



Cas Clinique

Prise en Charge du Lymphangiome Kystique Intra-Parotidien Exofacial de l'Enfant

Management of childhood exofacial intraparotid cystic lymphangioma

A DO Santos Zounon¹, UB Vodouhe¹, A Gbaguidi-Mekire¹, F Avakoudjo¹, W Adjibabi¹,
B Vignikin-Yehouessi¹

1. Faculté des Sciences de la Santé,
Université d'Abomey-Calavi ;
Cotonou ; Bénin

Correspondance: DO Santos Zounon
Alexis

Praticien Hospitalier ORL-CCF,
HIA-CHU-Cotonou, Bénin

Tél: 00229 97822748 E-mail:
azdosantos@yahoo.fr

Mots clés : lymphangiome kystique,
parotidectomie exofaciale, nerf facial,
récidive chirurgicale.

Key words: cystic lymphangioma,
exofacial parotidectomy, facial nerve,
surgical recurrence.

ABSTRACT

But. Rapporter les aspects diagnostiques et discuter les modalités de prise en charge chirurgicale face au lymphangiome kystique parotidien exofacial de l'enfant. **Observations.** Nous rapportons deux cas cliniques de lymphangiome kystique intra-parotidien exofacial. Les enfants ont été reçus, traités et suivis dans deux hôpitaux universitaires de Cotonou. La première observation est celle d'un garçon de 2 ans, suivi depuis la naissance pour une tuméfaction latéro-cervicale gauche. L'échographie a évoqué un lymphangiome kystique intra-parotidien confiné au lobe exofacial. Une parotidectomie exofaciale gauche a été réalisée. L'examen histo-pathologique de la pièce opératoire a confirmé le diagnostic de lymphangiome kystique intra-parotidien. Les suites opératoires ont été simples. L'évolution post-thérapeutique a été favorable avec un recul de quatre ans. La deuxième observation est celle d'une fille de dix ans suivie pour une tuméfaction de la région parotidienne droite. L'échographie cervicale a mis en évidence une poche kystique aux dépens du lobe externe de la glande parotide. Une parotidectomie exofaciale droite a été effectuée. L'examen anatomopathologique de la pièce opératoire a objectivé un lymphangiome kystique intra-parotidien. Les suites opératoires ont été simples. Il n'y a pas eu de récurrence après quatre ans de suivi post-thérapeutique. **Conclusion.** Le lymphangiome kystique intra-parotidien de l'enfant est une malformation rare. Lorsqu'il est confiné au lobe exofacial, une parotidectomie partielle est possible avec de bons résultats. Toutefois le risque de récurrence impose un suivi au long court.

RÉSUMÉ

Objective. To report the diagnostic aspects and discuss the surgical management modalities for exofacial parotid cystic lymphangioma in children. **Case presentation.** We report two clinical cases of exofacial intra-parotid cystic lymphangiomas. The children were received, treated and followed in two university hospitals in Cotonou. The first case is that of a 2-year-old boy, followed from birth for left lateral cervical swelling. The ultrasound suggested an intra-parotid cystic lymphangioma confined to the exofacial lobe. A left exofacial parotidectomy was performed. Histopathological examination of the operative specimen confirmed the diagnosis of intra-parotid cystic lymphangioma. The postoperative follow-up was straightforward. The post-treatment course was favorable with a follow-up of four years. The second case is that of a ten-year-old girl followed for swelling in the right parotid region. The cervical ultrasound showed a cystic pocket at the expense of the outer lobe of the parotid gland. A right exofacial parotidectomy was performed. Pathological examination of the surgical specimen revealed an intra-parotid cystic lymphangioma. The postoperative follow-up was straightforward. There was no recurrence after four years of post-treatment follow-up. **Conclusion.** Childhood intraparotid cystic lymphangioma is a rare malformation. When confined to the exofacial lobe, partial parotidectomy is possible with good results. However, the risk of recurrence requires long-term follow-up.

INTRODUCTION

Le lymphangiome kystique est une malformation congénitale type dysembryoplasie portant sur le système lymphatique. Son siège est cervico-facial fréquent, jamais cérébral. Sa localisation primitive dans parotide est rare [1]. Lorsqu'elle est strictement confinée à la couche superficielle de la parotide, une exérèse par

parotidectomie exofaciale est discutée car le risque sur le nerf facial est plus élevé en cas de reprise chirurgicale [2]. Nous rapportons deux cas cliniques de lymphangiome kystique intra-parotidien suivis et traités dans deux hôpitaux universitaires de Cotonou. Le but du travail est de mettre en exergue quelques aspects diagnostiques et de discuter la démarche thérapeutique.

PATIENTS ET MÉTHODES

Les deux cas cliniques ont été traités en 2017 dans deux centres hospitaliers et universitaires du Bénin à savoir l'hôpital de zone de Suru-Léré et l'hôpital d'Instruction des Armées de Cotonou.

Observation N°1

Garçon âgé de 2 ans suivi depuis la naissance pour une tuméfaction latéro-cervicale siégeant en région parotidienne gauche, rénitente, indolore, non compressive, mesure 6 centimètres x 4 centimètres, à peau de revêtement normale. La motricité faciale était conservée.

L'échographie cervicale réalisée a évoqué un lymphangiome kystique de la parotide en objectivant une formation multikystique aux dépens du lobe superficiel de la parotide. Cette formation était hypervascularisée avec des cloisons intra-kystiques fines. Il n'y avait pas d'adénomégalie cervicale.

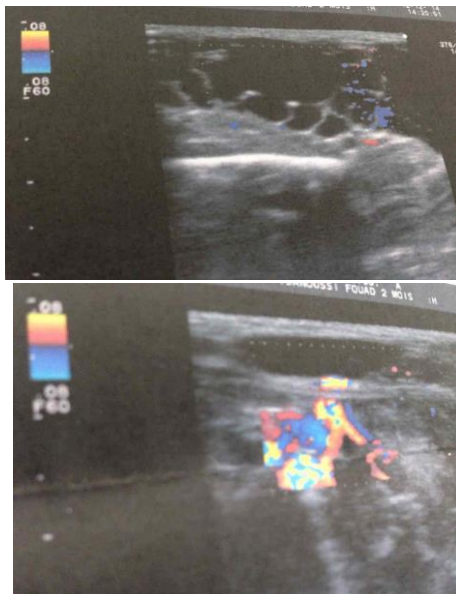


Fig 1 : Cloisonnement et hypervascularisation du lymphangiome kystique à l'échographie

Le patient a bénéficié d'une parotidectomie exofaciale gauche. L'examen histo-pathologique a confirmé le lymphangiome kystique. Les suites opératoires ont été simples. L'évolution a été favorable, marquée par l'absence de récurrence avec un recul de quatre ans.



Fig 2 : Photographie à 11 mois post-opératoire

Observation N°2

Fille de dix ans qui a constaté depuis six mois une tuméfaction de la région parotidienne droite augmentant progressivement de volume, indolore, ferme, homogène, 5 cm x 4 cm, à peau de revêtement normale. L'auscultation de cette tuméfaction n'objective pas de souffle.



Fig 3 : Photographie pré-opératoire

La région parotidienne controlatérale était normale ainsi que la motricité faciale. Le bilan inflammatoire biologique était normal.

L'échographie cervicale a objectivé une formation ovale kystique intra-parotidien confiné au lobe exofacial avec un aspect hypo-échogène hétérogène, une hypervascularisation ainsi que des travées fines cloisonnant la masse. La patiente a bénéficié d'une parotidectomie exofaciale droite.



Fig 4a: Photographie à J2 post-opératoire



Fig 4b : Photographie à J4 post-opératoire

L'examen anatomopathologique de la pièce opératoire a confirmé le lymphangiome micro-kystique de la parotide. Les suites opératoires ont été simples. L'évolution est

favorable marquée par l'absence de récurrence avec un recul de quatre ans.

DISCUSSION

Le lymphangiome kystique encore appelé hygroma kystique est une malformation congénitale bénigne. Bien que tous les auteurs s'accordent sur sa rareté, différentes incidences ont été rapportées. Ainsi les lymphangiomes kystiques représenteraient 5% à 25% des tumeurs vasculaires et 6% tumeurs des bénignes de l'enfant. Tous âges confondus, l'incidence serait de 0,8 % des tumeurs bénignes et de 0,1 % des tumeurs bénignes cervico-faciales [3]. Ceci revient à un à dix cas par an dans les séries d'oto-rhino-laryngologie pédiatrique. Environ 50 % des lymphangiomes sont apparents dès la naissance et 70 à 90 % sont apparents avant l'âge de 2 ans [3]. Dans la série d'étude le diagnostic a été suspecté depuis la naissance chez le premier patient alors qu'il a été posé vers l'âge de 10 ans chez le second. La localisation cervico-faciale est la plus fréquente, représentant jusqu'à 75% des cas [4]. Le siège primitif intra-parotidien est rarement rapporté dans la littérature [5]. Il n'y a aucune préférence droite ou gauche et il n'existe aucun facteur de risque en ce qui concerne le sexe, la race ou d'autres malformations [6]. Les circonstances de découverte ont été une tuméfaction parotidienne dans les deux cas rapportés. Cette tuméfaction étant présente à la naissance dans un cas et découverte vers l'âge de 10 ans dans l'autre. La motricité faciale était normale. Dans la littérature, la découverte chez l'adulte est rare [7]. Les signes cliniques sont fonction de la taille et de la topographie. Mais le maître-symptôme est la tuméfaction cervico-faciale apparue en dehors de tout contexte infectieux ou traumatique [8]. Des signes de compression à type de dyspnée, dysphagie, dysphonie en rapport avec le volume tumoral important. L'évolution naturelle est également émaillée de surinfection, de poussées inflammatoires ou hémorragiques [5]. L'échographie a été le seul examen d'imagerie réalisé chez les deux patients rapportés. Elle se fait en première intention et précise le siège parotidien de la tuméfaction ainsi que la caractéristique liquidienne ou tissulaire de la masse, son cloisonnement fin ou épais. L'échographie évoque ainsi le diagnostic et étudie son extension et ses rapports avec organes de voisinage. Le doppler permet de mettre en évidence l'hyper-vascularisation de la lésion. L'imagerie par résonance magnétique permet une bonne exploration du lobe parotidien profond ainsi qu'un meilleur bilan d'extension locale. La sanction chirurgicale s'impose car le risque de dégénérescence maligne n'est pas nul et la pièce opératoire est nécessaire pour le diagnostic anatomopathologique. De toute façon, le préjudice esthétique que cause les masses cervico-faciales en général est une raison suffisante pour leur ablation chirurgicale [9]. Le principe thérapeutique est l'exérèse chirurgicale complète de la tumeur [8]. Une parotidectomie totale systématique est conseillée par certains auteurs du fait du risque de lésion faciale lors d'une éventuelle reprise opératoire. La reprise opératoire est plus fréquente en cas d'exérèse incomplète. En fait le risque de récurrence est faible après exérèse

complète d'une tumeur de nature bénigne. Nous convenons avec Mubarak Ahmed Mashrah et al. que la parotidectomie exofaciale en est le traitement de choix car elle offre un équilibre acceptable entre l'incidence de la récurrence tumorale et le dysfonctionnement du nerf facial [10]. Dans les deux cas exposés, aucune récurrence n'a été constatée après quatre années de suivi post-chirurgical. Ils ont bénéficié d'une parotidectomie superficielle qui est de réalisation plus simple avec moins de complications opératoire et moins de risque de lésion du nerf facial [11]. Sa réalisation en ambulatoire est bien démontrée par plusieurs études antérieures [12- 14]. Elle permet de plus une réduction du temps opératoire. Il y a quelques années l'abstention thérapeutique et surveillance était recommandée. Certains auteurs ont ainsi rapporté une notion de régression spontanée dans 15% des cas [15]. D'autres moyens thérapeutiques tels que la radiothérapie, le drainage écho-guidée, la vaporisation au laser et la sclérothérapie par injection intraveineuse de cyclophosphamide ont été signalées dans la littérature mais ne font pas l'unanimité parmi les auteurs [16, 17].

CONCLUSION

Le lymphangiome kystique intra-parotidien de l'enfant est une malformation rare. Il se révèle par une tuméfaction indolore multi-kystique en région parotidienne. Sa prise en charge est chirurgicale avec examen histologique. Lorsqu'il est confiné au lobe externe, l'exérèse par parotidectomie exofaciale donne de bons résultats en ce qui concerne la tolérance chirurgicale et l'intégrité du nerf facial. Toutefois la surveillance post-opératoire au long court s'impose car il s'agit d'une lésion récidivante.

Conflit d'intérêt : Aucun

RÉFÉRENCES

- 1- Rezgui-Marhoul L, Hendaouri L. Lymphangiome kystique cervical, diagnostic prénatal. Presse Med 2005, Masson, Paris.
- 2- Renato Fortes Bittar, Homero Penha Ferraro, Marcelo Haddad Ribas, Carlos Neutzling Lehn. Facial paralysis after superficial parotidectomy : analysis of possible predictors of this complication. Braz J Otorhinolaryngol. 2016 ; 82(4) : 447-51. doi: 10.1016/j.bjorl.2015.08.024.
- 3- Oosthuizen JC, Burns P, Russel JD. Lymphatic malformations : a proposed management algorithm. Int J Pediatr Otorhinolaryngol.2010;74 :398-403
- 4- Khamassi K, Mahfoudhi M, Lymphangiome kystique de la parotide. Pan African Medical Journal. 2015 ; 20 :443
- 5- Mukakala A, Banza M, Musapudi E, Lubosha N, Kasanga T, Nafatalewa D et al. Lymphangiome kystique du cou chez un adulte jeune : à propos d'un cas et revue de littérature. Pan Afr Med J. 2020 ; 36 :54
- 6- Miloundja J, Manfoumbi Ngoma A B, Mba Ella R, Nguema Edzang B, N'Zouba L. Lymphangiomes kystiques cervicofaciaux de l'enfant au Gabon. Ann Otolaryngol Chir Cervico Faciale 2007, 124(6) :277-284
- 7- Sakthivel Chinnakkulam Kandhasamy, Thangadurai Ramasamy Raju, Ashok Kumar Sahoo, Gopalakrishnan Gunasekaran. Adult cystic lymphangioma of the parotid gland : An unwonted presentation. Cureus 2018 ; 10(5) : e2644. DOI 10.7759/cureus.26
- 8- Gedikbasi A, Orzatahan K, Aslan G, Demirali O, Akyol A, Sargin A et al. Multidisciplinary approach in cystic

- hygroma : prenatal diagnosis, outcome, and postnatal follow-up. *Pediatr Int* 2009 ; 51 :670-677
- 9- Volkan Erikci, Münevver Hosgör. Management of congenital neck lesions in children. *J Plast Reconstr Aesthet Surg* 2014 ; 67(9) : e217-22. doi: 10.1016/j.bjps.2014.05.018.
 - 10- Mubarak Ahmed Mashrah, Hesham Mohammed Al-Sharani, Maged Ali Al-Aroomi, Ahmed Abdelrehem, Taghrid Aldhohrah, Liping Wang. Surgical interventions for management of benign parotid tumors: Systematic review and network meta-analysis. *Head Neck* 2021; 43(11): 3631-3645. doi: 10.1002/hed.26813.
 - 11- Daniel J. Lee, David Forner, Christopher End, Christopher M.K.L. Yao, Shireen Samargandy, Eric Monteiro, Ian J. Witterick, Jeremy L. Freeman. Outpatient versus inpatient superficial parotidectomy: clinical and pathological characteristics. *Journal of Otolaryngology – Head and Neck Surgery* 2021 ; 50:10 <https://doi.org/10.1186/s40463-020-00484-9>
 - 12- Siddiqui SH, Singh R, Siddiqui E, Zhao EH, Eloy JA, Baredes S, et al. Outpatient versus inpatient parotidectomy: comparison of postoperative complication rates. *Laryngoscope*. 2019;129(3):655–61.
 - 13- Van Horn AJ, Goldman RA, Charnigo RJ, Johnson KC, Valentino J, Aouad RK. Outpatient versus observation/inpatient parotidectomy: patient factors and perioperative complications. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2017;274(9):3437–42.
 - 14- Ziegler A, Lazzara G, Thorpe E. Safety and efficacy of outpatient Parotidectomy. *J Oral Maxillofac Surg*. 2018;76(11):2433–6.
 - 15- Alqahtani A, Nguyen LT, Flageole H, Shaw K, Laberge J-M. 25 years' experience with lymphangiomas in children. *J Pediatr Surg* 1999 ; 34 (7) : 1164-1168
 - 16- Perkins JA, Manning SC, Tempero RM, Cunningham MJ, Edmonds JL, Hoffer FA et al. Lymphatics malformations : Review of current treatments. *Otolaryngol Neck Surg* 2010, 14(6) :795-803
 - 17- Boardman SJ, Cochrane LA, Roebuck D, Elliot MJ, Hartley BE. Multimodality treatment of pediatric lymphatic malformations of the neck using surgery and sclerotherapy. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2010 136(3) : 270-6. doi: 10.1001/archoto.2010.6