

Cas clinique et revue de littérature

Sialométaplasie nécrosante : à propos d'un cas

Yamina Guenane*, Asma Djilani, Badia Saari

Service de pathologie et chirurgie orale, CHU Mustapha, Alger, Algérie

(Reçu le 12 février 2014, accepté le 27 octobre 2014)

Mots clés :
sialométaplasie
nécrosante / ulcération
palatine / glandes
salivaires mineures /
lésions néoplasiques

Résumé – Introduction : La sialométaplasie nécrosante est une affection bénigne rare des glandes salivaires accessoires, de diagnostic parfois difficile. **Observation :** Un cas est rapporté chez une patiente de 29 ans avec une ulcération palatine qui a disparu spontanément au bout de six mois d'évolution. **Discussion :** La sialométaplasie nécrosante (SMN) est une maladie inflammatoire rare des glandes salivaires. L'étiopathogénie de cette affection fait l'objet de nombreuses controverses. Ce cas est présenté pour alerter les praticiens que la sialométaplasie nécrosante peut causer une difficulté diagnostique et surtout une confusion avec une lésion maligne. Il est donc important que les cliniciens et les pathologistes sachent reconnaître cette lésion pour éviter des erreurs dans le diagnostic et le traitement.

Key words:
necrotizing
sialometaplasia /
palatal ulceration /
minor salivary glands /
neoplastic lesions

Abstract – Necrotizing sialometaplasia: A case report. Introduction: Necrotizing sialometaplasia is an uncommon benign condition of the minor salivary glands whose diagnosis is sometimes difficult. **Case report:** This report demonstrates a case of a 29-year-old female patient with an ulcerative lesion in her palate which disappeared spontaneously after 6 months. **Discussion:** The etiopathogenesis of this condition is the subject of much controversy. This case is presented to warn practitioners about the possible diagnosis problem and confusion with a malignant lesion in terms of clinical and histological aspects, leading to errors in treatment. Therefore, clinicians and pathologists should be aware of this lesion so as to avoid errors in diagnosis and treatment.

Introduction

La sialométaplasie nécrosante (SMN) est un processus inflammatoire qui aboutit à la nécrose d'une glande salivaire accessoire par métaplasie malpighienne des canaux excréteurs et nécrose du parenchyme salivaire sous-jacent [1, 2]. Son étiologie reste encore non déterminée. Il est important de savoir reconnaître cette affection puisqu'elle peut mimer une lésion maligne, que ce soit sur le plan clinique mais aussi sur le plan histopathologique [3].

Une confusion avec un carcinome peut conduire à une thérapeutique inappropriée avec une chirurgie mutilante [2-5]. L'objectif de cet article est de présenter un nouveau cas de SMN qui a fait évoquer une lésion maligne et de présenter la démarche diagnostique.

Observation

Il s'agissait d'une femme de 29 ans adressée au service de pathologie et chirurgie orale pour prise en charge spécialisée d'une lésion palatine. L'interrogatoire n'a retrouvé aucun

antécédent médico-chirurgical. La patiente était non fumeuse. Il n'y avait pas de notion de vomissement. La patiente a décrit un début marqué par une tuméfaction palatine suivie par la formation d'une plaie douloureuse, sanguinolente, accompagnée d'une paresthésie dentaire dans le territoire correspondant à la lésion. L'examen clinique a retrouvé une ulcération arrondie au niveau du palais postérieur côté gauche de 2 cm de diamètre, d'aspect cratériforme à fond cruenté, centré par du tissu nécrotique blanchâtre, avec des bords bien limités, légèrement surélevés (Fig. 1). Au niveau des dents en regard, une carie distale a été objectivée sur la 26 en plus d'une légère mobilité de la 27.

Une radiographie panoramique n'a révélé aucune atteinte de l'os sous-jacent (Fig. 2). Après avoir écarté l'origine dentaire de par l'aspect évolutif de la lésion, les hypothèses diagnostiques évoquées face à ce tableau clinique étaient : un carcinome, une sialométaplasie nécrosante, un chancre ou une gomme syphilitique, un chancre tuberculeux, ou bien un lymphome non hodgkinien de localisation extraganglionnaire. Des examens biologiques ont été prescrits : glycémie à jeun, vitesse de sédimentation (VS), numération formule sanguine

* Correspondance : adel.rida@gmail.com



Fig. 1. Aspect de la lésion lors de la première consultation.
Fig. 1. Appearance of the lesion at the first consultation.



Fig. 2. Radiographie panoramique. Absence de lyse.
Fig. 2. Panoramic radiography. No osteolysis.

(NFS), sérologie (HIV, hépatite B et C, syphilis) et intradermoréaction (IDR) à la tuberculine ont été réalisées. Tous les résultats sont revenus normaux. Une biopsie a été effectuée. Elle a révélé un aspect histopathologique en faveur d'une tumeur mésoenchymateuse fuso-cellulaire agressive. L'incertitude du résultat anatomopathologique a conduit à réaliser une deuxième biopsie. L'étude histopathologique a montré une muqueuse malpighienne hyperplasique ulcérée par endroit surmontant un chorion fibreux vascularisé, siège de remaniements inflammatoires non spécifiques, évoquant une lésion fibromateuse bénigne (Fig. 3). Après quatre semaines d'évolution, un début de cicatrisation de la lésion a été observé (Fig. 4). Le diagnostic de sialométaplasie nécrosante a été retenu et une abstention-surveillance a été adoptée, associée à une mise en état de la cavité buccale et une motivation à l'hygiène bucco-dentaire. La patiente a été contrôlée régulièrement, la lésion étant en voie de cicatrisation avec ré-épithélialisation continue. Au bout de six mois, la lésion avait presque totalement disparu (Fig. 5). Un dernier contrôle a été

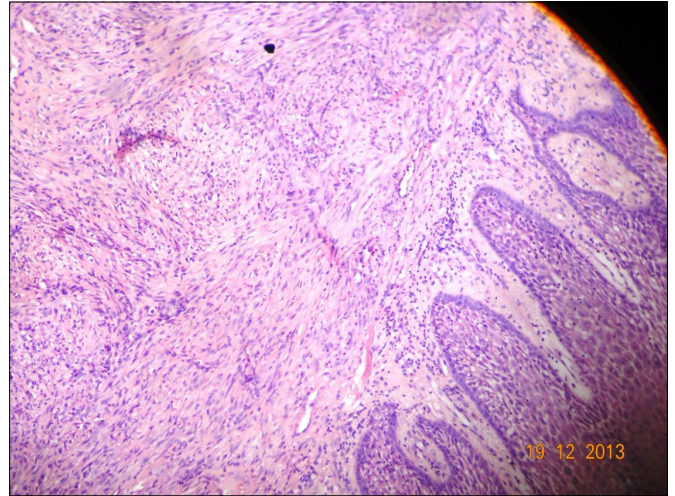


Fig. 3. Aspect histo-pathologique objectivant la présence d'éléments inflammatoires et d'une fibrose lobulaire.
Fig. 3. Histological aspect: Inflammatory elements with lobular fibrosis.



Fig. 4. Aspect de la lésion au bout de 4 semaines d'évolution.
Fig. 4. Appearance of the lesion after 4 weeks of evolution.

effectué au bout d'une année et a révélé une disparition totale de la lésion (Fig. 6).

Discussion

La sialométaplasie nécrosante (SMN) est une maladie inflammatoire rare des glandes salivaires. Sa prévalence est de 0,03 % des lésions de la muqueuse buccale biopsiées [6-7]. Saunders (1958) a rapporté deux observations cliniques très évocatrices d'une SMN palatine. Abrams et al. (1973) l'ont individualisée pour la première fois à partir de sept observations de localisation palatine. En 1979, les premières publications sur la SMN virent le jour en France. Depuis, peu d'études ont



Fig. 5. Aspect de la lésion au bout de 6 mois d'évolution.
Fig. 5. Appearance of the lesion after 6 months of evolution.



Fig. 6. Aspect de la lésion au bout d'une année d'évolution.
Fig. 6. Appearance of the lesion after one year of evolution.

été publiées, en dehors de petites séries dont il est difficile de tirer des conclusions. La revue de la littérature la plus récente a été publiée en 2012 [7].

Le sex-ratio de la SMN est de 2/1 [3, 6]. La SMN concerne une large tranche d'âge (1,5-83 ans), quoique la majorité des patients aient plus de 40 ans [8], alors que dans le cas décrit il s'agissait d'une patiente âgée de 29 ans. Quatre-vingt-huit pour cent des cas de SMN intéressent les glandes salivaires accessoires et 12 % des cas les glandes salivaires principales [7]. Soixante-dix-neuf pour cent des cas sont localisés au palais [7], ce qui correspond au cas rapporté. L'étiopathogénie de la SMN fait l'objet de nombreuses controverses. Les mécanismes ne sont pas clairement élucidés [3, 9-10]. De nombreuses théories ont été suggérées à savoir :

- une intoxication tabagique (la SMN représenterait le stade terminal ou ulcératif d'une stomatite nicotinique palatine) [6-7, 11] ;

- une carence en vitamine A [7, 10] ;
- un mécanisme allergique (par présence des polynucléaires éosinophiles dans l'infiltrat inflammatoire de la SMN) [7, 11] ;
- une infection ORL [7, 11] ou généralisée telle que le VIH [7] ;
- une anorexie et une boulimie [9], car plusieurs sont survenues chez des jeunes femmes anorexiques et/ou boulimiques [7] ;
- un événement ischémique [2-4, 7, 9, 11] serait aussi à l'origine d'une nécrose des lobules salivaires en compromettant leur circulation sanguine, soit par atteinte vasculaire (athérosclérose, hypertension artérielle), soit par traumatisme (injections d'anesthésiques locaux [9], usage de produits chimiques lors des soins dentaires [9], ingestion de boissons chaudes [9], port de prothèses dentaires [9], intervention chirurgicale locorégionale [4, 9, 11] ou présence d'une tumeur des voies aérodigestives supérieures.

Dans le cas rapporté, aucune des théories n'était retrouvée. Une possible manipulation intempestive de la brosse à dent ou une alimentation chaude a été suggérée par la patiente.

L'aspect clinique est souvent celui d'une ulcération cratériforme [1, 3, 6, 12] de la muqueuse palatine de 5 à 20 mm de diamètre à fond blanchâtre, recouvert par des tissus nécrotiques associés à un exsudat fibrino-leucocytaire [7, 10]. Elle est entourée d'un halo érythémateux ou blanchâtre et peut être unilatérale ou bilatérale [7]. Elle était unilatérale dans le cas présenté. La SMN peut se présenter sous deux formes cliniques [1, 10] : la forme ulcérate, c'est la sialométaplasie nécrosante qui correspond au cas clinique ; la forme tumorale, c'est la sialadénite nécrosante subaiguë qui constituerait le stade initial [3-4] de la SMN ou une forme plus localisée. La SMN touche préférentiellement les glandes salivaires accessoires, notamment le palais dur, et la jonction palais dur-palais mou [7, 10]. Plus rarement, d'autres localisations ont été décrites : les glandes salivaires principales (parotide et submandibulaire) [13]. La SMN peut être accompagnée de douleurs locales, parfois irradiantes. Dans certains cas, elle est associée à des troubles de la sensibilité de la zone concernée, comme une paresthésie [3], une hypoesthésie ou une anesthésie [7]. À noter que, dans le cas présenté, une paresthésie dentaire dans le territoire correspondant à la lésion a été relevée. Rarement, il existe une fièvre, des migraines ou une adéno-pathie. Le diagnostic différentiel au stade initial est celui d'un abcès d'origine dentaire ou une tumeur des glandes salivaires accessoires (adénome pléomorphe).

Au stade d'ulcération, on peut penser à un carcinome, un aphte géant (périadénite de Sutton), une ulcération d'origine infectieuse (tuberculose, syphilis, mycose systémique), une agranulocytose, un lymphome non hodgkinien ou un sarcome [3, 14]. Plus rarement, une thrombose de l'artère palatine peut être confondue avec une SMN [15].

L'évolution de la SMN est spontanément favorable au bout de 4 à 10 semaines sans traitement [14]. L'évolution spontanément

favorable permet le diagnostic différentiel avec une tumeur maligne. La cicatrisation s'effectue par seconde intention [3, 14]. Des évolutions prolongées ont été rapportées, probablement liées à l'extension de la lésion ou à une surinfection. Dans le cas exposé, la cicatrisation s'est faite lentement (six mois environ), cela a été rattaché au fait qu'il y ait eu deux biopsies. Il n'a jamais été rapporté de récurrence [3].

Sur le plan histologique, la SMN se caractérise par cinq critères [3, 7, 9, 11] :

- un infarctus ou une nécrose lobulaire ;
- la persistance de noyaux fantômes ;
- une métaplasie épidermoïde intéressant simultanément les canaux et les acini muqueux ;
- la présence d'un infiltrat inflammatoire et de tissu de granulation ;
- la conservation de l'aspect lobulaire bien que les altérations inflammatoires et métaplasiques touchent plusieurs lobules glandulaires.

L'aspect histopathologique dépend du stade d'évolution au moment de la biopsie. C'est ce qui expliquerait le fait que la métaplasie en question n'ait pas été retrouvée à l'étude microscopique de ce cas. Anneroth et Hansen ont décrit cinq stades évolutifs de la SMN : stade d'infarctus, de séquestration, d'ulcération, de réparation et de guérison [2, 3, 9]. L'aspect histologique conduit très souvent à une confusion avec une lésion carcinomateuse [1]. Des plages de métaplasie épidermoïde apparaissent souvent comme en continuité avec les crêtes épithéliales. Cet aspect qui peut faire évoquer le diagnostic de carcinome épidermoïde ou de carcinome muco-épidermoïde lorsque le mucus est abondant [2]. Le prélèvement doit donc être large et profond pour permettre l'examen de tous les éléments constitutifs de la SMN [7]. Dans le cas présenté, une incertitude a été notée, suggérant une lésion agressive dont la nature exacte devait être démontrée par une étude histochimique. Cependant, l'évolution clinique n'a pas corroboré ce résultat. Il a donc été décidé de réaliser une nouvelle biopsie. Celle-ci a retrouvé un infiltrat inflammatoire et du tissu de granulation. Des erreurs d'étiquetage histologique peuvent conduire à une thérapeutique mutilante à tort [1, 2]. Il faut retenir qu'en cas de doute, on peut s'accorder un délai de deux à trois semaines pour observer l'évolution, car ce délai modifie peu le pronostic s'il s'agit effectivement d'une tumeur ulcérée mais il permet d'éviter la réalisation d'une intervention d'exérèse à visée carcinologique, mutilante, telle qu'une maxillectomie [7].

En général, lorsque le diagnostic de la SMN est établi, la lésion se trouve déjà à un stade avancé de l'évolution (stade de nécrose ou d'ulcération). La prise en charge repose sur :

- un traitement symptomatique à visée antalgique [10] ;
- des mesures d'hygiène bucco-dentaire pour éviter la surinfection [4-10] ;
- au stade de nécrose, on peut procéder à l'élimination du tissu nécrotique.

Au stade initial de l'évolution, une corticothérapie systémique pourrait stopper l'évolution vers le stade nécrotique, mais son intérêt reste encore discuté [7].

Un suivi régulier est adopté jusqu'à la guérison [7].

Conclusion

La SMN est une affection bénigne rare des glandes salivaires accessoires, de diagnostic parfois difficile. Le pronostic est excellent mais la cicatrisation peut s'étendre sur plusieurs mois. En raison des difficultés d'interprétation anatomopathologiques, il semble indispensable de faire des biopsies de grande taille, à cheval sur l'ulcération et une de ses berges, de pratiquer de nombreux plans de coupe et de réaliser une confrontation anatomoclinique de qualité. Enfin, la certitude du diagnostic n'est apportée que par l'évolution spontanément résolutive de la lésion, la cicatrisation survenant dans les trois à dix semaines suivant l'apparition de l'ulcération.

Conflits d'intérêt : aucun

Références

1. Femopase FL, Hernández SL, Gendelman H, Criscuolo MI, López-de-Blanc SA. Necrotizing sialometaplasia: report of five cases. *Med Oral* 2004;9:304-8.
2. Dong Jin L, Hye Kyung A, Eun Seok K, Young Soo R, Hyung Ro C. Necrotizing sialometaplasia accompanied by adenoid cystic carcinoma on the soft palate. *CEO* 2009;2:48-51.
3. Alves O, Kitakawa D, Carvalho Y, Cabral L, Almeida J. Necrotizing sialometaplasia as a cause of a non-ulcerated nodule in the hard palate: a case report. *J Med Case Rep* 2011;5:406.
4. Ylikontiola L, Siponen M, Salo T, Sándor GK. Sialometaplasia of the soft palate in a 2-year old girl. *J Can Dent Assoc* 2007;73(4):333-6.
5. Eguía A, Vicario F, Muniz E, Ortega C. Sialometaplasia necrotizante: A proposito de un caso. *Rev Soc Otorrinolaryngol Castilla Leon Cantab* 2010;1:219-26.
6. Krishna S, Ramnarayan B. Necrotizing sialometaplasia of palate: a case report. *Imaging Sci Dent* 2011;41(1):35-8.
7. Aubies-Trouilh S, Fricain J-C. La sialométaplasie nécrosante : revue systématique de la littérature. *Med Buccale Chir Buccale* 2012;18:347-59.
8. Durrani F, Singh R, Durrani F, Ohja U. Necrotizing Sialometaplasia: a case report. http://www.webmedcentral.com/article_view/1704.
9. Garcia N.G, Oliveira DT, Faustino SES, Azevedo ALR. Necrotizing Sialometaplasia of Palate: A Case Report. *Case Rep Pathol* 2012;2012:679325.
10. Souyris F. Affections vélo-palatines. *EMC* 1999-22-056-A-30.
11. Rodrigues Johann A, Ferreira de Aguiar M, Mesquita R, Vieira do Carmo M. Necrotizing sialometaplasia of the palate. *Oral Oncol* 2006;42:147-49.

12. Piette E, Reyckler H. *Traité de pathologies buccale et maxillo-faciale*. De Boeck, Bruxelles, 1991.
13. Azim A, Allam H, Chong-Lopez A, Shollik N. Necrotizing sialometaplasia of parotid gland. *Tanta Medical Sciences Journal* 2007;2:173-75.
14. Bascones-Martínez A, Muñoz-Corcuera M, Cerero-Lapiedra R, Bascones-Ilundáin J, Esparza-Gómez G. Case report of necrotizing sialometaplasia. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2011;16:700-3.
15. d'Elbée J-M, Fricain J-C. Thrombose de l'artère palatine. *Med Buccale Chir Buccale* 2013;19:63-4.