

Adénome Pléomorphe Géant De La Glande Submandibulaire : A Propos D'un Cas

Haminason LS¹, Nomenjanahary L², Razafindrahova AP³, Riel AM⁴, Rakotosamimanana J¹,
Randriamanantena T⁵

¹ Service de Chirurgie, Centre Hospitalier Universitaire Antanambao Toliara, Madagascar

² Service d'Anatomie et Cytologie Pathologique, Centre Hospitalier Universitaire Joseph Ravoahangy
Andrianavalona Antananarivo, Madagascar

³Service d'imagerie, Centre Hospitalier Universitaire Mitsinjo Betanimena Toliara, Madagascar

⁴Service de Réanimation Médico-Chirurgicale, Centre Hospitalier Universitaire Antanambao Toliara, Madagascar

⁵Service de Chirurgie Maxillofaciale et Stomatologie, Centre Hospitalier Universitaire Andrainjato Fianarantsoa,
Madagascar

Email : haminasonl@gmail.com



Résumé

Introduction : L'objectif de ce travail est de rapporter un cas d'adénome pléomorphe géant de la glande submandibulaire en décrivant les raisons du retard de consultation et notre approche thérapeutique.

Observation : Il s'agissait d'une patiente âgée de 60 ans, sans antécédent particuliers, adressée en consultation pour prise en charge d'une tumeur latéro-cervicale droite évoluant depuis environ 15 ans. L'examen clinique a mis en évidence une volumineuse tumeur sous mandibulaire droite étendue à la région cervicale droite, indolore, bosselée, mesurant 17cm de grand axe ; sans paralysie faciale ni adénopathies cervico-faciales associées. L'échographie cervicale rapportait une tumeur d'échostructure mixte aux dépens de la glande submandibulaire droite. De ce fait, la patiente avait bénéficié d'une submandibulectomie totale droite emportant la totalité de la tumeur. L'examen anatomo-pathologique de la pièce opératoire était en faveur d'un adénome pléomorphe de la glande submandibulaire. Les suites opératoires étaient simples.

Conclusion : L'adénome pléomorphe à localisation submandibulaire est rare, d'autant plus que sa forme géante. La forme géante, longtemps évoluée, de cette tumeur entraîne une déformation faciale avec un retentissement esthétique et psycho-social et expose à des risques de dégénérescence maligne.

Mots clés – Adénome Pléomorphe, Glande Submandibulaire, Submandibulectomie.

Abstract

Introduction: The aim of this work is to report a case of giant pleomorphic adenoma of the submandibular gland, describing the reasons for the delay in consultation and our therapeutic approach.

Observation: This was a 60-year-old patient, with no particular history, referred for consultation for the management of a right cervical side tumor that had been evolving for approximately 15 years. The clinical examination revealed a large right submandibular tumor extending to the right cervical region, painless, bumpy, measuring 17cm in long axis; with no associated facial paralysis or cervico-facial

adenopathy. Cervical ultrasound revealed a mixed echostructure tumor at the expense of the right submandibular gland. As a result, the patient underwent a total right submandibulectomy, removing the entire tumour. Anatomopathological examination of the surgical specimen showed a pleomorphic adenoma of the submandibular gland. Postoperative management was simple.

Conclusion : Pleomorphic adenoma in the submandibular gland is rare, especially in its giant form. The giant form, long-evolved, of this tumor causes facial deformation with aesthetic and psycho-social repercussions and exposes it to the risk of malignant degeneration.

Keywords – Submandibular Gland, Submandibulectomy, Pleomorphic Adenoma.

I. INTRODUCTION

L'adénome pléomorphe ou tumeur mixte est la tumeur bénigne la plus fréquente des glandes salivaires, intéressant le plus souvent les glandes parotides [1, 2]. Environ Huit à 10% des adénomes pleomorphe se localise au niveau des glandes submandibulaires [2- 4]. C'est une tumeur d'évolution lente, indolore, n'entraînant que rarement des gênes fonctionnelles. Non traitée, elle peut devenir géante et être responsables d'une gêne esthétique avec retentissement psycho-social ou même se transformer en une tumeur maligne [3, 5, 6]. La forme géante de cette tumeur au niveau de la glande submandibulaire est rarement rapportée [2, 4].

L'objectif de ce travail est de rapporter un cas d'adénome pléomorphe géant de la glande submandibulaire en décrivant les raisons du retard de consultation et notre approche thérapeutique.

II. OBSERVATION

Une patiente âgée de 60 ans, vivant en milieu rural, sans antécédent particulier, a été vue en consultation dans le service de chirurgie du Centre Hospitalier Universitaire (CHU) Antanambao Toliara Madagascar pour une volumineuse tuméfaction latéro-cervicale droite. Apparue depuis environ 15 ans auparavant, cette tuméfaction était non douloureuse et avait progressivement grossi sans que le patient ou l'entourage s'inquiète trop.

La patiente signalait qu'elle avait déjà eu recours à des traitements traditionnels à savoir une application des mixtures, des massages chez un tradi-praticien, mais sans effet favorable sur l'évolution de la tuméfaction.

Elle déclarait une gêne cervicale provoquée par la lourdeur de la tuméfaction et disait qu'elle était obligée de porter toujours un foulard pour se cacher du visage à cause de cette gigantesque masse qui déformait son apparence, d'où sa consultation.

Lors de la consultation, la patiente était apparemment en bon état général. L'examen clinique avait retrouvé une volumineuse masse latéro-cervicale intéressant la région sous mandibulaire droite, non inflammatoire, d'environ 17 cm x 14cm de diamètre, à surface irrégulière (figure 1).

À la palpation, c'est une tuméfaction ferme, non douloureuse, bosselée, peu mobilisable par rapport aux plans superficiel et profond. La tuméfaction semblait être au dépend de la glande submandibulaire droite à la palpation bidigitale. Les aires ganglionnaires cervicales étaient libres. Le reste de l'examen clinique était sans particularité.

L'échographie cervicale rapportait une tumeur d'échostructure mixte aux dépens de la glande submandibulaire droite.

Au terme de ces examens, le diagnostic d'une tumeur submandibulaire bénigne avait été suspecté mais la probabilité d'une tumeur maligne ne pouvait pas être écartée totalement.

Malgré l'hésitation de la patiente et de son entourage au départ, ils sont finis par accepter la chirurgie. Ainsi, la patiente avait bénéficié d'une submandibulectomie droite sous anesthésie générale. Les suites opératoires étaient simples, il n'y avait pas de paralysie post opératoire. L'examen histologique de la pièce opératoire a retenu le diagnostic d'adénome pléomorphe de la glande submandibulaire droite sans signe de malignité. Aucune récurrence n'est retrouvée à 6 mois post opératoire. La patiente était perdue de vue après.

III. DISCUSSION

L'adénome pléomorphe à localisation submandibulaire est rare, d'autant plus sa forme géante [2].

Cette tumeur (L'adenome pleomorphe) s'observe à tout âge mais plus fréquemment entre la 4^e et la 6^{eme} décennie de la vie [4, 7]. Telle que notre patiente, une prédilection féminine de la tumeur a été rapportée par plusieurs auteurs [1, 7, 8, 9].

Sur le plan clinique, l'adénome pléomorphe se présente comme un syndrome tumoral lentement progressif, isolé, avec tuméfaction unilatérale de la glande submandibulaire, sans signes fonctionnels, évoluant le plus souvent sur plusieurs années [10, 11].

Dans notre cas, la tumeur avait évolué depuis une quinzaine d'année et c'est la difformité cosmétique et la répercussion psychosociale engendrées par cette gigantesque tumeur, qui avaient incité la patiente à consulter. En fait, l'absence des signes d'alerte comme la douleur concoure à la réticence thérapeutique des patients [2, 7]. Mais en absence de traitement, la masse peut atteindre des dimensions considérables et a un retentissement fonctionnel, esthétique ou social [2, 5, 11].

Cette forme de tumeur chez notre patiente est fréquente dans les pays en voies de développement et ce gigantisme serait lié à la conjugaison de plusieurs facteurs tels que la négligence ; l'ignorance ; la pauvreté ; les difficultés d'accès aux soins chez les patients vivants dans des villages reculés, loin de centre de santé de référence ou même à la crainte d'une intervention chirurgicale. Et à cela s'ajoutent aussi certaines pratiques néfastes de la médecine traditionnelle telles que l'application de mixture traditionnelle et la réalisation de scarification [3, 7]. En effet, certains tradithérapeutes déconseillent vivement les patients d'aller à l'hôpital, sous peine d'y mourir, car ils pensaient que toute pathologie se résume à un sort jeté par une tierce personne. Et ce comportement contribue à aggraver la maladie, principalement en retardant sa prise en charge médicale.

Sur le plan para-clinique, l'imagerie est indispensable dans le bilan préopératoire de l'adénome pléomorphe. Elle repose essentiellement sur la tomodensitométrie (TDM) et l'imagerie par résonance magnétique (IRM), en sachant que l'IRM est l'examen le plus performant pour l'exploration des tumeurs des glandes salivaires [1, 2, 7, 12]. A l'IRM, l'adénome pléomorphe se présente le plus souvent sous la forme d'une tumeur bien limitée, encapsulée, avec un aspect lobulé caractéristique, en hyposignal T1, se rehaussant de manière homogène après injection de gadolinium [12]. Notre patiente a bénéficié seulement d'une échographie cervicale faute de moyen financier mais aussi la non disponibilité de la TDM et de l'IRM dans notre région. Facile à réaliser et non invasive, l'échographie permet de confirmer le siège intraglandulaire de la tumeur, mais son intérêt pour distinguer une tumeur bénigne d'une tumeur maligne reste limité [12].

Malgré la taille inhabituelle de la tumeur de notre patiente, le diagnostic différentiel avec une tumeur maligne (à savoir le carcinome épidermoïde...) s'est fait sur la base de la lenteur de l'évolution, l'absence d'adénopathie, l'absence de paralysie faciale ni d'infiltration cutanée ou de la douleur. Néanmoins, c'est l'examen histopathologique de la pièce opératoire qui confirme le diagnostic. En effet, sur le plan histologique, l'adénome pléomorphe apparaît sous forme d'une tumeur mixte composée en proportion variable des cellules épithéliales et myoépithéliales au sein d'un stroma plus ou moins abondant [6, 12, 13].

La chirurgie est le traitement curatif de l'adénome pléomorphe quelque que soit sa localisation ou sa taille [2]. Ainsi, notre patiente avait bénéficié d'une submandibulectomie totale par voie cervicale sous anesthésie générale qui est recommandée pour les adénomes pléomorphes géants localisé au niveau de la glande submandibulaire [12, 14].

Bien qu'il soit classé comme une tumeur bénigne, **l'adénome pléomorphe peut se récidiver et même subir au cours de son évolution une dégénérescence maligne [6]**. En effet, environ 2% d'adénome pléomorphe submandibulaire se récidive après une chirurgie radicale et plus de 20% après énucléation, d'où la nécessité d'une surveillance régulière de tout patient opéré d'adénome pléomorphe [2, 12, 14].

Le risque de transformation maligne augmentait souvent avec la fréquence des récurrences, la durée d'évolution de la tumeur et l'âge avancé du patient [2, 4, 6, 7, 13]. Pour notre cas, aucune récurrence n'est retrouvée à 6 mois post-opératoire.

IV. CONCLUSION

L'adénome pléomorphe peut prendre un volume considérable au niveau de la glande submandibulaire en l'absence d'un traitement approprié qui est la chirurgie. Des facteurs socio-économiques sont impliqués dans le retard de consultation.

La surveillance post-opératoire prolongée est de règle en raison des récurrences possibles et du risque de dégénérescence maligne.

REFERENCES

- [1]. Wu Z, Liu D, Peng S, Wang Y, Zhan X, Li L et al. (2022) Surgical Treatment of a Giant Pleomorphic Adenoma of the Submandibular Gland: A Case Report. *Front Surg* 2022 Jan;8:800563.
- [2]. Abdelkhaleka M, Elmetwallya M, Mazy A, Gad M, Elsaid A, Awany S et al. Gigantic submandibular pleomorphic adenoma: A rare case report. *International Journal of Surgery Case Reports* 2019;65:91-6.
- [3]. Diarra K, Konaté N, Sidibé Y, Kamil Abdi O, Bagayoko D, Guindo B et al. Une masse cervicale géante révélant un adénome pléomorphe de la glande submandibulaire. *J. TUN ORL JUIN* 2020;43:65-8.
- [4]. Gupta M, Chaudhary N, Gupta M. Giant presentation of pleomorphic adenoma in major salivary gland. *BMJ Case Rep* 2011 Jul ; 4:1-3.
- [5]. Benedetti A, Popovski V, Popovik-Monevska D, Banev S, Kirkov A, Iliev A et al. Giant Pleomorphic Adenoma of the Submandibular Gland: Case Report and Therapeutic Challenge. *Oral Maxillofac Pathol J* 2021; 12(2): 78-80.
- [6]. Bhat VS, Biniyam K, Aziz AA, Yeshwanth SK. Carcinoma ex-pleomorphic adenoma of submandibular salivary gland: A case report and review of literature. *J NTR Univ Health Sci* a. 2017;6:185-8.
- [7]. Prajapati BJ, Gupta S, Gupta DP, Prajapati VJ, Shah CK. An Unusual Giant Pleomorphic Adenoma of Submandibular Salivary Gland: A Rare Case Report. *Int J Otorhinolaryngol Clin* 2020;12(1):14-6.
- [8]. Omeje K, Efunkoya A, Amole I, Osunde O, Akhiwu B, Agbara R. Giant pleomorphic adenoma of major salivary glands: A review of ten cases. *African Journal of Medical and Health Sciences* 2016;15(2):92.
- [9]. Baharudin NN, Suhaimi SNA, Rashid NFA, Othman S, Muhammad R. Giant Pleomorphic Adenoma of a Submandibular Gland: A Case Report. *Surg Chron* 2017;22(3): 142-44.
- [10]. Girardi AM, Girardi FM, Dos Santos MO. A giant neglected pleomorphic adenoma of the submandibular salivary gland: a case report. *Clin Biomed Res* 2015;35(1) :59-60.
- [11]. Rai A, Sharma S, Shrivastava P, Singh M. A huge pleomorphic adenoma of the submandibular salivary gland *BMJ Case Rep* 2018. doi:10.1136/bcr-2017-222249
- [12]. Touati M, El Boukhari A, Aljalil A, Chihani M, Zrara I, Ammar H. Adénome pléomorphe géant de la glande sous-mandibulaire chez un enfant. *La Lettre d'ORL et de chirurgie cervico-faciale* 2010;322 :20-2.
- [13]. Perumal CJ, Meyer M, Mohamed A. A giant pleomorphic adenoma of the submandibular salivary gland: a case report. *Craniofacial Trauma & Reconstruction* 2012; 5(3):185-8.
Moussa M, Abba Kaka Hy, Bancolé Pogon Sa, Camara A, Samuila S, Sani R. Adénome Pléomorphe Géant à Localisation Submandibulaire: À Propos d'un Cas. *European Scientific Journal* 2019;15(9):185-91.

LISTE DES FIGURES



Figure 1 : volumineuse tuméfaction latéro-cervicale droite mesurant environ 17 x 14 cm

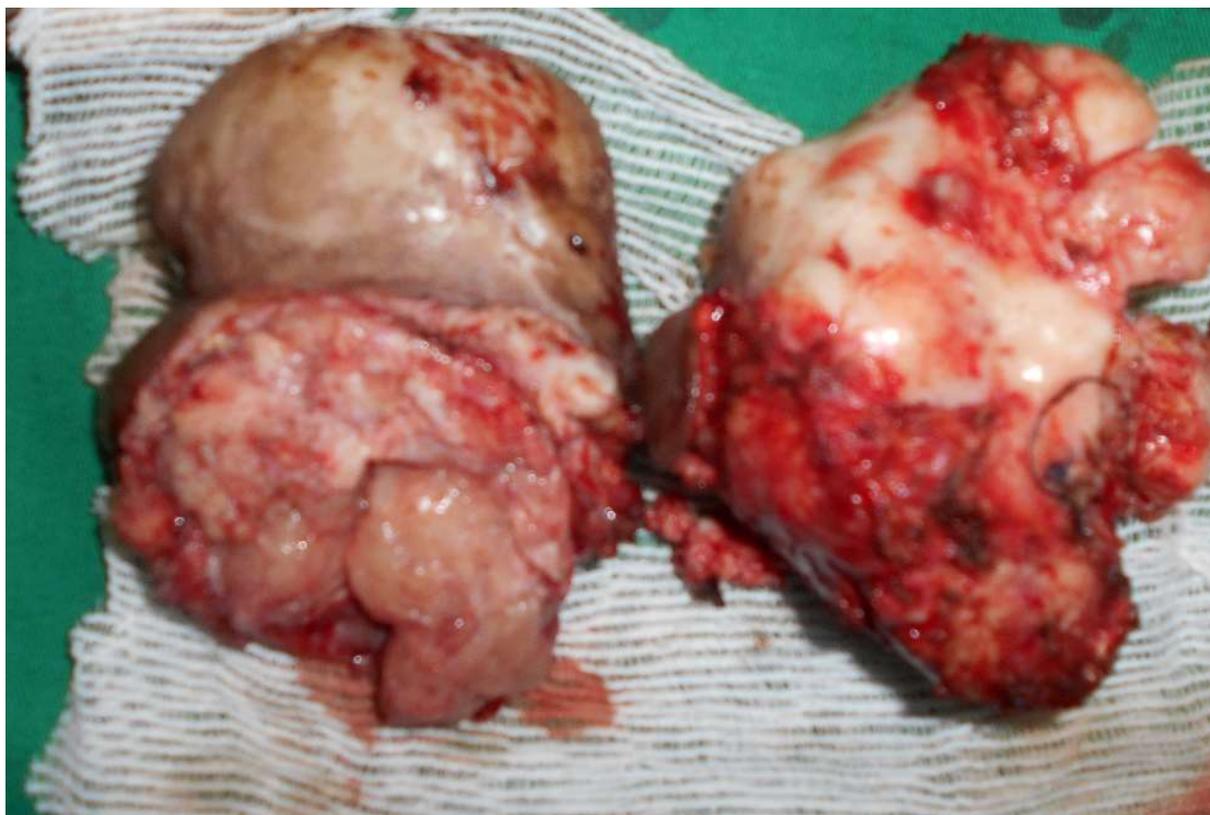


Figure 2 : pièce opératoire, aspect blanchâtre de la tumeur