



Cas Clinique

Carcinome Papillaire de la Thyroïde sur Goitre Ovarien Bilatéral avec Métastases Vertébrales : Une Présentation Exceptionnelle

Papillary Thyroid Carcinoma on Bilateral Struma Ovarii: An Exceptional Presentation

Mendimi Nkodo JM^{1,2}, Ngo Pambe CJ^{3,4}, Mouamba F^{5,6}, Rissia F^{5,6}, Mayemi E^{3,7}, Bopda Ngnie A^{1,5}, Mboudou E^{1,8}, Moukassa D⁵, Atangana PJA⁹

Affiliations

1. Faculté de médecine et des sciences Biomédicales, Université de Yaoundé 1
2. Hôpital Jamot de Yaoundé
3. Faculté de médecine et des sciences Biomédicales, Université de Garoua
4. Hôpital Général de Garoua
5. Faculté des Sciences de la Santé, Université Marien Ngouabi de Brazzaville
6. Centre Hospitalier Universitaire de Brazzaville
7. Hôpital Général de Yaoundé
8. Hôpital Gynéco-Obstétrique et Pédiatrique de Douala
9. Faculté de médecine et des sciences pharmaceutiques, Université de Douala

Auteur correspondant :

Ngo Pambe Christiane Judith
Médecin Anato-morphologiste
Hôpital Général de Garoua. FMSB – Uga. Cameroun
Tél: + 237 690 80 56 68. E-mail : jupambe@yahoo.fr

Mots clés : carcinome papillaire – goitre ovarien – bilatéralité – métastases

Key words: papillary carcinoma – struma ovarii – bilaterality - metastases

RÉSUMÉ

Le cancer thyroïdien sur goitre ovarien est une tumeur très rare. Il représente 0,01 % des tumeurs ovariennes. L'imagerie médicale peut évoquer un tératome, mais n'affirme pas son caractère malin. Le diagnostic de certitude reste histopathologique. La notion de malignité prend en compte les atypies cellulaires, l'invasion vasculaire ou capsulaire. Le carcinome papillaire est le type histologique le plus fréquent. Les auteurs rapportent un cas de carcinome papillaire de la thyroïde sur goitre ovarien avec des métastases vertébrales chez une multipare de 33 ans. Bien qu'exceptionnelles, les métastases osseuses, et la bilatéralité doivent être recherchées en cas de carcinome thyroïdien sur un goitre ovarien.

ABSTRACT

Thyroid cancer on struma ovarii is a very rare tumour of the ovary. It is a degenerated mature monodermal teratoma. Often discovered incidentally, it represents 0.01% of ovarian tumours and 5 to 10% of struma ovarii. Imaging may suggest a teratoma, but cannot formally determine whether it is malignant. The diagnosis of certainty remains histopathological. The notion of malignancy takes into account cellular atypia, nuclear pleomorphism, mitosis, vascular invasion or invasion of the ovarian capsule. Papillary carcinoma is the most common histological type. The authors report a case of papillary thyroid carcinoma on struma ovarii with vertebral metastases in a 33-year-old multiparous. Although exceptional, bone metastases, particularly vertebral metastases, and bilateral locations should be investigated in the presence of thyroid carcinoma developed on struma ovarii, this carcinoma not always has the same nuclear characteristics as lesion on the thyroid itself.

INTRODUCTION

Le goitre ovarien, ou struma ovarii (SO) dans la littérature anglo-saxonne, est une tumeur rare. Il s'agit d'un tératome mature ovarien composé majoritairement (> 50 %) ou exclusivement de tissu thyroïdien (goitre ovarien pur). Ce terme est également consacré aux tératomes matures comportant moins de 50 % de tissu thyroïdien mais dont ce dernier revêt des critères de malignité [1]. Le SO représente moins de 5 % des tératomes matures [2]. Il est très souvent bénin. Une dégénérescence maligne d'un SO est un phénomène rare retrouvé dans 5 à 10 % des cas [3]. En cas de dégénérescence, le carcinome papillaire en est le type histologique le plus fréquent [1]. L'atteinte est généralement unilatérale. Le mode de présentation habituel est celui des tumeurs ovariennes sans aucune

spécificité associant douleur (12 %) et masse abdominale (58 %) à une ascite dans un tiers des cas, ainsi qu'un « pseudosyndrome de Desmond-Meiggs » dans 5 % des cas [4]. La tumeur peut être évoquée par l'imagerie médicale mais le diagnostic de certitude reste histopathologique. Les auteurs rapportent un cas de carcinome papillaire de la thyroïde sur SO de présentation inhabituelle chez une patiente de 33 ans.

PRÉSENTATION DU CAS

Il s'agissait d'une femme de race noire âgée de 33 ans, mère de 3 enfants vivants. Elle consultait pour une impotence fonctionnelle progressive des membres pelviens, accompagnée de douleurs généralisées. La durée de l'évolution de ces symptômes était de 2 mois au moment de la consultation. Le scanner lombo-pelvien

avait mis en évidence de multiples lyses osseuses vertébrales diagnostiquées comme étant des métastases secondaires, associées aux localisations ovariennes bilatérales de lésions suspectes de malignité (figure 1). Sur le plan biologique, l'on retrouvait une hypocalcémie. Le statut sérologique au VIH était négatif. La numération et formule sanguines avait révélé une thrombopénie sévère et une anémie modérée (8,5g/dl) qui a évolué vers une anémie sévère (4g/dl). Les marqueurs tumoraux tels que CA 125, alpha fœtoprotéine et CA 15.3 étaient négatifs. Une hystérectomie totale avec annexectomie bilatérale avait été réalisée. La pièce fixée au formol dilué à 4% puis tamponné à pH neutre était transférée au laboratoire pour analyse histopathologique.

A l'examen macroscopique, cette pièce pesait 528,5 g. Les ovaires étaient augmentés de taille et avaient le même aspect hétéronodulaire avec des zones d'effraction capsulaire sur l'ovaire gauche. Les trompes et l'utérus étaient macroscopiquement normaux. A la coupe, la tranche de section des ovaires montrait des plages de nécrose et d'hémorragie (figure 2). L'examen microscopique des échantillons issus des deux masses ovariennes, colorés à l'hémateine-éosine, montrait une architecture thyroïdienne à différents stades de la vésiculogénèse. Sur plusieurs champs, l'on observait des nappes solides et diffuses et sur d'autres, des aspects papillaires (figure 3). On notait la présence d'emboles vasculaires et d'invasion capsulaire. Les trompes, le corps et le col utérin étaient d'histologie normale. Ces ensembles lésionnels avaient permis de conclure à un carcinome papillaire sur goître ovarien.

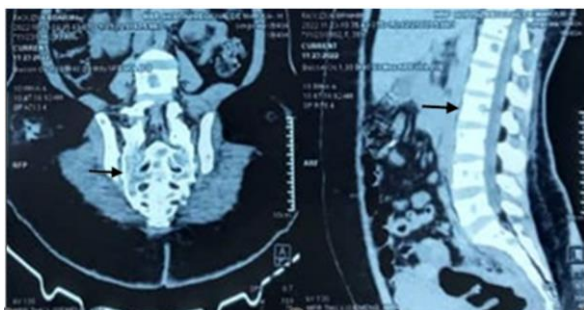


Figure 1: scanner montrant des images de lyses vertébrales métastatiques (flèche noire)

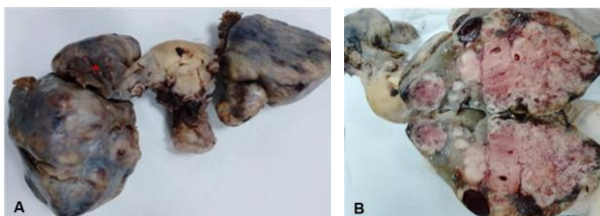


Figure 2 : aspects macroscopiques de la pièce opératoire avec en A l'utérus et ses annexes avec effraction capsulaire sur l'ovaire gauche (étoile blanche) ; en B la tranche de section hétérochrome, charnue (étoile noire), kystique (étoile blanche) et mucineuse (étoile rouge) d'un des ovaires.

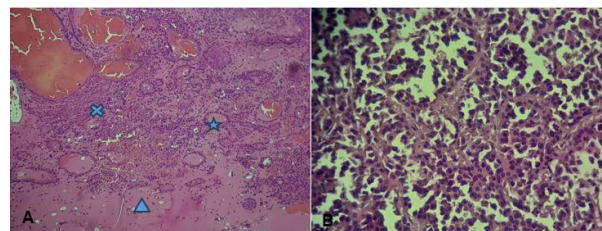


Figure 3 : aspects microscopiques montrant en A une vésicule (étoile), une nappe solide de cellules (croix) et une plage mucineuse et microkystique (triangle) ; coloration hémateine-éosine (Gx10) puis en B une prolifération tumorale maligne d'allure papillaire ; coloration hémateine-éosine (Gx40)

DISCUSSION

Le SO est une tumeur rare qui représente 0,01 % des tumeurs ovariennes. Une transformation maligne est retrouvée dans 5-10 % des cas. Peu de données sont disponibles concernant la prédilection raciale et l'âge au diagnostic. D'après une meta-analyse de 127 publications faites entre 1970 et 2020, les cas observés avaient un âge compris entre 12 et 78 ans et une moyenne de 42,55 ans [5]. Notre patiente âgée de 33 ans appartient cette fourchette d'âge. Dans cette même publication, les différents cas recensés étaient issus de 27 pays. La Chine, les Etats-Unis et l'Espagne occupaient les 3 premières positions avec respectivement 42 (29,37 %), 32 (22,38 %) et 9 cas (6,29%). La majorité des cas étaient rapportés en Asie (45,45 %) et aucun cas en Afrique. On pourrait s'interroger sur l'existence de facteurs génétiques favorisant la survenue de SO malin au sein de la population asiatique. On note cependant quelques cas de SO dans la littérature africaine, notamment celui d'une patiente sans précision d'âge au Maroc en 2016 [6], et un cas de carcinome papillaire de la thyroïde sur SO chez une femme de 58 ans rapporté par Bennani et al. [7].

Le SO est très souvent unilatéral. Il est bilatéral dans moins de 5 % des cas [8]. Sur 143 cas décrits, l'atteinte était majoritairement unilatérale 51,88 % à gauche ; 39,85 % à droite. Seulement 8,27 % de SO intéressaient les deux ovaires [3]. Dans notre cas, l'atteinte était bilatérale.

Il est à noter qu'au moment du diagnostic, la parité de notre patiente était de trois. Yuying Cui et al. ont estimé à 67,24 % le taux de fertilité [3]. Cette préservation de la fertilité serait à l'origine de la controverse concernant la prise en charge. Le traitement le plus conservateur possible est préconisé chez les femmes jeunes avec désir de conception [3-5,8].

Le SO se présente habituellement comme toutes les tumeurs ovariennes: douleur abdominale (12 %) ; masse à l'examen clinique (58 %) ; ascite dans un tiers des cas et «pseudosyndrome de Meigs» dans 5 % des cas [4]. Dans notre cas, la patiente s'est présentée d'emblée à un stade métastatique ce qui a rendu le diagnostic encore plus difficile. Devant cette présentation inhabituelle, les examens réalisés généralement pour apprécier l'extension de la tumeur étaient plutôt été à visée diagnostique.

La tumeur mesurait 12 cm de grand axe à gauche et 10 cm à droite. Nos trouvailles se rapprochent de celles de Yuying Cui et al. qui retrouvaient une taille moyenne de

8,65 ± 4,38 cm [3]. Plusieurs cas de SO ont été décrits comme des tumeurs tantôt solides tantôt kystiques ou une association des deux composantes [1,9,10]. Macroscopiquement, la tumeur que nous avons décrite avait un aspect hétérogène et nodulaire avec des plages de nécrose et d'hémorragie ainsi que des portions mucineuses et des kystes mucineux.

Nous avons à la microscopie une architecture thyroïdienne à différents stades de vésiculogenèse ; des nappes solides et diffuses de cellules, et des aspects papillaires.

Les critères de malignité étaient la présence de cellules folliculaires aux atypies marquées, les mitoses fréquentes, l'existence d'embolies vasculaires et l'invasion capsulaire. Le diagnostic de malignité en cas de SO est souvent difficile car les critères de malignité utilisés dans la thyroïde sont difficilement applicables sur les goitres ovariens. Le critère le plus important de malignité dans la thyroïde est la présence d'invasion, capsulaire et/ou vasculaire. L'invasion capsulaire est très rarement retrouvée car les lésions thyroïdiennes dans les goitres ovariens ne sont qu'exceptionnellement encapsulées et l'angio-invasion est également très rarement retrouvée[4]. Nous avons à la fois l'invasion capsulaire et l'invasion vasculaire ce qui rend notre cas exceptionnel. Concernant les caractéristiques nucléaires spécifiques de type papillaire, considérées comme un signe de malignité dans la thyroïde, cela ne semble pas être vrai dans l'ovaire. De plus, ce critère a été mis en cause d'être à lui seul suffisant pour établir un diagnostic de malignité dans la thyroïde [11]. Actuellement, selon la classification de l'OMS 2017, l'existence de papilles ou d'invasion sont nécessaires pour confirmer la malignité. Ce même critère est appliqué pour les goitres ovariens [4]. D'autres critères d'agressivité tels que la présence de composante d'architecture peu différenciée, une activité mitotique élevée ou la présence de nécrose tumorale sont également à rechercher bien que leur valeur pronostique ne soit pas actuellement établie en raison de la rareté de ces lésions. Tous ces critères étaient présents dans le cas décrit.

Les carcinomes papillaires et vésiculaires sont les types histologiques les plus fréquents [1,7,12], ici, il s'agissait d'un carcinome de type papillaire.

CONCLUSION

Le SO est une tumeur rare de l'ovaire et la forme maligne l'est encore plus. Le diagnostic est fortuit en présence de symptômes habituels de tumeurs ovariennes. Nous avons décrit un cas très particulier tant sur le plan clinique qu'histologique. Ce SO était malin, bilatéral avec une

invasion à la fois vasculaire et capsulaire. Ce cas était métastatique. Bien qu'exceptionnelles, les métastases osseuses, en particulier vertébrales, et les localisations bilatérales doivent être recherchées de façon collégiale, en présence d'un carcinome thyroïdien développé sur le goitre ovarien.

RÉFÉRENCES

1. Wei S, Baloch ZW, LiVolsi VA. Pathology of Struma Ovarii: A Report of 96 Cases. *Endocr Pathol.* 2015 Dec;26(4):342-8. doi: 10.1007/s12022-015-9396-1.
2. Al Hassan MS, Saafan T, El Ansari W, Al Ansari AA, Zirir MA, Farghaly H, Abdelaal A. The largest reported papillary thyroid carcinoma arising in struma ovarii and metastasis to opposite ovary: case report and review of literature. *Thyroid Res.* 2018 Jul 24;11:10. doi: 10.1186/s13044-018-0054-9.
3. Cui Y, Yao J, Wang S, Zhao J, Dong J, Liao L. The Clinical and Pathological Characteristics of Malignant Struma Ovarii: An Analysis of 144 Published Patients. *Front Oncol.* 2021 Mar 5;11:645156. doi: 10.3389/fonc.2021.645156.
4. Lebreton C, Al Ghuzlan A, Floquet A, Kind M, Leboulleux S, Godbert Y. Cancer thyroïdien sur struma ovarii : généralités et principes de prise en charge [Thyroid carcinoma on struma ovarii: Diagnosis and treatment]. *Bull Cancer.* 2018 Mar;105(3):281-289. French. doi:10.1016/j.bulcan.2017.11.014. Epub 2018 Feb 17. PMID: 29459090.
5. Li S, Yang T, Xiang Y, Li X, Zhang L, Deng S. Clinical characteristics and survival outcomes of malignant struma ovarii confined to the ovary. *BMC Cancer.* 2021 Apr 9;21(1):383. doi: 10.1186/s12885-021-08118-7.
6. Meriem Koual, Huyen-Thu Nguyen-Xuan, Jonas Deidier, Marie-Aude Le Frère-Belda, Anne-Sophie Bats, Goitre ovarien ou struma ovarii : une tumeur ovarienne rare à ne pas méconnaître, Volume 6697, Issue 11, 11/2020, Pages 777-846, ISSN 2468-7189, <http://dx.doi.org/10.1016/j.gofs.2020.05.008>
7. Khatchapuridze K, Kekelidze N, Tsitsishvili Z, Mchedlishvili M, Kordzaia D. Papillary thyroid carcinoma in Struma Ovarii. *Gynecol Endocrinol.* 2020 Aug;36(8):749-752. doi: 10.1080/09513590.2020.1725966.
8. Marti JL, Clark VE, Harper H, Chheng DC, Sosa JA, Roman SA. Optimal surgical management of well-differentiated thyroid cancer arising in struma ovarii: a series of 4 patients and a review of 53 reported cases. *Thyroid.* 2012 Apr;22(4):400-6. doi: 10.1089/thy.2011.0162. Epub 2011 Dec 19.
9. Ayhan S, Kilic F, Ersak B, Aytakin O, Akar S, Turkmen O, Akgul G, Toyran A, Turan T, Kimyon Comert G. Malignant struma ovarii: From case to analysis. *J Obstet Gynaecol Res.* 2021 Sep;47(9):3339-3351. doi: 10.1111/jog.14902. Epub 2021 Jul 4.
10. Raiteb H, El Fazazi H, Kouach J, Moussaoui D, Dehayni M. Struma ovarii: un cas rare de kyste ovarien géant [Struma ovarii: a rare case of giant ovarian cyst]. *Pan Afr Med J.* 2017 Apr 25;26:223. French. doi: 10.11604/pamj.2017.26.223.10621.
11. Nikiforov YE, Seethala RR, Tallini G, Baloch ZW, Basolo F, Thompson LD. Nomenclature Revision for Encapsulated Follicular Variant of Papillary Thyroid Carcinoma: A Paradigm Shift to Reduce Overtreatment of Indolent Tumors. *JAMA Oncol.* 2016 Aug 1;2(8):1023-9. doi: 10.1001/jamaoncol.2016.0386.
12. Guebessi NB, Karkouri M. Papillary thyroid carcinoma in struma ovarii: A case report and literature review. *J Afr Cancer Afr J Cancer.* 2015;2(7):140-2.