

Fait clinique

**Première description
d'un lipoblastome à Madagascar,
de localisation pré-vésicale antérieure**

MF Ralahy*¹, A Randrianirina¹, D Rakotomena²,
AF Rakototiana¹, ML Andriamanarivo³, A Ahmad⁴,
HN Rakoto-Ratsimba²

¹ Service d'Urologie, CHU-JRA Ampefiloha BP 4150 Antananarivo, Madagascar

² Service de Chirurgie Viscérale, CHU-JRA Ampefiloha BP 4150 Antananarivo, Madagascar

³ Service de Chirurgie Pédiatrique, CHU-JRA Ampefiloha BP 4150 Antananarivo, Madagascar

⁴ Service d'Imagerie Médicale, CHU-JRA Ampefiloha BP 4150 Antananarivo, Madagascar

Résumé

Nous rapportons un cas de lipoblastome chez une fillette de 3 ans qui avait consulté pour une tuméfaction sus-pubienne gauche évoluant depuis neuf mois et une pollakiurie d'apparition récente. L'échographie suspectait une tumeur musculaire du muscle grand droit gauche. Une exérèse chirurgicale complète était pratiquée et l'examen anatomo-pathologique concluait en un lipoblastome à localisation inhabituelle, pré vésicale. Les suites opératoires étaient simples et l'évolution favorable après un recul d'un an. Ce premier cas décrit à Madagascar est probablement le deuxième cas africain. Les particularités diagnostiques et thérapeutiques sont discutées à l'aide d'une revue de la littérature.

Mots-clés: Chirurgie; Lipoblastome; Vessie

First description of lipoblastoma in Madagascar with pre bladder location

Summary

We report a case of lipoblastoma in a 3 year-old female who consulted for an over-pubic left tumefaction evolving for nine months associated with recent pollakiuria. Ultrasound examination suspected left pectoralis major tumor. Complete surgical excision was practiced and histological examination found an uncommon location of lipoblastoma in pre bladder space. Post operative period was uneventful and evolution was favourable after one year follow up. This first case described in Madagascar is probably the second African case. Diagnosis and treatment features are discussed with a review of the literature.

Keywords: Bladder; Lipoblastoma; Surgery

Introduction

Le lipoblastome est une tumeur bénigne rare d'origine embryonnaire, retrouvée presque exclusivement chez l'enfant. Si le diagnostic peut être évoqué aisément au niveau de ses localisations habituelles, la localisation pré-vésicale que nous décrivons est exceptionnelle. Les auteurs en rapportent un cas observé chez une fillette de 3 ans diagnostiqué et traité au Centre hospitalier Universitaire Joseph Ravoahangy Andrianavalona d'Antananarivo (CHU-JRA) (Madagascar) afin de mettre en exergue les particularités de la prise en charge diagnostique et thérapeutique.

Observation

Une fillette de 3 ans était amenée en consultation pour une masse sus pubienne associée à une pollakiurie. Son état général était bien conservé et ses antécédents n'avaient aucune particularité. La mère était alertée par l'apparition d'une tuméfaction sus-pubienne depuis neuf mois et deux semaines avant la consultation, l'enfant avait présenté une pollakiurie. L'examen cyto-bactériologique des urines demandé alors revenait négatif. A l'examen clinique, une masse sus pubienne indolore, située à un centi-

mètre à gauche de la ligne blanche, de consistance ferme était perçue. Elle faisait 3cm de grand diamètre et adhérerait au plan profond. Le reste de l'examen clinique ne montrait aucune anomalie. L'échographie pelvienne visualisait une masse hétérogène au dépend du muscle grand droit gauche refoulant en partie la vessie faisant évoquer une tumeur musculaire. Le bilan biologique était normal. Une exérèse biopsique chirurgicale sous anesthésie générale était indiquée par un abord transversal sus pubienne gauche en billot sur la tuméfaction. En position sous aponevrotique, une masse tumorale cérébroïde de couleur grisâtre, disséquant le grand droit sans l'envahir, non encapsulée était retrouvée (Figure 1). Une marge macroscopique d'un centimètre en zone présumée saine était respectée lors de l'excision tumorale, allant jusqu'à la graisse pré-vésicale. La tumeur était grossièrement arrondie faisant 30mm de grand axe et pesant 30g. L'examen anatomo-pathologique de la pièce opératoire mettait en évidence une prolifération de cellules rondes correspondant à des cellules adipeuses aux différents stades de maturation évoquant un lipoblastome pré vésical (Figure 2). Les suites opératoires étaient simples et une disparition rapide de la pollakiurie était observée à une semaine de l'intervention. Les suivis clinique et échographique ne montraient aucune récurrence locale après un recul d'un an.

* Auteur correspondant

Adresse e-mail: bolitany@yahoo.fr (MF Ralahy).

¹ Adresse actuelle: Service d'Urologie, CHU-JRA Ampefiloha BP 4150 Antananarivo, Madagascar

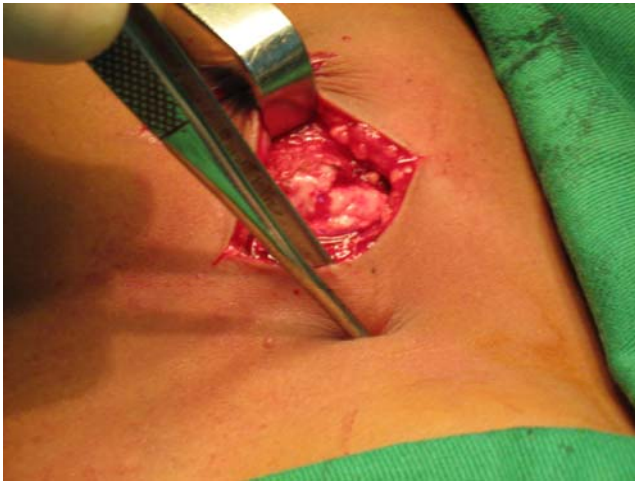


Fig. 1: Tumeur sous aponévrotique cérébroïde de couleur grisâtre, disséquant le grand droit sans l'envahir, non encapsulée

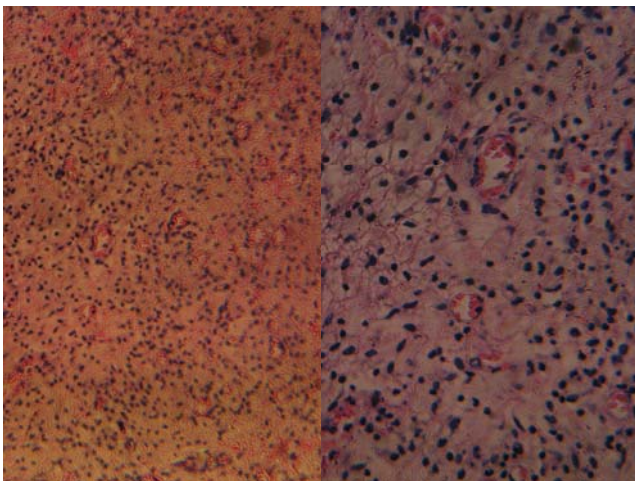


Fig. 2: Cellules rondes adipeuses aux différents stades de maturation évoquant un lipoblastome (Hematoxilline éosine x100 et x400)

Discussion

Le lipoblastome est une tumeur bénigne rare de l'enfant. Il survient avant l'âge de 3 ans et devient plus rare jusqu'à 8 ans [1]. Plus de la moitié des cas (55 %) sont retrouvés chez l'enfant de moins de douze mois et des cas exceptionnels ont été rapportés chez l'adulte [1,2]. La première description découle des travaux de Jaffe en 1926 [3]. Il était alors décrit comme une prolifération rapide de cellules adipeuses immatures dont l'agressivité était intermédiaire entre le liposarcome et le lipome. Le terme lipoblastome n'était accepté qu'en 1958 après les travaux de Vellios [4]. Cette tumeur peut être multifocale d'où l'appellation de lipoblastomatose [5]. Elle est encapsulée ou non, donc infiltrante comme pour notre cas [6]. Il existe une prédominance masculine avec un sex-ratio de 2 [7]. Plus fréquent en occident et en Asie, elle est moins rencontrée en Afrique. Notre cas est probablement le deuxième cas africain rapporté dans la littérature. Si plusieurs cas afro-américains ont été rapportés, Allison a démontré une plus grande fréquence chez les Hispaniques et les américains d'origine asiatique [8]. Les sites de prédilection se situent au niveau des noyaux adipeux blancs

primitifs des nouveaux nés. Arda, dans sa série de 84 cas, avait rapporté 41% des cas au niveau des membres inférieurs, 20% au niveau des membres supérieurs, 15% au niveau du tronc, 14% au niveau de l'abdomen et 11% au niveau du cou et de la tête. Des localisations plus inhabituelles ont été décrites: intra-scrotale simulant une torsion du cordon spermatique [9], pelvienne envahissant la moelle épinière et ayant nécessité une laminectomie [10] ou encore cardiaque [11]. Sur le plan clinique, le lipoblastome est souvent découvert lors de l'exploration d'une masse tumorale et se pose alors le problème de similitude avec d'autres processus tumoraux notamment le rhabdomyosarcome, le liposarcome (qui est rare aux âges de prédilection) et le fibrolipome [8,12]. Il est surtout évoqué pour les masses tumorales des extrémités chez l'enfant. Les localisations atypiques sont de diagnostic plus difficile. Pour notre part, une tumeur musculaire était évoquée dans un premier temps. La nature lipomateuse et infiltrante de la tumeur était de constatation opératoire et l'histologie avait rectifié le diagnostic. A l'échographie, le lipoblastome a une échostructure mixte hypo et pyperéchogène et présente ou non une capsule. Ces constatations échographiques ne présentent aucune spécificité particulière par rapport aux autres tumeurs bénignes [13]. Il en est de même pour l'imagerie par résonance magnétique (IRM) car les tonalités sont identiques à ceux du fibrolipome. L'IRM permet toutefois de délimiter avec précision les dimensions de la tumeur ainsi que ses rapports avec les organes voisins [14]. Le traitement consiste en une exérèse chirurgicale complète évitant ainsi la récurrence. Cette dernière est en effet fréquente pouvant atteindre 25% et allant jusqu'à 70% pour le lipoblastomatose [8]. Un suivi d'au moins 3 ans est recommandé car la majorité des récurrences surviennent durant cette période. Un seul cas de lipoblastome régressant spontanément après simple surveillance a été décrit [15]. L'exérèse chirurgicale doit être non mutilante, et en cas d'infiltration profonde d'un organe noble, l'attitude doit être conservatrice avec un suivi plus long comportant des IRM régulières [8,15].

Conclusion

Cette étude a permis de présenter une localisation pré-vésicale inhabituelle du lipoblastome. La symptomatologie clinique et paraclinique ne présente aucune spécificité et la certitude diagnostique reste anatomo-pathologique. Une exérèse chirurgicale complète permet d'éviter les récurrences qui sont fréquentes. Un suivi rigoureux d'au moins trois années doit être entrepris pour les dépister.

Références

- 1- Jimenez J. Lipoblastoma in infancy and childhood. *J Surg Oncol* 1986; 32: 238-44.
- 2- Sciot R, De Wever I, Debiec-Rychter M. Lipoblastoma in a 23 year-old male: distinction from atypical lipomatous tumor using cytogenetic and fluorescence in-situ hybridization analysis. *Virchows Arch* 2003; 442: 468-71.
- 3- Jaffe R. Recurrent lipomatous tumors of the groin: liposarcoma and lipoma pseudomyxomatodes. *Arch Pathol* 1926; 1: 381-7.
- 4- Vellios F, Baez J, Shumacker H. Lipoblastomatosis: a tumor of fetal fat different from hibernoma: a report of a case, with observations on the embryogenesis of human adipose tissue. *Am J Pathol* 1958; 34: 1149-59.
- 5- Mahour G, Bryan B, Isaacs H. Lipoblastoma and lipoblastomatosis: A report of six cases. *Surgery* 1988; 104: 577-9.
- 6- Hicks J, Dilley A, Patel D, Barrish J, Brandt M. Lipoblastoma and lipoblastomatosis in infancy and childhood: histologic, ultrastructural,

and cytogenetic features, *Ultrastruct. Pathol* 2001; 25: 321–3.

7- Chung E, Enzinger F. Benign lipoblastomatosis. An analysis of 35 cases. *Cancer* 1973; 32: 482-2.

8- Allison L, Speer A, Deborah E, Schofield D, Kasper S. Contemporary management of lipoblastoma. *J Pediatr Surg* 2008; 43:1295–300.

9- Arda I, Senocak M, Gogus S. A case of benign intrascrotal lipoblastoma clinically mimicking testicular torsion and review of the literature. *J Pediatr Surg* 1993; 28: 259-61.

10- Seung-Won C, Shi-Hun S. Intrapelvic lipoblastoma with massive spinal canal invasion. *Childs Nerv Syst* 2007; 23: 581–5.

11- Dishop M, O'Connor W, Abraham S. Primary cardiac lipoblastoma.

Pediatr Dev Pathol 2001; 4: 276-80.

12- Stephanie A, Koplina, Matthew H, Twohig M, Dennis P, Lundb G, et al. Omental lipoblastoma. *Pathol Res Pract* 2008; 204: 277–80.

13- Georgia P, Neil J, Kieran M. Imaging of the unusual pediatric “blastomas”. *Cancer Imag* 2009; 9: 1–11.

14- Kazuhiro K, Atsuyuki Y, Tadaharu O, Geoffrey J, Takeshi M. Magnetic resonance imaging in lipoblastoma: can it be a diagnostic modality? *Asian J Surg* 2006; 29: 198-201.

15- Mognato G, Cecchetto G, Carli M. Is surgical treatment of lipoblastoma always necessary? *J Pediatr Surg* 2000; 35: 1511.