

Mucocèles des glandes salivaires mineures : étude de deux cas cliniques et revue de la littérature.

Rakotoarivony AE¹, Rakotoarison RA¹, Rakotoarimanana FVA², Randriamanantena T², Rakoto Alson S³, Rakotondrabe JAB².

¹ Département de Chirurgie, IOSTM Mahajanga.

² Service de Stomatologie et de Chirurgie Maxillo-faciale, CHU d'Antananarivo.

³ Département de Parodontologie, IOSTM Mahajanga.

Auteur correspondant : RAKOTOARIVONY Andrianony Emmanuel, Département de Chirurgie, IOSTM, Université de Mahajanga.

Résumé

L'objectif de ce travail était de bien différencier les deux types de mucocèles. Nous rapportons deux cas de cette pathologie observés et traités au Centre Hospitalier de Soavinandriana-Antananarivo.

Les mucocèles sont des pathologies tumorales bénignes des glandes salivaires mineures de la muqueuse buccale. Etiologiquement, elles sont de deux types : le premier est dû à une rupture de l'épithélium de la glande déversant la salive dans l'espace extra-glandulaire, et formant un pseudo-kyste (mucocèle par extravasation); le second est causé par un blocage de l'évacuation salivaire par une prolifération épithéliale du conduit excréteur, réalisant un vrai kyste salivaire (kyste de rétention). L'âge d'apparition et le siège de prédilection sont différents dans ces deux types de lésions. Dans tous les cas, la thérapeutique est identique. Depuis quelques années, cette thérapeutique est devenue moins agressive et plus tolérée par les enfants. Néanmoins, la traditionnelle exérèse chirurgicale reste la stratégie la plus efficace où la récurrence est la moins fréquente. Une marge d'exérèse doit être respectée au cours de l'ablation de la tumeur afin d'éviter la récurrence, surtout dans les mucocèles par extravasation à cause de l'absence de paroi épithéliale.

Mots clés : mucocèle, extravasation de mucus, kyste de rétention, exérèse chirurgicale.

Abstract

The aim of this study was to differentiate the two types of mucocèles. We report two case of this disease that has been observed and treated at the "Centre Hospitalier de Soavinandriana" Antananarivo.

Mucocèles are benign tumoral of minor salivary glands of the oral mucosa. Etiologically, they are two types : the first is due to rupture of the epithelium of the gland, flowing saliva in extraglandular space, and making pseudo-cyst (extravasation mucocèles), and the second is due to drain salivary blockage by epithelial proliferation of the excretory duct, making a true

salivary cyst (retention cyst). The age and the site of predilection are different in these two types of lesions. In all cases, the management is identical. Since recent years, the treatment has become less aggressive and more tolerated by children. However, the surgical excision remains the best strategy to avoid recurrent lesions. A margin of excision should be respected during the tumor removal to prevent recurrence, especially in extravasation mucoceles due to loss of epithelial lining.

Key words : *mucocele, mucus extravasation, retention cyst, surgical excision.*

Introduction

Le terme de mucocele définit une rétention de mucus dans une cavité, les mucoèles ou kystes mucoïdes sont des lésions kystiques de la muqueuse buccale, et la muqueuse labiale inférieure est la localisation la plus commune [1]. Elles sont dues à une extravasation ou à une

rétention de mucus [2]. Le traitement de cette pathologie est de divers types, mais la chirurgie demeure la seule technique adoptée à Madagascar.

Les objectifs de cette étude ont été de savoir diagnostiquer une mucocele et de savoir distinguer les deux types.

Observation

Nous rapportons deux cas de mucoèles de la face ventrale de la langue et de la lèvre inférieure pris en charge au Centre Hospitalier de Soavinandriana Antananarivo.

Le premier cas est une femme de 22 ans et le second un garçon de 5 ans. La symptomatologie est identique dans les deux cas par la présence d'un nodule

indolore de la muqueuse ventrale de la langue pour le premier cas et de la muqueuse labiale inférieure pour le second cas (**figures 1 et 2**). Ce dernier évoque des épisodes de régression après rupture de la lésion par morsure provoquant une évacuation de liquide épais. Les traitements consistent en une exérèse chirurgicale sous anesthésie locale.

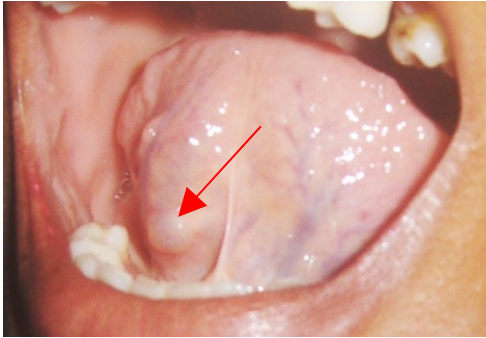


Figure 1 : Mucocèle de la face ventrale de la langue (mucocèle de la glande de Blandin-Nuhn). (Cas n°1)

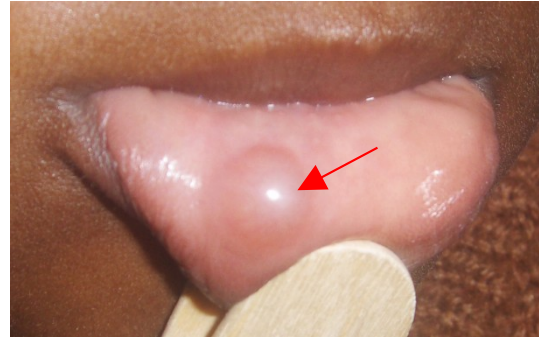


Figure 2 : Mucocèle de la muqueuse labiale inférieure. (Cas n°2)

Commentaires

Les mucocèles sont des lésions bénignes relativement fréquentes de la muqueuse buccale, affectant les glandes salivaires mineures [3-4]. Elles peuvent apparaître au niveau de toute la muqueuse buccale, mais rarement sur la lèvre supérieure, et encore moins fréquente au niveau de la fibromuqueuse palatine et gingivale [5].

Habituellement, ce sont des lésions solitaires comme dans nos observations, mais la littérature décrit de rares cas de kystes de rétention muqueuse multiples [6].

Elle constitue la moins fréquente des pathologies de la muqueuse buccale, de l'ordre de 0,1% [7-8]. Madagascar ne possède pas de données statistiques en ce qui la concerne, mais cette faible incidence peut être justifiée par le nombre de cas recensés en sept ans, de 2003 à 2010, qui n'est que de trois cas, dans le service ORL-

CCMF du Centre Hospitalier de Soavinandriana – Antananarivo.

Un gonflement généralement asymptomatique, de couleur normale ou bleutée, apparaît au niveau de la muqueuse. La dimension varie de quelques millimètres à quelques centimètres de diamètre.

Il existe deux types de mucocèles qui, de par la différence de leurs caractéristiques, ne sont pas liés et n'ont pas la même pathogénie [10] : les mucocèles par extravasation et les mucocèles de rétention. D'une part, les microtraumatismes et les congestions de mucus jouent un rôle important dans le développement des mucocèles par extravasation [11-12]. La lèvre inférieure est la localisation la plus fréquente car les parafunctions comme la morsure de la lèvre sont très évoquées [5]. Une notion de mauvaise habitude par morsure de la lèvre inférieure est évoquée

chez le deuxième patient. Les mucocèles apparaissent dans la deuxième décennie et le sexe masculin est généralement le plus atteint [11] : cela correspond à notre premier cas, son âge étant de 22 ans.

D'autre part, la notion d'obstruction partielle ou totale des canaux par une micro-lithiase salivaire est la cause la plus évoquée dans la formation d'un kyste de rétention [5]. C'est pour cela qu'il apparaît le plus souvent chez des personnes plus âgées, à partir de la quarantaine [12]. Ils peuvent se localiser sur toute la muqueuse buccale et c'est le sexe féminin qui est généralement le plus atteint [11].

Néanmoins, des auteurs relatent des mucocèles observées chez des enfants, et d'autres d'absence de prédominance par rapport au sexe [13-14-15].

Histologiquement, ces mucocèles par extravasation et mucocèles de rétention sont respectivement des mucocèles

granulomateuses (mucus granulomas), plus fréquentes, et des mucocèles kystiques (mucus retention cysts), plus rares. [11]

Une mucocèle granulomateuse est habituellement secondaire à une rupture d'un canal excréteur provoquant une effusion de salive dans le tissu environnant. C'est un pseudo-kyste ; l'extravasation est d'abord entourée de cellules inflammatoires réalisant plus tard un tissu de granulation composé de fibroblastes mais non pas de muqueuse épithéliale [5]. La littérature parle également de lésion non encapsulée mais directement en contact avec le tissu environnant, dont les muscles dans les mucocèles des glandes de Blandin-Nuhn de la face ventrale de la langue [16].

Macroscopiquement, le contenu de la lésion après dissection ressemble à du tissu granulomateux orientant le diagnostic histologique. (Figures 3 et 4)



Figure 3 : Pièce opératoire.

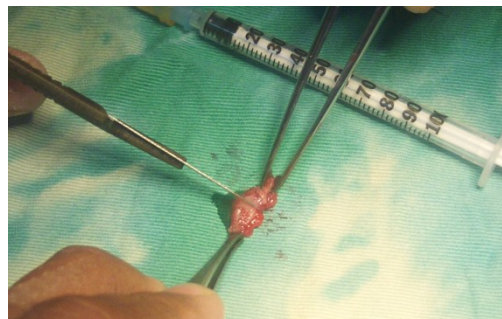
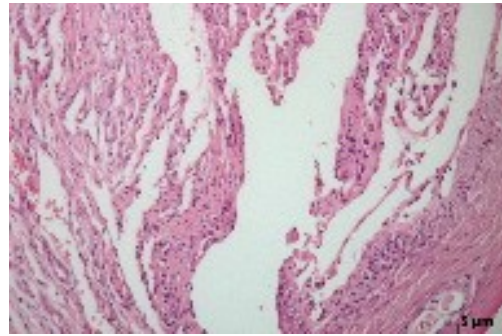
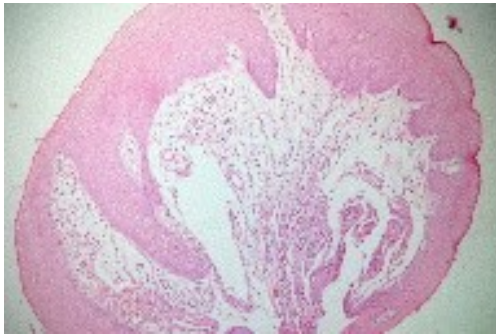


Figure 4 : Dissection de la pièce opératoire (aspect granulomateux de la lésion).

L'aspect histologique de notre premier cas correspond bien à ce type de mucocèle car l'examen évoque un tissu granulomateux inflammatoire polymorphe formant un bourgeon charnu. Il s'agit probablement

d'une réaction inflammatoire post-traumatique après rupture de la paroi d'une glande salivaire mineure et provoquant une extravasation de mucus. (**Figures 5 et 6**)



Figures 5 et 6 : Mucocèle par extravasation, le mucus est limité par du tissu de granulation formé de tissu conjonctif fibreux [2].

L'examen histologique de notre deuxième cas évoque une ectasie du canal excréteur d'une glande salivaire mineure tapissée d'un processus inflammatoire lymphohistiocytaire.

Par contre, un kyste de rétention est un vrai kyste bordé d'un épithélium dont la morphologie des cellules varie de la forme cubique à la forme cylindrique ou aplatie [12]. Des fois, il n'existe pas de micro-lithiase, mais de simple prolifération épithéliale obstruant partiellement le canal qui ne peut plus drainer de façon normale la salive et provoquant une dilatation et un gonflement [17].

Les mucocèles par extravasation doivent être distinguées de toutes les lésions se

manifestant par un gonflement au niveau de la muqueuse buccale. Ce sont les kystes de rétention, les fibromes buccaux, les lipomes de la lèvre et les néoplasmes de la glande salivaire. [5]

Les kystes de rétention doivent être distingués des mucocèles par extravasation et des autres kystes salivaires comme les kystes lymphoépithéliaux. [11]

En l'absence de traitement, des épisodes de diminutions et d'augmentations de taille de la lésion peuvent apparaître à cause d'une alternance de rupture de la paroi et de reprise du nodule [9]. Cette alternance de gonflement et régression après rupture de la lésion et évacuation de mucus épais est retrouvée chez notre deuxième patient.

La chirurgie d'exérèse au large de la tumeur reste la technique radicale limitant les récurrences [13]. C'est le type d'intervention adopté dans nos deux cas. En général, elle est réalisée sous anesthésie locale. La marsupialisation peut être indiquée dans les kystes de rétention.

Néanmoins, d'autres techniques plus modernes, moins traumatisantes et de réalisation plus facile que la chirurgie conventionnelle sont évoquées dans la littérature avec moins de risque de récurrence, mais elles ne sont pas encore utilisées à Madagascar. La plupart sont basées sur l'utilisation du laser telle que la technique au laser au dioxyde de carbone et à l'erbium. Les lasers sont actuellement

appliqués pour la chirurgie des tissus mous. Ces techniques ont l'avantage d'être rapide, il y a moins de saignement et la cicatrisation est bonne alors que les sutures ne sont pas indispensables. [18-19]

Une injection intralésionnelle d'un produit appelé OK-432 est également évoquée et donne de très bon résultat. Il s'agit d'une préparation lyophilisée d'une souche de faible virulence de *Streptococcus pyogenes*, inactivée par chauffage avec de la pénicilline G. C'est un agent non cytotoxique antinéoplasique en raison de son activité stimulante du système immunitaire. Ce traitement est simple, facile et relativement sûr. Il n'y a pas de cicatrice ni déformation locale. [20]

Conclusion

Les mucocèles de rétention et par extravasation peuvent se différencier en postopératoire immédiat après dissection de la pièce opératoire par l'absence ou non de salive intra-lésionnelle, mais seul le résultat de l'analyse anatomopathologique

confirme le diagnostic. La chirurgie d'exérèse au large de la tumeur reste le traitement de choix malgré l'existence d'autres techniques plus modernes et plus tolérées par les patients.

Références

1. [Martins-Filho PR, Santos Tde S, da Silva HF, Piva MR, Andrade ES, da Silva LC.](#) A clinicopathologic review of 138 cases of mucocèles in a pediatric population. [Quintessence Int.](#) 2011 Sep;42(8):679-85.
2. [Alves LA, Di Nicoló R, Ramos CJ, Shintome L, Barbosa CS.](#) Retention mucocèle on the lower lip associated with inadequate use of pacifier. [Dermatol Online J.](#) 2010 Jul 15;16(7):9.

3. [Silva A Jr](#), [Nikitakis NG](#), [Balciunas BA](#), [Meiller TF](#). Superficial mucocele of the labial mucosa: a case report and review of the literature. [Gen Dent](#). 2004 Sep-Oct;52(5):424-7.
4. [Hayashida AM](#), [Zerbinatti DC](#), [Balducci I](#), [Cabral LA](#), [Almeida JD](#). Mucus extravasation and retention phenomena: a 24-year study. [BMC Oral Health](#). 2010 Jun 7;10:15.

5. [Mustapha IZ](#), [Boucree SA Jr](#). Mucocele of the upper lip: case report of an uncommon presentation and its differential diagnosis. [J Can Dent Assoc](#). 2004 May;70(5):318-21.
6. [Tal H](#), [Altini M](#), [Lemmer J](#). Multiple mucous retention cysts of the oral mucosa. [Oral Surg Oral Med Oral Pathol](#). 1984 Dec;58(6):692-5.
7. [Kovac-Kovacic M](#), [Skaleric U](#). The prevalence of oral mucosal lesions in a population in Ljubljana, Slovenia. [J Oral Pathol Med](#). 2000 Aug;29(7):331-5.
8. [Mathew AL](#), [Pai KM](#), [Sholapurkar AA](#), [Vengal M](#). The prevalence of oral mucosal lesions in patients visiting a dental school in Southern India. [Indian J Dent Res](#). 2008 Apr-Jun;19(2):99-103.
9. Wood NK, Goaz PW. Lesions of the lips. In: Differential diagnosis of oral lesions. 4th ed. St. Louis (MO): Mosby Year Book; 1991. p. 663-85.
10. [Bodner L](#), [Tal H](#). Salivary gland cysts of the oral cavity: clinical observation and surgical management. [Compendium](#). 1991 Mar;12(3):150, 152, 154-6.
11. [Seifert G](#), [Donath K](#), [von Gumberz C](#). Mucoceles of the minor salivary glands. Extravasation mucoceles (mucus granulomas) and retention mucoceles (mucus retention cysts). [HNO](#). 1981 Jun;29(6):179-91.
12. [Kakarantza-Angelopoulou E](#), [Triantaphyllou A](#). Mucous retention cysts of the minor salivary glands. A specific type of mucocele. [Odontostomatol Proodos](#). 1989 Aug;43(4):373-9.
13. [Boj JR](#), [Poirier C](#), [Espasa E](#), [Hernandez M](#), [Espanya A](#). Lower lip mucocele treated with an erbium laser. [Pediatr Dent](#). 2009 May-Jun;31(3):249-52.
14. [Nico MM](#), [Park JH](#), [Lourenço SV](#). Mucocele in pediatric patients: analysis of 36 children. [Pediatr Dermatol](#). 2008 May-Jun;25(3):308-11.
15. [Chi AC](#), [Lambert PR 3rd](#), [Richardson MS](#), [Neville BW](#). Oral mucoceles: a clinicopathologic review of 1,824 cases, including unusual variants. [J Oral Maxillofac Surg](#). 2011 Apr;69(4):1086-93.
16. [Adachi P](#), [Soubhia AM](#), [Horikawa FK](#), [Shinohara EH](#). Mucocele of the glands of Blandin-Nuhn--clinical, pathological, and therapeutical aspects. [Oral Maxillofac Surg](#). 2011 Mar;15(1):11-3.
17. [Alves LA](#), [Di Nicoló R](#), [Ramos CJ](#), [Shintome L](#), [Barbosa CS](#). Retention mucocele on the lower lip associated with inadequate use of pacifier. [Dermatol Online J](#). 2010 Jul 15;16(7):9.
18. [Yagüe-García J](#), [España-Tost AJ](#), [Berini-Aytés L](#), [Gay-Escoda C](#). Treatment of oral mucocele-scalpel versus CO2 laser. [Med Oral Patol Oral Cir Bucal](#). 2009 Sep 1;14(9):e469-74.
19. [Wu CW](#), [Kao YH](#), [Chen CM](#), [Hsu HJ](#), [Chen CM](#), [Huang IY](#). Mucoceles of the oral cavity in pediatric patients. [Kaohsiung J Med Sci](#). 2011 Jul;27(7):276-9.
20. [Ohta N](#), [Fukase S](#), [Suzuki Y](#), [Aoyagi M](#). Treatment of salivary mucocele of the lower lip by OK-432. [Auris Nasus Larynx](#). 2011 Apr;38(2):240-3.