

CARCINOME PAPILLAIRE SUR KYSTE DU TRACTUS THYREOGLOSSE

N. KAFFEL , N. Jlassi , A. CHORFA, R. LAHIANI, D. NEJAH, M. BEN SALAH, H. HAJRI,
M. FERJAOU

SERVICE D'OTO-RHINO-LARYNGOLOGIE ET DE CHIRURGIE CERVICO-FACIALE
EPS CHARLES NICOLLE. TUNIS

RESUME

Introduction : Les kystes du tractus thyroïdienne (KTT) sont des malformations congénitales fréquentes et leur dégénérescence est rare. Leur présentation clinique est souvent non spécifique et leur diagnostic est généralement retenu en postopératoire.

But : La controverse concerne surtout la prise en charge thérapeutique et le suivi ultérieur de ce type de néoplasie.

Matériel : Nous rapportons 4 cas de KTT dégénérés opérés dans le service ORL de l'hôpital Charles Nicolle et chez qui le diagnostic de KTT dégénéré a été porté en peropératoire dans deux cas et à l'antomopathologie définitive dans 2 cas. L'attitude thérapeutique n'a pas été la même pour tous les patients, elle a été discutée dans chaque cas.

Conclusion : il n'y a pas de consensus quant à l'attitude thérapeutique à avoir en cas de malignité des KTT et le sujet requiert des études randomisées à grande échelle.

Mots clés : Kyste du tractus thyroïdienne, thyroïde, carcinome papillaire, chirurgie, thyroïdectomie totale.

SUMMARY

Introduction : Cysts of the thyroglossal duct are a congenital anomaly. they are common but the incidence of papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst (TDC) is rare. The clinical presentation of these cancers is generally nonspecific. There are usually identified only after histopathologic examination.

Aim: Modalities of treatment and prevention are discussed.

Methods: We report 4 cases of a papillary carcinoma developed on a thyroglossal duct cyst, who underwent surgery. Two cases have been detected on preoperative and two at the definitive anatomopathology. Our therapeutic attitude has been discussed in each of our 4 cases.

Conclusion: there is no consensus about the modalities of treatment of papillary carcinoma in thyroglossal duct cyst.

Keywords: Thyroglossal duct cyst, Thyroid, Papillary carcinoma, surgery, Total thyroidectomy.

INTRODUCTION

Les étiologies d'une tuméfaction cervicale antérieure sont nombreuses et sont dominées par les kystes du tractus thyroïdienne (KTT) surtout chez l'enfant. Ces kystes sont rarement le siège de tumeurs malignes. Leur tableau clinique est non spécifique et la mise en évidence d'un cancer à ce niveau est toujours une découverte histologique. Leur prise en charge reste l'objet de controverses.

OBSERVATION:

Il s'agit de 2 garçons et 2 filles dont l'âge moyen était de 23,5 ans avec des extrêmes allant de 10 à 35 ans. Aucun antécédent pathologique n'a été rapporté par ces 4 patients. Le motif de consultation était une masse cervicale indolore et non compressive, évoluant de façon isolée depuis une durée de 3,5 mois en moyenne avec des extrêmes allant de 1 à 8 mois. L'examen a révélé une tuméfaction latéro-cervicale gauche dans un cas et médiane dans 3 cas, adhésive, mobile à la protrusion de la langue, de consistance ferme dans 3 cas et dure dans un cas, de 3 cm de diamètre en moyenne (1,5 à 5 cm). La peau en regard était saine et la loge thyroïdienne était libre dans tous les cas. Chez un patient, la tuméfaction

latéro-cervicale gauche évoquait une adénopathie jugulo-carotidienne, ferme, faisant 2 cm de diamètre et qui représentait le motif de consultation. Cette adénopathie était suspecte à la cytoponction. L'échographie cervicale a été réalisée chez tous les patients, elle a montré une masse kystique contenant des calcifications dans 3 cas et une masse ganglionnaire dans 1 cas. La thyroïde était en place et anodulaire dans tous les cas. Une TDM cervicale demandée dans deux cas a objectivé une formation de densité tissulaire qui était le siège de calcification en « pop corn ».

Une intervention de type SISTRUNK a été réalisée dans 3 cas. Le diagnostic d'un KTT dégénéré de type carcinome papillaire a été porté sur l'examen extemporané dans 2 cas. Le geste chirurgical a été complété par une thyroïdectomie totale (TT) avec curage ganglionnaire récurrentiel (CR) bilatéral pour ces deux patients suivi d'une irradiation.

Dans un autre cas, le diagnostic de carcinome papillaire de KTT a été retenu sur l'examen anatomopathologique définitif qui concluait à un adénocarcinome papillaire développé en plusieurs microfoyers et sans effraction capsulaire. Une surveillance postopératoire sans reprise



chirurgicale a été décidée. Pour le patient qui s'est présenté avec une adénopathie cervicale, la cervicotomie exploratrice avec adénectomie et examen extemporané ont conclu à une métastase d'un carcinome papillaire. Une intervention de type SISTRUNK avec thyroïdectomie totale, curage ganglionnaire médiastino-récurrentiel et fonctionnel (CF) bilatéral ont été réalisés suivis d'une irradiation postopératoire. L'examen anatomopathologique définitif a confirmé la dégénérescence du KTT avec une thyroïde non tumorale. Au bout de 2 ans de recul, l'évolution était favorable et on n'a pas noté de récurrence. Tous nos patients ont été mis sous traitement freinateur à base de L-thyroxine.

DISCUSSION :

Durant la troisième semaine de la vie fœtale, le corps thyroïde apparaît sous la forme d'une prolifération épithéliale au niveau du plancher du pharynx, à la pointe du V lingual. L'ébauche thyroïdienne se creuse pour former un canal qui pénètre dans le mésoblaste sous-jacent et migre en avant de l'intestin pharyngien sous forme d'un canal qui va normalement se résorber et disparaître complètement. Le défaut de résorption du tractus thyro-glosse est à l'origine d'un kyste du tractus thyro-glosse (KTT). Ce KTT peut se situer sur tout le trajet du tractus, de la base de langue à la pyramide de Lalouette (1). Ces malformations cervicales congénitales sont fréquentes en ORL pédiatrique où elles représentent 40% des malformations cervicales congénitales. Elles peuvent persister chez l'adulte (1). Le risque d'une dégénérescence maligne sur KTT est rare, elle se voit dans 1 à 1,5 % des cas. Mais elle est certainement sous-évaluée en raison d'une chirurgie d'exérèse préventive très souvent réalisée dans l'enfance (2).

La première description était par Brentano en 1911. Parmi les cas de carcinome sur KTT rapportés dans la littérature(2), 80 % sont de type papillaire. Les autres types sont représentés par les carcinomes mixtes papillofolliculaires dans 8 % des cas, les carcinomes à cellules squameuses dans 6 % des cas, suivis par quelques cas de carcinomes à cellules de Hürthle et les carcinomes folliculaires et anaplasiques. Mais aucun cas de carcinome médullaire n'est décrit dans la littérature. En effet, la répartition des différents types histologiques semble être comparable au pourcentage retrouvé dans les cancers de la thyroïde.

Quelques hypothèses concernant la physiopathologie de ces types histologiques ont été rapportées. La majorité des auteurs pensent que ces lésions se développent de novo au sein du kyste et sont, donc, des primitifs du tractus thyro-glosse, alors que d'autres tel que Belnoue suggère que ce canal thyro-glosse peut constituer un canal naturel pour la propagation d'un carcinome développé au départ dans la glande thyroïde. D'où les différentes attitudes concernant la prise en charge thérapeutique de cette pathologie (3).

Ces tumeurs sont rarissimes chez l'enfant. La majorité

des études citées concernent essentiellement les adultes. Sept cas ont été rapportés dans la littérature, mais la forme et le traitement reste identique à l'adulte (4). L'âge de découverte est en moyenne et de 53,3 ans avec un sex-ratio de 1,4. Dans notre série, la moyenne d'âge se situe autour de la deuxième décennie de vie et il y a autant de garçons que de filles. Le tableau clinique d'un KTT dégénéré est non spécifique cependant, quelques signes cliniques peuvent laisser suspecter une éventuelle malignité notamment devant un caractère dur, fixe, irrégulier d'une masse cervicale qui aurait rapidement augmenté de taille ou qui s'associe à des adénopathies (1,5). Ailleurs, les carcinomes papillaires provenant de KTT sont souvent asymptomatiques (6) et leur découverte fortuite, se fait au cours d'un examen anatomopathologique comme c'est le cas de nos patients.

En préopératoire, la place de la cytoponction à l'aiguille fine reste discutable. Miccoli et al(11) ont rapporté une sensibilité et une spécificité de 100 % de cette technique chez neuf patients. Dans tous les cas, elle nécessite un cytologiste expérimenté. Dans notre série, et vu que la cytoponction n'a de valeur qu'en cas de positivité, nous n'avons pas considéré la cytoponction comme déterminante dans la prise en charge thérapeutique. Elle n'a pas été réalisée pour le KTT dans notre pratique.

À l'échographie, le KTT peut apparaître anéchogène, hypoéchogène ou hétérogène. Cependant, la néoplasie doit être suspecter devant le caractère solide à l'échographie, le contour irrégulier, la présence végétations intrakystiques et/ou de calcifications (comme c'est les cas de notre série). L'IRM, plus performante que la tomodensitométrie, permet de mieux étudier les rapports anatomiques surtout s'il s'agit d'un volumineux kyste (1,6)

L'envahissement des tissus de voisinage représente 20 % des cas. Les métastases ganglionnaires se voient dans 8 % des cas (3). L'un de nos cas a été révélé par une adénopathie métastatique. En cas d'adénopathie de découverte clinique ou radiologique, un curage ganglionnaire d'emblée est généralement recommandé (1).

Dès que le diagnostic d'un carcinome sur KTT est retenu, la question qui se pose est : faut-il réaliser, dans un second temps, un geste chirurgical sur la thyroïde ? Dans ce cas, les avis divergent :

- Certains auteurs maximalistes Al.Belnoue (3) et Miccoli (11) sont pour la réalisation d'une thyroïdectomie totale étant donné la fréquence des cancers thyroïdiens associés. En effet, 11 à 27% de carcinomes thyroïdiens sont découverts lors d'une thyroïdectomie systématique. De plus, cette thyroïdectomie permet une meilleure surveillance post opératoire. Patel (7) a montré, dans une méta-analyse, que seule l'étendue du geste chirurgical initial constituait une variable significative quant à la survie.

- D'autres auteurs minimalistes tel que Baïzri (1) se limitent à l'intervention de SISTRUNK et ne reprennent pas les patients, justifiant leur attitude par la lente évolutivité



des carcinomes papillaires sur KTT et leur bon pronostic, bien sûr la surveillance se fait à condition d'un suivi régulier des patients.

Cependant l'attitude la plus admise est l'abstention après intervention selon SISTRUNK suivie d'une opothérapie frénatrice s'il n'existe pas d'anomalie thyroïdienne ni d'adénopathies, s'il n'y a pas d'effraction capsulaire à l'anatomopathologie et si le patient peut être suivi au long court. Dans les autres cas, la thyroïdectomie s'impose et là, une IRM cervicale préopératoire est recommandée afin de réaliser un bilan d'extension loco-régional complet. Pour les patients présentant une forme évoluée (envahissement des tissus de voisinage, métastase ganglionnaire), un complément thérapeutique faisant appel à l'irathérapie avec un balayage corporel d'efficacité est indiqué, mais cela implique la réalisation préalable d'une thyroïdectomie totale complémentaire même en l'absence de nodules associés. Un freinage de la TSH et une surveillance annuelle de la thyroglobuline (6,8,9,10) seront assurés.

Le pronostic de ces tumeurs est généralement bon (11),

toutefois une surveillance postopératoire à long terme s'impose. Patel (7) a estimé que la survie à cinq et à dix ans était, respectivement, à 100 et à 95,6 %.

CONCLUSION

L'absence de caractères cliniques ou para cliniques permettant de différencier cliniquement un banal KTT d'un carcinome papillaire développé sur des reliquats thyroïdiens nécessite un traitement chirurgical premier de tous les KTT. Reprise ou surveillance, il n'y a pas consensus quant à l'attitude chirurgicale à avoir en cas de malignité. Cependant La présence de microfoyers carcinomateux sans effraction capsulaire et l'absence d'envahissement de voisinage ou de métastases permettent de limiter l'attitude chirurgicale à l'ablation du kyste selon la méthode SISTRUNK seule. Dans les autres cas, une thyroïdectomie totale associée à l'ablation du KTT complétée par une irradiation interne à l'iode radioactif est de rigueur, le tout, sous couvert d'une surveillance à long terme. La prise en charge des KTT dégénérés demeure un sujet de débat et nécessite des études randomisées à grande échelle.

REFERENCES

- 1- Baïzri H., Bouaity B., Abahou S. Carcinome papillaire sur kyste du tractus thyroïdienne : à propos d'un cas : quelle prise en charge ? Annales-d'Endocrinologie. 2009 ;70 (4) :256-60
- 2- El Bakkouri W., Racy1 E., Verecke1 A., Carcinome épidermoïde sur kyste du tractus thyroïdienne. Squamous Cell Carcinoma in a Thyroglossal Duct-Cyst-Annales-d'Otolaryngologie-et-de-Chirurgie-Cervico-Faciale. 2004 ;121 : 303-5
- 3- Belnoue A., Poupert M., Pignat J.C. -Intérêt de la thyroïdectomie dans la prise en charge des kystes du tractus thyroïdienne dégénérés. Annales-de-Chirurgie. 2004 ; 129 : 523-5
- 4- Righini C. A., Mouret P., Blanchet C., Piolat C., Dyon J. F., Reyt E. Traitement chirurgical de première intention des kystes du tractus thyroïdienne chez l'enfant : à propos de 99 cas. Rev Laryngol Otol Rhinol. 2001;122:159-65.
- 5- Thomas J., Komorowski R. A. Thyroglossal duct carcinoma. Human Pathology.1975;6: 717-29
- 6- Wigley T.L., Chonkich G. D., WAT B.Y. Papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst. Otolaryngology .Head and Neck Surgery. 1997; 116: 386-8
- 7- Patel S.G., Escrig M., Shaha A.R., Singh B., Shah J.P. Management of well-differentiated thyroid carcinoma presenting within a thyroglossal duct cyst, J. Surg. Oncol. 2002; 79: 134-41.
- 8- Yu-Hsing Lin, Sen-Tien Tsai, Hsu-Cheuh Ho. Primary Papillary Carcinoma of a Thyroglossal Duct Cyst. Tzu Chi Medical Journal. 2008; 20: 150-3
- 9- Kaveh S., Syedda A., Lemon C. , Shah N., Visavadia B. Papillary carcinoma arising from thyroglossal duct cysts-British. Journal of Oral and MaxillofacialSurgery. 2009; 47: 66-7
- 10- Kandogan T, Erkan N, Vardar E. Papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst with associated microcarcinoma of the thyroid and without cervical lymph node metastasis: a case report J Med Case Rep. 2008 ; 2 : 42
- 11- Miccoli P., Minuto M.N., Galleri D., Puccini M., Berti P. Extent of surgery in thyroglossal duct carcinoma: reflections on a series of 18 cases Thyroid 2004 ; 14 : 121-3