée par l'augmentation de la consommation tabagique chez les femmes (7).

Nous avons observé une forte fréquence du tabagisme chez les malades atteints (82% étaient des fumeurs et 67% étaient des gros fumeurs). Yu GY (4) a montré également, que la fréquence du tabagisme était plus importante chez les patients atteints de TW (96,3% patients fumeurs chez les TW) que chez ceux atteints d'AP (26,4% de patients fumeurs chez les patients présentant un AP) et par rapport à la population générale (25,5%).

Plusieurs hypothèses étiopathogéniques ont été évoquées mais la plus retenue est celle qui incrimine le développement d'inclusions épithéliales au sein du contingent lymphoïde intra-parotidien non isolées par une capsule. Cette théorie pourrait expliquer la localisation fréquente des TW au niveau de la glande parotide, la bilatéralité et la multiplicité de ces tumeurs (7). Pour certains auteurs, la forte incidence des TW chez l'homme suggère une dépendance hormonale possible car des récepteurs aux hormones sexuelles ont été identifiés au niveau des cellules des TW (3). Le rôle exact des hormones sexuelles et leur impact sur les glandes salivaires, restent non clarifiés (3). D'autre part, l'incidence des TW dans la race noire est extrêmement rare, impliquant probablement une participation de facteurs génétiques (8).

Cliniquement, la TW se présente sous la forme d'une tumeur arrondie, mobile, lisse, fluctuante, de croissance lente, préférentiellement développée dans le lobe superficiel de la glande parotide souvent aux dépens de son pôle inférieur (2). Dans notre série, une topographie polaire inférieure a été observée dans 91% des cas. Cette localisation a été rapportée dans 76% des cas par Paris (2). L'évolution est lente pouvant être parfois émaillée de

poussées inflammatoires mais jamais de paralysie faciale (2). Cependant, Teymoortash (3) n'a pas trouvé de différences dans les caractéristiques cliniques des malades atteints de TW et ceux atteints d'AP.

La TW est la plus fréquente des tumeurs bilatérales (4 à 12,3%) et multicentriques de la glande parotide (4% à 24%) (2, 3, 9). Dans notre série, la bilatéralité était absente alors que la multifocalité a été retrouvée dans 18% des cas. Les formes bilatérales sont rarement synchrones (9). Les séries portant sur l'aspect en IRM des TW sont en nombre encore plus limité que pour l'AP et les tumeurs malignes. Minami et al. (10) ont rapporté une importante variabilité de leur présentation. A l'IRM, les TW sont caractérisées par un signal intermédiaire en T1 et en T2, sans rehaussement après injection ; il peut exister des zones focales en hypersignal T1 et en hyposignal T2 (correspondant alors à des portions kystiques riches en cristaux de cholestérol et/ou à des remaniements hémorragiques) et encore d'autres qui sont en hypersignal T2 (correspondant à des composantes liquidiennes pures) ; la prise de contraste est parfois hétérogène délimitant des zones très fortement rehaussées (11).

La valeur diagnostique de bénignité et de malignité de l'IRM est très bonne (2). La valeur prédictive du diagnostic histologique pour les tumeurs bénignes apparaît assez fiable pour les AP mais elle est insuffisante pour le diagnostic des TW (2). Dans notre série, le diagnostic de bénignité à l'IRM a été porté dans les 3 cas explorés mais le diagnostic de TW a été porté dans un seul cas (tumeur intra-parotidienne caractérisée par un isosignal en T1, une absence de prise de contraste et un hyposignal en séquence T2). Devant ces résultats, le rôle des nouvelles techniques est essentiel pour caractériser le TW. Les séquences dynamiques de perfusion montrent un rehaussement précoce des portions tissulaires, sans plateau suivi d'un lavage rapide. En séquences de diffusion les TW ont des coefficients d'atténuation de diffusion (CDA), inférieurs aux tumeurs malignes (12).

Sur le plan histologique, cette tumeur comporte de façon caractéristique des structures glandulaires oncocytaires et un stroma lymphoïde (13). La transformation maligne est exceptionnelle et peut se faire à la fois aux dépens des composantes épithéliales (carcinome) et lymphoïdes (lymphome) (13). Nagao et al ont rapporté une fréquence de transformation maligne de 0,1% (14). Aucune transformation maligne n'a été rapportée dans notre série.

Il y a peu de travaux sur la cytoponction à l'aiguille fine (CAF) qui aurait une sensibilité diagnostique allant de 75% à 89,2% avec notamment des faux positifs entre le diagnostic de TW et carcinome épidermoïde (2, 15). Dans notre série, la CAF a été effectuée dans 3 cas : elle n'a pas pu faire le diagnostic et a même fait évoquer une tumeur maligne dans les trois cas où elle a été réalisée. La ponction cytologique n'est pas donc systématique pour l'établissement du diagnostic préopératoire et de la stra-



tégie thérapeutique et son association avec l'imagerie ne semble pas nettement améliorer les résultats aux dépens d'un coût plus important.

La majorité des auteurs préconisent une parotidectomie exofaciale avec repérage et dissection du nerf facial. Cette attitude est la plus adéquate permettant d'éviter les récurrences et de réduire les incidents postopératoires (1). Les partisans de la simple énucléation tumorale retiennent qu'il s'agit d'une tumeur encapsulée pour laquelle l'énucléation n'augmente ni le risque de récurrence ni celui de paralysiefaciale et ne compromet pas en cas de récurrence la parotidectomie exofaciale (16) ; mais la fréquence de la multifocalité est contre cette attitude. Nous préconisons de pratiquer une parotidectomie exo-faciale polaire inférieure ce qui donne très peu de complications et n'a

pas donné dans notre série de récurrence tumorale avec un recul moyen de 5 ans.

Dans la littérature, le taux de récurrence est de l'ordre de 2 à 5 % (13), ce qui pourrait traduire que d'autres foyers tumoraux ont été laissés en place par une exérèse incomplète.

L'intérêt des examens complémentaires (IRM et cytoponction) apparaît important mais aucun de ces examens n'est assez performant pour éviter la chirurgie parotidienne. Cette dernière n'est pas indemne de complications essentiellement la paralysie faciale transitoire (16 à 47%) ou définitive (0 à 9%) et le syndrome de Frey (35 à 70%) se traduisant par l'apparition, quelques mois après l'intervention, d'une rougeur et d'une sudation de la région parotidienne lors des repas (1).

## REFERENCES

1. HM. Chedid, A. Rapoport, KF. Aikawa, AD. Menezes, and al. Warthin's tumor of the parotid gland: study of 70 cases. *Rev Col Bras Cir.* 2011;38(2):90-4.
2. J. Paris, F. Facon, MA. Chrestian, A. Giovanni, M. Zanaret. Approche diagnostique des tumeurs de Warthin : clinique, cytoponction et IRM. *Rev LaryngolOtolRhinol (Bord).* 2004;125:65-9.
3. A. Teymoortash, Y. Krasnewicz, JA. Werner. Clinical features of cystadenolymphoma (Warthin's tumor) of the parotid gland: A retrospective comparative study of 96 cases. *Oral Oncol.* 2006;42:569-73.
4. Yu GY, Liu XB, Li ZL, Peng X. Smoking and the development of Warthin's tumour of the parotid gland. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 1998; 36:183-5.
5. Y. Marmary, JM. Gomori, DW. Nitzan. Lymphoepithelial parotid cysts as presenting symptom of immunodeficiency virus infection: clinical, sialographic, and magnetic resonance imaging findings. *J Oral Maxillofac Surg.* 1990; 48: 981-4.
6. JW. Eveson, RA. Cawson. Warthin's tumour (cystadenolymphoma) of salivary glands. A clinicopathologic investigation of 278 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1986;6:256-62.
7. J. Lamelas, JH. Terry, E. Antonio. AE. Alfonso. Warthin's Tumor: Multicentricity and Increasing Incidence in Women. *Am J Surg.* 1987;154: 347-51.
8. YK. Chung, ML. Khoo, MK. Heng, GS. Hong, KC. Soo. Epidemiology of Warthin's tumour of the parotid gland in an Asian population. *Br J Surg.* 1999; 86: 661-4.
9. E. Maiorano, L. Lo Muzio, G. Favia, A. Piattelli. Warthin's tumour: a study of 78 cases with emphasis on bilaterality, multifocality and association with other malignancies. *Oral Oncol.* 2002; 38: 35-40.
10. M. Minami, H. Tanioka, K. Oyama, Y. Itai, and al. Warthin tumor of the parotid gland: MR pathologic correlation. *AJNR Am J Neuroradiol.* 1993; 14: 209-14.
11. Halimi P, Gardner M, Petit F. Les tumeurs des glandes salivaires. *Cancer/Radiothérapie.* 2005; 9:251-60.
12. H. Miki, A. Jun-ichi, K. Hironobu, Y. Yoshinobu, and al. Assessment of dynamic MRI of Warthin's tumors arising as multiple lesions in the parotid glands. *Oral Oncology.* 2002;38: 369-32.
13. PA. Just, L. Miranda, Y. Elouaret, T. Meatchi, S. Hans, C. Badoual. Classification des tumeurs des glandes salivaires. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac.* 2008; 125:331-40.
14. T. Nagao, I. Sugano, Y. Ishida, Y. Tajima, and al. Mucoepidermoid carcinoma arising in Warthin's tumour of the parotid gland: report of two cases with histopathological, ultrastructural and immunohistochemical studies. *Histopathology* 1998; 33:379-86.
15. A. Jafari, B. Royer, M. Lefevre, P. Corlieu, and al. Value of the cytological diagnosis in the treatment of parotid tumors. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2009;140:381-5.
16. KS. Heller, JN. Attie. Treatment of Warthin's tumor by enucleation. *Am J Surg.* 1988; 156; 4: 294-6.