L'angiolipome cervical. A propos d'un cas

Angiolipoma of the neck. Report of a case

ABDELHAMID MESBAH, ABDELILAH OUJILAL, MOHAMED BOULAICH, MOHAMED KZADRI

RÉSUMÉ

Présentation d'un cas documenté d'un angiolipome de la région submandibulaire et des données récentes de la littérature sur ce sujet.

Il s'agit d'un patient âgé de 22 ans avec une tuméfaction évoluant depuis 8 ans dans la région submandibulaire gauche qui s'est révélée, à l'examen anatomopathologique, après exérèse chirurgicale complète, être un angiolipome.

Après trois ans de recul, il n'y a aucun signe de récurrence tumorale.

L'angiolipome de la région cervicale, en particulier de la région submandibulaire est extrêmement rare. Le tableau clinique peut faire évoquer une pathologie de la glande submandibulaire. L'origine extra-glandulaire de la lésion est en général facilement précisée par les données de l'imagerie. L'exérèse chirurgicale est parfois difficile car il existe une forme infiltrante d'angiolipome. (**Med Buccale Chir Buccale 2006; 12: 171-174**).

mots clés: angiolipome, lipome, cou

médecine
buccale
chirurgie
buccale

VOL. 12, N° 3
2006

page 171

SUMMARY

The authors present an illustrative case of angiolipoma of the submandibular region, and report a recent data of the literature.

A 22 years old man with a long history of a progressive growth of a left submandibular mass. He underwent a gross total resection. Histopathology concluded to an angiolipoma.

*An angiolipoma involving the cervical area – especially in the submandibular region – is extremely rare. The clinical signs could simulate some submandibular gland diseases. The progress of the imaging allows precisely the extraglandular location. Total surgery removal could be difficult for the infiltrative angiolipomas. (**Med Buccale Chir Buccale 2006; 12: 171-174**).*

key words: angiolipoma, lipoma, cervical, neck

Service d'ORL et de Chirurgie maxillo-faciale Hôpital des Spécialités CHU Rabat, Maroc

Demande de tirés à part :

Hamid Mesbah 31 rue de Varsovie et Londres BP 1375 l'Océan Rabat Maroc drmesbahhamid@yahoo.fr

Accepté pour publication le 3 juillet 2006

Article publié par EDP Sciences et disponible sur le site <http://www.mbcjournal.org> ou <http://dx.doi.org/10.1051/mbcjournal/2006019>

L'angiolipome (AL) est une tumeur bénigne qui est considérée comme une variante anatomopathologique du lipome puisqu'il se présente comme un lipome associé à une prolifération vasculaire ^[1]. Il est assez souvent retrouvé dans la région paraspinale ; sa localisation cervico-faciale est rare puisque jusqu'en 1998 seulement 17 cas ont été décrits ^[2]. Le tableau clinique d'un angiolipome est assez comparable à celui d'un lipome simple et ce n'est que les données de l'anatomopathologie qui permettent de préciser le diagnostic. Le traitement de ces tumeurs est essentiellement chirurgical ; sa réalisation est variable et elle dépend surtout de la variété clinico-histologique : facile pour les formes simples, difficile pour les formes infiltrantes. A partir de ce cas clinique et des données de la littérature, les auteurs précisent et discutent les particularités cliniques, radiologiques et thérapeutiques de cette variété de tumeur.

CAS CLINIQUE

M. E.A, âgé de 22 ans, sans antécédents pathologiques particuliers notamment traumatiques, présente depuis 8 ans une tuméfaction latéro-cervicale

haute, gauche, d'évolution progressive. A l'examen clinique, on observe une masse submandibulaire gauche, de 4 cm de diamètre, indolore, non pulsatile, mobile par rapport aux plans profond et superficiel. A l'examen endobuccal, la région du plancher buccal est normale, en particulier absence de toute tuméfaction ou anomalie des canaux de Wharton et de leur ostium. Le reste de l'examen oto-rhino-laryngologique était sans particularité.

Ce patient a bénéficié d'une échographie cervicale, complétée par un doppler, qui a révélé un processus tumoral de la loge submandibulaire gauche, d'échostructure mixte et richement vascularisée. L'examen tomodensitométrique cervical a montré qu'il s'agit un processus lésionnel dont la densité tissulaire est hypodense, avec des hyperdensités correspondantes à des phlébolites (Fig. 1 et 2).

Une cervicotomie exploratrice a été réalisée et elle a permis de retrouver une masse tumorale superficielle, d'allure bénigne, située au dessus de la glande submandibulaire, lobulée, encapsulée et légèrement hémorragique. Cette tumeur a été réséquée en totalité et en monobloc, en conservant l'intégrité des structures avoisinantes.

Figures 1 et 2 : Examen tomodensitométrique en coupes axiales montrant un processus de la loge submandibulaire gauche, hétérogène, hypodense, contenant des hyperdensités correspondant à des phlébolites.
CT axial view: hypodense mass with hyperdensities corresponding to phlebolites.

Figure 3 : Prolifération à double composante vasculaire et adipocytaire (hématéine - éosine, x 40).
Histology showing mature adipose tissue with numerous vascular channels (haematin-eosin, x 40).

L'examen anatomopathologique de la pièce opératoire a montré qu'il s'agissait d'une tumeur à double composante : du tissu adipeux constitué d'adipocytes et de nombreux vaisseaux de taille variable (Fig. 3 et 4).

Le patient est suivi régulièrement en consultation depuis 3 ans et aucun signe de récurrence n'a été observé.

DISCUSSION

L'AL a été décrit pour la première fois en 1960 par Howard et Helwing ^[3] qui, en réalisant une étude portant sur 288 cas de lipomes, ont pu identifier cette variété histologique dans 17 % des cas.

La pathogénie des AL reste inconnue. Certains auteurs pensent qu'ils résultent de la dégénérescence centrale d'un hémangiome ou de la prolifération vasculaire congénitale d'un lipome ^[4]. Ces AL sont rares par rapport à l'ensemble des lipomes. En effet, dans une étude de Lin et Lin ^[5] portant sur 459 lipomes, toutes localisations confondues, ils ne retrouvent que 25 cas d'AL, soit seulement 5,4 % des cas. En 1998, Alvi ^[2] a rapporté une série de 17 cas d'angioliopomes dans la région cervico-faciale : plus des deux tiers ont été retrouvés dans les régions jugale et cervicale. Dans cette localisation, les AL présentent certaines caractéristiques spécifiques :

Figure 4 : Prolifération à double composante vasculaire et adipocytaire (hématéine - éosine, x 100).
Histology showing mature adipose tissue with numerous vascular channels (haematin-eosin, x 100).

fréquence élevée à l'âge jeune, absence de préférence pour l'un ou l'autre sexe, absence d'antécédents familiaux de traumatisme ou de tumeurs multiples.

Dans leur localisation paraspinale, les AL se manifestent cliniquement le plus souvent par des douleurs et un déficit neurologique, habituellement secondaires à un œdème qui comprime les tissus nerveux adjacents. Dans la région cervicale, ils se présentent sous la forme d'une masse sous-cutanée, d'allure bénigne et rarement associée à une modification – en particulier d'allure vasculaire – des téguments de surface. Ces signes cliniques correspondent à ceux retrouvés chez notre patient.

Le bilan radiologique, en particulier l'examen tomodensitométrique ou l'imagerie par résonance magnétique, montre habituellement un processus hypodense typique des lipomes. Après injection du produit de contraste, on observe un rehaussement de la lésion tumorale qui doit faire évoquer le diagnostic d'AL ^[6].

A l'examen anatomopathologique, l'AL est constitué par une masse tumorale composée d'adipocytes matures, entremêlés avec des structures vasculaires dans lesquelles on observe des microthrombus de fibrine ^[7,8] ; ce sont ces deux derniers éléments qui les différencient des lipomes. Selon Dionne et Seemayer ^[9], ces AL comportent deux variétés

histologiques : les AL infiltrants et les AL non infiltrants. Les premiers, en l'absence de capsule, infiltrant les tissus mous avoisinants, surviennent surtout chez les sujets âgés et siègent principalement aux extrémités et dans la région paraspinale où ils peuvent être associés à des myalgies et un déficit neurologique [2,10,11]. Les seconds sont encapsulés, dépassent rarement 4 cm de diamètre, se localisent habituellement dans le tissu sous-cutané et se retrouvent le plus souvent chez les sujets jeunes des deux sexes [12]. C'est la forme retrouvée chez notre patient.

Le diagnostic différentiel des AL doit faire évoquer essentiellement un hémangiome, un lymphangiome, un lipome, un sarcome de Kaposi, un angiosarcome et un liposarcome [8].

Le traitement, de la forme infiltrante et de la forme non infiltrante, repose sur l'exérèse chirurgicale. Si cette exérèse est souvent facile dans la forme non infiltrante elle reste, cependant, difficile et parfois incomplète dans la forme infiltrante. Un traitement complémentaire par radiothérapie, dans ce cas, peut s'avérer alors nécessaire [5,13].

RÉFÉRENCES

- 1 - SANCHEZ ANICETO G, SALVAN SAEZ R, GARCIA PENIN A. Angiolipoma of the cheek: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1990 ; 48 : 512-5.
- 2 - ALVI A, GARNER C, THOMAS W. Angiolipoma of the head and neck. *J Otolaryngol* 1998 ; 27 : 100-3.
- 3 - HOWARD WR, HELWING EB. Angiolipoma. *Arch Dermatol* 1960 ; 82 : 924-31.
- 4 - FLAGGERT JJ III, HELDT LV, HELDT LV, KEATON WM. Angiolipoma of the palate. Report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1986 ; 61 : 333-6.
- 5 - LIN JJ, LIN F. Two entities in angiolipoma. A study of 459 cases of lipoma with review of literature on infiltrating angiolipoma. *Cancer* 1974 ; 34 : 720-7.
- 6 - BEHRENDT H, FAES J, RUWICKA T. Multiple angiolipome: analgetische therapie, it doxepin. *Hautarzt* 1992 ; 43 : 139-43.
- 7 - SCIOT R, AKERMAN M, DAL CIN P, DE WEVER I, FLETCHER CD, MANDAHN N, MERTENS F, MITELMAN F, ROSAI J, RYDHOLM A, TALLINI G, VAN DEN BERGHE H, VANNI R, WILLEN H. Cytogenetic analysis of subcutaneous angiolipoma-further evidence supporting its difference from ordinary pure lipomas: a report of the CHAMP study group. *Am J Surg Pathol* 1997 ; 21 : 441-4.
- 8 - WEITZNER S, MOYNIHAN PC. Angiolipoma of the cheek in a child. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1980 ; 9 : 486-90.
- 9 - DIONNE GP, SEEMAYER TA. Infiltrating lipomas and angiolipomas revisited. *Cancer* 1974 ; 33 : 732-8.
- 10 - SHOHET JA, SIMPSON B, COLEMAN JR, GEIGER XJ. Angiolipoma presenting as a nasal mass. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1998 ; 118 : 924-31.
- 11 - MASTUOKA Y, KUROSE K, NAKAGAWA O, KATSUYAMA J. Magnetic resonance imaging of infiltrating angiolipoma of the neck. *Surg Neurol* 1988 ; 29 : 62-6.
- 12 - CAMPOS GM, GRANDINI SA, LOPES RA. Angiolipoma of the cheek. *Int J Oral Surg* 1980 ; 9 : 486-90.
- 13 - SAYDAM L, BOZKURT MK, UGUR MB, OZCELIK T, KUTLUAY L. Angiolipoma of the neck: case report. *Ear Nose Throat J* 2005 ; 84 : 375-7.