



LA LOCALISATION INTRA-OSSEUSE DU CARCINOME MUCOÉPIDERMOÏDE: RAPPORT D'UN CAS CLINIQUE. INTRAOSSEOUS MUCOEPIDERMOID CARCINOMA: CASE REPORT.

C. Mahad, L. Kissi, M. Mahtar*, I. Ben Yahya

Service d'Odontologie Chirurgicale, CCTD, CHU Ibn Rochd Casablanca, Maroc.

* Service ORL, CHU Ibn Rochd Casablanca, Maroc

RÉSUMÉ:

Le carcinome mucoépidermoïde (CME) est la tumeur maligne la plus courante des glandes salivaires. Cet article rapporte le cas d'une patiente qui présente un carcinome mucoépidermoïde infiltrant de faible grade de malignité localisé au niveau mandibulaire gauche. La forme intra-osseuse est rarement observée. Elle est localisée dans la partie postérieure de la mandibule (2 à 4% des CME présentent une localisation intra-osseuse). Sur la radiographie la lésion se présente sous forme d'une image radioclaire, uni ou multiloculaire. Plusieurs théories ont été décrites dans la littérature pour expliquer le processus pathologique de cette tumeur. Le diagnostic du CME repose sur la radiographie et sur l'histopathologie. La chirurgie radicale demeure la meilleure option thérapeutique avec un pronostic favorable.

MOTS CLÉS:

carcinome, mucoépidermoïde, mandibule.

INTRODUCTION:

Les glandes salivaires peuvent être l'origine de nombreuses lésions bénignes et surtout malignes [1]. Le carcinome mucoépidermoïde (CME) est la tumeur maligne la plus courante des glandes salivaires dont la localisation fréquente est la glande parotide, les glandes salivaires mineures du palais, les glandes sous-maxillaires et les glandes sublinguales. Il peut présenter une localisation intra osseuse essentiellement mandibulaire et représente 2 à 4% de tous les carcinomes mucoépidermoïdes [2]. Dans cet article nous présentons le cas particulier d'un CME avec localisation intra-osseuse mandibulaire gauche.

OBSERVATION:

Nous rapportons le cas d'une patiente âgée de 73 ans, avec un bon état général apparent, qui a consulté pour une tuméfaction mandibulaire gauche évoluant depuis 3 ans, associée à des épisodes douloureux intermittents. A l'interrogatoire la patiente révèle qu'une biopsie au niveau du même site a été réalisée 3 ans auparavant dont l'examen anatomopathologique avait conclu à un kyste odontogène. (fig.1)

ABSTRACT:

Mucoepidermoid carcinoma (MEC) is the most common malignant tumor of the salivary glands. This article reports the case of an infiltrative mucoepidermoid carcinoma of low grade of malignancy, located at the left side of the mandible. The intra-osseous development is rare (only 2% to 4% of MECs could be detected in the jaw), and is usually seen affecting the mandible as uni- or multi-locular radiographic lesions. Several theories have been described in the literature to explain the pathological process of this tumor. The diagnosis of CME is based on radiography and histopathology. Radical surgery remains the best therapeutic option with a favorable prognosis.

KEY WORDS:

carcinoma, mucoepidermoid, mandible

INTRODUCTION:

The salivary glands can be the source of many benign and especially malignant lesions [1]. Mucoepidermoid carcinoma (MEC) is the most common malignant tumor of the salivary glands, frequently located in the parotid gland, minor salivary glands of the palate, submaxillary glands, and sublingual glands. It can present an essentially mandibular intraosseous localization and represents 2 to 4% of all mucoepidermoid carcinomas [2]. In this article we present the particular case of a mandibular MEC with intraosseous localization.

CASE REPORT:

We report the case of a 73-year-old patient, with a good general condition, who consulted for a left mandibular tumefaction evolving for 3 years, associated with intermittent painful episodes. During the interview, the patient revealed that a biopsy at the same site was performed 3 years previously, whose pathological examination had concluded to an odontogenic cyst. (Fig.1)

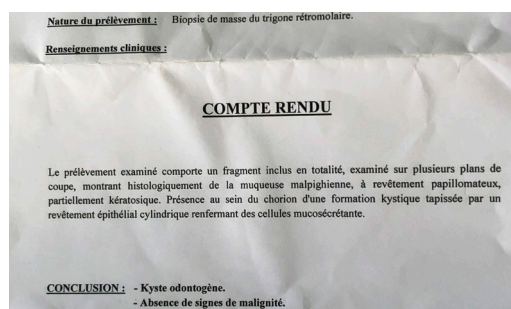


Fig. 1 : Résultat examen histopathologique datant de 3 ans
Fig. 1 : Result of the histopathological examination dating back 3 years

A l'examen clinique exobuccal, on note une symétrie faciale respectée et une absence d'adénopathies à la palpation des aires ganglionnaires. (fig.2,3)



Fig. 2 : Vue de face
Fig. 2 : Front view

On exobuccal examination, facial symmetry is respected and no lymphadenopathy is noticed on the palpation. (Fig.2,3)



Fig. 3 : Vue de profil
Fig. 3 : Profile view

L'examen endobuccal relève une tuméfaction mandibulaire gauche dans la région rétromolaire recouverte par une muqueuse bourgeonnante par endroit. Il s'agit d'une tuméfaction ferme, douloureuse et ne saignant pas à la palpation. (fig.4)

The endobuccal examination revealed a left mandibular swelling in the retromolar region covered by a budding mucosa by location. It is a firm, painful swelling that does not bleed on palpation. (Fig. 4)

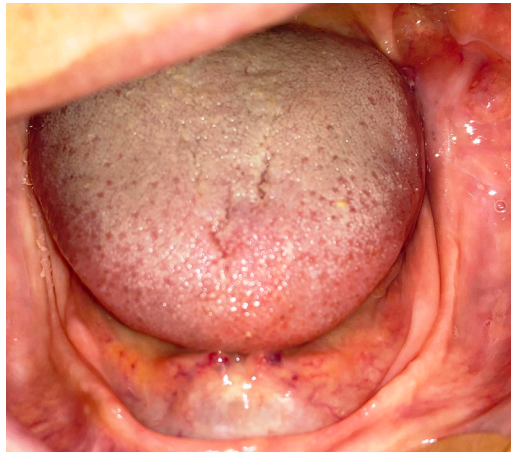


Fig. 4 : Vue endobuccale. Tuméfaction mandibulaire gauche
Fig. 4 : Endobuccal view. Left mandibular swelling

La radiographie panoramique révèle une image radio-claire bien limitée dans l'angle mandibulaire à proximité du nerf alvéolaire inférieur, avec présence de géodes en avant de la lésion. (fig.5)

The panoramic X-ray reveals a well-circumscribed radiolucent image in the mandibular angle near the inferior alveolar nerve, with the presence of geodes in front of the lesion. (Fig.5)

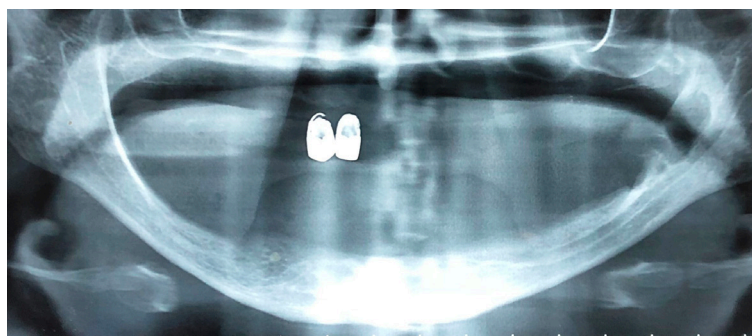


Fig. 5: Radiographie panoramique : ostéolyse dans la région rétro-molaire mandibulaire gauche
Fig. 5: Panoramic radiograph: osteolysis in the posterior left mandibular region

L'examen tomodensitométrique en coupes coronales montre une ostéolyse avec une rupture de la corticale interne gauche mandibulaire. (fig.6)

Computed tomography examination in coronal sections shows osteolysis with rupture of the left mandibular inner cortex. (Fig.6)

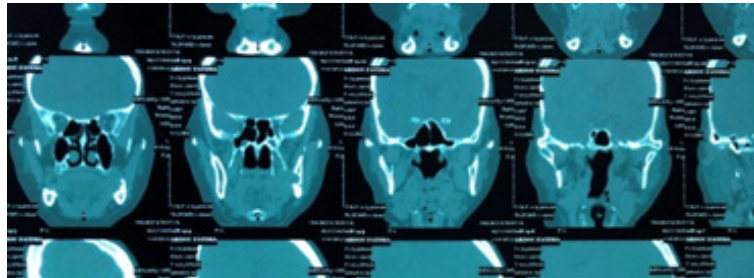


Fig. 6 : Scanner, coupes coronales : rupture de la corticale interne gauche mandibulaire

Fig. 6 : CT scan, coronal slices: fracture of the mandibular left bone cortex

Au terme des examens cliniques et radiographiques, le diagnostic évoqué à ce stade était soit un améloblastome, un kératocyste ou un kyste résiduel. La prise en charge a consisté en l'exérèse de la lésion. (fig.7)

The diagnosis mentioned at this stage was either an ameloblastoma, a keratocyst or a residual cyst. The treatment consisted in the excision of the lesion. (fig.7)

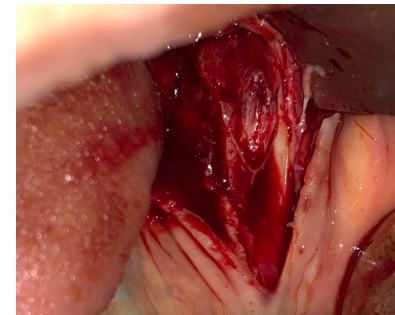
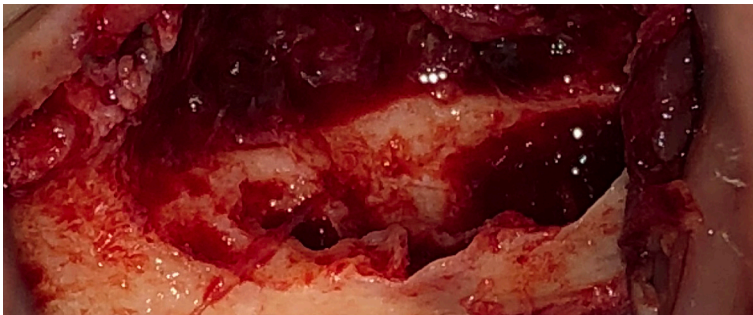


Fig. 7 : Exérèse de la tumeur

Fig. 7 : Excision of the tumor

La pièce opératoire a été envoyée pour un examen anatomopathologique dont le résultat était en faveur d'un carcinome mucoépidermoïde infiltrant de faible grade de malignité. (fig.8,9)

The surgical specimen was sent for anatomopathological examination, which resulted in an invasive mucoepidermoid carcinoma of low grade malignancy. (Fig.8,9)



Fig. 8 : Pièce opératoire

Fig. 8 : Operative piece

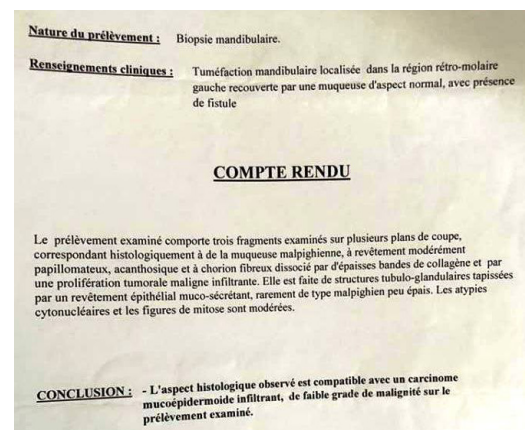


Fig. 9: Compte rendu de l'examen anatomopathologique

Fig. 9: Result of the pathological examination

Le contrôle à 3 semaines a montré une bonne cicatrisation du site. (Fig.10)

Check-up at 3 weeks showed good healing of the site. (Fig.10)

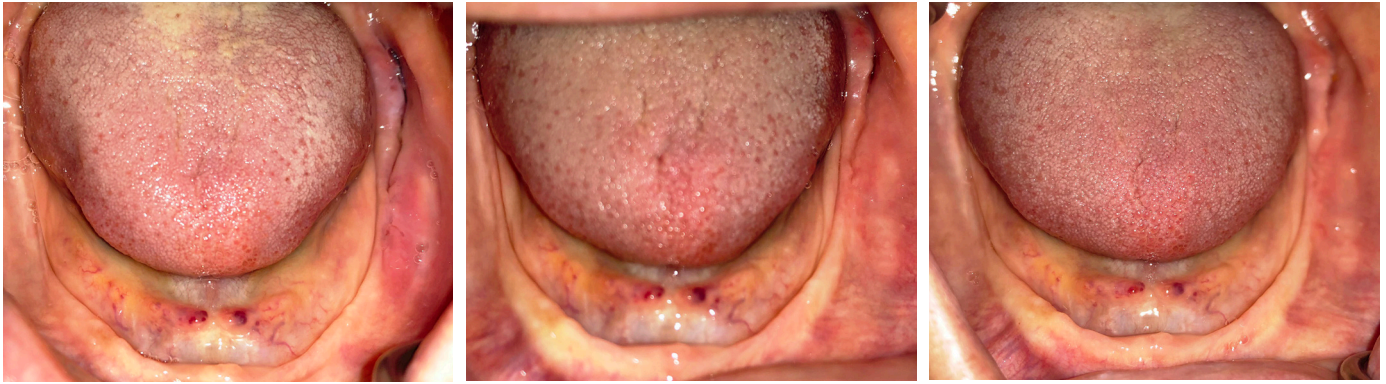


Fig. 10 : Contrôle: 1 semaine, 3 semaine, 6 semaine

Fig. 10 : Check-up: 1 week, 3 weeks, 6 weeks

La patiente a été ensuite adressée au service d'ORL où elle a bénéficié d'une exérèse de la tumeur avec hémimandibulectomie gauche associée à un curage ganglionnaire bilatéral. (Fig.11)

The patient was then referred to the department of otolaryngology where she underwent tumor resection with left hemimandibulectomy and bilateral lymph node dissection. (Fig.11)



Fig. 11: Contrôle après la réalisation d'une hémimandibulectomie gauche associée à un curage ganglionnaire au CHU Ibn Rochd Casablanca

Fig. 11: Check-up after the realization of a left hemimandibulectomy

COMMENTAIRES :

Les maxillaires représentent une localisation très rare du CME. La mandibule étant plus touchée que le maxillaire. La localisation intra-osseuse du CME est fréquemment retrouvée dans la partie postérieure de la mandibule. Le CME touche surtout les femmes dans les quatrième et cinquièmes décennies, cependant des cas de patients entre la première et la septième décennie sont rapportés dans la littérature. Dans notre cas il s'agit d'une localisation intra-osseuse dans la partie postérieure de la mandibule chez une femme dans la septième décennie [2]. Quatre théories sont décrites pour expliquer l'origine de cette tumeur [3,4]:

- 1- Une transformation néoplasique ultérieure des glandes muqueuses rétromolaires piégées dans la mandibule.
- 2- La présence de vestiges embryonnaires de la glande sous maxillaire inclus dans la mandibule.
- 3- La transformation néoplasique des cellules sécrétant le mucus que l'on trouve habituellement dans la muqueuse épithéliale de kystes odontogènes associés aux troisièmes molaires incluses.
- 4- La transformation néoplasique et l'invasion à partir du sinus maxillaire (pour la localisation maxillaire).

COMMENTS:

The maxillae represent a very rare localization of the MEC. The mandible is more affected than the maxillary. The intraosseous localization of the MEC is frequently found in the posterior part of the mandible. MEC mainly affects women in the fourth and fifth decades, however cases of patients between the first and seventh decade are reported in the literature. Our case is an intraosseous localization in the posterior part of the mandible in a woman belonging to the seventh decade [2].

Four theories are described to explain the origin of this tumor [3,4]:

- 1- Entrapment of retromolar mucus glands with in the mandible, which subsequently undergo neoplastic transformation.
- 2- Developmentally included embryonic remnants of submaxillary gland with in the mandible.
- 3- Neoplastic transformation of mucus secreting cells commonly found in the pluripotential epithelial lining of dentigerous cysts associated with impacted third molars.
- 4- Neoplastic transformation and invasion from maxillary sinus lining.

Pour le cas présenté à travers cet article, la troisième théorie semble la plus plausible en égard des antécédents rapportés par la patiente (biopsie antérieure au niveau du même site d'intervention qui a révélé un kyste odontogène), ainsi il s'agirait d'une éventuelle transformation néoplasique des cellules sécrétant le mucus présentes dans la muqueuse épithéliale des kystes odontogènes.

Les signes cliniques de la forme intra-osseuse peuvent être : une asymétrie faciale, des douleurs+/-, une paresthésie une tuméfaction endo-buccale, des malpositions dentaires [2,5]. De tous ces signes seule la tuméfaction endo-buccale a été retrouvée dans ce cas.

Le diagnostic positif du CME est basé sur l'imagerie et l'histopathologie. Les critères de diagnostic de la forme intra-osseuse du CME ont été définis par Alexander et al. (9) et modifiés par Browand et Waldron (5) et sont:[2,3]

1. Corticales intactes sur le scanner.
2. Signes radiographiques de destruction osseuse.
3. Exclusion d'une autre tumeur primitive dont la métastase pourrait imiter histologiquement la tumeur centrale.
4. Exclusion d'une tumeur odontogène.
5. Confirmation histopathologique (présence de mucine intracellulaire).

Radiologiquement, la tumeur se présente sous forme de masses uniloculaires ou multiloculaires pouvant être associées à une dent ou à un kyste inclus dans 50% des cas.

Concernant le pronostic, Brookstone et Huvo ont élaboré en 1992 une classification en se basant sur les propriétés radiographiques de la tumeur. Cette classification comprend 3 stades [2,6] :

Stade 1: bon pronostic. Absence d'expansion ou de rupture des corticales.

Stade 2: lésions avec expansion mais sans rupture de la corticale

Stade 3: pronostic défavorable. Lésions qui perturbent l'intégrité du périoste ou provoquent une perforation corticale avec ou sans atteinte ganglionnaire.

Le traitement des formes intra-osseuses du CME peut être conservateur, par énucléation, ou radical par la réalisation d'une résection en bloc de la tumeur.

Bien que le CME soit une tumeur de faible grade de malignité, le traitement conservateur est associé à un taux élevé de récurrences d'environ 40%. L'excision locale large et l'hémi-mandibulectomie ou l'hémi-maxillectomie devraient être considérées comme un traitement de première intention (taux de récurrences réduits à 13%) [2,5,7].

CONCLUSION :

Le carcinome mucoépidermoïde est une tumeur maligne courante des glandes salivaires, cependant la localisation intra-osseuse est rarement observée. La lésion peut se manifester radiologiquement sous forme d'une image radioclaire bien limitée. Le rôle du médecin dentiste est primordial dans le diagnostic, d'où l'intérêt de l'examen histologique. La prise en charge doit être multidisciplinaire en raison des taux élevés de récurrences locales et de métastases régionales.

In the case presented through this article, the third theory seems the most plausible with regard to the antecedents reported by the patient (anterior biopsy at the same site of intervention which revealed an odontogenic cyst).

The clinical signs of the intraosseous form may be: facial asymmetry, +/- pain, paresthesia, endo-oral swelling, dental malpositions [2,5]. Of all these signs only endo-oral swelling was found in our case.

The positive diagnosis of MEC is based on imaging and histopathology. The diagnostic criteria for the intraosseous form of MEC were defined by Alexander et al. (9) and modified by Browand and Waldron (5) and are: [2,3]

- 1. Cortical intact on the scanner.*
- 2. X-ray signs of bone destruction.*
- 3. Exclusion of another primary tumor whose metastasis may histologically mimic the central tumor.*
- 4. Exclusion of an odontogenic tumor.*
- 5. Histopathological confirmation (presence of intracellular mucin).*

Radiologically, the tumor is in the form of unilocular or multilocular masses that can be associated with a tooth or cyst included in 50% of cases.

Concerning the prognosis, Brookstone and Huvo developed a classification in 1992 based on the radiographic properties of the tumor. This classification comprises 3 stages [2,6]:

Stage 1: good prognosis. Absence of expansion or rupture of bone cortex.

Stage 2: expansion without rupture of the bone cortex

Stage 3: adverse prognosis. Lesions that disrupt the integrity of the periosteum or cause cortical perforation with or without lymph node involvement.

Treatment of intraosseous forms of MEC may be conservative, by enucleation, or radical by performing a block resection of the tumor.

Although MEC is a low grade malignancy tumor, conservative treatment is associated with a high recurrence rate of approximately 40%. Large local excision and hemimandibulectomy or hemimaxillectomy should be considered as a first-line treatment (recurrence rate reduced to 13%) [2,5,7].

CONCLUSION:

Mucoepidermoid carcinoma is a common malignant tumor of the salivary glands, however intraosseous localization is rarely observed. The lesion may radiologically manifest as a well-defined radiolucency image. The role of the dentist is essential in the diagnosis, hence the interest of histological examination. Management must be multidisciplinary because of high rates of local recurrence and regional metastases.

RÉFÉRANCES / REFERENCES:

1. Gauzeran.D. Tumor pathologies of accessory salivary glands. *Rev Odont Stomat* 2011;40:53-69.
2. Basaran B et al. Intraosseous Mucoepidermoid Carcinoma of the Jaw: Report of Three Cases. *Turk Arch Otorhinolaryngol*. 2018 Mar;56(1):42-46.
3. Chundru NS et al. Central mucoepidermoid carcinoma. *J Cancer Res Ther*. 2015 Jul-Sep;11(3):657.
4. Zhou CX, Chen XM, Li TJ. Central mucoepidermoid carcinoma: a clinicopathologic and immunohistochemical study of 39 Chinese patients. *Am J Surg Pathol*. 2012 Jan;36(1):18-26.
5. Li X et al. An unusual case of intraosseous mucoepidermoid carcinoma of the mandible: A case report and literature review. *Medicine (Baltimore)*. 2018 Dec;97(51):e13691.
6. Ferreira Costa AL et al. Cone beam computed tomography diagnostic imaging of intra-osseous mucoepidermoid carcinoma in the mandible. *J Clin Exp Dent*. 2017;9(9):e1158-61.
7. Yamazaki K et al. Clinicopathological features of mucoepidermoid carcinoma. *J Laryngol Otol*. 2014 Jan;128(1):91-5.