

# Carcinome mucoépidermoïde de la base de langue : présentation d'un cas

## *Mucoepidermoid carcinoma of the tongue base : a case report*

**Gustin T. et Sasserath C.**

Service de Stomatologie et de Chirurgie maxillo-faciale, Centre hospitalier de Wallonie picarde (CHwapi), Tournai

### RESUME

*Introduction : Le carcinome mucoépidermoïde (CME) est la tumeur maligne et localement invasive la plus fréquente des glandes salivaires. Les glandes salivaires accessoires se trouvent dans toute la cavité buccale mais la base de langue reste une localisation peu fréquente pour le CME.*

*Cas clinique : Nous rapportons le cas d'une patiente de 68 ans présentant un CME de la base de la langue découvert lors d'une mise au point de pharyngodynie. Après un bilan d'extension par résonance magnétique et exérèse chirurgicale, l'examen anatomopathologique a conclu au diagnostic de CME de bas grade. Le traitement a été complété par une radiothérapie adjuvante. Le suivi clinique et radiologique à 12 mois ne montre aucun signe de récurrence.*

*Discussion : La classification du CME des glandes salivaires accessoires en bas, intermédiaire ou haut grade, dépend du type histologique. Le traitement de première intention est chirurgical et associé à une radiothérapie adjuvante en cas de haut grade histologique ou de tumeurs volumineuses avec marges de résection positives.*

*Conclusion : Devant une tumeur de la base de la langue, le diagnostic différentiel inclut plusieurs tumeurs bénignes ou malignes. Malgré sa rareté, le CME reste la tumeur maligne la plus fréquente des glandes salivaires et peut survenir au niveau de la base de la langue. Vu les risques de récurrence, un suivi à long terme voire à vie est préconisé.*

*Rev Med Brux 2020 ; 41 : 160-3  
Doi : 10.30637/2020.19-080*

### ABSTRACT

*Introduction : Mucoepidermoid carcinoma (MEC) is the most common malignant and locally-invasive tumour of the salivary glands. Minor salivary glands are found throughout the oral cavity but the tongue base is an uncommon location for MEC.*

*Case report : We report the case of a 68-year-old woman with a MEC of the tongue base discovered during a pharyngodynia check-up. After magnetic resonance imaging, surgical excision was performed and histological examination revealed a low-grade MEC. Treatment was completed with adjuvant radiotherapy. Clinical and radiological follow-up showed no signs of recurrence at 12 months post treatment.*

*Discussion : MECs of the minor salivary glands are histologically classified as low, intermediate or high-grade. First-line treatment is surgery and adjuvant radiotherapy may be used in cases of high-grade malignancy or advanced tumours with positive resection margins.*

*Conclusion : When dealing with a tongue base mass, the differential diagnosis should include several benign and malignant neoplasms. Despite its rarity, MEC remains the most common malignant tumour of the salivary glands and can occur in the tongue base. Given the risks of recurrence, long-term or even lifelong follow-up is recommended.*

*Rev Med Brux 2020 ; 41 : 160-3  
Doi : 10.30637/2020.19-080*

*Key words : mucoepidermoid carcinoma, tongue base mass, head and neck cancer*

## INTRODUCTION

Le carcinome mucoépidermoïde (CME) est la tumeur maligne et localement invasive la plus fréquente des glandes salivaires<sup>1-3</sup>. Il est défini comme une tumeur épithéliale et glandulaire maligne caractérisée par trois types de cellules : épidermoïdes/malpighiennes, mucosécrétantes et intermédiaires (progénitrices pour les deux autres types)<sup>1-3</sup>. Le CME représente près de 35 % de toutes les tumeurs malignes des glandes salivaires et se retrouve le plus souvent au niveau de la glande parotide (89,6 %). Il peut également, mais moins fréquemment, atteindre les glandes salivaires accessoires au niveau de toute la cavité buccale. La base de la langue est une localisation peu trouvée dans la littérature<sup>1-5</sup>. Nous rapportons un rare cas de CME de la base de la langue chez une patiente de 68 ans et discutons la classification histologique et la prise en charge de cette pathologie.

## CAS CLINIQUE

Une femme de 68 ans s'est présentée dans le Service de Chirurgie maxillo-faciale pour des pharyngodynies présentes depuis quelques semaines. À l'anamnèse, la patiente rapportait un antécédent de néoplasie mammaire traitée par chirurgie. Elle était non fumeuse. L'examen clinique de la cavité buccale a mis en évidence une lésion exophytique centrée sur la base de la langue, assez volumineuse d'environ la taille d'une demi balle de ping-pong. L'examen exo-buccal ne retrouvait pas d'adénopathie. Une résonance magnétique a permis de mettre en évidence une importante masse tumorale basilinguale (47 x 34 x 31 mm), latéralisée à gauche et franchissant la ligne médiane, faisant protrusion dans la lumière de l'oropharynx, hypersignal en T2. Une biopsie de la partie oropharyngée de cette masse a été réalisée lors d'une laryngoscopie en suspension, sous anesthésie générale, par coblation, sans grande difficulté. L'examen anatomopathologique a conclu à un cystadénome mucineux. Après concertation multidisciplinaire, l'exérèse chirurgicale a été réalisée par un double abord transoral et cervical évitant tous les écueils et complications d'une voie transmandibulaire. L'examen anatomopathologique définitif effectué sur la pièce opératoire a finalement conclu à un CME de bas grade (figure) qui, au niveau de certains plans de section, affleurait la marge chirurgicale ; raison pour laquelle la patiente a bénéficié d'une radiothérapie adjuvante. La TEP-CT (tomographie par émission de positrons couplée à une tomodynamométrie) réalisé en période post-opératoire et les résultats histopathologiques ont permis de conclure à un stade p T3 N0 M0. Le suivi clinique et radiologique à 12 mois ne montre aucun signe de récurrence.

## DISCUSSION

La base de la langue peut être le siège de tumeurs tant bénignes que malignes. Les tumeurs malignes sont le plus fréquemment des carcinomes épidermoïdes, mais elles peuvent également se

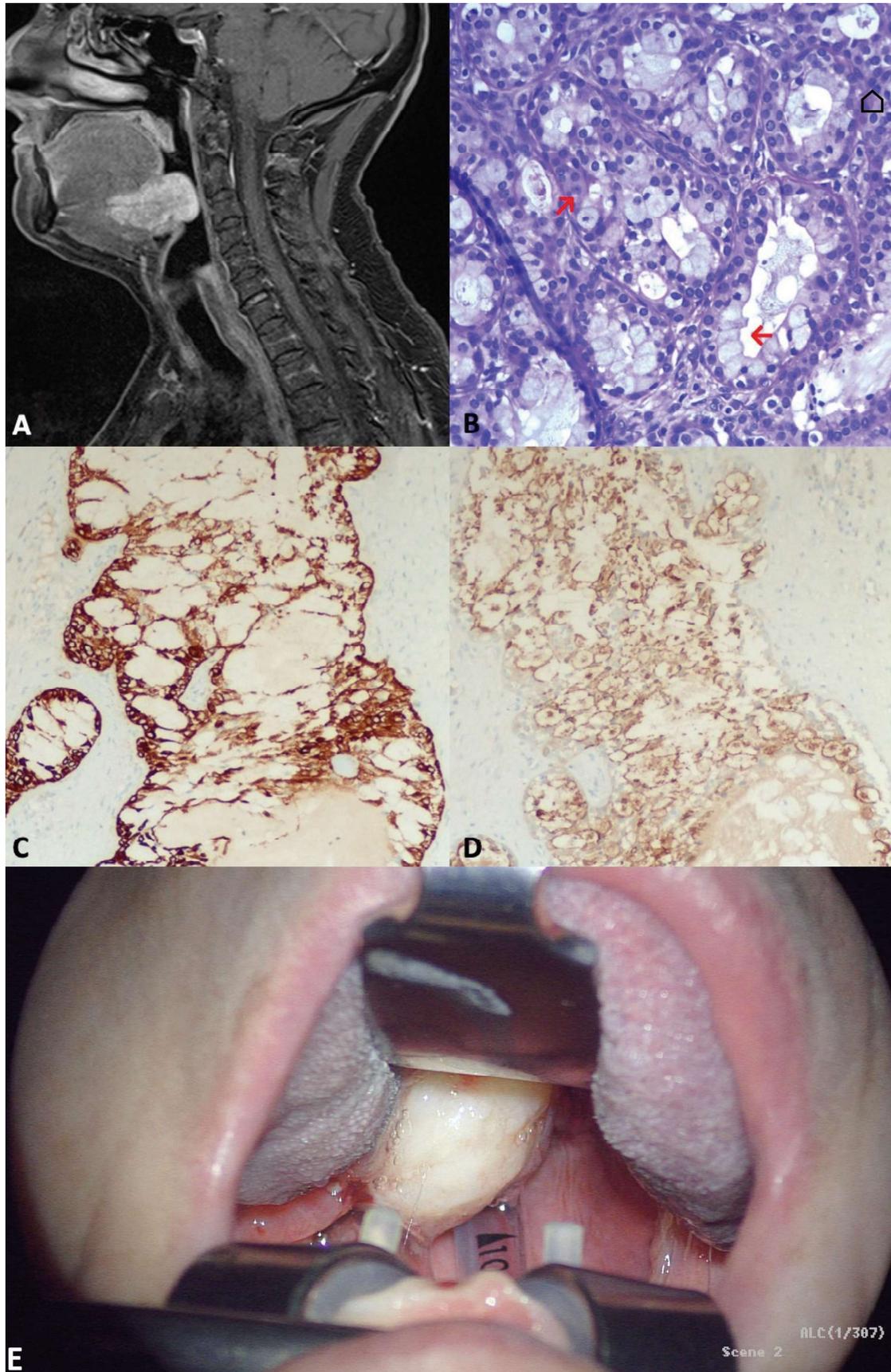
développer aux dépens des glandes salivaires<sup>3</sup>. Parmi les tumeurs malignes des glandes salivaires, le CME reste la tumeur la plus fréquemment observée. Néanmoins, la base de la langue, par l'atteinte de ses glandes salivaires accessoires, semble être une localisation rare<sup>1-5</sup>. L'évolution clinique de cette tumeur est souvent indolore, de croissance lente et insidieuse<sup>1,4,5</sup>. Bien que les femmes soient plus touchées que les hommes (rapport 3:2), une étude réalisée sur les paramètres immunohistochimiques des CME n'a révélé aucun récepteur d'œstrogène ou de progestérone jouant un rôle dans la formation tumorale<sup>6</sup>.

Le diagnostic du CME repose sur un examen anatomopathologique démontrant la présence de trois lignées cellulaires distinctes : cellules épidermoïdes/malpighiennes, cellules mucosécrétantes et cellules intermédiaires<sup>1-3,7</sup>. Chaque lignée cellulaire a tendance à s'associer à un modèle de croissance architectural et à être présente dans des proportions fortement variables, ce qui explique la variabilité morphologique non seulement d'une tumeur à l'autre, mais aussi au sein de la même tumeur. Les cellules intermédiaires ont tendance à se rassembler en îlots ; les cellules épidermoïdes peuvent être rares et former une morula se confondant avec les cellules intermédiaires et montrent rarement des signes de kératinisation ; les cellules mucosécrétantes forment souvent les parois de kystes ou de structures canalaire, mais peuvent aussi se retrouver isolément. L'hétérogénéité intratumorale peut certainement expliquer les différences de diagnostic entre les biopsies et les pièces opératoires. Le praticien devrait rester conscient de cette possibilité et donc des limites diagnostiques de l'échantillon biopsique.

Vu la grande variabilité de présentation clinique des CME, plusieurs systèmes de classification ont été proposés pour essayer de prédire leur évolution et de déterminer la meilleure approche thérapeutique<sup>1-3,7</sup>. La quatrième édition de la Classification des Tumeurs Tête et Cou de l'Organisation mondiale de la Santé (OMS) ne tranche pas clairement en faveur de l'un ou l'autre système de classification, néanmoins elle établit que les CME de haut grade présentent une ou plusieurs caractéristiques suivantes : une anaplasie cellulaire, un taux de mitoses augmenté, des zones de nécrose et une invasion périneurale ou osseuse<sup>3</sup>. Les CME de haut grade présentent fréquemment des foyers de CME de bas grade ou de grade intermédiaire, ce qui rend difficile, voire impossible, de correctement diagnostiquer et classer le CME sur un échantillon biopsique. Dès lors, la différenciation entre un grade intermédiaire et un haut grade peut être difficile. S'il existe un doute, le grade intermédiaire devrait être traité comme un haut grade<sup>3,8</sup>.

Face à une tumeur de la base de la langue, le principe du " *no meat, no treat* ", par lequel un traitement ne devrait être introduit qu'après prélèvement d'un échantillon biopsique, doit néanmoins rester d'application.

**Figure :** A. Résonance magnétique en coupe sagittale du CME basilingual (47 x 34 x 31 mm). Séquence pondérée en T1 (TSE DIXON SAG W) ;  
 B. Bleu Alcian (x 20) : CME présentant des cellules mucosécrétantes (←), des cellules épidermoïdes (↗) et des cellules intermédiaires (△) ;  
 C. Cytokératine5/6 (CK5/6 x 10) : localisation basale des cellules intermédiaires et épidermoïdes dans un espace kystique ;  
 D. Cytokératine19 (CK19 x10) : image en miroir des CK5/6 démontrant une coloration membraneuse des cellules mucosécrétantes ;  
 E. Laryngoscopie en suspension, lésion exophytique centrée sur la base de langue.



La rareté de la localisation du CME en base de la langue fait que l'algorithme thérapeutique n'est pas clairement établi. Dans les quelques cas rapportés dans la littérature, le traitement a consisté en une exérèse chirurgicale avec marges de sécurité et avec reconstruction immédiate si nécessaire. Une voie transorale et cervicale a été réalisée chez cette patiente, permettant ainsi d'éviter les risques d'ostéite et de pseudarthrose qui constituent les complications locales les plus fréquentes de l'abord transmandibulaire et qui peuvent aboutir dans certains cas à une hémimandibulectomie. Ces complications de la voie par mandibulectomie sont évidemment favorisées lorsque l'ostéosynthèse est incluse dans les champs d'irradiation administrée en pré- ou postopératoire. La chirurgie peut être associée à une radiothérapie adjuvante dans les cas de CME de haut grade ou de résections avec marges envahies afin de réduire les risques de récurrence locorégionale<sup>1,2,4,8-10</sup>. Notre patiente a bénéficié d'une radiothérapie adjuvante compte tenu de la présence du contingent tumoral au contact de la marge chirurgicale.

Le pronostic est non seulement affecté négativement par le grade histologique élevé, mais est également aggravé par une présentation clinique d'évolution rapide, la présence de métastases à distance, un âge avancé et une localisation linguale de la tumeur<sup>3,7</sup>. Les tumeurs de bas grade ont une survie à 5 ans de 76-95 %, alors que ce pourcentage tombe à 30-50 % pour les tumeurs de haut grade<sup>1,4,8,9</sup>. Bien que les récurrences de CME soient rares, des cas ont été rapportés 15 ans après chirurgie, indiquant la nécessité d'un suivi à long terme. En effet, le CME est un carcinome unique puisqu'il présente un large spectre d'agressivité, allant de tumeurs indolentes guéries par simple chirurgie à des tumeurs agressives sujettes à l'envahissement et aux métastases locorégionales, ainsi qu'à la récurrence. Quelle que soit la modalité de traitement initial, les patients atteints de CME devraient faire l'objet d'un suivi étroit pendant toute leur vie<sup>5</sup>.

## CONCLUSION

Devant une tumeur de la base de la langue, le diagnostic différentiel inclut plusieurs tumeurs bénignes ou malignes. Malgré sa rareté, le CME reste la tumeur maligne la plus fréquente des glandes salivaires et peut survenir au niveau de la base de la langue. Vu l'hétérogénéité architecturale et histologique des CME, il est assez difficile de diagnostiquer et classer cette tumeur sur un simple échantillon biopsique. La biopsie reste néanmoins indispensable avant toute décision thérapeutique. Le traitement de première intention est chirurgical et est associé à une radiothérapie adjuvante en cas de haut grade histologique ou de tumeurs volumineuses avec marges de résection positives. Vu le risque de récurrence à long terme, le suivi devrait se faire à vie.

Conflits d'intérêt : néant.

## BIBLIOGRAPHIE

1. McHugh CH, Roberts DB, El-Naggar AK, Hanna EY, Garden AS, Kies MS *et al.* Prognostic factors in mucoepidermoid carcinoma of the salivary glands. *Cancer*. 2012;118(16):3928-36.
2. Martellucci S, Pagliuca G, de Vincentiis M, Rosato C, Scaini E, Gallipoli C, Gallo A. Mucoepidermoid carcinoma of the tongue base mimicking an ectopic thyroid. *Case Rep Otolaryngol*. 2013;2013:925630.
3. El-Naggar AK, JKC C, Grandis JR, Takata T, Grandis J, Slootweg P (eds). WHO classification of head and neck tumours, 4<sup>th</sup> edn. Lyon:IARC;2017.
4. Mesolella M, Iengo M, Testa D, DI Lullo AM, Salzano G, Salzano FA. Mucoepidermoid carcinoma of the base of tongue. *Acta Otorhinolaryngol Ital*. 2015;35(1):58-61.
5. Varghese BT, Jacob MM, Madhavan J, Nair MK. Late scar recurrence in mucoepidermoid carcinoma of base of tongue. *J Laryngol Otol*. 2000;114(4):299-301.
6. Ito FA, Ito K, Coletta RD, Vargas PA, Lopes MA. Immunohistochemical study of androgen, estrogen and progesterone receptors in salivary gland tumours. *Braz Oral Res*. 2009;23(4):393-8.
7. Auclair PL, Goode RK, Ellis GL. Mucoepidermoid carcinoma of intraoral salivary glands. Evaluation and application of grading criteria in 143 cases. *Cancer*. 1992;69(8):2021-30.
8. Seethala RR. An update on grading of salivary gland carcinomas. *Head Neck Pathol*. 2009;3(1):69-77.
9. Triantafyllidou, K. , Dimitrakopoulos, J. , Iordanidis, F. and Koufogiannis, D. Mucoepidermoid carcinoma of minor salivary glands: a clinical study of 16 cases and review of the literature. *Oral Diseases*. 2006;12(4):364-70.
10. Dequanter D, Andry G, Lothaire P, Larsimont D, Deraemaecker R. Wide localized excision and reconstruction for minor salivary gland tumours. *B-ENT*. 2005;1(4):187-90.

### Correspondance :

T. GUSTIN  
Centre hospitalier de Wallonie picarde (CHwapi) – Site Union  
Service de Stomatologie et de Chirurgie maxillo-faciale  
Rue des Sports, 51  
7500 Tournai  
E-mail : gustin.thomas@gmail.com

Travail reçu le 5 novembre 2019 ; accepté dans sa version définitive le 12 mars 2020.