



Cas Clinique

Carcinome Améloblastique du Maxillaire

Ameloblastic carcinoma of the maxillary

Miloundja Jérôme¹, Atanga Léonel Christophe², Makungu AP³, Alenda Gulefac Gisèle², Lekassa Pierrette¹, Engohan Allogue Catherine⁴, Ivanga Mahiné⁵, Belembaogo Ernest⁵, Nzouba Léon¹

RÉSUMÉ

Une patiente de 22 ans a été admise pour une tumeur du maxillaire à gauche découverte après avulsion dentaire. A l'examen, la tumeur était sous muqueuse, friable, saignant modérément au contact et franchissant la ligne médiane. La tomodensitométrie a montré un processus tumoral tissulaire du maxillaire, musculo-muqueux avec extension au plancher du sinus maxillaire et au palais osseux. La patiente a eu trois interventions chirurgicales pour récurrence et extension tumorale locale. L'examen histologique a évoqué successivement une tumeur bénigne à cellules géantes puis un améloblastome. Le diagnostic de carcinome améloblastique a été établi à la quatrième intervention chirurgicale. Le traitement complémentaire a comporté six cures de chimiothérapie. La patiente était sans récurrence avec un recul de 15 mois.

ABSTRACT

We report the case of a 22 years old female presenting a left maxillary tumor discovered after dental avulsion. On examination, the tumor was submucosal, friable, bleeding on contact and crossing the midline. CT scan showed a tissular process of the left maxillary, extending to the floor of the maxillary sinus and hard palate. The patient underwent three surgical procedures for tumor recurrence and local extension. Histological results firstly suggested a giant cell benign tumor then an ameloblastoma. The diagnosis of ameloblastic carcinoma was established after the fourth surgical operation. The patient had six chemotherapy sessions. Fifteen months after surgery, the patient had no recurrence.

1. Service d'ORL Hôpital d'Instruction des Armées Omar Bongo Ondimba, Libreville-Gabon
2. Département d'ORL- Faculté de Médecine et des Sciences Biomédicales ; Université de Yaoundé I
3. Service de Chirurgie maxillo-faciale Centre Hospitalier Universitaire d'Owendo, Libreville-Gabon
4. Service d'anatomopathologie Hôpital d'Instruction des Armées Omar Bongo Ondimba, Libreville-Gabon
5. Institut de cancérologie de Libreville

Auteur correspondant

ATANGA Léonel Christophe

Mail : atangoleo@gmail.com

Tél : 00237 694 813 781

BP. 337 Yaoundé-Cameroun

Mots-clés : carcinome améloblastique, histopathologie

Key words : ameloblastic carcinoma, pathology

INTRODUCTION

Le carcinome améloblastique est une tumeur maligne d'origine dentaire, siégeant généralement au niveau de la mandibule, caractérisée par son évolution progressive. Il réalise des lésions kystiques d'allure bénignes, tissulaires ulcérées ou lytiques. Les aspects histologiques sont ceux d'un améloblastome associé à des atypies cellulaires [1, 2, 3]. Nous rapportons un cas de carcinome améloblastique secondaire du maxillaire découvert au décours d'une avulsion dentaire et rappelons les difficultés diagnostiques et les principes thérapeutiques.

OBSERVATION

Il s'agit d'une patiente de 22 ans, sans antécédents particuliers, admise le 20/06/13 pour une tumeur maxillaire gauche évoluant lentement depuis 4 ans au décours d'une avulsion de la 13.

A l'examen endobuccal, la tumeur était sous muqueuse, en regard de la 11 et la 12, friable, saignant au contact, franchissant la ligne médiane et mesurant environ 4x5 cm (figure 1). Les fosses nasales étaient perméables ; il n'y avait pas d'atteinte du nerf sous orbitaire et d'adénopathies cervicales. La tomodensitométrie

montrait un processus tumoral tissulaire du maxillaire à gauche, vasculaire, musculo-muqueuse avec extension au plancher du sinus maxillaire et au palais osseux et un dépassement paramédian droit (figure 2).



Figure 1 : Volumineuse tumeur maxillo-palatine gauche avec anarchie dentaire, comblement du vestibule buccal et obstruction buccale.

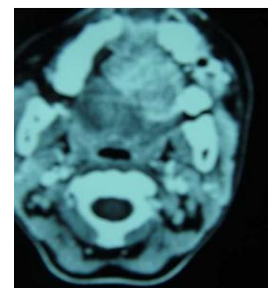


Figure 2 : TDM du massif facial montrant un tumeur maxillaire gauche lytique avec atteinte, géniopalatine et ptérygomaxillaire.

L'analyse anatomopathologique de la pièce de biopsie réalisée le 27/06/2013 était en faveur d'une tumeur bénigne à cellules géantes. La résection tumorale était

réalisée le 17/07/13. L'histologie de la pièce opératoire concordait avec celle de la pièce biopsique.

L'évolution quatre mois plus tard a été marquée, par une récurrence locale motivant une seconde intervention chirurgicale. L'examen histologique de la pièce opératoire n'avait pas été jugé utile.

La tumeur a récidivé localement trois mois après la deuxième intervention.. Les aires ganglionnaires cervico-faciales restaient libres.

Après réunion de concertation pluridisciplinaire à l'Institut de cancérologie, il a été décidé de réaliser une nouvelle résection chirurgicale puis une chimiothérapie. Le résultat histologique de la pièce de la 3e intervention a conclu à un améloblastome. Au cours de la surveillance, une nouvelle récurrence a été notée. A la tomographie, la tumeur était lytique. Elle atteignait tout l'étage moyen de l'hémiface gauche avec atteinte orbito-maxillo-malaire et géniopalatine, extension intraorbitaire, sous temporale et ptérygomaxillaire. Le bilan d'extension n'avait pas trouvé de localisation secondaire.

La patiente a été évacuée au Maroc où une résection large du maxillaire supérieure a été réalisée avec reconstruction du plancher orbitaire gauche. Après cicatrisation, il a été confectionné une prothèse palato dentaire gauche. La pièce opératoire pesait 86 grammes et mesurait 8 x 3 cm. Elle avait un aspect hémorragique et friable. A l'histologie on notait une prolifération tumorale agencée en larges lobules et travées anastomotiques d'aspect basaloïde. Les cellules prenaient un aspect palissadique en périphérie des lobules. Ailleurs, elles étaient polygonales, à cytoplasme tantôt bien défini, tantôt mal défini, d'abondance modérée. Les noyaux étaient anisocaryotiques, volumineux, à chromatine dense ou vésiculeuse avec de gros nucléoles. De nombreux corps apoptotiques étaient observés au sein des amas tumoraux ainsi que nombreuses mitoses, parfois anormales atteignant jusqu'à 8 mitoses par champ au fort grossissement. Il était observé au sein des lobules tumoraux, des cellules éosinophiles enroulées, d'aspect fantomatique avec quelques foyers d'inflexion malpighienne. Le stroma était fibreux et inflammatoire, largement dissocié par des suffusions hémorragiques. Ailleurs, on retrouvait un aspect kystique, bordé d'un revêtement tumoral et une infiltration du tissu osseux maxillaire. Ces aspects étaient compatibles avec un carcinome améloblastique (fig 3).

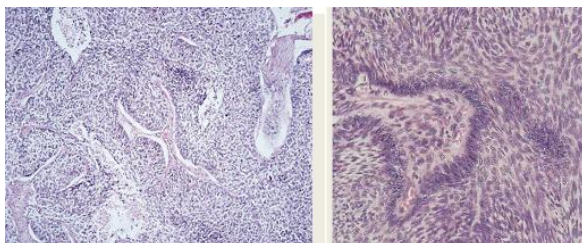


Figure 3 : Histologie de la tumeur réséquée au Maroc
A faible grossissement (X 40). B fort grossissement (X 60)

Six cures de chimiothérapie complémentaire comprenant Adriablastine et cisplatine ont été réalisées à Libreville.

La tomographie du massif facial (figure 4) et l'échographie abdominale réalisées au bout de cinq mois étaient normales. Avec un recul de 15 mois, il n'y avait pas de récurrence locale ni de métastases à distance.

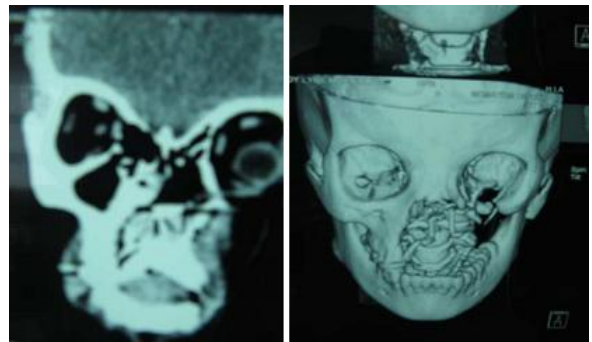


Figure 4 : TDM montrant l'absence de poursuite évolutive et de récurrence tumorale

DISCUSSION

Le carcinome améloblastique est une tumeur odontogène qui se développe aux dépens des reliquats embryonnaires dentaires. Il représente environ 1% des tumeurs des maxillaires [1]. Le carcinome améloblastique peut être primitif ou secondaire à la transformation maligne d'un améloblastome bénin [2]. Il présente des aspects histologiques à la fois d'un améloblastome et d'un carcinome et doit être différencié de l'améloblastome malin caractérisé par des métastases locorégionales ou à distance [3].

Le carcinome améloblastique, chez notre patient, a été découvert après plusieurs interventions d'un améloblastome, ce qui correspond à une forme secondaire. L'âge des patients au moment du diagnostic est variable. Notre patient avait 22 ans et se rapproche des cas rapportés chez les sujets jeunes [4]. Certains auteurs rapportent des cas de carcinomes améloblastiques chez les enfants [5, 6] et chez les sujets âgés [7, 8]. Cependant l'âge moyen est de 30,1 ans, sans prédominance de sexe [9]. La localisation au niveau du 1/3 postérieur de la mandibule est la plus fréquente. Notre patient fait partie des rares cas décrits au niveau du maxillaire [1, 8, 10]. La durée d'évolution est difficile à préciser tant la tumeur évolue lentement. La douleur, le trismus et la dysphagie sont les signes fonctionnels les plus rapportés mais la tuméfaction est le motif de consultation le plus fréquent [9]. L'avulsion dentaire en regard de la tuméfaction peut favoriser la prolifération rapide de la tumeur comme dans notre cas. A l'examen physique, la peau en regard est saine, par contre la muqueuse apparaît bombée et friable avec effacement du cul de sac gingivo-labial et comblement du palais. La tumeur est souvent bosselée, sous muqueuse et saignant au contact, les dents en regard sont mobiles et déplacées [9].

L'imagerie médicale ne montre pas de lésions spécifiques. Dans notre cas, la tumeur était tissulaire. Le seul aspect évoquant la malignité dans ce cas est le caractère vasculaire marqué par la prise importante du produit de contraste. L'imagerie médicale permet d'apprécier l'extension locale et l'existence de

métastases ganglionnaires cervicales et à distance. Ces dernières sont plus fréquentes au niveau des poumons, des os et du cerveau [11].

Le diagnostic différentiel histologique se fait surtout avec d'autres tumeurs odontogènes tels que l'améloblastome qui est caractérisé par la présence sous épithéliale d'îlots de cellules basophiles réparties au sein d'un stroma lâche, hyalinisé ou fibreux avec quelques mitoses et la tumeur bénigne à cellule géantes mais aussi le carcinome épidermoïde prenant naissance dans le revêtement d'un kyste odontogène. Certains marqueurs immunohistochimiques tels que la cytokeratine 14, la vimentine et l'index de prolifération cellulaire permettent de confirmer le diagnostic du carcinome améloblastique [6,12].

Le traitement du carcinome améloblastique fait appel à une équipe multidisciplinaire comprenant les chirurgiens cervico maxillo faciaux, le chirurgien dentiste, l'oncologue et le radiothérapeute. L'exérèse chirurgicale large est le premier temps thérapeutique. Les marges d'exérèse osseuse se situent entre 10 et 15 mm en cas de carcinome améloblastique secondaire et moins de 10 mm pour le carcinome améloblastique primaire en raison de leur agressivité plus réduite [12, 13]. Ces exérèses entraînent des mutilations importantes du massif facial et nécessitent parfois une réparation par une prothèse obturatrice ou des lambeaux micro anastomosés. Le curage ganglionnaire cervical est indiqué lorsqu'il existe des adénopathies cliniques ou radiologiques [12]. La place de la radiothérapie et de la chimiothérapie reste controversée. La radiothérapie préopératoire est proposée par certains auteurs pour réduire le volume tumoral ou lorsque la croissance a été rapide [14]. La radiothérapie post opératoire est recommandée en cas d'envahissement des marges d'exérèse, d'envahissement périnerveux et ganglionnaire, d'extension extracapsulaire ou lorsque la chirurgie est insuffisante [15]. La chimiothérapie n'a pas fait la preuve de son efficacité, elle est cependant utilisée pour réduire et contrôler les métastases à distance [16]. Coulibaly et al [10] ont utilisé la radiothérapie et la chimiothérapie concomitante chez deux patients opérés l'un d'un carcinome améloblastique primitif du maxillaire et l'autre d'un carcinome améloblastique secondaire de la mandibule avec des résultats satisfaisants. Notre patiente a eu la chimiothérapie post opératoire et ne présente pas de récurrences locales ou de métastases.

Le pronostic est dominé par le risque de survenue de récurrence, à court ou long terme, en particulier lors que l'exérèse chirurgicale initiale est insuffisante. Dans une revue de la littérature [12], ces récurrences surviennent entre 3 et 151 mois avec une moyenne de 47,5 mois. La fréquence de ces récurrences est corrélée au taux de survenue de métastase et de mortalité [12]. Ces données imposent donc une surveillance longue.

CONCLUSION

Le carcinome améloblastique est une tumeur agressive, notamment, dans sa localisation maxillaire. Aucun aspect clinique ne permet de préjuger de son caractère malin,

tant la lésion peut être kystique d'allure bénigne ou présenter une masse tissulaire avec ulcérations. Les aspects histologiques sont variables ce qui rend le diagnostic difficile. Le traitement consiste en une chirurgie large associée à un curage ganglionnaire dans certains cas et complété par la radiothérapie. La place de la chimiothérapie mérite d'être précisée par des études multicentriques. Enfin, la reconstruction postopératoire est indispensable pour améliorer le préjudice esthétique.

RÉFÉRENCES

1. Franca DCC, Moreira JM Jr, De Aguiar SM, De Carvalhos AA, Goiato CC. Amaloblastic carcinoma of maxilla: a case report. *Oncology letters* 2012; 4:1297-1300.
2. Shafer WG, Hine MK, Levy BM, editors. A textbook of oral pathology. 4th ed. Philadelphia: WB Saunders Co.; 1983. p. 280-1.
3. Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. Odontogenic carcinomas. World Health Organization classification of Tumours. Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours. IARC Press: Lyon 2005; 287-93.
4. Sastre J, Munoz M, Naval L, Adrados M. Ameloblastic carcinoma of the maxilla: report of case. *J Oral Maxillofac Surg* 2002; 60: 102-4.
5. Ajayi OF, ladeinde AL, Adeyeno WL, et al. odontogenic tumors in Nigerian children and adolescents: a retrospective study of 92 cases. *World J Surg Oncol* 2004; 2: 39-43.
6. Yazici N, Karagoz B, Varan A, et al. Maxillary ameloblastic carcinoma in a child. *Pediatr Blood cancer*. 2008; 50: 175-6.
7. Avon SL, McComb J, Clokie C. ameloblastic carcinoma: case report and literature review. *J Can Dent Assoc* 2003; 69:573-6.
8. Dhir K, Sciubba J, Tufano RP: Ameloblastic carcinoma of the maxilla. *Oral Oncol* 2003; 39: 736-41.
9. Corio LR, Goldblatt LI, Edwards PA, Hartman KS. Ameloblastic carcinoma: a clinicopathologic study and assessment of eight cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987; 64:570-6.
10. Coulibaly B, Le Hémon A, Sorbier C, George L, Blanc JL, Fernandez C. Carcinome améloblastique : primitif ou secondaire ? *Ann Pathol* 2009; 1: 28-31.
11. Benlyazid A, Lacroix-Triki M, Azia R, et al: Ameloblastic carcinoma of the maxilla: case report and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endoc*. 2007; 104:17-24.
12. Uzawa N, Suzuki M, Miura C, Timomatsu N, Izumo T, Harada k. Primary ameloblastoma carcinoma of the maxilla: a case report and literature review. *Oncology Letters* 2014; 31:459-67.
13. Casaroto AR, Toledo GL, Filho JL, et al. Ameloblastic carcinoma, primary type: case report, immunohistochemical analysis and literature review. *Anticancer Res* 2012; 32:1515-25.
14. Ozlugedik S, Ozcan M, Basturk O, Deren O, Kaptanoglu O, Adanali G, Una A. Amaloblastic carcinoma arising from anterior skull base. *Skull Base* 2005; 15: 269-72.
15. Philip M, Morris CG, Werning JW, Mandernall WM. Radiotherapy in the treatment of ameloblastoma and ameloblastic carcinoma. *JHK Coll Radiol* 2005; 8: 157-61.
16. Lanham RJ: Chemotherapy of metastatic ameloblastoma. A case report and review of the literature. *Oncology* 1987; 44: 133-4.