

UN CAS D'HARMATOME CONGÉNITAL DE LA LANGUE CHEZ UN NOURRISSON

A CASE OF AN INFANTILE CONGENITAL HARMATOMA OF THE TONGUE

ABOUNA AD¹, KOUYATÉ M², TRAORÉ ZCA³, TRAORÉ B¹, EHUI AY¹, KOUAMÉ BI S¹,
KOUADIO AE¹, KOUACOU BNF¹, DOUKOURÉ B¹

RESUME

L'Harmatome est une malformation tumorale, semblable à une tumeur, de tissu mature qui est naturel à l'organe à partir duquel il s'est développé. La localisation buccale en particulier linguale est rare et exceptionnelle. Nous rapportons un cas chez un nourrisson de sexe masculin de 01 an 4 mois qui a présenté une excroissance tumorale à la naissance au niveau du V lingual. Cette masse d'augmentation progressive a conduit à une exérèse chirurgicale. Le diagnostic a été posé à l'examen histologique.

Les harmotomes linguaux bien que rares, sont des anomalies congénitales de bon pronostic après traitement chirurgical dont le diagnostic est posé par l'examen anatomopathologique de la pièce opératoire.

Mots-clés : Harmatome – Congénital – Langue – Nourrisson

SUMMARY

A Harmatome is a tumor-like malformation of mature tissue that is natural to the organ from which it developed. Oral localization, particularly on the tongue, is rare and exceptional.

We report a case in a 1-year-old male infant who presented with a tumorous growth at birth on the lingual V. This progressively enlarging mass led to surgical excision. The diagnosis was made on histological examination.

Although rare, lingual harmotomas are congenital anomalies with a good prognosis after surgical treatment, the diagnosis of which is made by pathological examination of the surgical specimen.

Keywords : Harmatoma – Congenital – Tongue – Infant

1- Service d'Anatomie et Cytologie Pathologiques du CHU de Cocody
2- Service d'Anatomie et Cytologie Pathologiques du CHU de Treichville
3- Service d'Anatomie et Cytologie Pathologiques du CHU de Bouaké

Correspondance : Dr Abouna Alain Didier Courriel : abounalaindidier@yahoo.fr / alaindidierabouna@gmail.com

INTRODUCTION

L'Harmatome est une malformation tumorale, semblable à une tumeur, de tissu mature qui est naturel à l'organe à partir duquel il s'est développé ^[1].

Les hamartomes linguaux congénitaux sont rares chez les nouveau-nés, en particulier au niveau de la ligne médiane de la base de la langue ^[2]. Statistiquement, les tumeurs congénitales sont rares et surviennent dans 1,7 à 13,5 cas pour 100 000 naissances ^[3]. Les localisations linguales

peuvent apparaître de manière isolée ou dans le cadre d'un syndrome tel que le syndrome oral-facial-digital (OFDS), un ensemble de troubles génétiques caractérisés par des anomalies buccales, une dysmorphie faciale et des anomalies des mains et des pieds ^[4]. Seuls 63 cas non associés à des syndromes identifiables sont rapportés dans la littérature anglaise ^[4]. Nous rapportons un cas rare d'hamartome sur la partie médiane du V de la langue chez un nourrisson non syndromique.

NOTRE OBSERVATION

Il s'agit d'un nourrisson de sexe masculin âgé de 01 an 04 mois sans antécédents particuliers qui a présenté à la naissance une masse polyploïde de découverte fortuite. L'histoire prénatale était normale et aucune mention de la masse n'avait été faite lors de l'échographie prénatale. À l'examen, l'enfant présentait une grosse masse lobulée de 1,5 cm × 1 cm au niveau de la partie médiane du V de la langue. La taille de la masse provoquait une protrusion de la langue. Le reste de la langue et de la cavité buccale était normal. L'examen systémique était sans particularité. Cette masse entravait l'alimentation maternelle et augmentait progressivement de volume six mois après sa naissance. Devant l'inquiétude des parents et la difficulté d'alimentation de l'enfant, une intervention chirurgicale a été réalisée (figure 1). Le prélèvement fixé au formol dilué à 10% est acheminé au service

d'anatomie pathologique pour analyse histologique.

L'examen macroscopique a retrouvé un fragment tissulaire de consistance ferme, pesant 11g et mesurant 1,2 x 1cm. A la coupe, l'aspect est homogène, nodulaire et blanchâtre sans remaniements nécrotico-hémorragiques.

A l'examen microscopique, il s'agissait de fragments recouverts par un épithélium malpighien de surface hypercanthosique sans anomalie architecturale ou de dysplasie. Le chorion sous-jacent est fibreux dense, congestif avec des vaisseaux sanguins bordés de cellules endothéliales régulières et contenant des lobules d'adipocytes matures, de fibres musculaires lisses et striés et des filets nerveux hyperplasiques, infiltrés de lymphoplasmocytes diffus. L'aspect était compatible à un hamartome congénital de la langue (figure 2 et 3).

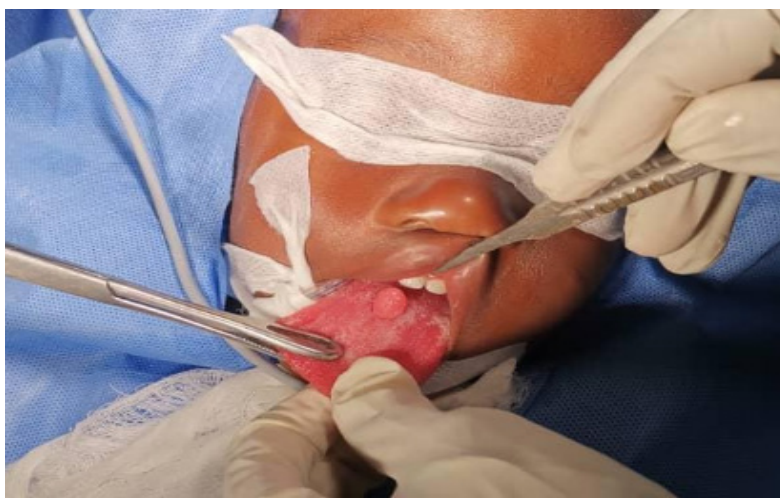


Figure 1 : masse polyploïde linguale en per-opératoire chez un nourrisson de 01 an 4 mois (cliché au bloc opératoire – Dr Ndouba au CHR Yamoussoukro)

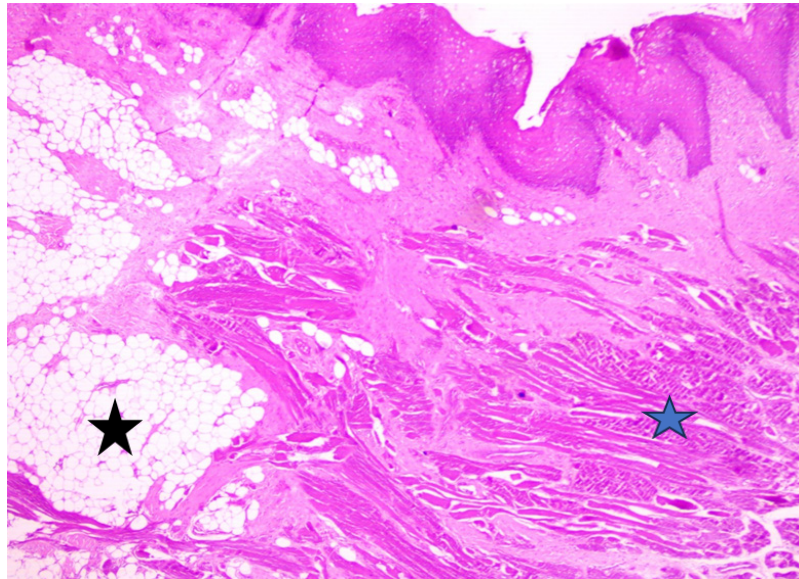


Figure 2 (HEx100) : image histologique d'un hamartome montrant des lobules d'adipocytes matures (étoile noire), des faisceaux de fibres musculaires striés (étoile bleu) surmonté d'un épithélium hyperacanthosique.
Source : Dr Abouna Alain Didier laboratoire d'Anatomie Pathologique CHU de Cocody.

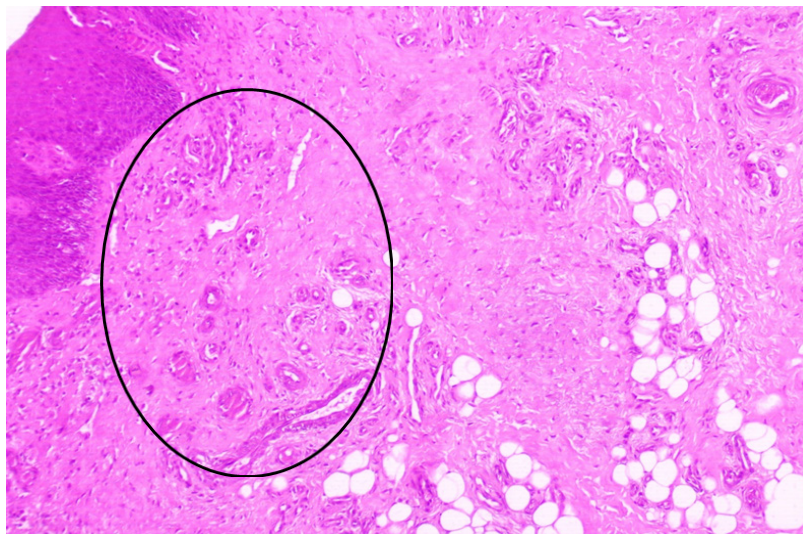


Figure 3 (HEx100) : image histologique d'un hamartome montrant un tissu fibreux dense dissocié par des vaisseaux sanguins(cercle) et des adipocytes matures. Source : Dr Abouna Alain Didier laboratoire d'Anatomie Pathologique CHU de Cocody.

DISCUSSION

Les hamartomes linguaux sont des lésions relativement rares de la langue, représentant environ 13 % des lésions primaires pédiatriques de la langue ^[5]. Ils surviennent généralement dans

le tractus gastro-intestinal et le système respiratoire et il est rare qu'ils apparaissent de manière multiple dans la cavité buccale ^[5-6].

Dans leur études, Surej Kumar et Hiebert et al [7-8] ont suggéré que la présence d'une masse linguale pendant la période embryonnaire pourrait interférer mécaniquement avec le développement de la langue et du palais, pouvant potentiellement entraîner des anomalies telles que la fente linguale et la fente palatine, non observé dans notre cas. Notre patient ne présentait aucune autre malformation en dehors de l'hamartome lingual. La majorité des cas survienne au cours des 5 premières années de vie [2] et l'âge de survenu de notre cas a été découvert à la naissance comme relaté par la plupart des données de la littérature [5, 9]. En ce qui concerne les caractéristiques cliniques, toutes les lésions se présentaient sous la forme d'une masse exophytique, variant de lésions polypoides à nodulaires [9]. Cet aspect lésionnel a été observé chez notre patient et était situé à la partie médiane face postérieure de la langue. Cette situation anatomique de l'hamartome lingual est retrouvé en majorité dans les études

de Perez-de-Oliviera ME et al au Brésil [9]. Au plan anatomopathologique, la taille de la masse était de 1x1 cm et d'aspect nodulaire. Cette taille dans notre cas corrobore celle retrouvée dans la littérature [4-5]. Au microscope, les composants tissulaires prolifératifs des hamartomes de la langue peuvent inclure des faisceaux de muscles lisses ou squelettiques, du parenchyme des glandes salivaires, du tissu adipeux, des vaisseaux sanguins, des faisceaux nerveux, des structures annexes, du cartilage, des éléments gliaux, du tissu conjonctif fibreux et du tissu lymphoïde [5, 9]. A l'examen microscopie de nos différents fragments, nous avons retrouvé du tissu fibreux dense, des lobules adipeux, du tissu musculaire lisse et strié, et des vaisseaux sanguins. Tous ces aspects histologiques concordent avec ceux décrits par la plupart des auteurs de la littérature. Notre patient a bénéficié d'une exérèse chirurgicale de la lésion qui demeure le seul traitement décrit dans la littérature [4-6, 9]

CONCLUSION

Les hamartomes linguaux congénitaux sont rares chez les nouveau-nés, en particulier leur localisation au niveau de la ligne médiane du V de la langue. Ils se manifestent sous forme de masse polyploïde. L'examen histologique confirme le diagnostic par la mise en évidence de la présence de tissus normaux matures.

Le traitement demeure avant tout chirurgical.

Déclaration d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts.

RÉFÉRENCES

- 1-Wang HL, Chiang FY, Tai CF, Tsai KB, Wang LF. Lingual leiomyomatous hamartoma with bifid tip and ankyloglossia in a patient without orofacialdigital syndrome : A case report and literature review. World J Surg Oncol 2013 ;11 :230.
- 2- Alkhalifah KA, Alhazmi WA. Congenital Lingual Leiomyomatous Hamartoma in a Healthy Newborn. Saudi J Otorhinolaryngol Head Neck Surg.2025. DOI: 10.4103/sjoh.sjoh_2_25
- 3- Junaid M, Ahmed SQ, Kazi M, Haroon S. Oral neurovascular hamartoma : An extraordinary verdict in the oral cavity. BMJ Case Rep 2014 ; 26 : 2014. doi: 10.1136/bcr2013-200832.
- 4- Liu YC, Shih M, Hicks MJ, Sitton MS. Lingual Hamartomas: Clinical Characteristics, Diagnostic Evaluation, Treatment, and Outcomes. Laryngoscope. 2021;131(6):2080-88. doi. org/ 10. 1002/ lary. 29284.
- 5- Kreiger PA, Ernst LM, Elden LM, Kazahaya K, Alawi F, Russo PA. Hamartomatous tongue lesions in children. Am J Surg Pathol. 2007 ;31(8):1186- 90.
- 6- Qin Y, Hu N, Zhang R, Yang X and Wang J. A Case of Multiple Tongue Hamartomas with Cleft Palate: 7 Years of Follow-Up. Ear, Nose & Throat Journal, 2024 : 1-4. <https://doi.org/10.1177/01455613241272494>
- 7- Surej Kumar LK, Kurien Nikhil M, Sivan Madhu P. Isolated congenital bifid tongue. National Journal of Maxillofacial Surgery. 2010 ;1(2) :187-189. doi:10.4103/0975-5950. 79228
- 8- Hiebert JC, Johnson AB, Henry TH, et al. Congenital tongue mass with concomitant cleft palate and bifid tongue : a case report and review of the literature. Cleft Palate-Craniofacial Journal. 2016 ;53(2) :245-248. doi:10.1597/15-062
- 9- Pérez-de-Oliveira ME, Robinson L, Van Heerden WFP, Assunção JJR, Abrahão AC, Romãnach MJ and al. Tongue hamartomas in pediatric patients: an international case series and literature review. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol. 2022 ; 134(6):739-48. PMID: 36241602