

ARTICLE ORIGINAL

HEMANGIOMES LARYNGES DE L'ADULTE A PROPOS DE 9 CAS

ADULT LARYNGEAL HEMANGIOMAS 9 CASES REPORT

Z. OUESLATI ; D. MENIF; S. BEN ALI; S. TOUATI;
A. EL KHEDIM; A. LACHKHAM; N. MOKNI* ; A. GAMOUDI* ; A. LADGHAM.

SERVICE DE CHIRURGIE CARCINOLOGIQUE CERVICO-FACIALE ET ORL, TUNIS.

*SERVICE D'IMMUNO-HISTO-CYTOLOGIE, INSTITUT SALAH AZAIZ TUNIS.

RESUME

L'hémangiome laryngé de l'adulte est extrêmement rare et présente des spécificités histologiques et évolutives. Il peut représenter un véritable défi thérapeutique. Les auteurs rapportent 9 cas d'hémangiomes laryngés de l'adulte colligés rétrospectivement sur une période de 20 ans (1984- 2004). Il s'agissait de 6 hommes et 3 femmes, âgés en moyenne de 46 ans (17 à 75 ans). Les signes d'appel étaient la dysphonie dans tous les cas, associée à des hémorragies de sang rouge extériorisées par voie buccale chez 3 patients. Le diagnostic reposait dans tous les cas sur la laryngoscopie directe qui retrouvait une tuméfaction glottique de couleur bleutée, à surface lisse. Une biopsie avec examen anatomo-pathologique a été systématique. Tous les patients ont bénéficié d'une exérèse instrumentale de la masse par voie endoscopique, avec hémostase locale. Deux récurrences ont été notées, pour lesquels une seconde exérèse instrumentale par voie endoscopique a été réalisée avec une évolution favorable. Le recul moyen était de 9 ans.

SUMMARY

The adult laryngeal hemangioma is extremely rare and presents histological and evolutionary particularities. It can represent a real therapeutic challenge. The authors report 9 cases of adult laryngeal hemangiomas over a period of 20 years (1984-2004). It was about 6 man and 3 women, old on average of 46 years (17 - 75 years). The signs of appeal were the dysphonia in every case, associated to bleedings of red blood exteriorized with oral way in 3 cases. Diagnosis based in every case on the direct laryngoscopy which found a glottic tumefaction of bluish colour, in smooth surface. A biopsy with anatomo-pathological exam was realized in every case. All the patients benefited from an instrumental excision of the mass by endoscopic way, with local haemostasis. Two recurrences were noted, which benefited from a second endoscopic instrumental excision, with a favorable evolution. Average follow up was of 9 years.

INTRODUCTION

La première description de malformation veineuse laryngée a été réalisée par Mackenzie en 1871 [1]. Les hémangiomes du larynx sont très rares chez l'adulte [2]. Ils diffèrent de l'angiome sous-glottique du nourrisson sur les plans étiopathogénique, histologique et évolutif, et peuvent poser des difficultés diagnostiques et thérapeutiques [3].

MATÉRIEL ET MÉTHODES

Nous rapportons 9 cas d'hémangiomes laryngés de l'adulte, colligés rétrospectivement sur une période de 25 ans (1980 à 2004) au service de Chirurgie Carcinologique Cervico-Faciale et ORL de l'institut Salah Azaïz.

Les antécédents et les signes d'appel cliniques ont été recueillis chez tous les patients. Tous ont bénéficié d'un examen ORL et cervical, et d'une laryngoscopie directe en suspension sous anesthésie générale, après consultation de pré-anesthésie. Dans tous les cas nous avons pratiqué une biopsie laryngée avec examen anatomo-

pathologique après inclusion en paraffine. Nous n'avons demandé aucune imagerie complémentaire. Nous avons traité tous les patients, chirurgicalement. Le recul moyen était de 9 ans.

RESULTATS

Il s'agissait de 6 hommes et 3 femmes (sex-ratio : 1,5), âgés en moyenne de 46 ans (17 à 75 ans). Tous étaient indemnes d'antécédents pathologiques particuliers. Le temps d'évolution de la symptomatologie clinique était de 6 mois en moyenne (1 mois à 4 ans). Les signes d'appel étaient : une dysphonie d'aggravation progressive dans tous les cas, et un rejet de sang rouge par la bouche, avec toux, chez 3 patients (33,3%). La laryngoscopie indirecte retrouvait dans tous les cas une tuméfaction du plan glottique interprétée comme une tumeur laryngée. Aucun patient ne présentait d'angiomes cutanéomuqueux cervico-faciaux associés. Nous n'avons pas demandé de manœuvre de Valsalva ni recherché de modifications de



la lésion laryngée en fonction de la position du patient. La laryngoscopie directe en suspension nous a permis de retrouver dans tous les cas une tuméfaction bleutée, à surface lisse, non pulsatile, du plan glottique. Les localisations étaient : le pli vocal droit (5 cas), le pli vocal gauche (2 cas), et la commissure antérieure (2 cas). La biopsie lésionnelle n'a entraîné de complications, notamment hémorragiques ou respiratoires, chez aucun patient.

L'examen anatomo-pathologique retrouvait des cavités veineuses bordées d'un endothélium régulier.

Nous avons réalisé dans tous les cas une exérèse instrumentale de la masse par voie endoscopique, sous anesthésie générale avec intubation. L'hémostase locale était assurée au bistouri électrique. Nous n'avons constaté aucune complication per- ou post-opératoire.

Nous avons observé dans un délai, respectivement, de 9 et 24 mois, une récurrence locale révélée par une dysphonie chez 2 patients (22,2%). Nous avons traité à nouveau ces récurrences par une exérèse instrumentale par voie endoscopique, avec une évolution favorable.

DISCUSSION

L'angiome laryngé de l'adulte diffère de celui du nourrisson : en 1921, Sweetser [1] est le premier à classer les hémangiomes en formes néonatale et adulte.

Mulliken et Tlowaski [4] différencient l'hémangiome : tumeur bénigne de l'enfant caractérisée par une phase de croissance rapide liée à la prolifération des cellules endothéliales, suivie d'une phase d'involution spontanée ; des malformations vasculaires : composées de vaisseaux dysplasiques dont les cellules endothéliales ont un turnover normal, auxquelles correspondent les formes de l'adulte. Présentes à la naissance, ces dernières peuvent rester stables ou progresser au cours de la vie [5, 6].

Ainsi l'hémangiome de l'adulte est une malformation veineuse, à développement sous-muqueux. La muqueuse peut être intacte, ou épaissie et inflammatoire ; la couleur bleutée fortement évocatrice peut être absente et la malformation vasculaire peut siéger sous un revêtement lisse et parfaitement rosé. Son volume augmente classiquement avec la pression veineuse, par exemple, au cours de la manœuvre de Valsalva ou en déclivité. Sur le plan histologique, il s'agit de veines normales dont la particularité est le caractère ectasique des vaisseaux [3].

L'hémangiome laryngé de l'adulte est très rare [2, 7]. Cependant son incidence réelle est probablement sous-estimée car la lésion peut être asymptomatique [3].

A un stade évolué, elle peut se révéler par un syndrome d'apnée de sommeil, une dyspnée ou une dysphagie. Elle peut être associée à d'autres malformations veineuses

notamment à localisation cutanée, qui peuvent alors orienter le diagnostic. La laryngoscopie directe permet à elle seule le diagnostic lorsqu'elle découvre une tumeur lisse, dépressible, de couleur caractéristique, violacée ou lie de vin. Les biopsies ne sont alors pas indispensables au diagnostic, au contraire des formes à revêtement muqueux normal, dont le diagnostic différentiel se pose notamment avec les laryngocèles et les tumeurs. Si elles sont réalisées, les biopsies doivent être prudentes du fait du risque hémorragique et respiratoire [3].

L'imagerie par résonance magnétique représente actuellement l'examen de référence dans le diagnostic et le bilan d'extension de la malformation, qui apparaît en hypersignal intense sur les séquences pondérées en T2 ; l'adjonction de séquences en suppression de graisse permet de distinguer la malformation de la graisse environnante [8, 9].

L'évolution d'une malformation vasculaire laryngée ne se fait pas vers la régression spontanée : la tumeur peut rester stable ou présenter une croissance très variable, avec risque d'obstruction des voies aériennes supérieures [1].

Dans les formes a ou paucisymptomatiques, une surveillance, clinique et radiologique, peut être préconisée [3].

La microchirurgie endolaryngée : instrumentale comme dans notre série [7], ou aux Laser Nd :YAG [10], ou Nd :YAG et CO2 [11], permet le traitement des malformations de petite taille. La chirurgie par voie externe est indiquée pour les malformations plus volumineuses : les localisations supra-glottiques peuvent être abordées par pharyngotomie médiane ou latérale sous couvert d'une trachéotomie provisoire. Une laryngectomie partielle, voire une pharyngolaryngectomie totale peuvent être nécessaires [3].

Les techniques de radiologie interventionnelle sous anesthésie générale, avec embolisation ou sclérose percutanée notamment par l'éthanol, constituent une alternative thérapeutique. Une trachéotomie de couverture est alors réalisée du fait du risque d'œdème.

Des séances itératives sont souvent nécessaires. La sclérose peut être utilisée seule si la lésion est de petite taille, ou précéder le geste opératoire : elle diminue alors le risque hémorragique, l'embolisation artérielle pré-opératoire étant quasiment abandonnée [8].

Le suivi post-thérapeutique, clinique et radiologique, doit être régulier afin de dépister une éventuelle récurrence, fréquente quel que soit le moyen thérapeutique choisi [3].

CONCLUSION

L'hémangiome laryngé de l'adulte est une malformation veineuse rare, d'évolution imprévisible sans tendance à la régression spontanée. Son diagnostic repose sur la laryngoscopie directe en suspension, et actuellement sur l'ima-



gerie par résonance magnétique. La biopsie est alors facultative. Le traitement, lorsqu'il est indiqué, peut faire appel à divers procédés. Dans tous les cas, la récurrence est fréquente et une surveillance doit être instituée.

REFERENCES

- 1- BERKES B ; SENTE M. Adult laryngeal hemangioma. Med Pregl 1998 ; 51 : 547-50
- 2- YILMAZ MD ; AKTEPE F ; ALTUNTAS A. Cavemous hemangioma of the left vocal cord. Eur Arch Otorhinolaryngol 2004 ; 261 : 310-1
- 3- AUBRY K ; ORSEL S ; BURGUET M ; CHAPOT R ; LABROUSSE F ; BESSEDE JP ; SAUVAGE JP. Malformation veineuse laryngée de l'adulte : à propos d'un cas. Rev Laryngol Otol Rhinol 2004 ; 125 : 59-63
- 4- MULLIKEN JB ; GLOWACKI J. Hemangioma and vascular malformations in infants and children : classification based on endothelial characteristics. Plast Reconstr Surg 1982 ; 69 : 412-22
- 5- LAHOZ ZAMARRO MT ; ROYO LOPEZ J ; VALERO RUIZ J ; et al. Cavemous hemangioma of the larynx in the adult. A propos of a case. Acta Otorrinolaringol.Esp. 1989 ; 40:141-4
- 6- CONTENCIN Ph. Malformatios congénitales du larynx. Editions techniques Encycl.Med.Chir. (Paris-France), Oto-Rhino-Laryngologie, 20-631-A10, 1992,10p
- 7- CINAR U ; YIGIT O ; BASAK T ; DADAS B. Cavemous lymphangioma in the laryngeal ventricle in an adult patient. Kulak Burun Bogaz Ihtis Derg 2003 ; 11 : 117-20
- 8- HERBRETEAU D ; AYMARD A ; JHAVERI HS ; CHAPOT R ; et al. Current management of cervicofacial superficial vascular malformation and hemangiomas. Miscellaneous interventional neuroradiologic procedures. In: JJ. CONNORS JOAN WOIAK. Interventionnal Neuroradiology strategies and pratical techniques. Sanders compagny. Part III ; 1999 : 317-326
- 9- ENJOLARS O ; HERBRETEAU D ; LEMARCHAND F ; et al. Hémangiomes et malformations vasculaires superficielles: classification. J Mal vasc 1992 ; 17 : 26-32
- 10- YELLIN SA ; LABRUNA A ; ANAND VK. Nd : YAG laser tratment for laryngeal and hypopharyngeal hemangiomas : a new technique. Ann Otol Rhinol Laryngol 1996 ; 105 : 510-5
- 11- KORNFEHL J ; KONTRUS M ; SUSANI M ; KAUTSKY M ; BIGENZAHN W. Laser surgical excision of a hypopharyngeal hemangioma using the CO2/Nd: YAG combination laser. HNO 1995 ; 43 : 389-92
- 12- MEGAREJO MORENO PJ ; HELLIN MESEGUER D ; RUIZ MACIA JA. Cavemous hemangioma of the larynx in an adult. Edolaryngeal excision. An otorrinolarigol. Ibero Am. 1998 ; 25(3) : 213-7