

Cas clinique et revue de la littérature

Pseudotumeur inflammatoire du sinus maxillaire : un cas

Samia Ayachi^{1,*}, Ramzi Moatemri¹, Zouha Mziou¹, Lamia Oualha², Sarra Mestiri³,
Habib Khochtali¹

¹ Service de Chirurgie maxillo-faciale, EPS Sahloul, Sousse, Tunisie

² Service de Médecine dentaire, EPS Sahloul, Sousse, Tunisie

³ Laboratoire d'Anatomie et de Cytologie pathologiques, EPS Farhat Hached, Sousse, Tunisie

(Reçu le 2 juin 2014, accepté le 7 juin 2015)

Mots clés :
pseudotumeur
inflammatoire / tumeur
myofibroblastique
inflammatoire / sinus
para-nasaux

Résumé – Introduction : Les pseudotumeurs inflammatoires sont un groupe rare de tumeurs bénignes d'étiologie inconnue. La localisation cervico-faciale est rare, particulièrement au niveau des sinus para-nasaux. Les auteurs rapportent une nouvelle observation de pseudotumeur inflammatoire au niveau du sinus maxillaire et discutent les caractéristiques cliniques et thérapeutiques de cette entité en se basant sur une revue de la littérature. **Observation :** Patiente, âgée de 31 ans, ayant consulté pour une tuméfaction jugale droite évoluant depuis trois mois. L'examen clinique a montré un comblement vestibulaire supérieur droit avec une mobilité des dents en regard. La tomодensitométrie a confirmé la présence d'un processus tissulaire dense du sinus maxillaire droit avec érosion des parois osseuses et extension à la fosse nasale homolatérale. Elle a bénéficié d'une exérèse tumorale. L'examen histologique a été en faveur d'une tumeur myofibroblastique inflammatoire du sinus maxillaire. Aucune récurrence n'a été notée avec un recul de neuf ans. **Discussion :** Bien que bénignes, ces pseudotumeurs inflammatoires présentent des caractéristiques cliniques d'agressivité avec un pouvoir lytique mimant une tumeur maligne. Le traitement de ces tumeurs est mal codifié. L'exérèse chirurgicale et les corticostéroïdes représentent les modalités thérapeutiques les plus utilisées.

Key words:
inflammatory
pseudotumor /
inflammatory
myofibroblastic tumor /
paranasal sinuses

Abstract – Inflammatory pseudotumor of the maxillary sinus : a case report. Introduction: Inflammatory pseudotumors are a rare group of benign neoplasms of unknown etiology. They are uncommon in the head and neck, particularly in the paranasal sinuses. The authors report a new case of an inflammatory pseudotumor of the maxillary sinus, and discuss the clinical and therapeutic characteristics of this entity based on a literature review. **Case:** The patient, aged 31, consulted for a right cheek swelling lasting for 3 months. Clinical examination showed a right upper vestibular filling with teeth mobility. Computed tomography confirmed the presence of a dense tissue process of the right maxillary sinus with erosion of the bone walls and extension to the ipsilateral nasal cavity. Tumor resection was done, and histological examination showed an inflammatory myofibroblastic tumor of the maxillary sinus. No recurrence was observed with a follow-up of 9 years. **Discussion:** Although benign, inflammatory pseudotumors often show aggressive clinical behavior, with locally destructive features that mimic a malignant tumor. Their treatment is not well established. Surgical excision and corticosteroids are the most used. Surgeons and pathologists should consider this entity in order to avoid surgery.

Introduction

Les pseudotumeurs inflammatoires (PTI) sont des tumeurs bénignes rares dont la dénomination dans la littérature est multiple : granulome à cellules plasmocytaires, prolifération myofibroblastique inflammatoire, pseudotumeur xanthomateuse, histiocytome à cellules plasmocytaires complexes [1].

Décrite initialement par Birch-Hirschfield en 1905 [2, 3], cette tumeur se caractérise par une prolifération myofibroblastique associée à des lymphocytes, histiocytes, plasmocytes et des macrophages au sein d'un stroma riche en fibres de collagène [4, 5]. L'étiopathogénie de cette tumeur reste inconnue, plusieurs hypothèses ont été évoquées comme l'origine auto-immune, infectieuse et tumorale [6, 7, 8]. Les localisations les

* Correspondance : samia.ayachi@gmail.com



Fig. 1. Tuméfaction de la joue droite effaçant le sillon nasogénien.
Fig. 1. Swelling of the right cheek erasing the nasolabial furrow.

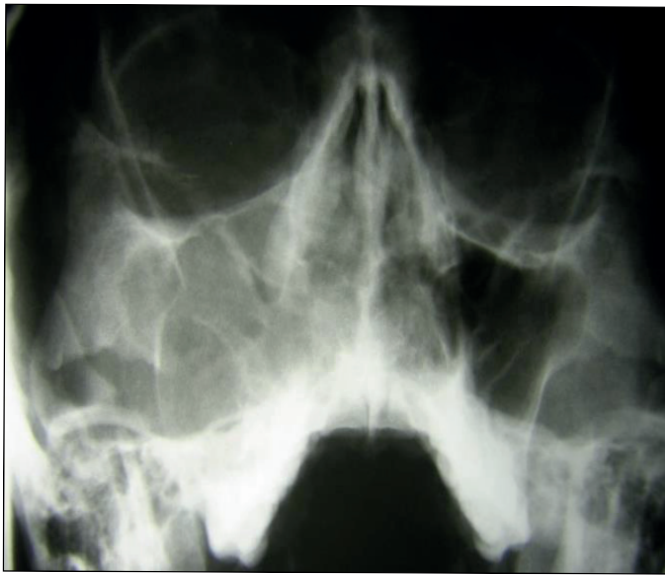


Fig. 2. Radiographie de Blondeau : comblement du sinus maxillaire droit.
Fig. 2. Blondeau radiography showing the filling of the right maxillary sinus.

plus fréquentes sont le poumon et l'orbite [3, 9]. Au niveau de la région cervico-faciale, leur incidence est de 15 % [5] et elle représente 16 % des tumeurs bénignes de la cavité buccale [10]. La localisation au niveau du sinus maxillaire est rare, seule une vingtaine de cas sont rapportés dans la littérature [11].

Les auteurs rapportent l'observation d'une pseudotumeur inflammatoire du sinus maxillaire, après accord préalable de la patiente pour publier ses photographies, et discutent les caractéristiques cliniques et thérapeutiques de cette entité.

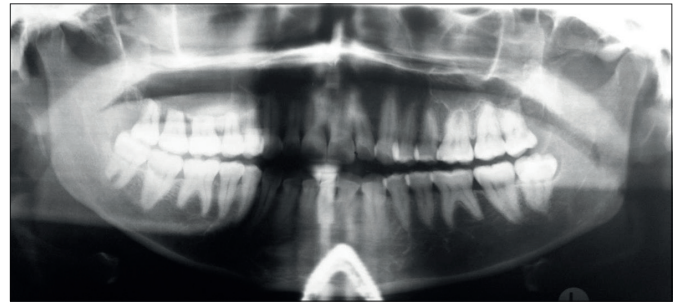


Fig. 3. Orthopantomogramme montrant une rhizalyse des 15, 16, 17 et 18 avec lyse osseuse en regard.
Fig. 3. Orthopantomogram showing rhizolysis of teeth 15, 16, 17 and 18 with peripheral osteolysis.

Observation

Une patiente âgée de 31 ans, sans antécédent pathologique général, a été adressée pour une tuméfaction jugale droite évoluant depuis trois mois avec une hyperesthésie sous-orbitaire et une rhinorrhée mucopurulente homolatérale (Fig. 1). L'examen endobuccal a objectivé :

- un comblement vestibulaire supérieur droit et une voussure palatine avec une muqueuse saine en regard ;
- une mobilité des 15, 16, 17 et 18.
- L'examen cervical n'a pas mis en évidence d'adénopathies.

La radiographie de Blondeau a montré un comblement du sinus maxillaire droit (Fig. 2).

La radiographie panoramique a noté une rhizalyse des dents mobiles (15, 16, 17 et 18) avec lyse osseuse en regard (Fig. 3).

La tomodensitométrie a objectivé un processus tissulaire dense du sinus maxillaire droit avec érosion des parois osseuses et extension à la fosse nasale homolatérale (Fig. 4).

Devant ces données cliniques et radiologiques, un processus tumoral malin a été fortement suspecté. Une biopsie par voie endonasale a montré des signes d'inflammation chronique. Devant le résultat non concluant de la biopsie, nous avons opté pour un abord direct de la tumeur avec un examen extemporané.

La patiente a été avertie des différentes éventualités thérapeutiques :

- si tumeur bénigne : exérèse tumorale en monobloc ;
- si lymphome : polychimiothérapie ;
- si carcinome : maxillectomie avec curage ganglionnaire.

La patiente a été opérée sous anesthésie générale par voie vestibulaire et abord sinusien de Caldwell-Luc. La tumeur a été facilement clivable (Fig. 5). L'examen histologique extemporané de la pièce tumorale a conclu à une tumeur mésoenchymateuse bénigne. L'examen histopathologique définitif a objectivé une prolifération tumorale à cellules fusiformes, mal limitée. Les cellules étaient d'aspect fibroblastique et myofibroblastique, à noyaux réguliers, allongés, globuleux ou ondulants à bouts effilés. Les mitoses étaient exceptionnelles. Cette

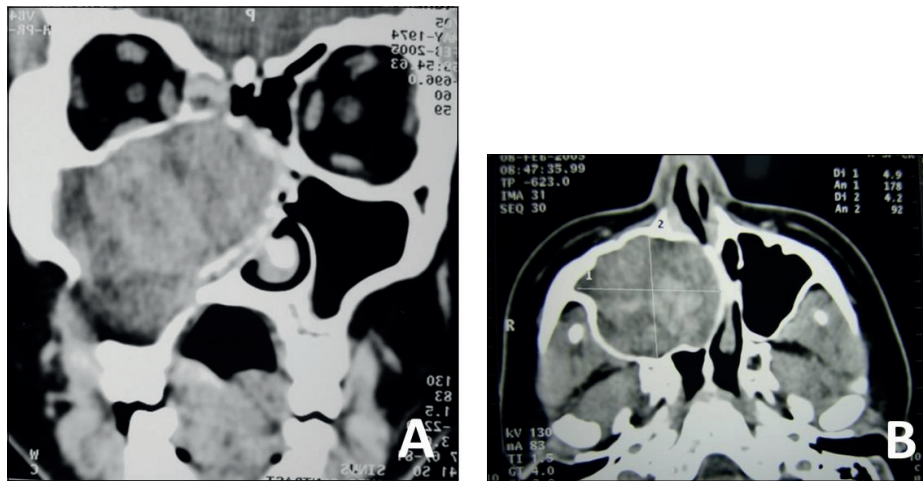


Fig. 4. TDM du massif facial en coupe frontale (A) et axiale (B) montrant un processus tumoral qui occupe la totalité du sinus maxillaire droit avec extension à la fosse nasale homolatérale.

Fig. 4. TDM with frontal (A) and axial (B) view, showing tumoral process filling at the right maxillary sinus.

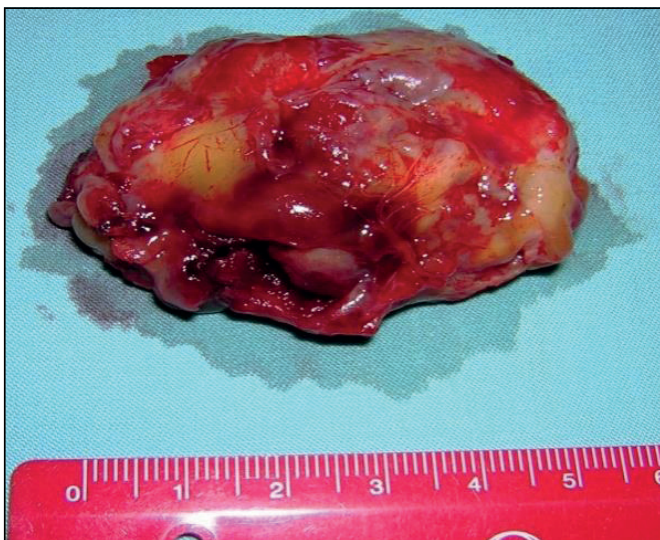


Fig. 5. Vue macroscopique de la tumeur.

Fig. 5. Macroscopic view of the tumor.

prolifération cellulaire était située au sein d'une abondante matrice fibreuse renfermant des vaisseaux à paroi légèrement épaissie associés à un infiltrat inflammatoire polymorphe, faits de lymphocytes, plasmocytes et polynucléaires éosinophiles (Fig. 6a et b). L'étude immuno-histochimique a montré une positivité des cellules tumorales avec la smooth muscle actin (SMA) et la desmine (focalement exprimée) (Fig. 6c). La h-caldesme, le CD34, la PS100 et l'ALK ont été négatifs.

Aucune corticothérapie ni radiothérapie n'a été instaurée en postopératoire. La patiente a été régulièrement suivie et les suites opératoires ont été simples, sans récurrence tumorale.

Le scanner de contrôle, à deux ans postopératoire, n'a pas montré de récurrence locale (Fig. 7).

L'évolution a été favorable sans récurrence locale avec un recul de neuf ans.

Discussion

Les PTI sont des formations tissulaires ubiquitaires rares souvent méconnues. Les sites les plus fréquemment rapportés sont le poumon et l'abdomen. La localisation cervico-faciale est moins fréquente et représente moins de 5 % des cas, en dehors des localisations orbitaires [3]. Elles ont été rapportées au niveau des cavités nasale et buccale [9, 12], des glandes salivaires [13], de la fosse ptérygo-maxillaire [14] et des régions pharyngées et laryngées [15, 16].

Les PTI pulmonaires et viscérales se rencontrent essentiellement chez l'enfant alors que les localisations cervico-faciales sont préférentiellement rencontrées chez l'adulte jeune. Au niveau du sinus maxillaire, seule une vingtaine de cas ont été décrits dans la littérature [11].

La symptomatologie initiale des PTI des sinus maxillaires est non spécifique, se présentant comme une masse nasosinusienne évoluant progressivement sur des mois voire des années [4, 7].

Cette tumeur peut être associée à des algies faciales, obstruction nasale, épistaxis, simulant souvent une tumeur maligne avec infiltration des parties molles, déformation endo-buccale et mobilité dentaire [7, 11].

La muqueuse sinusienne en regard peut revêtir un aspect normal, œdématisé ou hypertrophique à l'endoscopie nasale. Une atteinte ganglionnaire a été rapportée [11, 17].

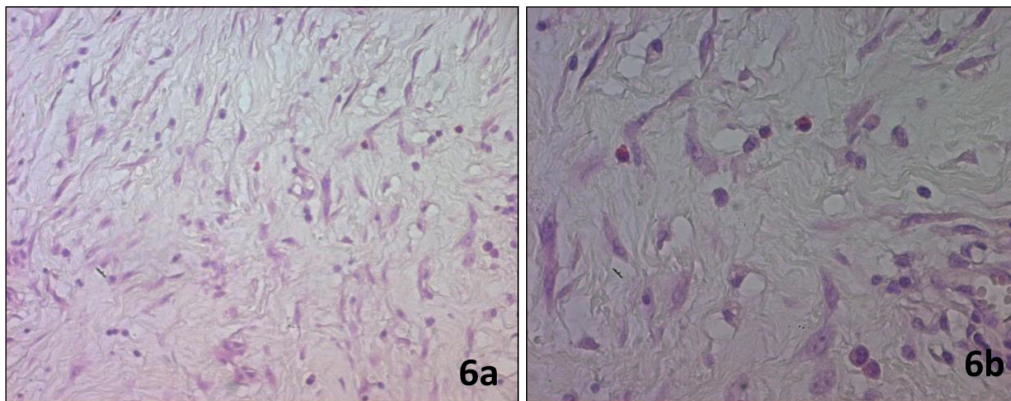


Fig. 6a et b. HE x 200 et HE x 400 : prolifération de cellules fusiformes à noyaux allongés, ondulants à bouts effilés, parfois nucleolus, au sein d'une abondante matrice fibreuse renfermant des lymphocytes et des éosinophiles.

Fig. 6a and b. HE x 200 et HE x 400: proliferation of fusiform cells in fibrous matrix containing lymphocytes and eosinophil cells.

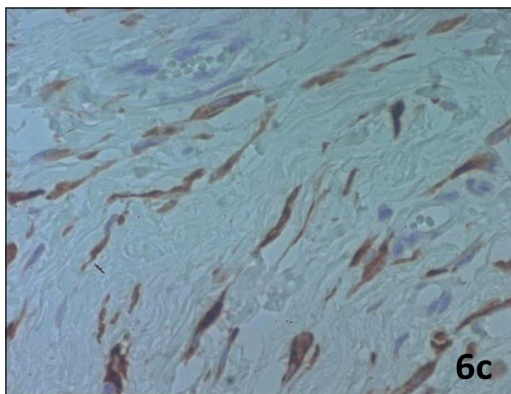


Fig. 6c. IHC x 200 : Immunomarquage des cellules fusiformes avec la desmine.

Fig. 6c. IHC x 200: Immunostaining of fusiform cells with desmin.

Les manifestations systémiques telles la fièvre, une perte de poids, une anémie et/ou une vitesse de sédimentation augmentée sont généralement observées dans les localisations pulmonaires et abdominales et non pas dans les localisations nasosinusiennes [6, 2].

L'examen tomодensitométrique révèle le plus souvent une masse tissulaire homogène, de densité variable prenant le contraste, avec lyse des parois osseuses [17]. Au niveau de la région nasosinusiennne, les PTI semblent plus agressives qu'au niveau des autres localisations [1, 2]. Une extension au niveau des fosses nasales, du palais, de l'orbite et de la fosse infra-temporale a été fréquemment rapportée [6, 8]. Les explorations radiologiques ne font que confirmer l'impression de malignité et permettent de préciser l'extension tumorale et de suivre l'évolution après le traitement. Ces PTI peuvent être multifocales et il est difficile de distinguer une vraie métastase d'une lésion primaire synchrone ou métachrone [1, 3].

Macroscopiquement, il s'agit d'une tumeur unique ou multiple, généralement bien circonscrite, bien que non encapsulée, adhérent ou infiltrant les organes. À la coupe, elle est ferme, blanc-jaunâtre, homogène.

Histologiquement, la PTI est caractérisée par la prolifération de cellules fusiformes se disposant soit de façon dense avec une architecture storiforme ou fasciculée, soit de façon lâche dans un stroma myxoïde. Ces cellules sont fusiformes, globuleuses ou étoilées de taille moyenne, dotées de noyaux volumineux, vésiculeux comportant des nucléoles proéminents éosinophiles. Les atypies nucléaires sont absentes ou discrètes. Le cytoplasme est abondant, amphiphile. L'activité mitotique est le plus souvent faible. La nécrose est rare. Il s'y associe constamment un infiltrat inflammatoire polymorphe lymphoplasmocytaire, des polynucléaires éosinophiles et des neutrophiles [18]. Il convient de distinguer les PTI non infectieuses des PTI spécifiques infectieuses en particulier les infections à mycobactéries positives, observées chez les patients séropositifs pour le VIH. Le diagnostic différentiel peut se poser avec un rhabdomyosarcome embryonnaire, un léiomyosarcome, un schwannome ou un neurofibrome. L'étude immunohistochimique démontre le phénotype myofibroblastique des cellules qui prolifèrent puisqu'elles expriment l'actine musculaire lisse et focalement la desmine, voire la kératine AE1/AE3 dans les lésions abdominales et vésicales. Les PTI sont souvent positives pour ALK1 (50 % des cas) en corrélation avec un réarrangement du gène ALK, ceci surtout chez l'enfant et l'adulte jeune [19].

Le traitement de ces tumeurs est encore mal codifié. L'exérèse chirurgicale des localisations nasosinusiennes est indiquée en première intention. Elle doit être la moins mutilante possible du fait de la bénignité des PTI [9, 11, 20]. En cas de récurrence ou d'exérèse incomplète, une corticothérapie à forte dose est indiquée [7]. Sa durée est d'au moins quatre semaines et elle peut être prolongée en cas de cortico-résistance. La

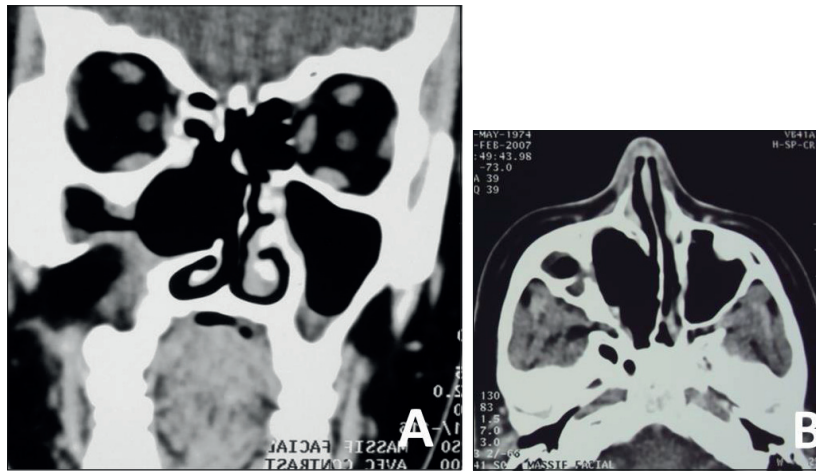


Fig. 7. TDM du massif facial de contrôle à deux ans postopératoire, en coupes frontale (A) et axiale (B) montrant l'absence de récurrence tumorale.

Fig. 7. TDM exam two years after tumour resection. No recurrence was observed.

radiothérapie à visée anti-inflammatoire est réservée aux formes ayant résisté à tous les traitements précédents, son efficacité n'a pas été prouvée [14, 17]. L'exérèse chirurgicale a été complète chez notre patiente, ce qui n'a pas nécessité une corticothérapie adjuvante. La surveillance clinique et radiologique n'a pas montré de récurrence avec un recul de neuf ans.

Bien que rare, ces PTI des sinus maxillaires semblent présenter une évolution clinique plus favorable et se distinguent des autres localisations par l'absence de récurrence, de transformation maligne et de métastases [1, 3].

Conclusion

Les PTI sont un groupe de tumeurs bénignes d'étiologie inconnue. La localisation au niveau du sinus maxillaire est rarissime. Elle est caractérisée par son agressivité locale. Le traitement est médico-chirurgical. Les chirurgiens et les anatomopathologistes doivent penser à cette entité afin d'éviter une chirurgie trop délabrante. Les patients devront se soumettre à une surveillance régulière pour reconnaître une récurrence ou une éventuelle dégénérescence.

Conflits d'intérêt : aucun

Références

- Naveen J, Sonalika W, Prabhu S, Gopalkrishnan K. Inflammatory pseudotumor of maxillary sinus: Mimicking as an aggressive malignancy. *J Oral Maxillofac Pathol* 2011;15(3): 344-345.
- Vuyser S, Hermans R, Sciort R, Crevits I, Marchal G. Extraorbital inflammatory pseudotumor of the head and neck: CT and MR findings in three patients. *Am J Neuroradiol* 1999;20:1133-1139.
- Gallego L, Santamarta TR, Blanco V, Garcia-Consuegra L, Cutilli T, Junquera L. Inflammatory myofibroblastic tumor of the lung and the maxillary region: a benign lesion with aggressive behavior. *Case Rep Dent* 2013;2013:879792.
- Kim SY, Yang SE. Inflammatory myofibroblastic tumor of the maxillary sinus related with pulp necrosis of maxillary teeth: case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2011;112(5): 684-687.
- Lazaridou M, Dimitrakopoulos I, Tilaveridis I, Iordanidis F, Kontos K. Inflammatory myofibroblastic tumor of the maxillary sinus and the oral cavity. *Oral Maxillofac Surg* 2014;18(1):111-114.
- Soysal V, Yigitbasi OG, Kontas O, Kahya HA, Guney E. Inflammatory myofibroblastic tumor of the nasal cavity: a case report and review of the literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2001; 61(2):161-165.
- Chuang CC, Lin HC, Huang CW. Inflammatory pseudotumor of the sinonasal tract. *J Formos Med Assoc* 2007;106(2):165-168.
- Nakayama K, Inoue Y, Aiba T, Kono K, Wakasa K, Yamada R. Unusual CT and MR findings of inflammatory pseudotumor in the parapharyngeal space: case report. *AJNR Am J Neuroradiol* 2001; 22(7):1394-1397.
- Huang WH, Dai YC. Inflammatory pseudotumor of the nasal cavity. *Am J Otolaryngol* 2006;27:275-277.
- El Khatib K, Guerouani A, Hajji F, Sabani H, Al Bouzidi A, Rzin A. Tumeurs bénignes de la cavité buccale : étude rétrospective de 209 cas. *Med Buccale Chir Buccale* 2011;17:115-119.
- Thomas L, Uppal HS, Kaur S, David VC. Inflammatory pseudotumor of the maxillary sinus presenting as a sino-nasal malignancy. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2005;262(1):61-63.
- Gleizal A, Ranchere-Vince C, Beziat JL. Inflammatory myofibroblastic tumor of the tongue: a case report. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2007;45(5):423-424.
- Oudidi A, Hachimi H, Ridal M, El Alami MN. Pseudotumeur inflammatoire de la parotide. À propos d'un cas. *La Lettre d'Oto-rhino-laryngologie et de chirurgie cervico-faciale* 2006; 302:20-21.

14. Karakök M, Ozer E, Sari I, Mumbuc S, Aydin A, Kanlikama M, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor) of the maxillary sinus mimicking malignancy: a case report of unusual location (is that a true neoplasm?). *Auris Nasus Larynx* 2002;29(4):383-386.
15. Maruya S, Miura K, Tada Y, Masubuchi T, Nakamura N, Fushimi C, et al. Inflammatory pseudotumor of the parapharyngeal space: a case report. *Auris Nasus Larynx* 2010;37(3):397-400.
16. Vellin JF, Canata CM, Kemeny JL, Liompart X, Russier M, Mom T, et al. Tumeur myofibroblastique inflammatoire du larynx. *Fr ORL* 2005;87:75-77.
17. Zhou SH, Ruan LX, Xu YY, Wang SQ, Ren GP, Ling L. Inflammatory myofibroblastic tumor in the left maxillary sinus: a case report. *Chin Med J* 2004;117(10):1597-1599.
18. Coffin CM, Humphrey PA, Dehner LP. Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic: a clinical and pathological survey. *Semin Diagn Pathol* 1998;15(2):85-101.
19. Sirvent N, Coindre JM, Peudetour F. Inflammatory myofibroblastic tumors. *Ann Pathol* 2002;22:453-460.
20. Lee HM, Choi G, Choi CS, Kim CH, Lee SH. Inflammatory pseudotumor of the maxillary sinus. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2001;125(5):565-566.