

ADÉNOCARCINOME LIEBERKHUNIEN PRIMITIF DE LA VESSIE CHEZ UNE FEMME DE 40 ANS : À PROPOS D'UN CAS

PRIMARY LIEBERKHUNIAN ADENOCARCINOMA OF THE BLADDER IN A WOMAN 40 YEARS OLD: CASE REPORT

Traore B¹, Dieng M.M², Conde M¹, Diallo A. B³, Niang L⁴.

¹ Unité de chirurgie oncologique de Donka, université de Conakry (Guinée)

² Unité de radiothérapie, Institut du cancer de Dakar (Sénégal)

³ Service d'Urologie, université de Conakry

⁴ Service d'Urologie, Hôpital Général Grand Yoff de Dakar (Sénégal)

Correspondant : Dr Bangaly Traore, *E-mail* : ucodonka@gmail.com

RESUME

Introduction : L'adénocarcinome liberkhunien primitif est une entité anatomoclinique rare des cancers de la vessie qui se développe sur une métaplasie glandulaire des cellules urothéliales de la vessie. Nous présentons un cas d'adénocarcinome liberkhunien primitif de la vessie et discuterons la prise en charge thérapeutique, le pronostic et l'évolution de ce cancer. **Observation** : Une patiente de 40 ans, multipare, a consulté pour hématurie terminale et pollakiurie. Devant la suspicion de tumeur de la vessie en échographie, une cystoscopie réalisée a mis en évidence une tumeur de la paroi antérieure et latérale gauche de la vessie. Les biopsies ont confirmé un adénocarcinome de type liberkhunien. L'imagerie par résonance magnétique a montré une image hypodense de la paroi antérieure vésicale, rehaussée par le contraste avec infiltration du muscle pariétal. La coloscopie était normale. La patiente va bénéficier de 4 cures de chimiothérapie néoadjuvante par FOLFOX6 avec une réponse clinique partielle.

Au moment de l'intervention chirurgicale par laparotomie, il persistait une tumeur occupant le dôme latéral gauche de la vessie et infiltrant le péritoine pariétal et le muscle grand droit gauche. Une cystectomie partielle, emportant le péritoine pariétal, le ligament rond gauche et quelques pastilles du muscle grand droit gauche, est réalisée et complétée par un curage ganglionnaire ilio-obturateur. Dans les suites de l'intervention chirurgicale, la patiente a eu une radiothérapie externe adjuvante à la dose de 46 Gy. La patiente est en vie sans récurrence après un recul de 17 mois. **Conclusion** : L'adénocarcinome de la vessie est de découverte tardive. Le pronostic dépend de la réponse initiale au traitement néoadjuvant et des marges de résection chirurgicale.

Mots clés : adénocarcinome liberkhunien, vessie, traitement néoadjuvant, cystectomie partielle

ABSTRACT

Introduction: *The primitive liberkhunian adenocarcinoma is a rare pathological entity of bladder cancer that develops in glandular metaplasia of urothelial cells of the bladder. We present a case primary liberkhunian adenocarcinoma of the bladder and discuss the therapeutic management, prognosis and the development of this cancer. **Observation:** A patient of 40 years, multipara, consults for terminal hematuria and pollakiuria. To the suspicion of bladder tumor ultrasound, the cystoscopy performed showed a tumor of the anterior and left lateral bladder wall. Biopsies confirmed bladder liberkhunian adenocarcinoma. The magnetic resonance imaging showed a hypodense image of the anterior bladder wall, enhanced by the contrast with infiltration of the parietal muscle. Colonoscopy was normal. The patient will receive 4 cycles of neoadjuvant chemo*

*therapy by FOLFOX6 with a partial clinical response. At the time of surgery by laparotomy, there is still a tumor occupying the left side of the bladder dome and infiltrating the parietal peritoneum and the left rectus muscle. Partial cystectomy, taking the parietal peritoneum, the round ligament of the left and some pellets left rectus muscle, is performed and completed by an ilio-obturator lymphadenectomy. In the aftermath of the surgery, the patient had an adjuvant to external beam radiation dose of 46 Gy. She was alive without recurrence after falling 17 months. **Conclusion:** The bladder adenocarcinoma is late discovery. The prognosis depends on the initial response to neoadjuvant therapy and surgical resection margins.*

Keywords: *liberkhunian adenocarcinoma, bladder, neoadjuvant treatment, partial cystectomy*

INTRODUCTION

L'adénocarcinome liberkhunien primitif est une entité anatomoclinique rare des cancers de la vessie. Sa fréquence ne dépasse pas 2% de l'ensemble des cancers de la vessie [1], à l'exception des zones d'endémie de bilharziose où elle peut atteindre 5 à 10% [2]. Il se développe sur une métaplasie glandulaire des cellules urothéliales de la vessie. Il existe différentes variétés histologiques d'adénocarcinome de la vessie en fonction de l'architecture tumorale : l'adénocarcinome à différenciation intestinale (type lieberkunhien), l'adénocarcinome fait de cellules en bague à chignon ou l'adénocarcinome mucineux [3]. La symptomatologie n'est pas différente de celle des autres cancers de la vessie, mais le diagnostic nécessite d'éliminer une atteinte primitive du cadre colique. Le pronostic est aggravé par la découverte souvent tardive et par l'infiltration de la paroi vésicale au moment du diagnostic.

Nous présentons un cas d'adénocarcinome lieberkhunien primitif de la vessie et discuterons la prise en charge thérapeutique, le pronostic et l'évolution de ce cancer.

OBSERVATION

Mme AB, 40 ans, ménagère, multipare, a consulté dans un cabinet médical en août 2009 pour une hématurie terminale à 3 mois de grossesse. La reprise de l'hématurie malgré la prise d'antibiotique et l'apparition d'une pollakiurie après accouchement ont motivé une consultation au service d'urologie de l'Hôpital Ignace DEEN. Le diagnostic de tumeur de la vessie était alors évoqué par une échographie vésicale.

La patiente a décidé de consulter dans le service d'urologie de l'Hôpital Général Grand Yoff (Sénégal) où une cystoscopie réalisée en mars 2011 permettait de retrouver une tumeur de la paroi antérieure et latérale gauche de la vessie. L'analyse histologique des biopsies a montré des structures papillaires et polypoïdes, formées de cellules cylindriques hautes, aux noyaux stratifiés et aux mitoses ascensionnées, évoquant un carcinome tubulo-papillaire de type lieberkunhien. La tomодensitométrie, puis l'imagerie par résonance magnétique ont confirmé la présence d'une tumeur de la paroi antérieure vésicale de 43mm d'épaisseur, se rehaussant après injection du produit de contraste avec rupture de la musculature (**figure 1**). Le bilan a été complété par une coloscopie qui s'est avérée normale.

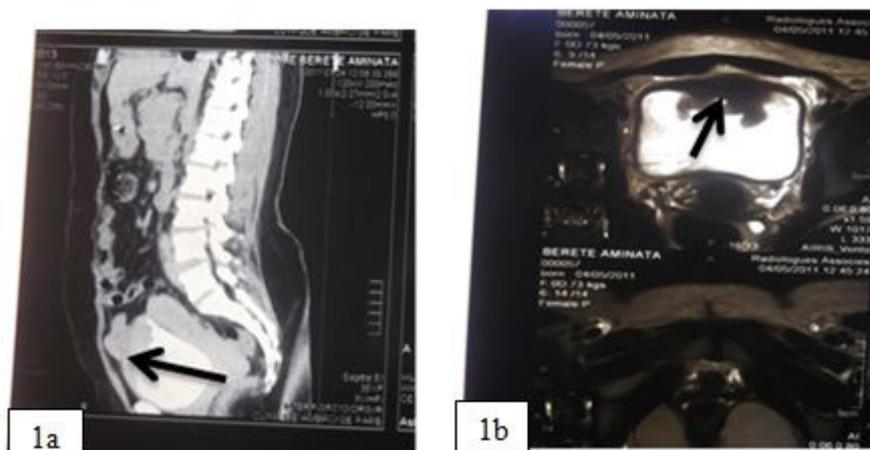


Figure 1: Image hypodense de la paroi antéro-supérieure de la vessie en coupe sagittale au scanner (1a) et frontale à l'IRM (1b)

La patiente a décidé de rentrer en Guinée pour la suite de sa prise en charge. En novembre 2011, au moment de débiter son traitement, il existait une masse centropelvienne, ferme, mobile au toucher vaginal combiné avec le palper abdominal. L'axe principal était oblique, du pubis vers la ligne paramédiane gauche, mesurant 16,5cm. Le col utérin était macroscopiquement sain et les paramètres souples. Il n'y avait pas de signes d'une atteinte de l'ampoule rectale. Le taux d'hémoglobine était à 12,0g/dL et la créatinine à 10,3mg/L. La sérologie pour le virus de l'immunodéficience humaine était négative. L'antigène carcino-embryonnaire et le CA19.9 n'ont pas été dosés.



Figure 2 : Orifice de l'abcès pariétal suite à la première cure de chimiothérapie (FOLFOX4)

La prise en charge initiale a consisté en une chimiothérapie néoadjuvante de type FOLFOX6 (folinate de calcium, 5-fluoro uracile et oxaliplatine).

Ce traitement a été compliqué à la première cure, par un abcès pariétal à streptocoque B ayant nécessité une mise à plat chirurgicale (**figure 2**) et une antibiothérapie par gentamycine. La patiente a reçu au total quatre cures avec une réponse tumorale satisfaisante évaluée à 52%.

La laparotomie réalisée à l'Unité de Chirurgie Oncologique en juin 2012, a révélé la persistance d'une tumeur occupant le dôme latéral gauche de la vessie, faisant 8x8cm de dimension, infiltrant le péritoine pariétal et le muscle grand droit gauche. Le colon gauche, le grêle, l'utérus et ses annexes étaient indemnes. Un curage ganglionnaire ilio-obturateur bilatéral a été réalisé, suivi d'une cystectomie partielle, emportant au large les pastilles du muscle grand droit et le ligament rond gauche (**figure 3**).



Figure 3 : Pièce de cystectomie partielle

L'uretère gauche a été disséqué et protégé avant de faire la cystorraphie extramuqueuse en un plan et complétée par un surjet sur le péritoine. Les suites opératoires ont été simples, marquées uniquement par une pollakiurie rapidement résolutive.

L'examen histologique de la pièce opératoire a confirmé un adénocarcinome vésical à différenciation intestinale, infiltrant toute la paroi et la graisse périvésicale avec la présence d'embolies périvasculaire et d'engainement nerveux. Les marges de résection étaient saines. Il n'y avait pas de ganglions envahis (4N-/4).

Une radiothérapie adjuvante, délivrant 46Gy par des champs antéro-postérieurs et latéraux a été aussi délivrée à l'Institut du cancer de Dakar. La patiente a été revue pour surveillance clinique et échographique chaque trois mois ; elle est en vie sans récurrence après un recul de 17mois.

DISCUSSION

L'adénocarcinome primitif de la vessie est le troisième cancer de la vessie après les cancers d'origine urothéliales et les carcinomes épidermoïdes. Diao et al [4] ont rapporté une série de 4 cas sur 125 cancers de la vessie au Sénégal, soit une fréquence de 3,2%. Le cas que nous rapportons est à notre connaissance, le premier en Guinée. Il s'agit d'une femme de 40 ans alors que dans la littérature, une prédominance masculine est notée, avec un âge compris entre 28 et 82 ans [5].

La tumeur se caractérise par son agressivité et par l'infiltration de la paroi vésicale. La localisation sur le dôme vésical est retrouvée dans 2/3 des cas, développée à partir d'une métaplasie de la muqueuse urothéliale [5].

Aucun signe n'est spécifique de l'adénocarcinome lieberkunnien de la vessie. L'hématurie est le principal symptôme, retrouvé dans 65 à 87% des cas [5].

Le caractère primitif vésical peut se discuter avec une atteinte secondaire d'origine colique. L'immunomarquage des fragments de biopsie à la recherche de l'expression de la β -caténine peut aider à faire la différence entre un adénocarcinome primitif vésical ou secondaire d'un adénocarcinome d'origine colique. Dans le cas présent, en l'absence d'im-

munohistochimie, le diagnostic d'adénocarcinome primitif de la vessie a été retenu sur les raisons suivantes : absence de signe digestif dans l'histoire clinique, coloscopie normale et l'architecture cellulaire et tissulaire retrouvée à l'examen histologique. Le faible nombre de cas rapportés dans le monde ne permet d'avoir un traitement de référence. Notre patiente a bénéficié d'une chimiothérapie néoadjuvante à base de FOLFOX, suivie d'une cystectomie partielle et de radiothérapie. Pour les tumeurs non résécables, quelques études ont rapporté un taux de réponse élevé avec l'utilisation de 5FU en intra-artérielle. Une seule étude a été trouvée dans la littérature, utilisant le protocole FOLFOX avec une réponse complète [6]. Le choix du traitement chirurgical se discute entre la cystectomie radicale et partielle, ces deux techniques offrant une survie à 5 ans de 33,3% et 20,0% respectivement [7]. Dandekar et al [8] n'ont pas trouvé de différence significative entre la cystectomie partielle et la cystectomie radicale. Dans le cas présent, l'indication de cystectomie partielle a été retenue en raison de la réponse initiale obtenue après la chimiothérapie, de la taille de la tumeur, du nombre de foyer (unique), de la localisation anatomique (dôme vésicale), de la possibilité d'obtenir une marge de résection saine et de la gestion difficile d'une stomie dans notre contexte. Cependant, pour el-Mekresh et al [9], le risque de récurrence après chirurgie partielle est trois fois plus élevé qu'après chirurgie radicale. L'adénocarcinome vésical est classiquement considéré comme une tumeur radiorésistante [5]. Dans certains cas, le risque élevé de récurrence après chirurgie partielle pourrait être diminué par la radiothérapie adjuvante, comme dans l'étude de Zaghoul et al [10] où la survie est de 58%. Notre patiente est en vie après un recul de 15 mois sans récurrence.

CONCLUSION

L'adénocarcinome de la vessie est une tumeur agressive et de diagnostic tardif. La chimiothérapie néoadjuvante, suivie de cystectomie partielle et de radiothérapie adjuvante pourrait être une option thérapeutique.

REFERENCES

1. **ABOL-ENEIN H, KAVA BR, CARMACK AJ.** Nonurothelial cancer of the bladder. *Urology*. 2007;69:93-104.
2. **ZAGHLOUL MS.** Bladder cancer and schistosomiasis. *J Egypt Natl Canc Inst.* 2012 ;24(4):151-9.
3. **KAPUR P, LOTAN Y, KING E, KABBANI W, MITRA A P., MOSBAH A, ABOL-ENEIN H, GHONEIM M, & YOUSSEF R F.** - Primary Adenocarcinoma of the Urinary Bladder Value of Cell Cycle Biomarkers *Am J Clin Pathol* 2011;135:822-830
4. **DIAO B, AMATH T, FALL B, FALL PA, DIÉMÉ MJ, STEEVY NN, NDOYE AK, BA M, MENDES V, DIAGNE BA.** Les Cancers de la vessie au Sénégal : particularités épidémiologiques, cliniques et histologiques. *Prog Urol.* 2008 Jul;18(7):445-8.
5. **ZERBIB M, BOUCHOT O.** Les Traitements des tumeurs rares de la vessie. Les adénocarcinomes de vessie. *Progrès en Urologie* (2002), 12, N°5, 1121-1127
6. **TATLI AM, UYSAL M, GOKSU SS, ARSLAN D, GUNDUZ S, OZDOGAN M, COSKUN HS, BOZCUK H, SAVAS B.** Primary mucinous adenocarcinoma of the bladder: complete response with FOL-FOX-4 regimen. *Med Oncol.* 2012;29(3):1935-7.
7. **SHOU J, MA J, XU B.** Adenocarcinoma of the urinary bladder: a report of 27 cases. *Zhonghua Zhong Liu Za Zhi.* 1999;21(6):461-3.
8. **DANDEKAR NP, DALAL AV, TONGAONKAR HB, KAMAT MR.** Adenocarcinoma of bladder. *Eur J Surg Oncol.* 1997;23(2):157-60.
9. **EL-MEKRESH MM, EL-BAZ MA, ABOL-ENEIN H, GHONEIM MA.** Primary adenocarcinoma of the urinary bladder: a report of 185 cases. *Br J Urol.* 1998;82(2):206-12.
10. **ZAGHLOUL MS, NOUH A, NAZMY M, RAMZY S, ZAGHLOUL AS, SEDIRA MA, KHALIL E.** Long-term results of primary adenocarcinoma of the urinary bladder: a report on 192 patients. *Urol Oncol.* 2006;24(1):13-20.