




Disponible en ligne sur
 ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France

www.em-consulte.com



CAS CLINIQUE

Malformation veineuse géante de la langue : intérêt du surgiflo

Giant venous malformation of the tongue: The value of surgiflo

S. Slaba^a, C. Braidy^{a,*}, R.B. Sader^a, N. Hokayem^b, J. Nassar^c

^a Service de radiologie, Hôtel-Dieu de France, Beyrouth, Liban

^b Service de chirurgie plastique, Hôtel-Dieu de France, Beyrouth, Liban

^c Université Saint-Joseph, Beyrouth, Liban

Reçu le 14 janvier 2010 ; accepté le 26 février 2010

Disponible sur Internet le 15 avril 2010

MOTS CLÉS

Malformation
veineuse ;
Sclérothérapie ;
Éthanol ;
Surgiflo

KEYWORDS

Venous
malformations;
Sclerotherapy;
Ethanol;
Surgiflo

Résumé Les angiomes veineux sont des malformations vasculaires veineuses (MV) congénitales rares ayant une prédilection crâniofaciale. Les angiomes veineux géants et intra-oraux peuvent être symptomatiquement sévères et nécessiter un traitement agressif. La thérapie actuelle est basée sur la sclérothérapie, combinée ou non à la chirurgie. Nous rapportons le cas d'un patient connu avoir une MV énorme de la face et de la langue traitée avec succès dans notre département par embolisation, sclérothérapie, et chirurgie maxillofaciale, en insistant sur l'intérêt du Surgiflo dans la sclérothérapie.

© 2010 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

Summary Cavernous hemangiomas are rare congenital venous malformations having propensity for the head and neck. These venous malformations, especially the large and intraoral ones, may cause severe symptoms requiring aggressive treatment. Today, the main treatment is based on sclerotherapy, associated or no with surgery. We report on a patient presenting an enormous venous malformation of the face and tongue, which was treated successfully in our department by embolization, sclerotherapy and maxillo-facial surgery, with a special focus on Surgiflo in our technique.

© 2010 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

Cas clinique

M. K. âgé de 74 ans, connu pour avoir une MV congénitale de très grande taille, prenant les quatre cinquièmes de la lèvre inférieure et du menton et les deux tiers antérieurs de la langue (Fig. 1), est admis dans notre hôpital pour augmentation de la taille de sa MV avec difficulté à l'alimentation et

* Auteur correspondant.

Adresse e-mail : dr_chadi_braidy@hotmail.com (C. Braidy).

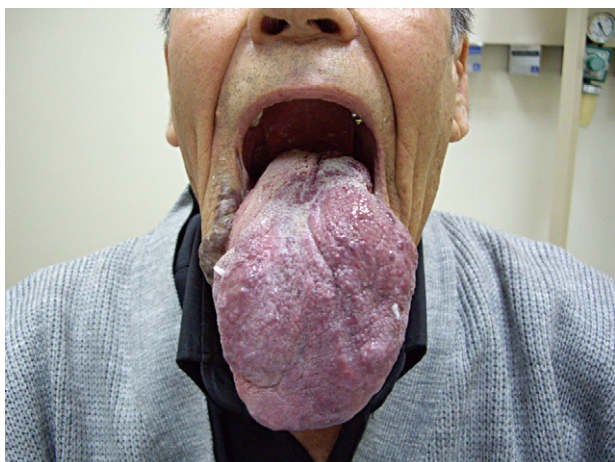


Figure 1 Photographie préopératoire. MV énorme prenant la lèvre inférieure et les deux tiers antérieurs de la langue.
Preoperative photograph. Enormous venous malformation of the lower lip and anterior two-thirds of the tongue.

la phonation. Cette MV avait été investiguée dix ans plus tôt par un scanner de la face (Fig. 2) et une IRM crâniofaciale (Fig. 3) pour en étudier l'étendue. Il a été traité, à plusieurs reprises et dans différentes institutions par sclérothérapie percutanée mais sans succès, avec à chaque fois récurrence et augmentation de la taille de la MV.

Le patient est admis en salle d'interventionnelle. Sous anesthésie générale, un cathétérisme hypersélectif des deux artères linguales est réalisé avec embolisation du blush vasculaire par des microparticules de 500 à 700 microns (Fig. 4a). Dans un deuxième temps, une ponction directe de la lèvre inférieure et de la langue est faite avec injection in situ et sous contrôle fluoroscopique d'un mélange sclérosant à base d'éthanol pur, de lipiodol et de Surgiflo (produit par Ferrosan A/S, distribué par Johnson & Johnson, Ethicon, Danemark) (Fig. 4b). La procédure se déroule sans complications.

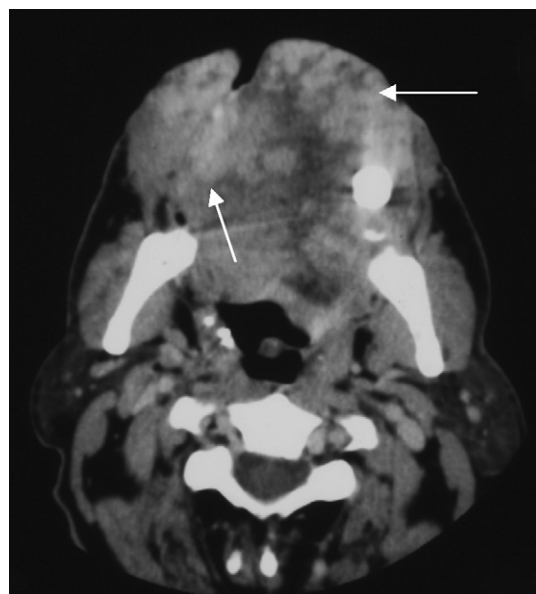


Figure 2 Coupe tomodensitométrique axiale préopératoire montrant des espaces vasculaires hyperdenses tortueux de la langue et de la lèvre inférieure (flèches).
Preoperative axial CT view showing hyperdense tortuous vascular spaces within tongue and lower lip (arrows).

Quarante-huit heures plus tard, le patient est admis au bloc opératoire; dans un premier temps, une résection de la lèvre inférieure est faite à 3 cm de la commissure gauche et 1 cm de la commissure droite avec passage à travers l'angiome en préservant le menton. Dans un deuxième temps, une résection en V de la langue prenant les trois quarts de l'angiome, est suivie d'un rapprochement avec fermeture des berges et du plancher buccal. Une reconstruction de la lèvre inférieure est faite dans un dernier temps. Le saignement peropératoire est limité.

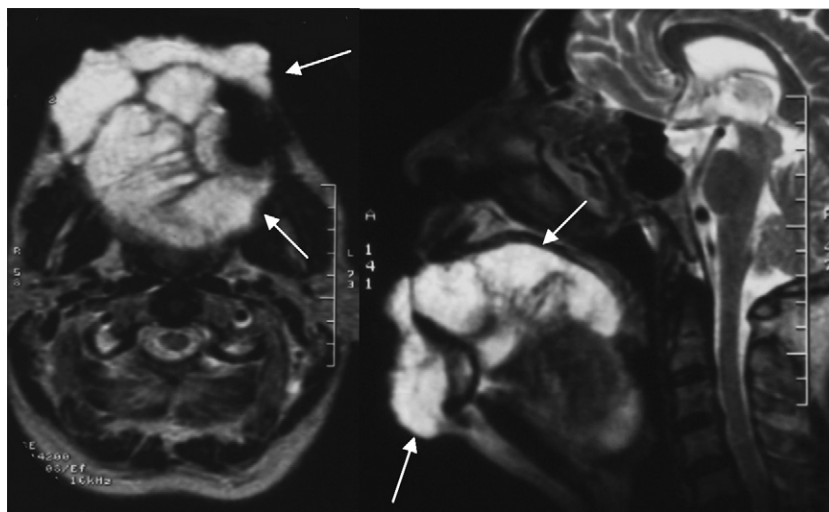


Figure 3 IRM préopératoire. Coupes axiale et sagittale pondérées T2 montrant les lacs vasculaires lobulés en hypersignal (flèches).
Preoperative MRI. T2-weighted axial and sagittal views showing high signal lobular vascular spaces (arrows).

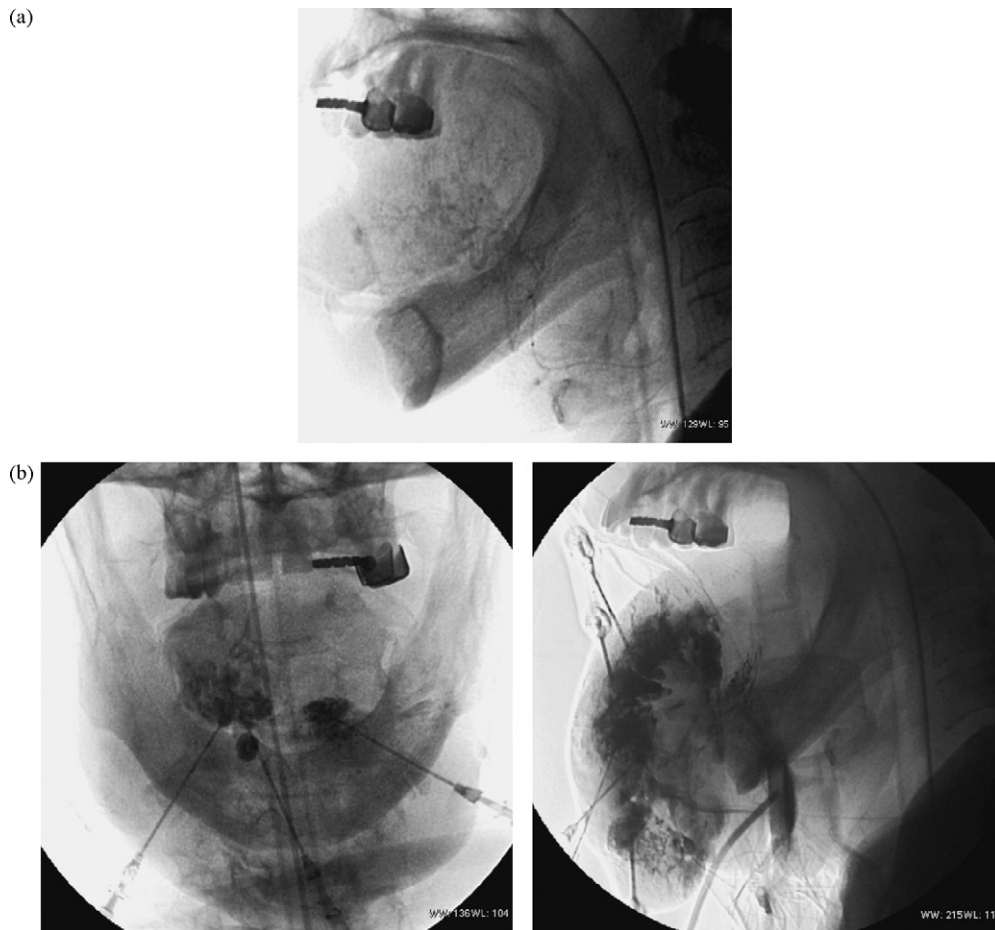


Figure 4 a: cathétérisme hypersélectif de l'artère linguale et embolisation par microsphères; b: multiples injections sous fluoroscopie d'un mélange d'éthanol, de lipiodol et de Surgiflo.
a: hyperselective catheterization and embolization of lingual artery with microspheres; b: multiple injections under fluoroscopy of a mixing of ethanol, lipiodol and Surgiflo.

L'étude anatomopathologique des pièces réséquées confirme la nature angiomeuse veineuse et l'efficacité de la sclérothérapie utilisée (Fig. 5).

Le patient quitte l'hôpital dans de bonnes conditions. Revu un an plus tard, il existe une excellente amélioration de la phonation, de l'alimentation et surtout de l'esthétique (Fig. 6).

Discussion

Les malformations vasculaires sont des vaisseaux dysmorphiques qui proviennent probablement d'une anomalie de développement embryonnaire. La première classification de ces malformations a été décrite en 1982 par Mulliken et Glowacki [1]. Depuis, elle a été mise à jour à plusieurs reprises. Selon le type de compartiment vasculaire atteint, les caractéristiques hémodynamiques et la symptomatologie clinique, les malformations vasculaires peuvent être divisées en :

- malformations vasculaires à bas débit qui sont sous-divisées en malformations capillaires, veineuses et lymphatiques ;

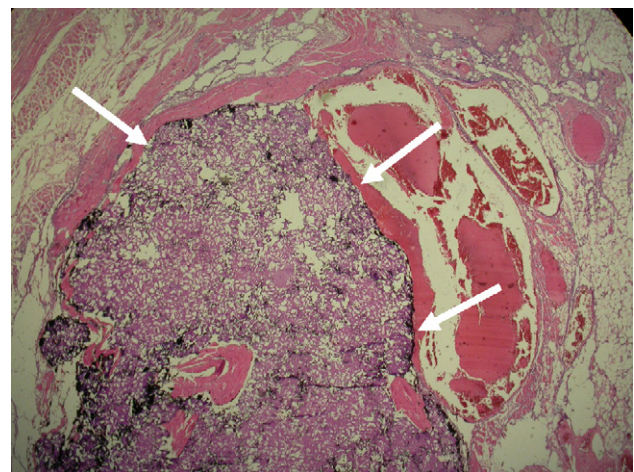


Figure 5 Pièce anatomopathologique montrant le matériel d'embolisation correspondant au Surgiflo (flèches) au sein des lacs vasculaires.
Surgical specimen showing the Surgiflo material (arrows) inside the vascular spaces.



Figure 6 Un an après le traitement.
One year after treatment.

- malformations vasculaires à haut débit (malformations artério-veineuses) [2–4].

Les malformations veineuses sont les anomalies vasculaires les plus fréquentes notamment au niveau crâniofacial. Elles peuvent apparaître à n'importe quel âge et augmenter de taille par expansion. La clinique dépend de la localisation et de la taille, pouvant être sévère avec les lésions géantes et intra-orales.

L'évaluation radiologique des malformations veineuses est importante. La radio simple peut montrer des phlébolithes. L'écho Doppler, en particulier le Doppler puissance, la distingue des autres malformations, et permet surtout d'analyser la richesse et l'architecture vasculaire de la lésion et d'obtenir une excellente visualisation de l'arborisation même s'il s'agit de flux faibles tels que dans les malformations veineuses. Le scanner étudie l'extension de la lésion et évalue les remaniements osseux. Enfin, l'IRM est l'examen de choix vu la meilleure résolution de contraste montrant souvent la lésion en hypersignal franc sur les séquences pondérées T2. Elle permet de mieux définir l'extension des malformations et leur relation avec les tissus adjacents et est surtout intéressante pour le suivi post-sclérothérapie ou postopératoire [4–6].

Classiquement, la chirurgie était le traitement de première ligne mais avec un taux élevé de complications, à savoir l'hémorragie massive, les dégâts nerveux et les problèmes cosmétiques, notamment pour les MV crâniofaciales et géantes. Depuis, plusieurs méthodes ont été utilisées comme l'irradiation, l'électrocoagulation, la cryothérapie, l'excision chirurgicale, le laser, la compression et la sclérothérapie.

Plusieurs agents ou combinaison d'agents sclérosants ont été utilisés comme l'éthanolamine oléate, la bléomycine, l'OK432, le salicylate de sodium, l'éthibloc et surtout l'éthanol pur ou combiné à d'autres agents.

L'éthanol est souvent utilisé vu sa disponibilité, sa qualité antiseptique, sa facilité d'utilisation, son faible coût et surtout, son potentiel sclérosant destructif. L'éthanol pur en intravasculaire induit une dénaturation des protéines sanguines avec destruction endothéliale, précipitation de fibrines et formation de thrombus évoluant vers une rétraction et une occlusion du lit vasculaire [4,7,8]. Le taux de complications avec l'éthanol pur varie dans la littérature de 7,5 à 27,9% [4], certaines pouvant être dangereuses telles que la nécrose tissulaire, la lésion nerveuse permanente,

la dépression du système nerveux central, l'embolie pulmonaire, l'arythmie cardiaque... [4–8].

La réponse à l'éthanol pur varie selon les centres avec des taux de réussite allant de 64 à 96% [4,7] et le taux de récurrence le plus faible par rapport aux autres agents sclérosants. Des résultats similaires sont observés avec l'éthanolamine oléate avec des taux d'efficacité allant jusqu'à 92% [9], avec, par comparaison à l'éthanol pur, moins d'effet destructif sur la paroi endothéliale donc moins de risque de complications mais un risque de récurrence augmenté par rapport à l'éthanol pur [4,9]. De plus, Jin et al. [7] ont obtenu un succès de 97,5% en utilisant l'éthanol combiné à la bléomycine A5 avec un taux de complications minime.

Notre patient a présenté plusieurs récurrences de sa lésion quand il a été traité par sclérothérapie percutanée seule, cela est dû probablement à la taille énorme de sa malformation. D'où, une prise en charge multidisciplinaire était nécessaire. Notre technique avec ce patient a présenté deux points forts; d'abord l'embolisation par voie endovasculaire des artères nourricières de la lésion par des microsphères calibrées a permis la diminution du débit de la lésion donc une diminution du potentiel de lavage du produit sclérosant et surtout une minimisation du risque de saignement durant la chirurgie d'excision. De plus, durant la sclérothérapie, nous avons mélangé l'éthanol pur au Surgiflo. Ce produit utilisé pour la première fois en intravasculaire est à base de gélatine porcine et agit comme une matrice hémostatique avec ses propriétés thrombogéniques. De plus, il se comporte comme une éponge qui va retenir l'éthanol et empêcher sa migration extra-lésionnelle, réduisant le risque de nécrose puis le libérant progressivement. Le lipiodol, comme produit de contraste, est nécessaire pour le monitoring des injections en visualisant une fuite vers la circulation systémique. Suite à cette technique de sclérothérapie combinée à l'embolisation, aucune complication aiguë n'a été notée chez ce patient et la chirurgie d'excision, bien qu'agressive et complexe, s'est déroulée avec un saignement acceptable pour la taille de la lésion et un résultat esthétique excellent. L'étude anatomopathologique de la pièce opératoire a confirmé la présence du Surgiflo au sein des lacs vasculaires asséchés.

En conclusion, la sclérothérapie à l'éthanol est un traitement efficace et sûr des malformations veineuses crâniofaciales, devant être combinée à l'embolisation et la chirurgie pour les lésions énormes. Il serait intéressant

d'étudier sur une longue série, l'importance du Surgiflo et la réduction du risque de complications.

Conflit d'intérêt

Aucun.

Remerciements

Dr Viviane Trak-Smayra.

Références

- [1] Mulliken JB, Glowacki J. Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endothelial characteristics. *Plast Reconstr Surg* 1982;69: 412–22.
- [2] Herbreteau D, Aymard A, Jhaveri HS, Chapot R, Casasco AE, Slaba S, et al. Current management of cervicofacial superficial vascular malformations and hemangiomas. In: *Interventional neuroradiology*. États Unis: Saunders; 1999. pp. 317–327.
- [3] Enjolras O. Classification and management of the various superficial vascular anomalies: hemangiomas and vascular malformations. *J Dermatol* 1997;24:701–10.
- [4] Hyodoh H, Hori M, Akiba H, Tamakawa M, Hyodoh K, Hareyama M. Peripheral vascular malformation: imaging, treatment, approaches and therapeutic issues. *RadioGraphics* 2005;25:S159–171.
- [5] Berenguer B, Burrows PE, Zurakowski D, Mulliken JB. Sclerotherapy of craniofacial venous malformations: Complications and results. *Plast Reconstr Surg* 1999;104:1–11.
- [6] Slaba S, Semrani-Younan H, Hokayem N, Malek G, Abadjian G, Aoun N, et al. Venous malformation of the corpus adiposum buccae. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac* 1999;116:372–5.
- [7] Jin Y, Lin X, Li W, Hu X, Ma G, Wang W. Sclerotherapy after embolisation of draining vein: A safe treatment method for venous malformations. *J Vasc Surg* 2008;47:1292–9.
- [8] Johnson P, Eckard D, Brecheisen M, Girod D, Tsue T. Percutaneous ethanol sclerotherapy of venous malformations of the tongue. *AJNR* 2002;23:779–82.
- [9] Choi YH, Han MH, O-Ki K, Cha SH, Chang KH. Craniofacial cavernous venous malformations: Percutaneous sclerotherapy with use of ethanolamine oleate. *J Vasc Interv Radiol* 2002;13:475–82.