

## Infiltrating Ductal Carcinoma of the Parotid Gland: A Case Report and Review of the Literature

El Matlini A<sup>\*</sup>, Bouchabaka Y, Raouah M, Saadoune M, Darfaoui M, Lalya I, El Omrani A, Khouchani M

Radiation Oncology Department, Mohammed VI University Hospital, CHU Mohammed VI BP2360 Principal Avenue Ibn Sina, Marrakesh, Morocco

DOI: [10.36347/sjmcr.2020.v08i06.014](https://doi.org/10.36347/sjmcr.2020.v08i06.014)

| Received: 20.05.2020 | Accepted: 02.06.2020 | Published: 30.06.2020

\*Corresponding author: Abdelali El Matlini

### Abstract

### Case Report

Infiltrating ductal carcinoma (IDC) of the parotid gland is a rare and aggressive tumor that accounts for 1 to 3% of all salivary gland tumors. This histological type is characterized by high rate of local recurrence and cervical lymph node invasion. We report the observation of a 57-year-old female patient with IDC of the left parotid gland revealed by painful swelling of the parotid region. CT of the face with ultrasound complement has highlighted a lesional process of the left parotid gland. Parotidectomy with histological study was in favor of an IDC of the parotid gland. The patient received adjuvant radiotherapy of 50Gy.

**Keywords:** Infiltrating ductal carcinoma, Parotid gland.

**Copyright @ 2020:** This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution license which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium for non-commercial use (NonCommercial, or CC-BY-NC) provided the original author and source are credited.

## INTRODUCTION

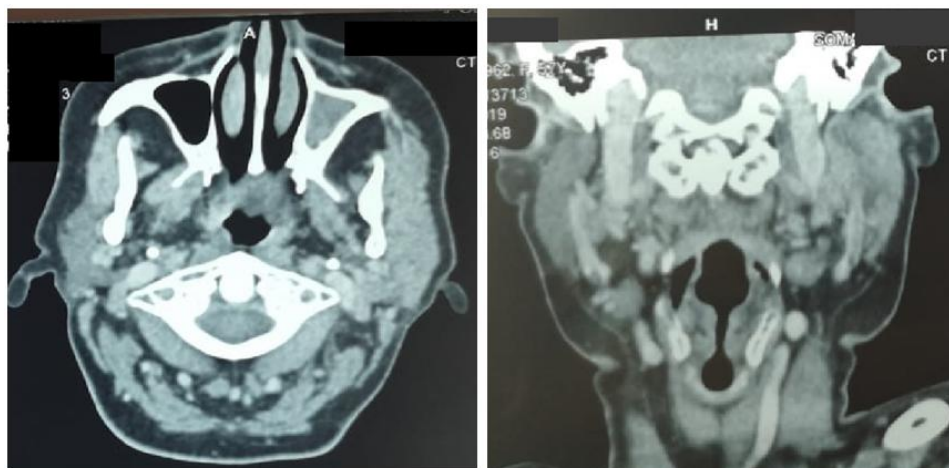
Représentant 1 à 3% de l'ensemble des tumeurs malignes des glandes salivaires[1], le carcinome canalaire infiltrant (CCI) de la glande parotidienne est une tumeur agressive de haut grade de malignité ayant un aspect histologique ressemblant au carcinome canalaire de la glande mammaire[2,3]. Cette tumeur est à l'origine d'une atteinte ganglionnaire cervicale précoce et des métastases pulmonaires et osseuses responsables d'un mauvais pronostic[4]. Le traitement standard comprend une exérèse chirurgicale suivie d'une radiothérapie avec un taux élevé de récurrences locale et métastatique<sup>5</sup>. Nous rapportons l'observation d'un cas de CCI de la parotidienne pris en charge au service d'oncologie-radiothérapie du CHU Mohammed VI de Marrakech.

## OBSERVATION

Nous rapportons l'observation d'une femme âgée de 57 ans, sans antécédents pathologiques notables, qui a présenté depuis 3 mois une tuméfaction douloureuse de la région parotidienne gauche sans notion de fièvre ni autres signes associés. L'examen clinique a objectivé une tuméfaction parotidienne gauche sans nodules individualisables ni signes inflammatoires ni paralysie faciale, la palpation des aires ganglionnaires cervicales n'a pas montré

d'adénopathies. Une Tomodensitométrie (TDM) de la face avec complément échographique a mis en évidence un processus lésionnel de la glande parotidienne gauche mesurant 17x09 mm (Figure 1). La patiente a eu une parotidectomie superficielle avec préservation du nerf facial et l'étude anatomopathologique avec immunohistochimie était en faveur d'un carcinome canalaire infiltrant de la parotidienne, d'une taille de 25mm et présence d'engainement péri-nerveux sans embolies vasculaires néoplasiques visibles. Le complément immunohistochimique a montré une absence d'expression des anticorps anti-Oestrogène, anti-Progestérone et anti-HER2 avec un taux de Ki67 à 10%.

Une imagerie par résonance magnétique (IRM) post-opératoire de la face a montré une hypertrophie hétérogène de la glande parotidienne gauche associée à des adénopathies jugulo-carotidiennes homolatérales d'allure suspecte. Une reprise chirurgicale a été réalisée consistant en une parotidectomie totale avec curage ganglionnaire homolatéral intéressant les groupes IIa, IIb et III dont l'étude anatomopathologique n'a pas montré de résidu tumoral ni de métastases ganglionnaires. L'échomammographie bilatérale était sans anomalies. Une radiothérapie adjuvante de 50Gy sur le lit tumoral et sur les aires ganglionnaires a été envisagée.



**Fig-1: TDM cervico-faciale en coupe axiale et frontale montrant une hypertrophie hétérogène de la glande parotidienne gauche**

## DISCUSSION

Le CCI de la glande parotide est une tumeur rare, très agressive. Environ 200 cas ont été rapportés dans la littérature anglaise [6]. Sur le plan histologique, ces tumeurs présentaient de grandes similitudes avec le carcinome canalaire du sein, c'est pourquoi ont décrit cette tumeur comme «carcinome du canal salivaire»[6]. Elle représente une tumeur rare avec une incidence estimée à 1% à 3% de toutes les tumeurs malignes des glandes salivaires [1]. La glande parotide est le plus souvent atteinte, le CCI représente 0,9% à 6% de toutes les tumeurs de la glande parotide [7]. Les glandes submandibulaires et les glandes salivaires accessoires sont rarement concernées [6]. Cette tumeur peut se développer dans certains cas sur adénome pléomorphe préexistant ou survenir de novo [6].

Les patients sont généralement de sexe masculin dont l'âge moyen se situe entre 55 et 61 ans [8]. Il se présente comme une masse de la région parotidienne à croissance rapide avec possibilité de métastases précoces à distance, de récurrence locale et de mortalité élevée [6]. Une paralysie faciale est observée dans 40% à 60% des cas alors que des adénopathies cervicales sont notées dans 35% des cas [8,9]. Les résultats de l'imagerie, TDM et IRM de la face, ne sont pas spécifiques, ils sont utiles pour le diagnostic de la malignité et pour la stratégie de prise en charge. Ils peuvent évoquer la nature maligne de la tumeur en montrant des limites irrégulières ou une infiltration du tissu adjacent [6].

Le diagnostic positif est histologique. La parotidectomie exploratrice avec examen histologique extemporané est le seul examen déterminant pour le diagnostic étiologique d'une tuméfaction parotidienne, une aspiration à l'aiguille fine avec étude cytologique peut être utile mais pas fiable. Macroscopiquement, on retrouve une tumeur bien limitée, jaunâtre ou blanc grisâtre de forme nodulaire, multinodulaire, kystique ou infiltrante entourée de fibrose avec des zones hémorragiques, de nécrose et de dégénérescence

kystique, des calcifications intratumorales peuvent être retrouvées[10,11]. Les formes histologiques comédonoécrosante, papillaire et cribriforme sont les plus souvent rencontrées[12]. On retrouve également une prolifération cellulaire intracanalair avec un polymorphisme nucléaire à cytoplasme éosinophile avec quelques mitoses et une augmentation du rapport nucléo-cytoplasmique[10]. Les diagnostics différentiels sont les carcinomes muco-épidermoïdes et les métastases d'adénocarcinomes mammaires. En cas de doute, l'étude des récepteurs à l'estrogène et à la progestérone et la recherche en immunohistochimie de la protéine HER-2 peuvent être utiles au diagnostic[13]. Certains auteurs ont rapporté que l'expression de l'HER2, associée à un taux de prolifération élevé, est associée à une évolution clinique défavorable[8].

En raison des données limitées l'approche thérapeutique est non consensuelle, la chirurgie radicale est le traitement principal, représenté par l'exérèse chirurgicale de la tumeur par parotidectomie avec ou sans conservation du nerf facial, avec curage cervical homolatéral<sup>3</sup>. Cependant, le taux de récurrence locorégionale est élevé en cas de marges de résection insuffisantes ou en cas de métastases ganglionnaire [12]. La présence d'embolies vasculaires, l'engainement péri-nerveux, l'atteinte extra-parotidienne et l'envahissement ganglionnaire sont des indicateurs d'un mauvais pronostic[3].

La radiothérapie postopératoire est indiquée en cas de stades avancés tandis qu'une chimiothérapie est généralement réservée aux formes métastatiques<sup>3</sup>. La radiothérapie adjuvante est indiquée chez les patients ayant une invasion neurale et vasculaire, des métastases ganglionnaires cervicales ou des marges positives après chirurgie [14,15]. Chez les patients au stade T1-2 ou au stade N0, la chirurgie seule peut atteindre un taux de contrôle local élevé et la supériorité de la radiothérapie adjuvante n'a pas été démontrée [9]. Pourtant, la radiothérapie adjuvante améliore considérablement le pronostic chez les patients ayant des stades T3-4, N1 ou TNM III[9]. Lorsque les patients présentent une atteinte

ganglionnaire multiple ou avec des métastases à distance, le bénéfice de survie de la radiothérapie en tant que thérapie loco-régionale pourrait être compromis par le décès résultant de métastases à distance [9]. Ainsi, le rôle de radiothérapie adjuvante dans le traitement CCI de la parotide doit être évalué par d'autres études prospectives. Les patients atteints de CCI de la parotide du sous-type HER-2 positif peuvent bénéficier de thérapies ciblées utilisant des anticorps monoclonaux anti-HER-2, le Trastuzumab et le Pertuzumab, ou des inhibiteurs de la tyrosine kinase HER2, tels que le Lapatinib[3]. De même, une hormonothérapie peut être prescrite en cas d'expression des récepteurs hormonaux[16]. Le pronostic du CCI de la parotide dépend du stade avec un meilleur pronostic en cas de tumeur < 2cm [12,17]. Le taux de survie sans récurrence à cinq ans est de l'ordre de 30 % [18,19].

## CONCLUSION

Le CCI de la glande parotide est une tumeur rare et agressive, le traitement repose essentiellement sur la chirurgie alors que la radiothérapie adjuvante est indiquée en cas de stade avancé et les thérapies ciblées anti-HER2 et de l'hormonothérapie ont une place en cas de maladie métastatique. Des études prospectives pour comparer les différents moyens thérapeutiques sont nécessaires pour améliorer le pronostic et éviter les rechutes locales et à distance.

## RÉFÉRENCES

- Seifert G, Caselitz J. Epithelial salivary gland tumors: Tumor markers. In *Progress in surgical pathology* 1989 (pp. 157-187). Springer, Berlin, Heidelberg.
- Kleinsasser O, HJ K. Hubner G [Salivary duct carcinoma. A group of salivary gland tumors analogous to mammary duct carcinoma] *Arch Klin Exp Ohren Nasen Kehlkopfheilkd.* 1968; 192: 100–105. doi: 10.1007. BF00301495.[PubMed][Cross Ref].
- Xie S, Yang H, Bredell M, Shen S, Yang H, Jin L, Zhang S. Salivary duct carcinoma of the parotid gland: A case report and review of the literature. *Oncology letters.* 2015 Jan 1;9(1):371-4.
- Ellis GL, Auclair PL. *Atlas of Tumor Pathology*, 3rd series, fascicle 17. Tumors of the Salivary Glands. Washington, DC: Armed Forces Institute of Pathology. 1996:324-3.
- Lewis JE, McKinney BC, Weiland LH, Ferreiro JA, Olsen KD. Salivary duct carcinoma: clinicopathologic and immunohistochemical review of 26 cases. *Cancer: Interdisciplinary International Journal of the American Cancer Society.* 1996 Jan 15;77(2):223-30.
- Mlika M. Salivary duct carcinoma of the parotid gland. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2012; 16: 134–136.
- Etges A, Pinto DS, Kowalski LP, Soares FA, Araujo VC. Salivary duct carcinoma: immunohistochemical profile of an aggressive salivary gland tumour. *Journal of clinical pathology.* 2003 Dec 1;56(12):914-8.
- Jaehne M, Roeser K, Jaekel T, Schepers JD, Albert N, Löning T. Clinical and immunohistologic typing of salivary duct carcinoma: a report of 50 cases. *Cancer.* 2005 Jun 15;103(12):2526-33.
- Lv T, Wang Y, Wang X. Subgroups of parotid gland infiltrating ductal carcinoma benefit from postoperative radiotherapy: a population-based study. *Future Oncology.* 2019 Mar;15(8):885-95.
- Hosal AS, Fan C, Barnes L, Myers EN. Salivary duct carcinoma. *Otolaryngology—head and neck surgery.* 2003 Dec;129(6):720-5.
- Hosal AS, Fan C, Barnes L, Myers EN. Salivary duct carcinoma. *Otolaryngology—head and neck surgery.* 2003 Dec;129(6):720-5.
- BenJelloun H, Maazouzi A, Benchakroun N, Acharki A, Tawfiq N, Saharoui S, Benider A. Salivary duct carcinoma of the parotid gland: report of two cases and literature review. *Cancer radiotherapie: journal de la Societe francaise de radiotherapie oncologique.* 2004 Dec;8(6):383-6.
- Nabili V, Tan JW, Bhuta S, Sercarz JA, Head CS. Salivary duct carcinoma: a clinical and histologic review with implications for trastuzumab therapy. *Head & Neck: Journal for the Sciences and Specialties of the Head and Neck.* 2007 Oct;29(10):907-12.
- D'heygere E, Meulemans J, Vander Poorten V. Salivary duct carcinoma. *Current opinion in otolaryngology & head and neck surgery.* 2018 Apr 1;26(2):142-51.
- Pons Y, Alves A, Clément P, Conessa C. Le carcinome canalaire de la parotide: à propos de deux cas, et une revue de la littérature. *Annales françaises d'Oto-rhino-laryngologie et de Pathologie Cervico-faciale.* 2011 Sep 1;128(4):232-4.
- Huang X, Hao J, Chen S, Deng R. Salivary duct carcinoma: A clinopathological report of 11 cases. *Oncology letters.* 2015 Jul 1;10(1):337-41.
- Delgado R, Klimstra D, Albores- Saavedra J. Low grade salivary duct carcinoma: a distinctive variant with a low grade histology and a predominant intraductal growth pattern. *Cancer: Interdisciplinary International Journal of the American Cancer Society.* 1996 Sep 1;78(5):958-67.
- Valeri RM, Hadjileontis C, Skordalaki A, Pandidou A, Vahsevanos C, Destouni H. Salivary duct carcinoma of the parotid gland. *Acta cytologica.* 2005;49(1):61-4.
- Jamal AM, Zhi-Jun S, Xin-Ming C, Yi-Fang Z. Salivary duct carcinoma of the parotid gland: case report and review of the literature. *Journal of oral and maxillofacial surgery.* 2008 Aug 1;66(8):1708-13.