

Un carcinome adénoïde kystique trachéal mimant un tableau d'asthme

Tracheal adenoid cystic carcinoma confused with asthma

R. Abidi¹, N. Mahjoub², A. Mousli¹, F. Noubigh¹, A. Belaid¹, L. Kochbati³, K. Mahjoubi¹, C. Nasr¹.

¹ Service de Radiothérapie Carcinologique. Institut Salah Azaiz-Tunis

² Service de Carcinologie Médicale. Hôpital régional Jendouda

³ Service de Radiothérapie Carcinologique. Hôpital Abederrahmen Mami- Tunis

Reçu: 04 Mars 2021; Accepté: 09 Juillet 2021; Publié en ligne: 31 Octobre 2021

RÉSUMÉ

Objectif: A travers un cas de carcinome adénoïde kystique trachéal traité initialement comme asthme rebelle, nous soulignons l'intérêt de l'endoscopie pour soulever le diagnostic et nous discutons les aspects diagnostiques et thérapeutiques de cette pathologie.

Observation: Nous rapportons le cas d'une jeune femme considérée asthmatique pendant deux années. Devant un tableau d'état de mal asthmatique une fibroscopie bronchique a montré un bourgeon tumoral trachéal. La patiente a eu une exérèse chirurgicale. L'étude anatomopathologique a conclu à un carcinome adénoïde kystique. Une radiothérapie post opératoire a été indiquée devant des limites chirurgicales tumorales. L'évolution était favorable sur le plan carcinologique et respiratoire.

Conclusion: Un tableau d'asthme résistant au traitement habituel doit faire penser à une autre cause telle que les obstructions trachéales d'origine néoplasique. Le carcinome adénoïde kystique trachéal, malgré sa rareté devrait être évoqué.

Mots clés: Asthme; Carcinome adénoïde kystique; Tumeur-Bronche; Radiothérapie.

ABSTRACT

Objective: Through a case of tracheal adenoid cystic carcinoma, initially, treated as intractable asthma, we underline the value of endoscopy to raise the diagnosis and we discuss the diagnostic and therapeutic aspects of this pathology.

Observation: A 27 year old woman was considered as asthmatic during two years. Acute respiratory episode led to bronchoscopic investigation showing a tracheal obstructive tumor. Surgical excision was performed. histopathology concluded to an adenoid cystic carcinoma. Postoperative radiotherapy was given due to positive margins with favourable outcome.

Conclusion: Tracheal adenoid cystic carcinoma, although rare, should be considered among differential diagnosis of poorly controlled asthma.

Keywords: Asthma; Cystic adenoid carcinoma; Tumor, Bronchus; Radiotherapy.

INTRODUCTON:

L'asthme est une maladie fréquente qui se manifeste par des tableaux cliniques variés. Un asthme avec des symptômes atypiques ou difficiles à contrôler par les traitements classiques doit faire évoquer d'autres diagnostics tels qu'une sarcoïdose, une BPCO, un dysfonctionnement des cordes vocales, un reflux gastro-œsophagien ou une néoplasie des voies respiratoires [1, 2]. Le carcinome adénoïde kystique trachéal, malgré sa rareté devrait être évoqué aussi pour ne pas retarder la prise en charge thérapeutique adéquate de ce type de tumeur, qui par sa localisation peut mettre en jeux le pronostic vital en jeux.

A travers un cas de carcinome adénoïde kystique trachéal traité initialement comme asthme rebelle, nous soulignons l'intérêt de l'endoscopie pour soulever le diagnostic et nous discutons les aspects diagnostiques et thérapeutiques de cette pathologie.

OBSERVATION:

Il s'agit d'une femme âgée de 27 ans non tabagique sans notion d'allergie ni de traitement médical antérieur, considérée asthmatique depuis 2 ans. Elle a été hospitalisée dans un tableau d'insuffisance respiratoire aigue nécessitant une ventilation artificielle durant 48 heures. La radiographie du thorax a montré

Auteur correspondant: RIM ABIDI

Adresse: Service de Radiothérapie Carcinologique. Institut Salah Azaiz-Tunis

Email: ab.rim@hotmail.fr

une image d'amputation de la paroi latérale gauche de la trachée avec des opacités alvéolaires de la base pulmonaire gauche, en rapport avec une pneumopathie à pyocyanique.

La fibroscopie bronchique a mis en évidence une formation bourgeonnante irrégulière obstruant 50% de la lumière trachéale, arrivant jusqu'au niveau de la carène.

L'imagerie par résonance magnétique a montré une masse tissulaire développée au dépend de la paroi postérieure et latérale gauche de la trachée se prolant vers la partie initiale de la bronche souche gauche. (Figure 1)

L'étude anatomopathologique de la biopsie bronchique a évoqué une tumeur carcinoïde. La malade a eu une résection anastomose de la trachée.

L'étude anatomopathologique définitive avec IHC a montré qu'il s'agit plutôt d'un CAK avec des recoups profondes tumorales.

Elle a eu une radiothérapie post opératoire à la dose de 44 Gy dans le médiastin et le creux sus claviculaire et 65 Gy dans le lit tumoral. Après un recul de 40 mois, la patiente est en rémission clinique et radiologique et sans troubles respiratoires.



Figure 1: L'imagerie thoracique par résonance magnétique qui montre une image d'amputation trachéale

DISCUSSION:

Les carcinomes adénoïdes kystiques (CAK) (anciennement dénommés cylindromes), ont été décrits pour la première fois en 1873 par Billroth [3]. Les localisations les plus fréquentes sont les glandes salivaires, le nasopharynx, le col utérin, la prostate, les glandes lacrymales, le sein et la muqueuse bronchique

surtout au niveau de la trachée ou des gros troncs proximaux [4]. La localisation bronchique représente 0.04 à 0.2% de tous les cancers broncho-pulmonaires [5]. Ils sont souvent de diagnostic tardif; en effet la symptomatologie clinique est souvent très modérée et trompeuse et passe parfois inaperçue. Les symptômes respiratoires sont au premier plan: dyspnée inspiratoire, stridor, wheezing, toux, voire multiples épisodes de détresse respiratoire sont des présentations cliniques classiques [6]. Plus rarement, les patients peuvent présenter une hémoptysie, une dysphonie ou une dysphagie en relation avec la localisation et l'extension locorégionale.

Le délai moyen de révélation après le premier symptôme est souvent supérieur à six [5].

La certitude de diagnostic est apportée par l'étude histologique de la biopsie ou de la pièce opératoire: la tumeur présente souvent une architecture cribriforme caractéristique. Les cellules tumorales, de petite taille à cytoplasme peu abondant et à noyau hyperchromatique, formant des cordons et des massifs d'aspect cribriforme, dans lesquels se dispose un matériel hyalin formant des cylindres; le stroma peut être myxoïde ou hyalinisé. L'infiltration tumorale périnerveuse est classique. A l'étude immunohistochimique, les cellules tumorales expriment la kératine (marqueur épithélial), la vimentine (marqueur mésenchymateux), l'actine muscle lisse et la protéine S100 [7]

Dans notre cas, La malade était jeune, aucune habitude toxique n'a été retrouvée. Le signe fonctionnel majeur était la dyspnée. Elle a été étiquetée pendant deux ans comme asthmatique mal contrôlée par le traitement classique. Ce n'est qu'à l'occasion d'une détresse respiratoire aiguë, nécessitant une hospitalisation en réanimation, qu'elle a eu une bronchoscopie montrant la tumeur trachéale.

Le traitement de carcinome adénoïde kystique pulmonaire repose sur la chirurgie et la radiothérapie. La chirurgie doit toujours être envisagée devant un CAK non métastatique. Une lésion envahissant les organes au voisinage sera considérée comme non résecable. Classiquement, une résection de la trachée avec anastomose en un temps est pratiquée. Une laryngectomie, une reconstruction de la carène ou une pneumonectomie sont des gestes qui peuvent lui être associés.

Dans tous les cas, la résection doit être R0 dans la mesure du possible.

L'extension sous muqueuse et périnerveuse rend cette chirurgie trachéale, difficile [8].

Le bénéfice de la radiothérapie adjuvante pour les CAK est surtout démontré dans les localisations salivaires avec un taux de survie de 83% à 10 ans après chirurgie et radiothérapie et seulement 25% après chirurgie seule dans une série de 76 CAK des glandes salivaires rapportée par Matsuba [9]. Pour les localisations trachéales, la radiothérapie adjuvante est souvent recommandée du fait du caractère fréquemment marginal de la résection [6]. Maziak a rapporté une



survie médiane de 118 mois après une chirurgie R0 suivie de radiothérapie [9]. La dose de radiothérapie varie de 45 à 65Gy selon la qualité des marges d'exérèse. Le volume d'irradiation devait être large du fait des modalités d'extension des CAK avec des marges de 4-5cm. L'irradiation préventive des aires ganglionnaires de drainage est peu évoquée dans les rares séries publiées. Elle peut être justifiée par un risque de métastases ganglionnaires de 20% [6]. De toute façon, un compromis est à trouver entre le bénéfice du contrôle tumoral et le risque accru de toxicité d'un volume large d'irradiation. Les nouvelles techniques de radiothérapie (neutronthérapie, hadronthérapie surtout testées dans les CAK des glandes salivaires) ouvrent des perspectives d'avenir.

Le pronostic dépend du stade clinique, de la qualité d'exérèse chirurgicale et de la présence ou non d'une infiltration peribronchique ou le long des gaines nerveuses. Les récurrences locales sont fréquentes et surviennent parfois après plusieurs années. Les

métastases à distance sont plus rares et tardives, intéressant le foie, la rate, le rein, les os, le cerveau et les surrénales. [10]

CONCLUSION:

L'asthme peut revêtir des tableaux cliniques variables et trompeurs. Une néoplasie des voies respiratoires est à évoquer devant une forme atypique ou résistante au traitement classique. Le CAK, du fait de son évolution lente et son siège souvent proximal peut être un diagnostic différentiel à ne pas écarter.

Considérations éthiques:

Déclaration d'intérêts: Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relation avec cet article.

Déclaration de financement: Les auteurs déclarent ne pas avoir reçu de financement particulier pour ce travail.

REFERENCES:

1. B Egger A, Sauty. Maladies mimant l'asthme ou la broncho-pneumopathie chronique obstructive. Revue Médicale Suisse 2004; Article N 24160.
2. Ricketti PA, Ricketti AJ, Cleri DJ, Seelagy M, Unkle DW, Vernaleo JR. A 41-year old male with cough, wheeze, and dyspnea poorly responsive to asthma therapy. Allergy Asthma Proc. 2010;31(4):355-8.
3. Billroth T. Die Cylindergeschwalst. Untersuchungen ueber die Entwicklung der Blutgefasse. Berlin: G Reimer; 1856, p. 55—69.
4. Y Sbitti, H Kadiri, M Fetohi, I Elghissassi, H M'rabti, S Boutayeb et al. Carcinome adénoïde kystique primitif du sein. Cancer Radiothér. 2009;13:65—68.
5. Y Ouadnouni, M Bouchikh, A Jahid, A Achir, M Smahi, Y Msougar, et al. Carcinome adénoïde kystique trachéal. Pan Afr Med J. 2010; 7: 21.
6. Pawlewicz K, Szutkowski Z, Kawecki A: Recurrence of adenoid cystic carcinoma of the trachea treated with radical radiotherapy: A case report. Oncol Lett, 2018; 15: 3890—94
7. Gondivkar SM, Gadbail AR, Chole R, Parikh RV. Adenoid cystic carcinoma: a rare clinical entity and literature review. Oral Oncol 2011;47:231—6.
8. Honings J, Gaissert HA, Weinberg AC, Mark EJ, Wright CD, Wain JC, et al. Prognostic value of pathologic characteristics and resection margins in tracheal adenoid cystic carcinoma. Eur J Cardiothorac Surg 2010;37:1438—44.
9. Maziak DE, Todd TRJ, Keshavjee SH, Winton TL, Norstrand PV, Pearson. Adenoid cystic carcinoma of the airway: thirty-two-year experience. J Thorac CardiovascSurg. 1996;112:1522-32.
10. Ahn Y, Chang H, Lim YS et al: Primary tracheal tumors: Review of 37 cases. J Thorac Oncol, 2009; 4: 635—38