



Cas clinique

Hamartome chondromésenchymateux nasal : À propos d'un cas rare diagnostiqué à Ouagadougou et Revue de la littérature

Nasal chondromesenchymal Hamartoma: About a rare case diagnosed in Ouagadougou and review of literature

FAHA Ido^{1*}, AS Ouédraogo¹, I Savadogo², WN Ramdé¹, S Ouattara³, A Traoré⁴, A Lamien-Sanou⁴, OM Lompo⁴, BR Soudré⁵

Résumé

L'hamartome chondromésenchymateux nasal est une entité reconnue qui a été décrite pour la première fois en 1998 par McDermott et al. Ses caractéristiques morphologiques sont spécifiques et superposables à ceux de l'hamartome chondromésenchymateux de la paroi thoracique. Il s'agit d'une lésion très rare, seulement une quarantaine de cas a été publié dans la littérature. Cette lésion est l'apanage du jeune enfant, mais de rares cas chez l'adulte ont été décrits. Sa symptomatologie clinique est variée et son diagnostic est histologique. Nous rapportons ici un cas diagnostiqué chez un jeune garçon de 05 ans avec des antécédents de masse endonasale réséquée un an plus tôt, mais non documentée et qui a été reçu pour « récurrence » de la masse endonasale. L'examen anatomopathologique des fragments de résection complémentaire a conclu à un hamartome chondromésenchymateux nasal. Ce cas est le premier cas burkinabé documenté à notre connaissance. Bien que le pronostic de l'hamartome chondromésenchymateux nasal soit bon avec de

rares cas localement agressifs, il faut néanmoins garder à l'esprit la possibilité de transformation maligne.

Mots clés : Hamartome chondromésenchymateux, masse nasale, anatomie pathologique, Ouagadougou

Abstract

Chondromesenchymal nasal hamartoma is a recognized entity that was first described in 1998 by McDermott et al. Its morphological characteristics are specific and superimposable to those of mesenchymal hamartoma of the chest wall. It is a very rare lesion, only about forty cases have been published in the literature. This lesion is the prerogative of young children, but rare cases in adults have been described. His clinical symptomatology is varied and his diagnosis is histological. We report here a case diagnosed in a 05-year-old boy with a history of endonasal mass resected a year earlier, but not documented and who was received for "recurrence" of the endonasal mass. Pathologic examination of the complementary resection fragments concluded a

nasal chondromesenchymal hamartoma. This case is the first case in Burkina Faso documented to our knowledge. Although the prognosis of nasal chondromesenchymal hamartoma is good with locally aggressive rare cases, the possibility of malignant transformation must be kept in mind.

Keywords: chondromesenchymal hamartoma, nasal mass ,pathology., Ouagadougou

Introduction

Un hamartome est une formation tissulaire pseudotumorale définie comme un mélange anormal des cellules normalement présentes dans l'organe où elles se développent [1]. L'hamartome chondromésenchymateux nasal est une lésion très rare siégeant dans le tractus nasosinusal. Il a été décrit pour la première fois en 1998 par McDermott et al [1,2]. A ce jour seulement une quarantaine de cas a été publié dans la littérature [3]. Il est l'apanage du nourrisson et du jeune enfant, bien que de rares cas aient été décrits chez l'adulte [1,2,3,4]. Cette lésion présente une symptomatologie clinique variée mais son diagnostic est anatomopathologique [2]. Nous rapportons ici un cas d'hamartome chondromésenchymateux nasal diagnostiqué chez un jeune garçon de 05 ans avec des antécédents de masse endonasale réséquée un an plus tôt, mais non documentée et qui a été reçue pour « récurrence » de la masse endonasale. Ce cas est le premier cas burkinabé décrit dans la littérature à notre connaissance.

A travers ce cas et avec la revue de la littérature nous avons pour but de préciser les caractéristiques épidémiologiques, anatomopathologiques et évolutives de cette lésion rare à laquelle il faut savoir y penser pour une prise en charge efficiente des masses naso-sinusiennes qui sont relativement fréquentes dans notre contexte.

Cas clinique

Il s'agissait de ZR garçon de 05 ans avec comme antécédents une notion de masse endonasale gauche ayant fait l'objet d'une résection non documentée un an plus tôt, qui a été reçue en consultation pour récurrence de la masse avec obstruction nasale intermittente accompagnée d'épisodes d'épistaxis. L'examen clinique révèle la présence d'une volumineuse excroissance muqueuse de la fosse nasale gauche à cheval entre la cloison nasale antérieure et le cartilage antérieur du septum. La masse réséquée reçue au laboratoire d'anatomie pathologique était constituée macroscopiquement de 04 fragments blanchâtres mi fibreux mi translucides dont la taille variait de 0,3cm à 2cm de grands axes. Histologiquement il s'agissait d'un tissu fibreux lâche et chondromyxœide avec de nombreuses cellules d'allure myofibroblastique, tapissé en surface par un épithélium de type respiratoire (figure1). On observait au sein de ces éléments, des formations lobulaires cartilagineuses avec des îlots osseux et des zones de transition progressives entre ces 2 types de tissus (figures2). Le tissu cartilagineux est assez richement cellulaire et comporte de nombreuses cellules binucléées et des noyaux parfois un peu volumineux. En périphérie, il se continue avec un tissu mésenchymateux, par endroits richement cellulaire, constitué de cellules fusiformes qui se disposent en bandes (figure3). On observe également des secteurs richement vascularisés avec des amas d'érythrocytes ressemblant à des kystes osseux anévrysmaux (Figure 4). Il n'était pas retrouvé d'atypies cyto-nucléaires marquées ni de caractères de malignité. Devant ces éléments l'examen anatomopathologique a conclu à un hamartome chondromésenchymateux nasal.

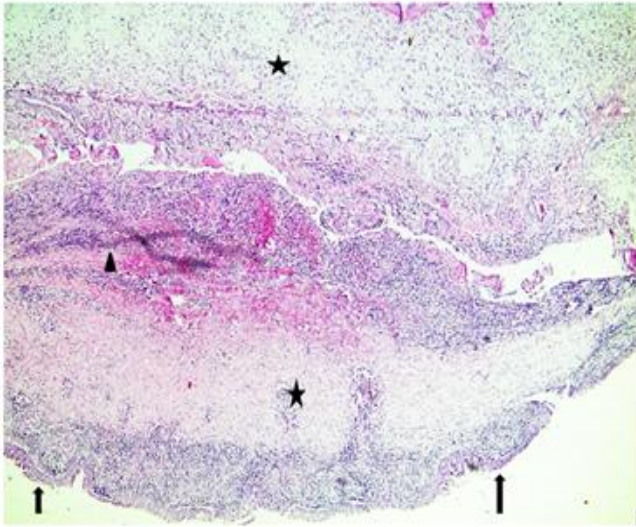


Fig. 1 Hématéine Eosine GX50 : Tissu fibreux chondromyxoïde (étoiles) avec des plages hémorragiques (triangle) surmonté en surface par un épithélium de type respiratoire (flèches)

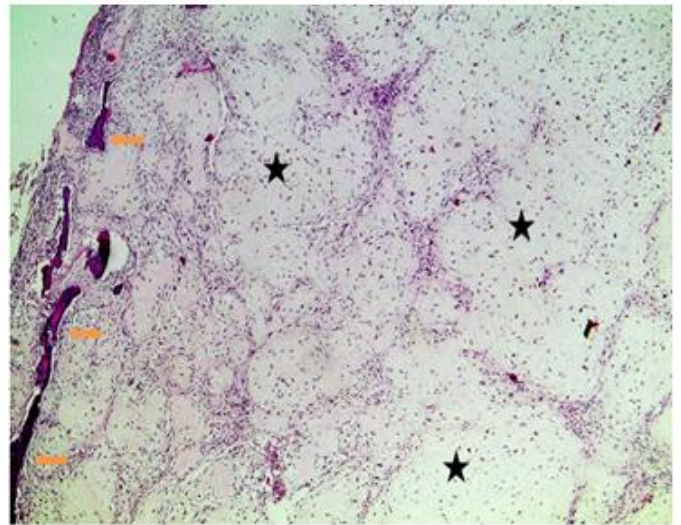


Fig. 3 Hématéine Eosine GX100 : Lobules cartilagineux entourés de tissu fibrocartilagineux (étoiles) et tissu osseux (flèches oranges).

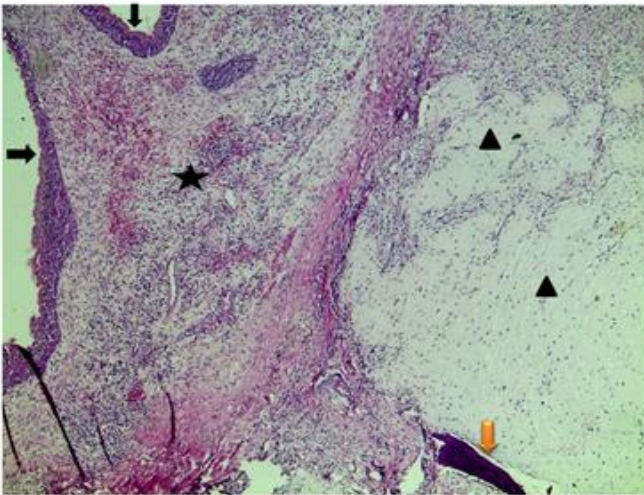


Fig. 2 Hématéine Eosine GX100 : lobules cartilagineux (triangles), tissu osseux (flèche orange) et zone fibrocartilagineuses (étoile) tapissés en surface par un épithélium de type respiratoire (flèches noires).

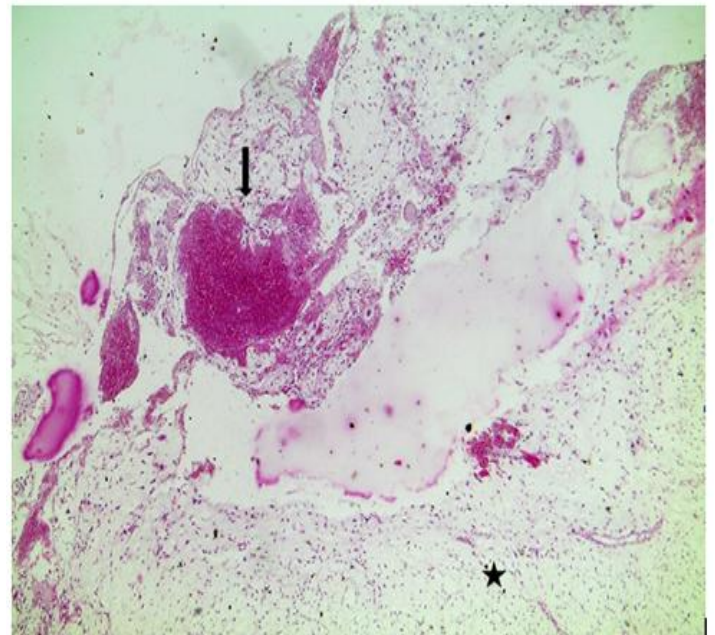


Fig. 4 Hématéine Eosine GX100 : Tissu fibro cartilagineux myxoïde (étoile) délimitant des espaces kystiques hémorragiques (flèche).

Discussion

L'hamartome chondromésenchymateux nasal est une lésion bénigne rare de la cavité nasale et des

sinus paranasaux décrite pour la première fois en 1998 par McDermott et al [1,2]. Il est l'apanage du nourrisson et du jeune enfant, la majorité des cas décrits dans la littérature à un âge inférieur à 7ans [2,3]. Il existe cependant des cas décrits chez l'adulte, le patient le plus âgé rapporté dans la littérature est âgé de 69 ans [2,3,4]. Cliniquement la symptomatologie est variable en fonction de la taille et du siège de la lésion. Les principaux symptômes décrits sont l'obstruction nasale, la rhinorrhée, l'épistaxis, la dyspnée, les difficultés d'alimentation et les symptômes ophtalmologiques [2, 5]. Du point de vue anatomopathologique, Cette lésion présente des similitudes morphologiques avec l'hamartome chondromésenchymateux de la paroi thoracique. Macroscopiquement, la taille de la masse est variable. Pour notre cas qui s'agit en fait d'une repousse secondaire à une résection antérieure incomplète. La résection complémentaire de la repousse a été reçue en 04 fragments dont la taille variait entre 2 cm et 0,3 cm. La taille moyenne dans la série par McDermott et al était de 3,6 cm; tandis que, Ozolek et al ont rapporté une masse qui atteignait 8 cm de grand axe [4,6]. Histologiquement la lésion est d'architecture lobulée faite d'ilots de cartilage hyalin mature et de fibrocartilage. Les nodules cartilagineux sont entourés de cellules fusiformes monomorphes. La composante mésenchymateuse peut être lâche myxoïde ou fibro-collagène dense. Il peut exister des microkystes dans les zones myxoïdes et plus rarement des zones kystiques hémorragiques rappelant un kyste osseux anévrysmal. Tous ces éléments sont retrouvés dans notre cas. On peut également parfois observer focalement des cellules géantes multinucléées ostéoclastes-like. Plus rarement on peut avoir des zones de calcification en grillage « chicken-wire », des zones fibro-osseuses faites d'os lamellaire immature rappelant une dysplasie fibreuse, une

hyalinisation périvasculaire et une activité mitotique. Certains lobules cartilagineux peuvent être bordés par un épithélium de type respiratoire [2].

À l'immunohistochimie les cellules fusiformes mésenchymateuses expriment l'actine musculaire lisse et les cellules chondroïdes expriment la protéine S-100 [2].

Le diagnostic différentiel de l'hamartome chondromésenchymateux nasal se fait avec les tumeurs cartilagineuses du tractus nasosinusal dont le principal est le chondrosarcome mésenchymateux. Mais comparativement l'hamartome chondromésenchymateux nasal, le chondrosarcome mésenchymateux est plus densément cellulaire avec des cellules plus petites munies de noyaux hyperchromatiques dont la chromatine est condensée en périphérie. En plus du point de vue architectural, le chondrosarcome mésenchymateux est caractérisé par un aspect bimorphe avec des zones de chondrosarcome bien différencié de bas grade alternant avec un stroma indifférencié, la limite entre les deux composantes étant souvent abrupte. En tout état de cause, l'âge souvent très jeune des patients et le caractère intimement mélangé des éléments non-cartilagineux avec les nodules cartilagineux sont en faveur de l'hamartome chondromésenchymateux [2, 7].

Le traitement de l'hamartome chondromésenchymateux nasal est chirurgical. Une exérèse complète entraîne la guérison sans récurrence. Cependant il faut préciser que la résection complète est souvent difficile à obtenir et nécessite parfois une approche neurochirurgicale. Lorsque la résection est incomplète on peut assister à une repousse de la masse résiduelle comme ça a été le cas pour notre patient et pour deux (02) des sept (07) patients de la série de McDermott et al. Dans ces cas des résections chirurgicales complémentaires plus larges sont indiquées [2, 6].

Le pronostic de l'hamartome chondromésenchymateux nasal est bon quoique, de rares cas localement agressifs notamment au niveau des sinus para nasaux et de l'ethmoïde aient été décrits [2, 7]. Un seul cas de transformation maligne a été décrit dans la littérature [8]. Aucune véritable récurrence ou décès dû à cette lésion n'a été rapporté à ce jour. Les cas de récurrence sont le fait d'exérèses incomplètes et non dues à de véritables récurrences [2].

Conclusion

L'hamartome chondromésenchymateux nasal est une lésion très rare du tractus nasosinusal. Il survient habituellement chez les nourrissons et les jeunes enfants avec une prépondérance masculine mais de rares cas ont été décrits chez l'adulte. A ce jour seulement une quarantaine de cas a été publié dans la littérature. La symptomatologie est variée, mais le diagnostic est anatomopathologique. Le traitement de choix est une exérèse chirurgicale complète qui est souvent difficile entraînant une forte récurrence par repousse des masses incomplètement excisées. Le pronostic est bon, l'hamartome chondromésenchymateux nasal est considéré comme une lésion bénigne malgré le fait qu'un cas de transformation maligne a été décrit dans la littérature.

*Correspondance

Franck Auguste Hermann Adémayali Ido
(idofranck@yahoo.fr)

Reçu: 06 Mars, 2018 ; Accepté: 05 Mai, 2018; Publié: 29 Mai, 2018

¹Service d'Anatomie et Cytologie Pathologiques de l'Hôpital de District de Bogodogo (HDB), Ouagadougou, Burkina Faso

²Service d'Anatomie et Cytologie Pathologiques du CHU régional de Ouahigouya, Burkina Faso

³Service d'Anatomie et Cytologie Pathologiques du CHU Blaise Compaoré, Ouagadougou, Burkina Faso

⁴Service d'Anatomie et Cytologie Pathologiques du CHU Yalgado Ouédraogo, Ouagadougou, Burkina Faso

⁵Polyclinique Sandof, Ouagadougou, Burkina Faso

Conflit d'intérêt: Aucun

Références

- [1] Jun Kang, Young Ok Hong, Geung Hwan Ahn, Young Min Kim, Hee Jeong Cha, Hye-Jeong Choi. Nasal Chondromesenchymal Hamartoma- A Case Report. The Korean Journal of Pathology 2007; 41: 258-62.
- [2] Manju L. Prasad, Bayardo Perez-Ordóñez. Nonsquamous lesions of the nasal cavity, paranasal sinuses, and nasopharynx. In: Douglas R Gnepp, dir. Diagnostic Surgical Pathology of the Head and Neck. Philadelphia: W.B. Saunders Company; 2009, 2nd ed. P.120.
- [3] Mason A, Navaratnam A, Theodorakopoulou E, Chokkalingam P G. Nasal Chondromesenchymal Hamartoma (NCMH): a systematic review of the literature with a new case report. Journal of Otolaryngology - Head and Neck Surgery (2015) 44:28.
- [4] Ozolek JA, Carrau R, Barnes EL, Hunt JL. Nasal chondromesenchymal hamartoma in older children and adults: series and immunohistochemical analysis. Arch Pathol Lab Med 2005; 129: 1444-1450.
- [5] Adnan Ünal, Rauf Oğuzhan Kum, Yonca Avcı, Devrim Tuba Ünal. Nasal chondromesenchymal hamartoma, a rare pediatric tumor: Case report. The Turkish Journal of Pediatrics 2016; 58: 208-211.
- [6] McDermott MB, Ponder TB, Dehner LP. Nasal chondromesenchymal hamartoma: an upper respiratory tract analogue of the chest wall mesenchymal hamartoma. Am J Surg Pathol 1998; 22: 425-433.
- [7] Wang T, Li W, Wu X, Li Q, Cui Y, Chu C et al. Nasal chondromesenchymal hamartoma in young children: CT and MRI findings and review of the literature. World Journal of Surgical Oncology 2014, 12:257.
- [8] Yang Li, Qing-xu Yang, Xiao-ying Tian, Bin Li, Zhi Li. Malignant transformation of nasal chondromesenchymal hamartoma in adult: a case report and review of the literature. Histol Histopathol (2013) 28: 337-344.

Pour citer cet article:

Ido Franck Auguste Hermann Adémayali, Ouédraogo Aimé Sosthène, Savadogo Ibrahim et al. Hamartome chondromésenchymateux nasal : à propos d'un cas rare diagnostiqué à Ouagadougou et Revue de la littérature. *Jaccr Africa* 2018 ; 2(2):223-227.