Article original / Original article

Revue Méditerranéenne d'Odonto - Stomatologie

Case report

Cas rare d'un carcinome verruqueux de la région rétro-commissurale

Rare case of verrucous carcinoma in the retrocommissural region

Auteurs :

Safa Inoubli[1] ; Mounir Omami[1] ; Dhekra Jlassi[1] ; Amira Besbes[1] ; Manel Njima[2] ; Habib Hamdi[1] ; Jamil Selmi[1]

1 : Service de Médecine et Chirurgie Buccales, Clinique Universitaire de Médecine et Chirurgie Dentaire, Monastir, Tunisie

2 : Service d'Anatomie et Cytologie Pathologiques, Hôpital Fattouma Bourguiba, Monastir, Tunisie.

Auteur correspondant

Safa Inoubli, Service de Médecine et Chirurgie Buccales, Clinique Universitaire de Médecine et Chirurgie Dentaire, Monastir, Tunisie

E mail : Safa.inoubli91@gmail.com

Mots-clés : carcinome verruqueux buccal, tumeur d'Ackermann, rapport de cas

Résumé

Le carcinome verruqueux buccal est une variante rare, de bas grade et bien différenciée, du carcinome épidermoïde. Sa transformation maligne est observée dans 20 % des cas, justifiant ainsi l'importance du diagnostic et de la prise en charge précoce de cette lésion. Nous rapportons un cas de carcinome verruqueux au niveau de la région rétro-commissurale chez un patient de 68 ans. Celui-ci a bénéficié d'une exérèse chirurgicale à but diagnostique, qui a révélé une des limites passant par la lésion à l'étude histologique. Une reprise chirurgicale avec des marges de sécurité a été effectuée avec succès. Le contrôle après 2 mois de la dernière intervention ne montre aucun signe de récidive. Un suivi régulier est instauré. Le traitement chirurgical reste la base du traitement des carcinomes verruqueux surtout diagnostiqués précocement et restant bien limités.

Abstract :

Oral verrucous carcinoma is a rare, low-grade, well-differentiated variant of squamous cell carcinoma. Its malignant transformation is observed in 20% of cases, thus justifying the importance of early diagnosis and management of this lesion. We report a case of verrucous carcinoma in the retro-commissural region in a 68-year-old patient. He underwent a surgical resection for diagnostic purposes, which revealed one of the limitations passing through the lesion on histological study. Revision surgery with safety margins was successfully performed. The control after 2 months of the last intervention shows no sign of recurrence. Regular monitoring is in place.

Surgical treatment remains the basis of the treatment of verrucous carcinomas, especially diagnosed early and remaining very limited.

Key words: oral verrucous carcinoma, Ackermann's tumor, case report

Introduction

Le carcinome verruqueux buccal a été décrit pour la première fois par Lauren V.Ackermann en 1948 (également dénommée «tumeur d'Ackermann» ou «carcinome verruqueux d'Ackermann »). [1] Il représente 2 à 12% de tous les carcinomes buccaux avec un âge moyen de découverte de 69 ans et une prédilection masculine. [2] Il s'agit d'un carcinome de bas grade de malignité. Il a une croissance lente et ne donne pas de métastase locale ou à distance. [3] Les adénopathies loco-régionales réactionnelles sont fréquentes du fait de l'inflammation ou de la surinfection des carcinomes verruqueux buccaux. Le risque de transformation maligne est observé dans 20 % des cas. [1]

Le diagnostic et la prise en charge de cette lésion potentiellement maligne doit être précoce. Le traitement n'est pas encore codifié ; mais, la chirurgie reste le traitement de choix pour les lésions de petite taille et bien limitées. [1] Nous rapportons un cas de carcinome verruqueux buccal bien limité ayant été traité efficacement par chirurgie d'exérèse.

Observation :

Un patient âgé de 68 ans, en bon état général a été adressé au service de Médecine et Chirurgies Buccales pour une lésion blanche intra-orale droite évoluant depuis des années et qui est à l'origine d'une gêne notamment lors des repas. Le patient est tabagique à 20 paquets/année.

L'examen exobuccal ne montre ni tuméfaction ni rougeur ; par contre des adénopathies sub-mandibulaires bilatérales, infra-centimétriques, non douloureuses à la palpation et adhérentes aux plans profonds (Figure 1 a).

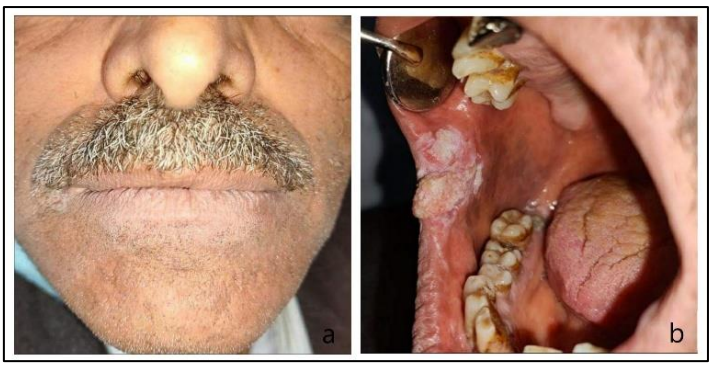

Figure 1 : Examen clinique a)vue exobuccale b)vue endobuccale

L'examen endobuccal met en évidence une hygiène bucco-dentaire défaillante, avec la présence de tartre et de plaque sur les dents restantes, dans un contexte de parodontite chronique généralisée. Au niveau de la région rétro-commissurale droite, une lésion blanche d'aspect hyperkératosique, verruqueuse par endroits mesurant environ 3 cm dans son grand axe est objectivée (Figure 1 b).

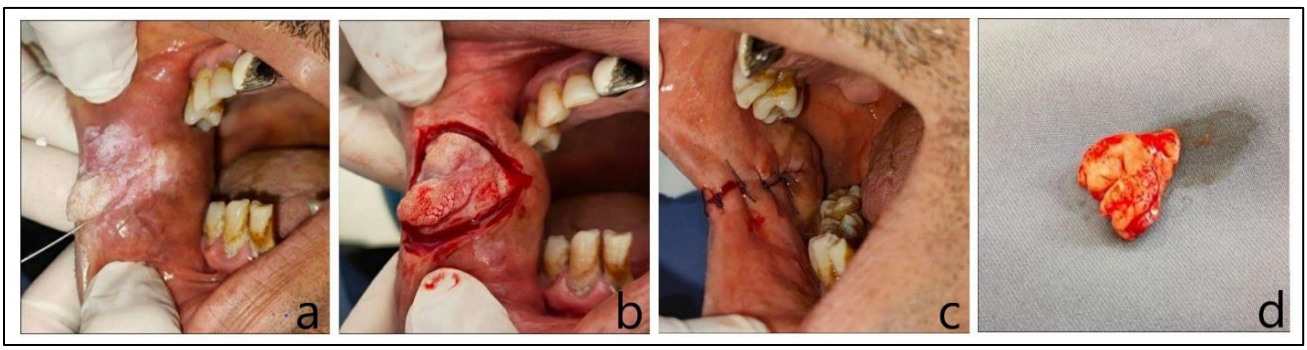

Figure 2 : étapes de l'exérèse chirurgicale. a) anesthésie locale b) incision à la lame bistouri en laissant une marge de sécurité de 1 cm autour de la lésion c) sutures d) pièce opératoire

La radiographie panoramique ne révèle pas d'anomalies hormis une lyse osseuse en rapport avec la parondontite.

Compte tenu de la présence des adénopathies sous-angulo-maxillaires, une échographie cervicale est demandée et qui s'avère normale ainsi qu'une radiographie de thorax qui montre l'absence de métastases à distance.

Un diagnostic clinique de carcinome verruqueux est ainsi évoqué et une exérèse à visée diagnostique, avec des marges de sécurité de 1 cm, est pratiquée (Figure 2).

L'examen histologique de la pièce opératoire conclut à un carcinome verruqueux, sans signes de malignité, avec une des limites d'exérèse passant par la lésion (Figure 3).

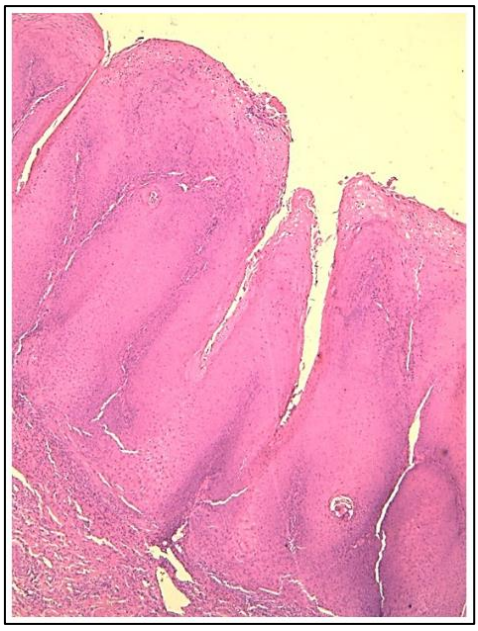

Figure 3 : Coupe histologique de la pièce opératoire évoquant un carcinome verruqueux : Epithélium avec hyperkératose, papillomatose, hypergranulose, acanthose, larges crêtes épithéliales repoussant le chorion en profondeur

De même, le contrôle clinique post-opératoire, effectué 20 jours après l'intervention, montre l'apparition d'une nouvelle lésion kératosique sur le site initial, signe de récidive locale (Figure 4 a).

Une reprise de l'exérèse avec des marges de sécurité de 1 cm est alors réalisée (Figure 4). L'analyse histologique montre un carcinome verruqueux évoluant sur une leucoplasie avec des limites d'exérèse saines.

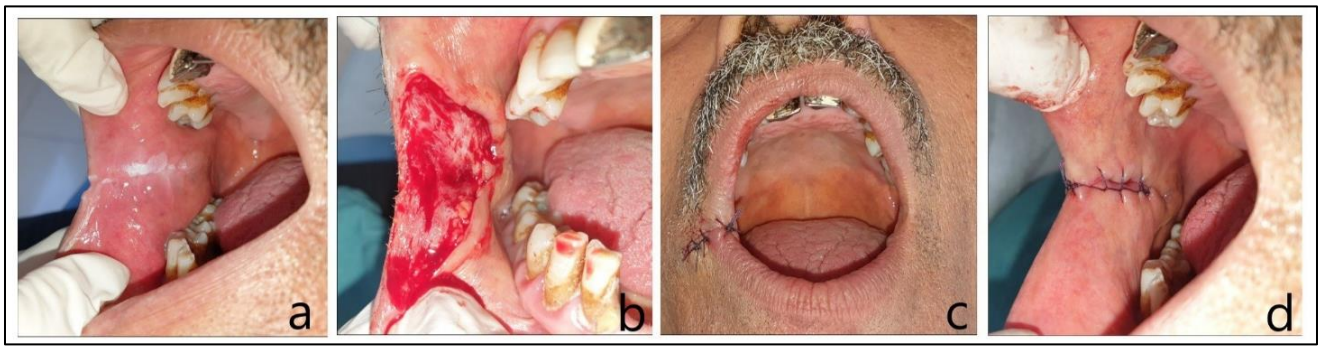

Figure 4 : Reprise chirurgicale a) apparition d'une nouvelle lésion hyperkératosique, signe de récidive locale b) exérèse large avec marges de sécurité c,d) sutures

Le contrôle post-opératoire après 15 jours montre une bonne cicatrisation muqueuse, sans signe de récidive locale (Figure 5).

Figure 5 : contrôle postopératoire après 1 mois montrant une cicatrisation muqueuse complète et l'absence de récidive a,b) vue exobuccale c) vue endobuccale

Un suivi régulier est ainsi instauré. Le patient est revu après 6 mois post-opératoires, avec absence de récidive (Figure 6).

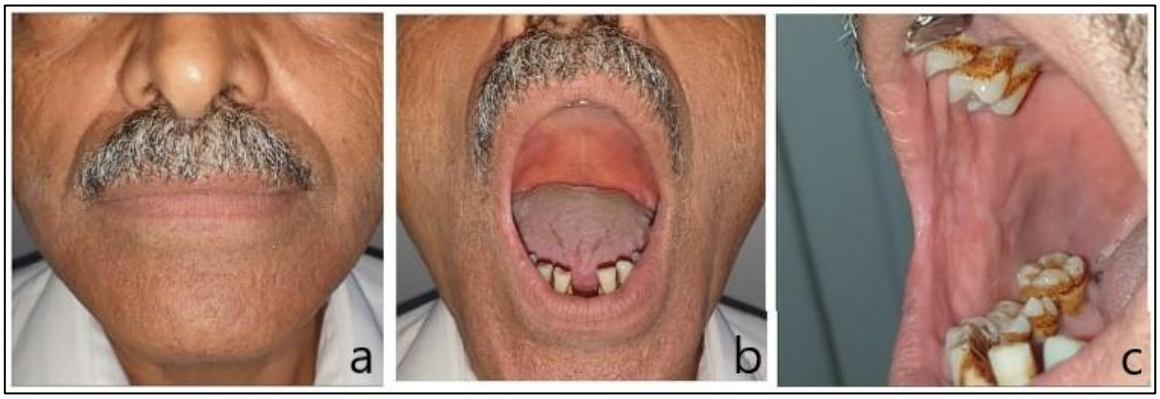

Figure 6 : Contrôle postopératoire après 6 mois, pas de signe de récidive a,b) vue exobuccale c) vue endobuccale

Discussion :

Le carcinome verruqueux est une lésion qui prête à confusion. Certains auteurs pensent que c'est une variante non invasive d'un carcinome épidermoïde, très bien différencié et de bas grade, avec un aspect clinique spécifique. D'autres le considèrent comme une entité propre, caractérisée par un pronostic favorable. [1,4,5]

Deux formes de carcinomes verruqueux peuvent être distinguées : la forme pure, respectant la membrane basale, comme le montre notre cas ; et la forme hybride, présentant des foyers de carcinomes épidermoïdes en son sein. Ce type de lésion mixte serait observé dans 20 % des cas de carcinome verruqueux buccal et pourrait s'expliquer par un continuum histopathologique entre le carcinome verruqueux et le carcinome épidermoïde. Cette infiltration du chorion pourrait être un facteur de mauvais pronostic et conduire à une prise en charge se rapprochant de celle du carcinome épidermoïde. [6,7]

La pathogenèse du carcinome verruqueux fait débat. Le tabac, l'alcool et la mauvaise hygiène bucco-dentaire seraient des facteurs de risque importants mais ils n'expliquent pas les carcinomes verruqueux cutanés ou génitaux. Les lésions inflammatoires chroniques comme le lichen plan pourraient évoluer en carcinome verruqueux. [1] Les rayonnements ultra-violets pourraient être impliqués dans le développement d'un carcinome verruqueux labial. [8] L'implication du virus HPV dans la pathogénicité du carcinome verruqueux, en particulier les sous-types 16 et 18, est aussi évoquée par certains auteurs mais n'est pas vérifiée. [1]

Le diagnostic d'un carcinome verruqueux est basé sur les caractéristiques cliniques, macroscopiques et microscopiques de la lésion. L'aspect clinique malin de cette tumeur contraste avec une image histologique rassurante. [1,9]

Cliniquement, il s'agit d'une lésion exophytique, kératosique, d'aspect verruqueux ou papillomateux, souple à la palpation, localement agressive et les limites sont nettes. Il atteint préférentiellement la gencive attachée et la muqueuse jugale. [8]

Histologiquement, le carcinome verruqueux montre à la fois des aspects de croissance exophytique et endophytique, c'est une lésion épithéliale hyperplasique bien différenciée. La surface est densément kératinisée (parakératine). Les massifs épithéliaux endophytiques, qui s'alternent avec les projections papillaires exophytiques, forment un véritable « front d'invasion » (pushing border), refoulant les structures avoisinantes. La membrane basale est respectée avec la présence dans le chorion sous-jacent d'un infiltrat inflammatoire lymphoplasmocytaire. Au niveau cellulaire, les atypies et les mitoses sont rares, et se limitent aux couches basales. [1,7]

Le diagnostic différentiel histologique comporte les verrues vulgaires et condylomes acuminés, le kératoacanthome, le carcinome épidermoïde bien différencié, l'hyperplasie verruqueuse. [9]

Le carcinome épidermoïde bien différencié est une lésion invasive effractant la membrane basale et montrant des signes cytologiques de malignité : mitose anormale et atypies cyto-nucléaires. Dans les stades avancés, bien que les métastases à distance soient rares, l'extension aux ganglions lymphatiques locaux est courante et le pronostic est sombre. [9]

L'hyperplasie verruqueuse est une lésion pré-néoplasique évoluant en carcinome verruqueux ou en carcinome épidermoïde. Son diagnostic est histologique ; cette lésion peut exister seule ou correspondre à l'un des stades d'une leucoplasie verruqueuse proliférative. La distinction est basée sur les aspects de croissance exophytique et endophytique de la prolifération épithéliale : en plus de projections de surface, il existe, dans le carcinome verruqueux, des projections profondes dans le tissu conjonctif sous-jacent que l'on ne retrouve pas dans l'hyperplasie. [7,9]

Le carcinome verruqueux, ayant des marges bien déterminées et un bon pronostic après traitement, doit être distingué de la leucoplasie verruqueuse proliférative (PVL). Hansen et al. réservent le diagnostic de PVL aux lésions diffuses et multifocales. Pour les lésions solitaires, l'auteur préfère le diagnostic de carcinome verruqueux, d'autant plus quand elles sont associées à une consommation tabagique. [7]

Le traitement du carcinome verruqueux buccal pur est moins radical que celui du carcinome épidermoïde du fait de l'absence de métastase, mais il n'y a pas de véritable consensus. Celui-ci dépend principalement de l'extension des lésions. [4]

L'exérèse chirurgicale représente le traitement de choix pour les lésions de petite taille et bien limitées. [1] Dans le cas présenté, le traitement chirurgical a été retenu en raison du caractère limité de la lésion.

L'exérèse doit être large avec des marges de sécurité supérieures à 1 cm. En effet, Gokavarapu et al., dans son étude clinique de 2014, émet l'idée qu'aucune biopsie, même multiple, ne peut garantir que l'on passe à côté d'un foyer invasif, tant que la pièce opératoire entière n'a pas été étudiée. Ceci pourrait suggérer que toute prise en charge d'un carcinome verruqueux devrait considérer qu'il existe un foyer invasif. [7,10]

Les rares cas de métastases ganglionnaires, observés dans les formes hybrides des carcinomes verruqueux, tendent à ne pas envisager le curage ganglionnaire comme traitement de première intention. En effet, après un curage des adénopathies palpables, il s'avère le plus souvent que celles-ci soient des adénopathies réactionnelles inflammatoires. De même, les métastases à distance sont quasi inexistantes. [7] Dans le cas présenté, l'histologie montre l'absence de foyers de carcinomes épidermoïdes et l'échographie cervicale est normale. Une métastase ganglionnaire a donc été écartée et le curage ganglionnaire n'a pas été réalisé.

Pour les lésions étendues, le traitement chirurgical ne fait pas l'unanimité du fait du taux élevé de récidives locales et du risque de séquelles fonctionnelles et esthétiques. [1]

En cas de contre-indication chirurgicale, la radiothérapie a été proposée mais elle est controversée du fait que le carcinome verruqueux serait moins radiosensible que le carcinome épidermoïde. De plus, des cas de transformation anaplasique post-radiques des carcinomes verruqueux ont été rapportés. Cette transformation est

controversée et elle a été aussi observée après traitement chirurgical et sur des carcinomes verruqueux buccaux non traités. [1,4]

La chimiothérapie serait efficace dans le traitement des formes étendues mais n'exclut pas la nécessité d'avoir recours, dans un second temps, à la chirurgie ou à la radiothérapie. [4,5]

Dans une étude récente, un carcinome verruqueux labial et jugal a été traité par 4 cures de 40 mg/m2 de méthotrexate par voie intra-veineuse. Une rémission partielle importante des lésions a été observée après les deux premières cures. Un traitement d'entretien par deux autres cures a été réalisé et complété par l'exérèse chirurgicale de la lésion labiale persistante. [1]

La thérapie photodynamique, le laser CO2, la cryochirurgie, l'immunothérapie et les rétinoïdes ont été utilisés, mais leur efficacité est controversée. [1]

Le pronostic est bon avec un taux de survie de 95% à 5 ans et de 83,4% à 10 ans. [1]

Conclusion

Il convient donc de ne pas méconnaître le caractère potentiellement très agressif de cette lésion, afin de pouvoir réaliser une exérèse précoce, et selon un protocole d'exérèse radicale.

Un suivi régulier est indispensable afin de détecter les éventuelles récidives à un stade précoce, notamment en cas de transformation épidermoïde.

Un accompagnement du patient vers un sevrage tabagique dans toutes ses formes de consommation doit également être entrepris.

Conflits d'intérêts

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêts.

Contributions des auteurs

Tous les auteurs ont contribué à la réalisation de ce travail, le cas étant opéré par Pr. Habib Hamdi. Ils ont également lu et approuvé la version finale de ce manuscrit.

Références

1. d'Elbée JM, Fricain JC. Carcinome verruqueux buccal traité par méthotrexate. Médecine Buccale Chir Buccale. 2014; 20(1):21-5.
2. Chaisuparat R, Limpiwatana S, Kongpanitkul S, Yodsanga S, Jham BC. The Akt/mTOR pathway is activated in verrucous carcinoma of the oral cavity. J Oral Pathol Med. 2016; 45:581–5.
3. Rekha KP, Angadi PV. Verrucous carcinoma of the oral cavity: a clinico-pathologic appraisal of 133 cases in Indians. Oral Maxillofac Surg. 2010; 14:211-8.
4. Karagozoglu KH, Buter J, Leemans CR, Rietveld D, Van den Vijfeijken S. Subset of patients with verrucous carcinoma of the oral cavity who benefit from treatment with methotrexate. Br J Oral Maxillofac Surg. 2012; 50:513-8.
5. Wu CF, Chen C, Shen Y, Huang I, Chen C. Effective eradication of oral verrucous carcinoma with continuous intraarterial infusion chemotherapy. Head Neck. 2008; 30:611-7.

6. Terada T. Squamous cell carcinoma arising within verrucous carcinoma of the oral cavity: a case report. Int J Clin Exp Pathol. 2012; 5:363-6.
7. Provost M. Prise en charge des carcinomes verruqueux oraux : étude rétrospective et analyse de la littérature. Sciences du Vivant [q-bio]. 2018. ffdumas-02025425
8. Zhu LK, Ding YW, Liu W, Zhou YM, Shi LJ, Zhou ZT. A clinicopathological study on verrucous hyperplasia and verrucous carcinoma of the oral mucosa. J Oral Pathol Med. 2012; 41:131-5.
9. Montjean F, Evrard L, Magremanne M, Vervaet C, Louryan S. Le carcinome verruqueux oral. Rev Med Brux. 2004; 25: 173-177.
10. Gokavarapu, S., Rao.S, L.M.C., Tantravahi, U.S. et al. Oral Hybrid Verrucous Carcinoma: A Clinical Study. Indian J Surg Oncol. 2015; 5, 257–262.