



Royaume du Maroc المملكة المغربية

كلية الطب والصيدلة
FACULTÉ DE MÉDECINE ET DE PHARMACIE

Année 2021

Thèse N° 110/21

LA CHIRURGIE DES TUMEURS PRIMITIVES DE LA TRACHÉE DE TYPE GLANDE SALIVAIRE (à propos de 07 cas)

THESE

PRESENTÉE ET SOUTENUE PUBLIQUEMENT LE 05/03/2021

PAR

Mme.HOKOUMI Houda

Née le 26 Janvier 1996 à Fès

POUR L'OBTENTION DU DOCTORAT EN MÉDECINE

MOTS-CLÉS :

**Tumeur de la trachée - Résection anastomose - Glande salivaire
Carcinome adénoïde kystique - Bronchoscopie - TDM thoracique**

JURY

M. SMAHI MOHAMED	PRÉSIDENT ET RAPPORTEUR
Professeur de Chirurgie thoracique	
M. SERRAJ MOUNIA	JUGES
Professeur de Pneumo-phtisiologie	
M. OUADNOUNI YASSINE	
Professeur de Chirurgie thoracique	
M. ALAMI BADRE EDDINE	MEMBRE ASSOCIE
Professeur agrégé de Radiologie	
M. LAKRANBI MAROUANE	
Professeur Assistant de Chirurgie thoracique	

PLAN

ABREVIATIONS	6
INTRODUCTION	7
MATERIEL ET METHODES	10
I. Type d'étude	11
II. Critères d'inclusion :	11
III. Critères d'exclusion :	11
IV. Mode de recueil des données	11
RESULTATS	12
I. Données épidémiologiques	13
1. Sexe	13
2. Age	13
II. Antécédents	14
1. Toxiques	14
2. Médico-Chirurgicaux	14
III. Profil clinique	15
1. Délai de consultation	15
2. Signes fonctionnels	15
3. Examen clinique	16
IV. Bilan paraclinique	17
1. Radiographie du thorax	17
2. Tomodensitométrie thoracique	17
3. Imagerie par résonnance magnétique	19
4. Endoscopie trachéale	19
V. Prise en charge thérapeutique	21
1. Préopératoire	21
2. Temps opératoire	21
2.1 Anesthésie	21

2.2 Type de ventilation.....	22
2.3 Voies d'abord.....	23
2.4. Chirurgie.....	24
2.4.1 Technique chirurgicale	24
2.4.2 Etendue de la résection	26
2.4.3 Technique de mobilisation	26
2.4.4 Gestes chirurgicaux associés	26
VI. Résultats anatomo-pathologiques	28
VII. Suites opératoires	29
1. Extubation	29
2. Séjour en réanimation	29
3. Séjour post-opératoire au service.....	29
4. Contrôle endoscopique	30
5. Traitements adjuvants	31
VIII. DONNEES EVOLUTIVES	31
1. Evolution à court terme	31
2. Evolution à long terme	31
DISCUSSION	34
I. Fréquence et incidence.....	35
II. Facteurs prédisposants.....	37
1. Age	37
2. Sexe	39
3. Tabagisme et alcoolisme	39
III. Anatomie-pathologie	40
1. Classification OMS des tumeurs de la trachée	40
2. Description histologique des sous types histologiques.....	42
2.1 Carcinome adénoïde kystique.....	42

2.2 Carcinome muco-épidermoïde	45
2.3 Carcinome épithélial myoépithélial	46
2.4 Adénome pléomorphe	47
IV. Clinique	50
1. Signes cliniques	50
2. Délai diagnostic	52
V. Paraclinique	53
1. Radiographie thoracique	53
2. Tomodensitométrie.....	55
3. Endoscopie trachéale	61
3.1. Taille de la tumeur	66
3.2. Localisation de la tumeur	67
4. Explorations Fonctionnelles Respiratoires	67
5. Imagerie par résonnance magnétique	69
VI. Prise en charge thérapeutique	71
1. Evaluation pré-anesthésique	71
2. Prise en charge opératoire.....	71
2.1. La chirurgie	71
2.1.1 Installation du malade	72
2.1.2 Choix de la technique de ventilation	73
2.1.3 Voies d'abord	74
2.1.4 Technique chirurgicale : La résection-anastomose	75
2.1.5 Temps chirurgicaux	77
2.1.6 Technique de mobilisation.....	80
2.1.7 Mesures post-opératoires.....	82
2.1.8 Problème particuliers des résections de carène	82
2.1.9 Fin d'intervention	87

2.1.9.1 Etanchéité	87
2.1.9.2 Couverture	87
2.1.9.3 Drainage.....	88
2.1.10 Gestes chirurgicaux associés	89
2.2 Endoscopie interventionnelle	90
VII. Prise en charge post-opératoire	91
1. Extubation	91
2. Traitement médical	91
VIII. Suites opératoires	91
1. Suites simples	91
2. Suites compliquées	92
2.1. Lâchage précoce des sutures :	92
2.2. Sténose cicatricielle	92
2.3. Hémorragies par ulcération	92
IX. Radiothérapie et chimiothérapie	93
1. Radiothérapie	93
2. Chimiothérapie.....	95
X. Mortalité et Pronostic	97
CONCLUSION	100
RESUME	102
BIBLIOGRAPHIE	108

ABREVIATIONS

ADP	: Adénopathie
AEG	: Altération de l'état général
AP	: adénome pléomorphe
ATCD	: Antécédents
BSD	: Bronche Souche Droite
BSG	: Bronche Souche Gauche
CAK	: Carcinome Adénoïde Kystique
CEM	: Carcinome épithélial myoépithélial
CME	: Carcinome muco-épidermoïde
CV	: Cordes Vocales
ECG	: Electrocardiogramme
FC	: Fréquence cardiaque
FR	: Fréquence Respiratoire
IRM	: Imagerie par résonnance magnétique
RAT	: Résection anastomose trachéale
RC	: Rythme cardiaque
RCP	: Réunion de Concertation Pluridisciplinaire
TA	: Tension artérielle
TABC	: tronc artériel brachio-céphalique
TDM CAP	: Tomodensitométrie cérébrale et abdomino-pelvienne
TDM	: Tomodensitométrie
VNI	: Ventilation Non Invasive

INTRODUCTION

Les tumeurs primitives de la trachée sont très rares. Bien que l'incidence de ces lésions ne soit pas bien établie, plusieurs rapports ont estimé qu'elles représentent environ 0,1 à 0,4 % de tous les nouveaux cancers diagnostiqués, soit 2,6 nouveaux cas pour 1 000 000 de personnes par année [1]. La faible incidence de ces tumeurs crée un faible indice de suspicion, ce qui rend difficile le diagnostic initial et le traitement précoce et peut affecter négativement le pronostic des patients atteints de ces cancers.

Ces tumeurs peuvent se développer à partir de l'épithélium respiratoire, du tissu mésenchymateux ou des glandes salivaires localisées dans la trachée. Elles ont une répartition dichotomique en fonction de l'âge, de sorte que les formes malignes sont plus fréquentes chez l'adulte alors que chez l'enfant les tumeurs bénignes sont beaucoup plus souvent retrouvées.

Lorsqu'elles se développent à partir des glandes salivaires, elles conservent les mêmes types histologiques que ceux des glandes salivaires principales. Selon la classification OMS 2015, elles sont essentiellement représentées par des entités malignes comme le carcinome adénoïde kystique qui est le type histologique le plus fréquent, le carcinome muco-épidermoïde et le carcinome épithélial/myoépithélial. Les tumeurs bénignes sont représentées par l'adénome pléomorphe.

Leur description dans la littérature est en grande partie limitée à quelques séries de cas et à des rapports de cas. Une meilleure connaissance de ces tumeurs est essentielle pour un diagnostic précis et une gestion clinique adéquate.

Le travail présenté dans cette thèse est une étude rétrospective portant sur 7 patients admis pour tumeur de la trachée de type glande salivaire au service de Chirurgie Thoracique du CHU Hassan II de Fès, sur une période de 10 ans allant de 2010 à 2020.

L'objectif étant de rapporter l'expérience du service de chirurgie thoracique dans la prise en charge des tumeurs primitives de la trachée de type glande salivaire et de comparer les résultats avec la littérature.

MATERIEL

ET METHODES

I. Type et période d'étude :

Nous avons réalisé une étude rétrospective portant sur un total de 7 patients opérés pour tumeur primitive de la trachée de type glande salivaire au service de chirurgie thoracique à CHU HASSAN II Fès, durant une période étalée sur 10 ans, entre décembre 2010 et décembre 2020.

II. Critères d'inclusion :

Un diagnostic histologique de certitude de tumeurs primitives de la trachée de type glande salivaire.

III. Critères d'exclusion :

De notre étude ont été exclus :

- Les malades opérés pour des envahissements de la trachée par contiguïté.
- Les malades opérés pour des tumeurs primitives de la trachée de type histologique autre que le type glande salivaire.
- Les malades opérés pour des lésions trachéales non tumorales.

IV. Mode de recueil des données :

Les données suivantes ont été consignées chez tous les patients inclus dans l'étude :

- Profil épidémiologique : Sexe, âge
- Les antécédents pathologiques.
- Les circonstances de découverte.
- L'examen clinique
- Les données endoscopiques
- Les données des examens d'imagerie
- Les modalités du traitement, l'étude histologique ainsi que l'évolution.

RESULTATS

I. Profil épidémiologique

1. Fréquence :

Pendant notre période d'étude, étalée sur 10 ans, 7 cas de tumeurs primitives de la trachée de type glande salivaire ont été recensés.

2. Sexe

Dans notre série 6 patients sur 7 étaient de sexe masculin avec un sex-ratio de 1,16.

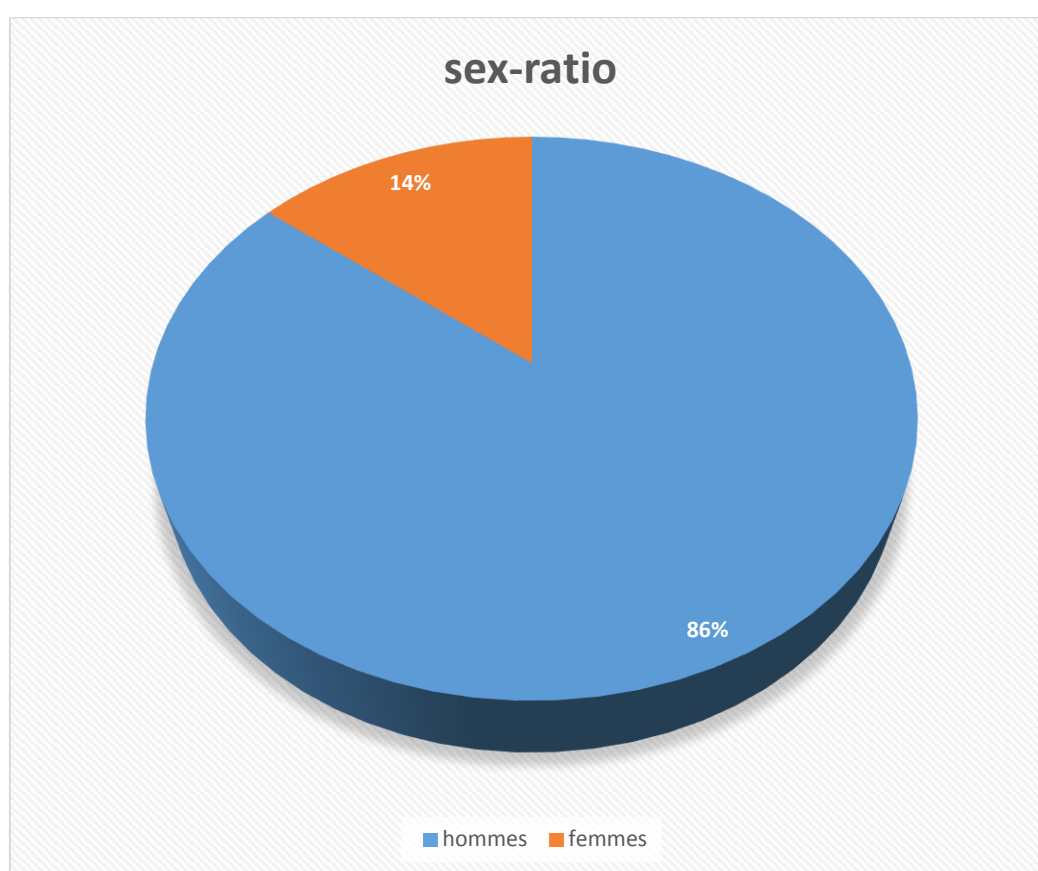


Figure 1 : Répartition des malades selon le sexe

3. Age

L'âge moyen au diagnostic de nos patients est de 43.8 ans avec des extrêmes de 21 ans et de 56 ans, la 4ème décade de la vie était la plus touchée.

II. Antécédents

1. Toxiques :

Nous avons retrouvé dans notre étude :

- Deux patients tabagiques chroniques.
- Un patient éthylique occasionnel.
- 5 patients sans antécédent particulier.

2. Médico-Chirurgicaux :

Une patiente avait une tuberculose pulmonaire. Les autres patients n'avaient aucun antécédent médical ou chirurgical.

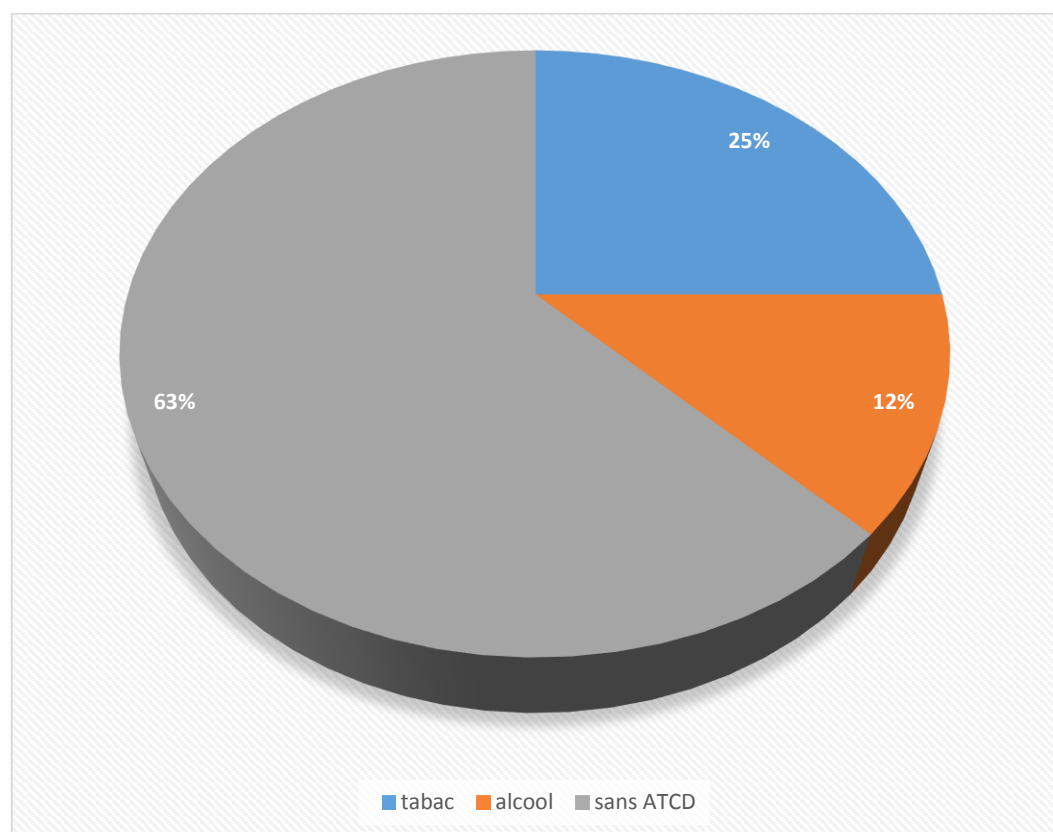


Figure 2 : Répartition selon les antécédents

III. PROFIL CLINIQUE :

1. Délai de consultation :

Les différents délais entre le début de la symptomatologie et la consultation variaient entre 3 mois et 2 ans, avec un délai moyen de 9mois.

Tableau 1: Répartition des patients selon le délai de prise en charge

Durée de la symptomatologie	Nombre de cas	pourcentage
3 mois	1	14 %
6 mois	3	43 %
9 mois	2	29 %
2 ans	1	14 %
total	7	100 %

2. Signes fonctionnels :

Dans notre étude la dyspnée et le wheezing étaient les principaux symptômes :

- 6 patients présentaient une dyspnée chronique d'aggravation progressive dont 2 patients présentaient une dyspnée stade III, évoluant depuis 9 mois chez le premier, et depuis 6 mois chez le second (cas 2 et 6)
- 1 patient présentait une dyspnée stade I, inspiratoire, depuis 9 mois (cas 5)
- 3 patients présentaient une dyspnée stade II, inspiratoire, évoluant respectivement depuis 6mois chez 2 patients et 3 mois chez le troisième (cas 3, 4 et 7)
- 5 patients présentaient un wheezing d'apparition récente
- 3 patients présentaient une toux chronique (cas 3,4, 6)
- une hémoptysie isolée évoluant depuis 2 ans a été retrouvé chez un patient (cas 1)

- 1 patient avait présenté une détresse respiratoire à l'admission (cas 6)
- D'autres symptômes notamment une douleur thoracique droite et une fièvre ont accompagné la dyspnée (cas 7).

Dans notre étude un patient a été traité à tort pour asthme pendant une durée de 6 mois, sans amélioration, avant la découverte de la tumeur (cas 6). Un autre patient avait une symptomatologie évoquant une infection respiratoire pour laquelle il a été traité plusieurs fois avant le diagnostic de la tumeur (cas 7).

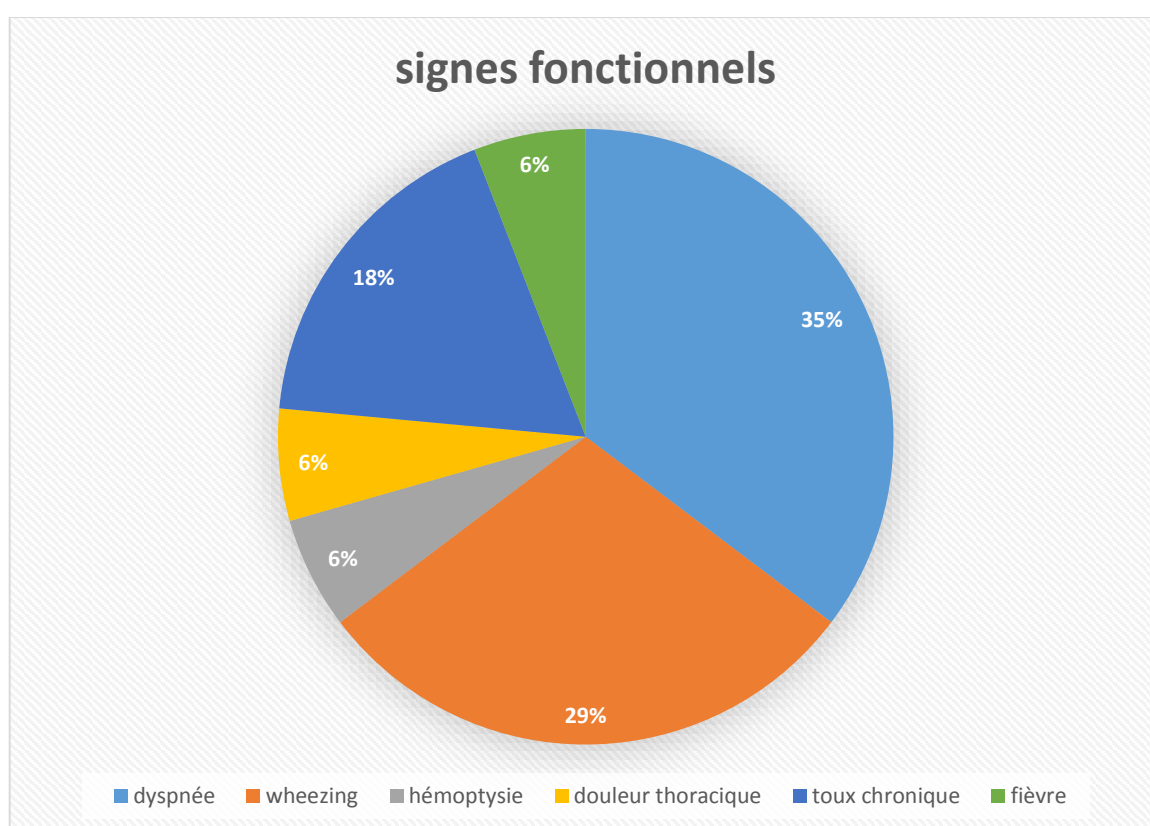


Figure 3 : Répartition des malades selon les signes fonctionnels

3. Examen clinique

Tous les patients étaient en bon état général avec un indice OMS à 0 et un examen clinique sans particularité à l'exception d'un patient chez qui l'examen physique a révélé une détresse respiratoire avec un stridor inspiratoire (cas 6).

IV –BILAN PARACLINIQUE :

1. Radiographie du thorax :

En général, la radiographie thoracique présente une faible sensibilité pour détecter les tumeurs de la trachée.

- Dans notre série, tous les patients ont bénéficié d'une radiographie thoracique. Dans 5 cas la radio n'a pas pu déceler d'anomalie (cas 1, 2, 3, 4,6).
- Chez un patient la radio avait montré des séquelles de tuberculose (cas 5).
- Chez un autre patient la radio était en faveur d'un processus médiastino-hilaire englobant la bronche souche droite (cas 7).

Tableau 2 : Aspect radiographique des tumeurs trachéales

Malade	Type de la tumeur	Radiographie thoracique
1	Carcinome muco-épidermoïde de bas grade	Aspect normal
2	CAK	Aspect normal
3	CAK	Aspect normal
4	Adénome pléomorphe	Aspect normal
5	CAK	Séquelles de tuberculose pulmonaire
6	Adénome pléomorphe	Aspect normal
7	CAK	Processus médiastino-hilaire englobant la BSD

2. Tomodensitométrie thoracique :

Tous nos patients ont bénéficié d'une TDM thoracique injectée, avec des coupes sagittales, coronales, axiales et des images de reconstructions, qui a été faite en premier lieu avant la fibroscopie.

Les caractères scannographiques, notamment le siège par rapport au cordes vocales et la carène, les mensurations de la tumeur, le degré de l'obstruction de la lumière trachéale et l'existence d'une éventuelle extension locorégionale ou à distance, peuvent être élucidés dans le tableau suivant :

Tableau 3 : Aspect scannographique des tumeurs trachéales

Malade	Type de la tumeur	Caractère scannographique
1	Carcinome muco-épidermoïde de bas grade	Tumeur précarinaire droite, du 1/3 inférieur de la trachée, au niveau de la paroi antérieure Faisant corps avec la crosse de l'azygos Rehaussée au PDC
2	CAK	Tumeur endotrachéale de la paroi postéro-latérale gauche de la trachée, au niveau du 1/3 moyen, en regard de D2- D3, rehaussée au PDC Etendue sur 52 mm, sans extension locorégionale
3	CAK	Tumeur du 1/3 moyen de la trachée de 4 cm obstruant 90% de la lumière trachéale, sans extension locorégionale
4	Adénome pléomorphe	Tumeur du 1/3 inférieur de la trachée, sur la paroi latéro-postérieure droite, pédiculée étendue sur 17 mm obstruant 85 % de la lumière trachéale, se situe à 6 mm de la carène Pas d'ADP médiastinales
5	CAK	Tumeur du 1/3 inférieur de la trachée à base d'implantation large, sans extension exo trachéale, réduisant les $\frac{3}{4}$ de la lumière trachéale
6	Adénome pléomorphe	Tumeur endotrachéale bien limitée du 1/3 inférieur de la trachée juste au-dessus de la carène, mesurant 1.5 cm × 1.2 cm × 1.8 cm Pédiculée, obstruant la quasi-totalité de la lumière trachéale avec rehaussement modéré et homogène au PDC
7	CAK	Processus hilaire droit englobant totalement la BSD, de contours irréguliers, envahissant l'artère pulmonaire droite, à moins de 1 cm de la carène, faiblement rehaussé au PDC Présence d'une atélectasie plane basale droite

3. Imagerie par résonnance magnétique thoracique :

L'IRM thoracique a été réalisée chez deux patients de notre série, le résultat était en faveur d'un processus tumoral hilaire droit localement avancé, classé T4N0M0 avec envahissement de l'artère pulmonaire droite (cas 7); tumeur précarinaire droite sans envahissement vasculaire (cas 1).

4. Endoscopie trachéale :

Dans notre série, 5 patients ont bénéficié d'une endoscopie bronchique. Elle n'a pas été réalisée chez 2 patients car la tumeur était de petite taille, jugée résecable d'emblée au scanner thoracique (cas 4,6).

4-1. Aspect fibroscopique :

Les différents aspects endoscopiques peuvent être résumés dans le tableau ci-dessous :

Tableau 4 : Aspect fibroscopique des tumeurs trachéales

Malade	Type de la tumeur	Aspect fibroscopique
1	Carcinome muco-épidermoïde de bas grade	Lésion sous muqueuse, soulevant la muqueuse, qui est inflammée et saignant au moindre contact, développée au dépend de la trachée basse et le départ de la bronche souche droite
2	CAK	Bourgeon lisse tumoral faisant corps avec la trachée, mesurant 2 cm
3	CAK	Bourgeon tumoral, saignant au contact
4	Adénome pléomorphe	Non faite : tumeur de petite taille jugée résecable d'emblée au scanner
5	CAK	Bourgeon au niveau de la trachée à environ 2,5 cm de la carène, obstruant de 85% la lumière bronchique
6	Adénome pléomorphe	Non faite : tumeur de petite taille jugée résecable d'emblée au scanner
7	CAK	Bourgeon lisse obstruant totalement la BSD à environ 1,5cm de la carène

Les résultats des biopsies étaient comme suit :

- Dans le premier, le troisième et le cinquième cas le résultat anatomopathologique était non concluant.
- Dans le deuxième cas le résultat anatomopathologique n'avait pas montré de lésion tumorale.
- Dans le septième cas le résultat anatomopathologique était en faveur d'un CAK.

4-2. Siège des tumeurs :

Le siège des tumeurs par rapport à la carène et aux cordes vocales peut être illustré dans le tableau ci-dessous :

Tableau 5 : le siège des tumeurs par rapport aux CV et la carène

malade	Type de la tumeur	Distance des CV et de la carène
1	Carcinome muco-épidermoïde de bas grade	Flanc droit de la trachée basse et départ de la BSD
2	CAK	4 cm des CV
3	CAK	4 cm des CV et à 3,5 cm de la carène
4	Adénome pléomorphe	6 mm de la carène
5	CAK	2.5 cm de la carène
6	Adénome pléomorphe	Juste au-dessus de la carène
7	CAK	Moins de 1 cm de la carène

V. Prise en charge thérapeutique :

1. Préopératoire :

➤ Hospitalisation

Le délai de séjour en hospitalier avant la chirurgie est en moyenne de 3 jours, avec un minimum d'un jour et un maximum de 6 jours, délai durant lequel les patients ont bénéficié d'une antibiothérapie et d'une kinésithérapie respiratoire afin de les préparer au geste chirurgical.

➤ Examen clinique

➤ Tous nos patients ont bénéficié d'un examen clinique comprenant un examen ORL, cardio-pulmonaire et général, qui était sans particularité.

➤ Explorations fonctionnelles respiratoires.

➤ Dans notre série, deux patients ont bénéficié d'une spirométrie pré-opératoire qui a montré chez :

- Le premier patient une courbe inspiratoire et expiratoire aplatie, témoignant d'une obstruction fixée intra-trachéale (cas 1)
- Le second patient un trouble ventilatoire d'allure restrictif (cas 7)

Tous nos patients ont bénéficié d'une visite pré-anesthésique avec un bilan classique comprenant la biologie standard (NFS, CRP, Ionogramme sanguin, TP), un ECG et une radiographie thoracique.

2. Temps opératoire:

2.1 Anesthésie

Tous les patients de notre série ont bénéficié d'un monitoring standard au bloc opératoire: ECG, pression artérielle non invasive, oxymétrie du pouls, capnographie et mise en place d'une sonde gastrique et d'une sonde urinaire.

Tous les patients ont bénéficié en premier lieu d'une narco-neuroleptanalgie de

courte durée d'action permettant un contrôle facile au niveau de l'anesthésie et un réveil généralement rapide, et ce pour avoir le temps d'intervenir en cas de désaturation lors de l'intubation. Dans notre série, aucun patient n'a présenté de désaturation sévère au cours de cette étape.

Après la mise en place de la sonde d'intubation et gonflement du ballonnet, le patient est mis sous anesthésie profonde pour permettre le geste chirurgical.

Il faut noter que dans notre série, 2 patients ont bénéficié d'une péridurale thoracique lors de l'abord par thoracotomie postéro-latérale (cas 1 et 4).

Une intubation sous contrôle fibroscopique a été faite chez un patient (cas 3).

2.2 Type de ventilation :

- Toutes les interventions ont eu lieu sous anesthésie générale, avec intubation trachéale.
- Pendant le temps de résection trachéale et d'anastomose, la ventilation du bout trachéal inférieur était assurée par l'intubation du bout inférieur à travers le champ opératoire chez l'ensemble de nos malades, sauf pour un patient ayant un CAK de la BSD étendu à la carène qui a bénéficié d'une CEC pour réaliser une anastomose trachée-BSG après pneumonectomie droite (cas 7).

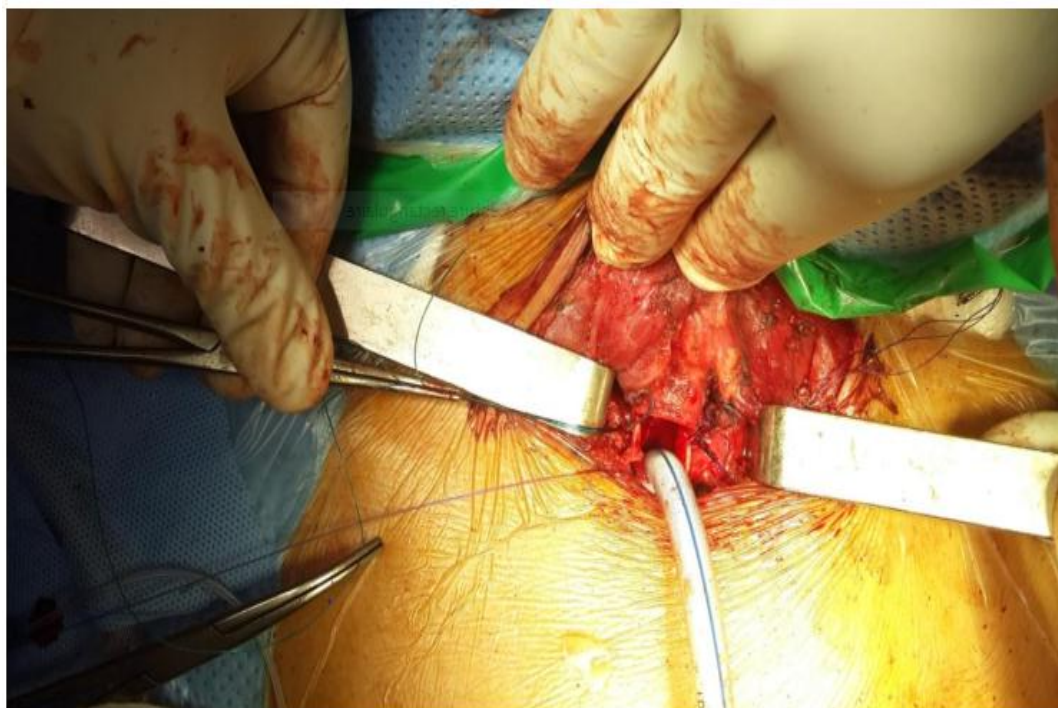


Figure 4 [23] : Intubation à travers le champ opératoire du bout inférieur de la trachée (CAK)

2.3 Voies d'abord :

Le tableau ci-dessous résume les voies d'abord chez nos patients :

Tableau 6 : les voies d'abord chez nos patients

malade	Voie d'abord
1	Thoracotomie conservatrice postéro latérale droite passant par le lit de la cinquième côte dépériostée
2	Cervicotomie
3	Cervicotomie + manubriotomie
4	Thoracotomie postérolatérale droite sans conservation musculaire passant par le lit de la sixième côte dépériostée
5	Thoracotomie postérolatérale droite avec conservation du grand dorsal passant par le lit de la sixième côte dépériostée
6	Thoracotomie postérolatérale droite
7	stérnotomie totale verticale

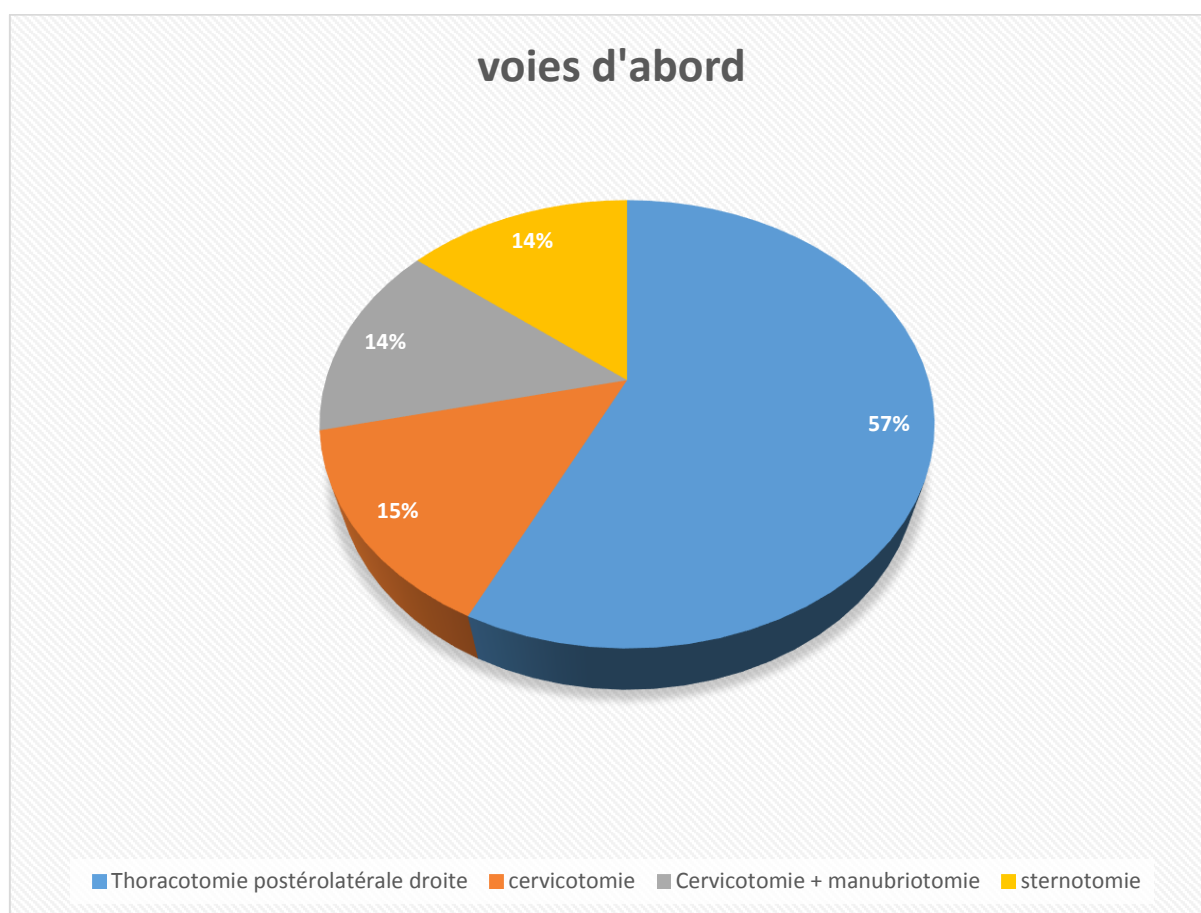


Figure 5: Les voies d'abord utilisées chez nos patients

2.4 Chirurgie :

2.4.1 Technique chirurgicale :

Dans notre série, les techniques chirurgicales ont été comme suit :

- 5 patients ont bénéficié d'une résection-anastomose trachéale (cas 2, 3, 4, 5, 6) (schéma 1).
- 1 patient a bénéficié d'une résection latérale et plastie en V sur la carène (cas1) (schéma 2).
- 1 patient a bénéficié d'une pneumonectomie droite élargie à la carène avec anastomose trachée-BSG sous CEC (schéma 3).

Les techniques chirurgicales utilisées chez nos patients sont schématisées dans les images suivantes :

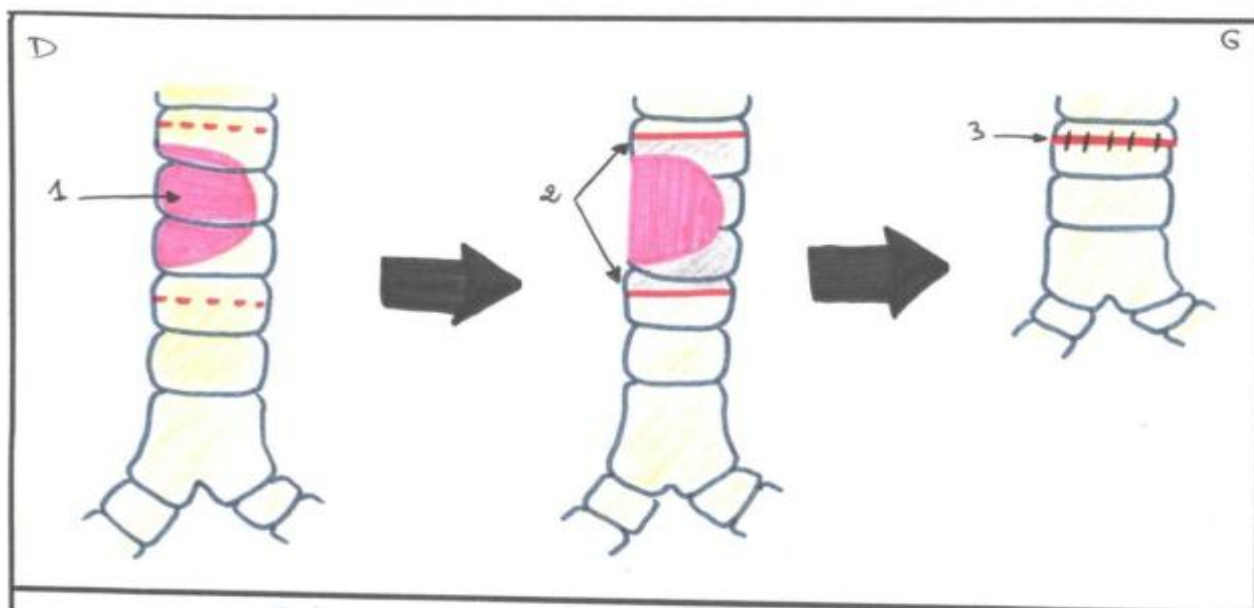


Schéma 1: Technique de la résection anastomose trachéale

1. Tumeur au niveau de la trachée
2. Limites de la résection supérieure et inférieure au niveau de la trachée
3. Anastomose trachéo-trachéale

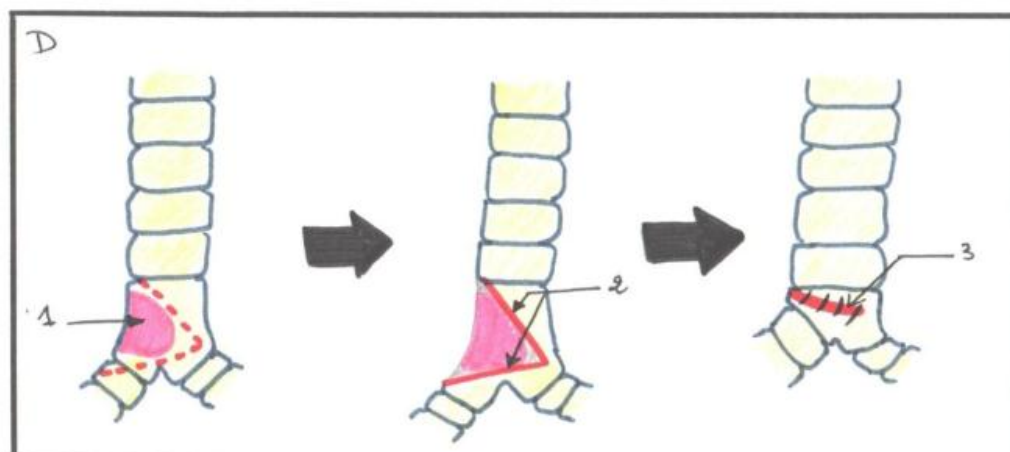


Schéma 2 : Résection avec plastie en V élargie à la carène

1. Tumeur à l'entrée de la BSD sur la partie postéro-latérale droite de la carène
2. Limites de résection en « V » latéralement sur la trachée inférieure en emportant une partie de la carène
3. Anastomose des berges d'exérèse

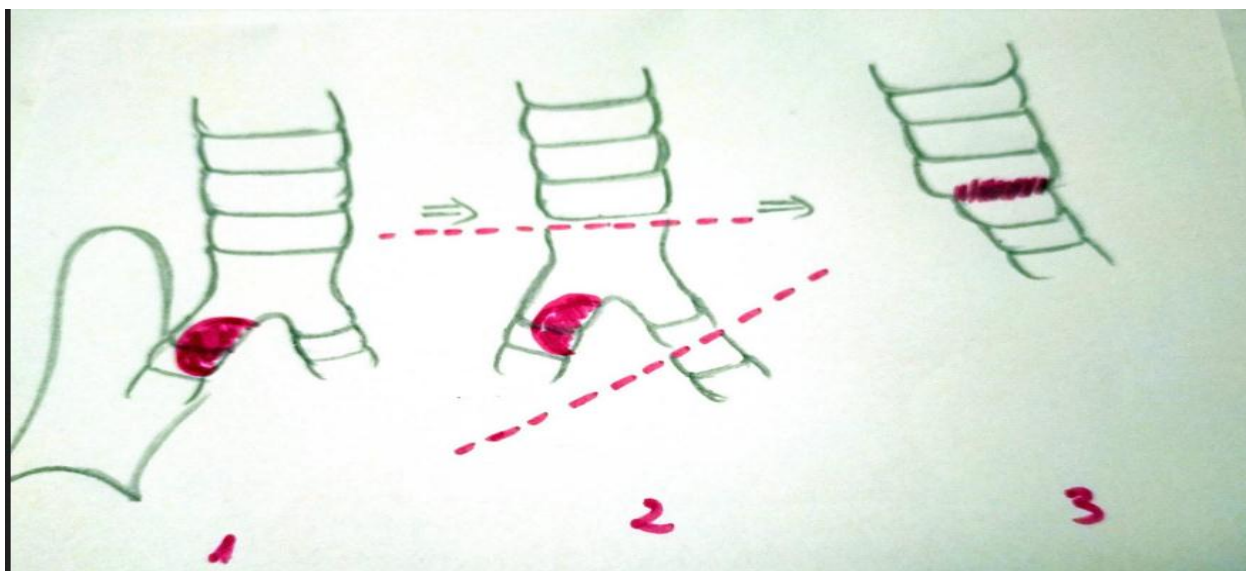


Schéma 3 : pneumonectomie droite élargie à la carène avec anastomose trachée- BSG

1. Tumeur au niveau de la BSD à moins d'un cm de la carène
2. Pneumonectomie droite élargie à la carène
3. Anastomose trachée- BSG

2.4.2 Etendue de la résection :

L'étendu moyen de la portion réséquée chez nos malades est de 3 cm avec des extrêmes de 2.5 cm et de 4.5 cm.

2.4.3 Les techniques de mobilisation :

Les techniques de mobilisation utilisées chez nos patients étaient la dissection et la libération de la trachée permettant de réaliser l'anastomose sans tension.

2.4.4 Gestes chirurgicaux associés :

Dans notre série :

- De nombreux tissus de voisinage ont été utilisés pour protéger les anastomoses trachéales notamment le thymus et les lobes thyroïdiens chez 2 patients, le tissu thymique chez 1 patient, un lambeau pleural chez 1 patient.

- 01 patient a bénéficié d'un curage de ganglions latéro-trachéaux droits et gauches à proximité de la tumeur qui se sont révélés négatifs à l'examen anatomopathologique (cas2).
- 01 patient a bénéficié d'une pneumonectomie droite élargie à la carène emportant les ganglions sous carinaires envahis par contiguité, prélevés en monobloc avec la pièce opératoire (cas 7).
- Une suture provisoire sterno-mentonnière a été réalisée chez quelques patients ayant eu une RAT de plus de 3 cm, pour maintenir la tête en hyper flexion afin d'éviter un lâchage de l'anastomose trachéale.

VI. Résultats anatomo-pathologiques :

Dans notre étude :

- Un carcinome adénoïde kystique a été retrouvé chez 4 patients (cas 2, 3, 5, 7).
- Un adénome pléomorphe a été retrouvé chez 2 patient (cas 4, 6).
- Un carcinome muco-épidermoïde de bas grade a été retrouvé chez 1 patient (cas 1).

Le type histologique le plus retrouvé dans notre série est le carcinome adénoïde kystique avec un pourcentage de 57 %. Chez le septième cas, des ganglions sous carinaires prélevés en monobloc avec la pièce opératoire, étaient envahis par contiguïté.

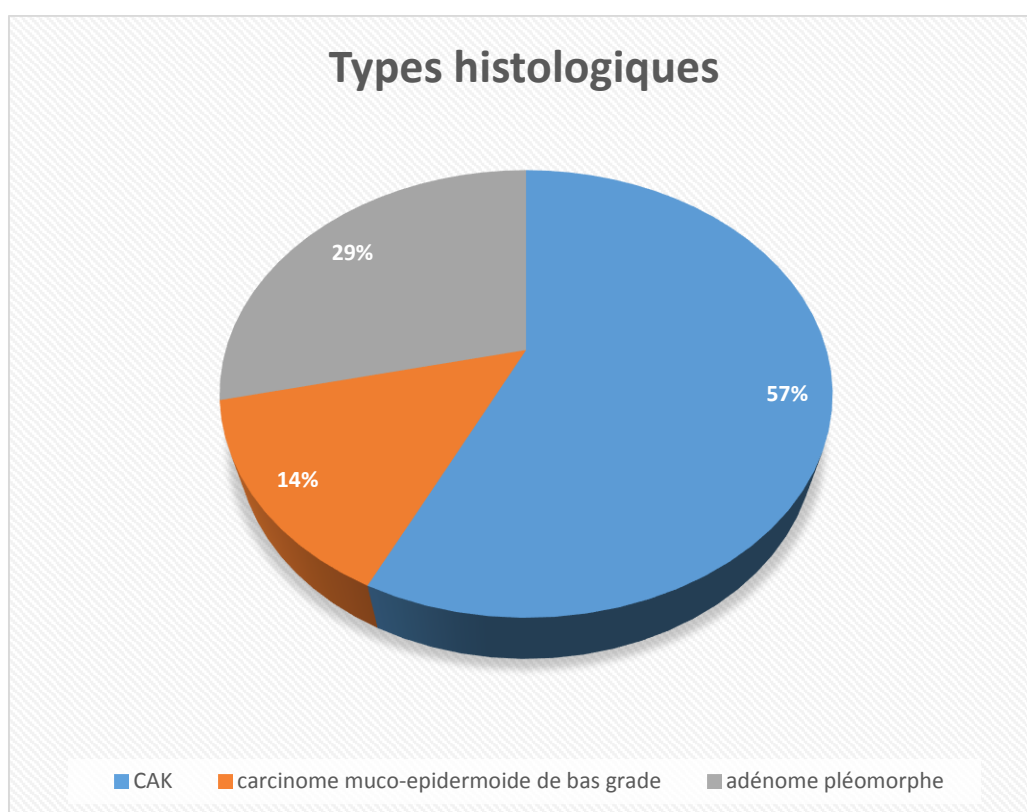


Figure 6 : Les types histologiques dans notre série

VII. Suites opératoires :

1. Extubation

Tous les patients ont été extubés sur table opératoire avec surveillance prolongée en salle de réveil, avant leur transfert systématique en réanimation.

2. Séjour en réanimation

Le protocole suivi en service de réanimation a été le même chez tous nos patients avec un séjour d'un minimum de 3 jours :

- Mise en position demi-assise avec flexion de la tête en avant, et surveillance des constantes cliniques (FC, RC, FR, TA, température, diurèse)
- Kinésithérapie respiratoire post-opératoire avec des séances de VNI, oxygénothérapie et spirométrie incitative pour favoriser la ventilation alvéolaire et éviter les atélectasies et les complications pulmonaires redoutables
- séances de nébulisations – humidifications
- Une réalimentation orale à partir de J2-J3 post opératoire
- anticoagulation préventive
- Antibiothérapie prophylactique
- analgésie efficace
- Protection gastrique

3. Séjour post-opératoire au service

La durée du séjour au service de chirurgie thoracique était d'une moyenne de 11 jours avec une bonne évolution de l'ensemble des patients.

Lors de cette hospitalisation, tous les patients ont bénéficié d'une mobilisation précoce, de kinésithérapie respiratoire avec humidification de l'air et nébulisation, analgésie efficace, poursuite de la prévention thromboembolique et de l'antibiothérapie prophylactique, et alimentation entérale assistée avec surveillance pour éviter les fausses routes.

4. Contrôle endoscopique

Le contrôle endoscopique s'est fait systématiquement à J 10 du post-opératoire avant la sortie de l'hôpital, puis un second contrôle à J 30 afin de s'assurer de la qualité de la cicatrisation.

Tous les contrôles endoscopiques à J 10 et à J 30 étaient satisfaisants sans sténose ni granulome.

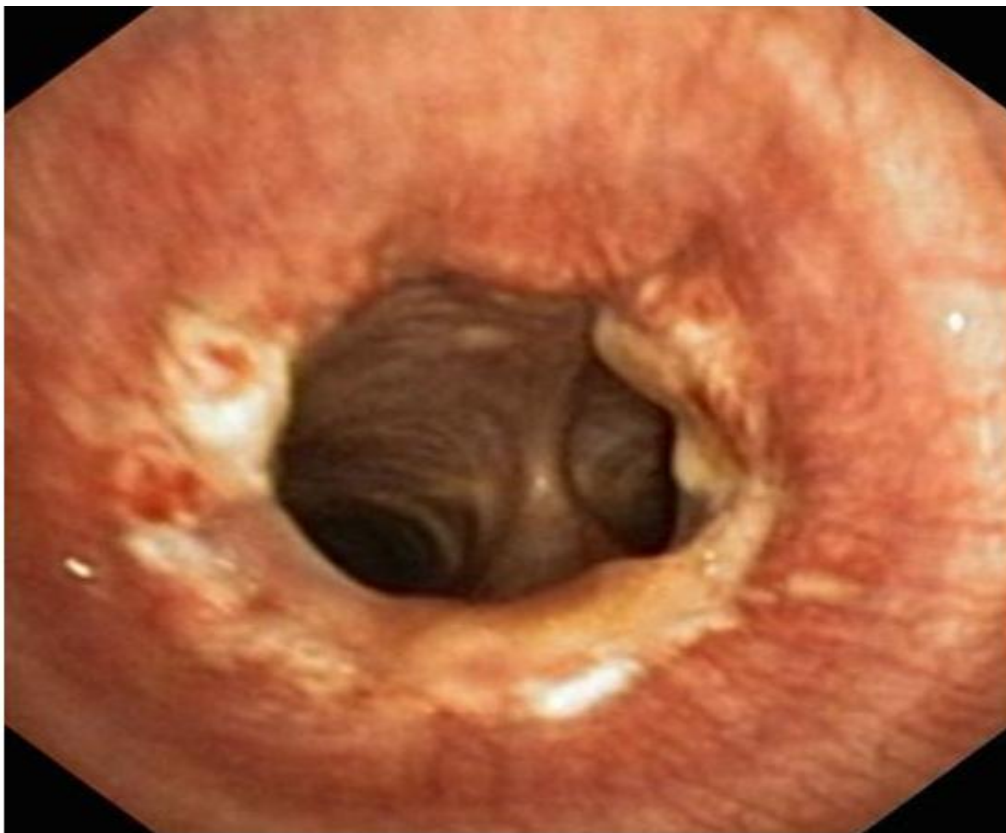


Figure 7 [23]: endoscopie post-opératoire d'un CAK montrant une bonne cicatrisation de l'anastomose trachéale.

5. Traitements adjuvants

Dans notre série, un patient seulement a bénéficié d'un traitement adjuvant après RCP. Il s'agit d'un patient porteur d'un CAK qui avait à l'examen histologique de la pièce d'exérèse chirurgicale une limite inférieure tumorale. Il a bénéficié d'une radiothérapie post- opératoire.

VIII. DONNEES EVOLUTIVES

1. Evolution à court terme

Les suites opératoires étaient simples chez tous les patients. Aucune complication spécifique n'a été notée.

2. Evolution à long terme :

Nous avons noté dans notre étude un recul moyen de 38 mois. Une bonne évolution a été marquée chez 5 patients qui sont vivants à ce jour et revus régulièrement en consultation.

Un décès a été déploré dans notre série. Il s'agit d'un patient (cas 2), opéré pour CAK avec RAT de 05 cm et dont la limite inférieure à l'examen histologique de la pièce opératoire était tumorale. Le dossier a été discuté en RCP avec décision de compléter par radiothérapie vu que la possibilité chirurgicale était épuisée. 2 ans après, il a présenté une sténose post radique pour laquelle il a bénéficié à plusieurs reprises d'un traitement endoscopique avec pose d'une prothèse trachéale dans le but de dilater la sténose, dont le dernier s'est compliqué d'une perforation trachéale, le patient a été hospitalisé en réanimation puis décédé dans un tableau de détresse respiratoire.

Un autre patient (cas 3) est décédé après 5 ans, d'un cancer de l'œsophage, alors que le CAK de la trachée dont il a été opéré a été contrôlé.

Tableaux récapitulatifs des résultats

cas	année	Age	sexe	ATCD	clinique	TDM thoracique	Fibroskopie bronchique	Biopsie bronchique
1	2012	48	M	Tabagisme chronique pendant 22 ans Ethylisme	Hémoptysie isolée	Tumeur précarinaire droite, du 1/3 inférieur de la trachée, au niveau de la paroi antérieure Faisant corps avec la crosse de l'azygos Rehaussée au PDC	Bourgeon sous muqueux rougeâtre, saignant au contact, développé au dépend de la carène et la bronche souche droite	Non concluante
2	2014	21	M	RAS	Dyspnée stade III Wheezing	Tumeur endotrachéale de la paroi postéro-latérale gauche de la trachée, au niveau du 1/3 moyen, en regard de D2- D3, rehaussée au PDC Etendue sur 52 mm, sans extension locorégionale	Bourgeon lisse tumoral faisant corps avec la trachée, situé à 4 cm des cordes vocales mesurant 2 cm	Absence de lésion tumorale
3	2014	46	M	Tabagisme chronique pendant 23 ans	Dyspnée stade II Wheezing Toux chronique	Tumeur du 1/3 moyen de la trachée de 4 cm obstruant 90% de la lumière trachéale, sans extension locorégionale	Bourgeon tumoral à 4 cm des cordes vocales et à 3,5 cm de la carène, saignant au contact	Résultats non concluants
4	2017	49	M	RAS	Dyspnée stade II Wheezing Toux chronique	Tumeur du 1/3 inférieur de la trachée, sur la paroi latéro-postérieure droite, pédiculée étendue sur 17 mm obstruant 85 % de la lumière trachéale, se situe à 6 mm de la carène Pas d'ADP médiastinales	Non faite : tumeur de petite taille jugée résecable d'emblée au scanner	_____
5	2018	56	F	Tuberculose pulmonaire	Dyspnée stade I Wheezing	Tumeur du 1/3 inf de la trachée à base d'implantation large, sans extension exo trachéale, réduisant les $\frac{3}{4}$ de la lumière bronchique	Bourgeon au niveau de la trachée à environ 2,5 cm de la carène, obstruant de 85% la lumière bronchique	Non concluante
6	2019	38	M	RAS	Dyspnée stade III Wheezing Toux chronique productive Détrousse respiratoire avec Stridor	Tumeur endotrachéale bien limitée du 1/3 inférieur de la trachée juste au-dessus de la carène, mesurant 1.5 cm × 1.2 cm × 1.8 cm Pédiculée, obstruant la totalité de la lumière trachéale avec rehaussement modéré et homogène au PDC	Non faite : tumeur de petite taille jugée résecable d'emblée au scanner	_____
7	2020	49	M	RAS	Dyspnée stade II Douleur thoracique droite Fièvre	Processus hilaire droit englobant totalement la BSD, de contours irréguliers, envahissant l'artère pulmonaire droite, à moins de 1 cm de la carène, faiblement rehaussé au PDC Présence d'une atélectasie plane basale droite	Bourgeon lisse obstruant totalement la BSD à moins de 1cm de la carène	CAK

cas	Voie d'abord	Geste chirurgical	Gestes associés	Suites opératoires	Type histologique	Marges d'exérèse	Traitement adjuvant	évolution
1	Thoracotomie postéro-latérale droite	Résection latérale et plastie en V sur la carène Anastomose trachéo-trachéale	Protection de l'anastomose par un lambeau pleural	Simple Contrôle endoscopique à j10 : Bonne cicatrisation de l'anastomose avec calibre trachéal conservé	Carcinome muco-épidermoïde de bas grade	Saines	aucun	Suivi pendant 8 ans sans récurrence
2	cervicotomie	Résection anastomose trachéale	Curage des ganglions latéro-trachéaux droits et gauches à proximité de la tumeur Protection de l'anastomose par rapprochement des lobes thyroïdiens et du thymus	Contrôle endoscopique à J10 : Bonne cicatrisation avec calibre trachéal respecté Survenue d'une sténose post-radique 4mois après la dernière cure de radiothérapie	CAK	Limite supérieure saine, Limite inférieure tumorale	RT	Décès 2 ans après la chirurgie par détresse respiratoire au cours d'une séance de remplacement de prothèse endotrachéale
3	cervico-manubriotomie	Résection anastomose trachéale	Protection de l'anastomose par rapprochement du thymus et des lobes thyroïdiens	Simple Contrôle endoscopique à J10 : Sans particularité	CAK	Saines	aucun	Décès 5 ans après la chirurgie d'un cancer de l'œsophage
4	thoracotomie postéro-latérale droite	Résection anastomose trachéale	Protection de l'anastomose par le tissu thymique	Simple Contrôle endoscopique à j10 : Bonne cicatrisation de l'anastomose avec calibre trachéal conservé	Adénome pléomorphe	Saines	aucun	Suivi pendant 3 ans sans récurrence
5	Thoracotomie postéro-latérale droite	Résection anastomose trachéale	_____	Simple Contrôle endoscopique à J10 : Sans particularité	CAK	Saines	aucun	Bonne évolution à 2 ans
6	Thoracotomie postéro-latérale droite	Résection anastomose trachéale	_____	Simple	Adénome pléomorphe	Saines	aucun	Bonne évolution à 1 an
7	Sternotomie totale verticale	pneumonectomie droite avec anastomose trachée-BSG	_____	Simple Contrôle endoscopique à J10 : Sans particularité	CAK	Saines	aucun	Bonne évolution à 6 mois

DISCUSSION

I. Fréquence et incidence

Les tumeurs primitives de la trachée sont très rares, elles représenteraient 0,1 % à 0,4 % de l'ensemble des tumeurs malignes [1], et uniquement 2 % des tumeurs des voies aériennes supérieures. [3]

Chez l'adulte Les tumeurs primitives de la trachée sont en très grande majorité malignes, alors que dans la population pédiatrique, les tumeurs trachéales sont généralement bénignes. [2]

L'incidence des tumeurs trachéales malignes est d'environ 0,1 pour chaque 100 000 personne par an, ce qui correspond approximativement à 0,2% de toutes les tumeurs du tractus respiratoire et de 0,02% à 0,04% de l'ensemble des tumeurs confondues. Les tumeurs malignes du larynx et des bronches respectivement sont environ 40 et 400 fois plus fréquentes que les cancers de la trachée [43, 108].

Les tumeurs bénignes représentent 11–13 % des tumeurs trachéales [4,5].

Les tumeurs trachéales d'origine salivaire sont des tumeurs rares. Elles sont essentiellement représentées par des entités malignes notamment :

–Le carcinome adénoïde kystique qui en est le type le plus fréquent représentant près de 40 % des tumeurs trachéales et près de 10% de toutes les tumeurs des glandes salivaires en général [6,7]. C'est une tumeur à malignité atténuée, caractérisée par une croissance lente, une évolution clinique progressive, une tendance à la récurrence locale et à l'évolution métastatique à distance tardive [117, 118]. Il est non lié au tabagisme.

–Le carcinome muco-épidermoïde forme le sous-type de carcinome de type salivaire le plus fréquemment observé en pathologie pulmonaire avec le carcinome adénoïde kystique [8]. Ce sont des tumeurs à développement endoluminal pouvant envahir la couche musculaire [69]. Barski distinguait déjà en 1983 les formes de haut grade de malignité avec un pronostic très péjoratif, des formes de bas grade de pronostic plus favorable [119]. Ils restent très rares, surtout dans leur localisation trachéale, représentant moins de 1 % des tumeurs de la trachée [68].

-Carcinome épithélial-myoépithélial est une tumeur très rare en localisation primitive pulmonaire, elle représente <1% de toutes les tumeurs. Elle est le plus souvent de bas grade [18, 121].

Les tumeurs bénignes sont essentiellement représentées par l'adénome pléomorphe :

L'adénome pléomorphe de la trachée est extrêmement rare [9]. En raison de la croissance lente de la tumeur, les signes respiratoires et les symptômes, elle est souvent diagnostiquée à tort comme un asthme [9,10]. Bien qu'il s'agit d'une tumeur bénigne environ 6 % des adénomes pléomorphes ont le potentiel de se transformer en carcinome ex adénome pléomorphe. [11]

Le tableau suivant récapitule les types histologiques retrouvés dans notre étude :

Type histologique	Nombre de cas retrouvés
CAK	4
Carcinome muco-épidermoïde	1
Carcinome épithélial-myoépithélial	0
Adénome pléomorphe	2

II. Facteurs prédisposant

1. Age

Le carcinome adénoïde kystique affecte plus souvent les patients dans leurs quatrièmes et cinquièmes décennies de la vie [12]. Dans notre étude l'âge moyen pour le CAK est de 43 ans.

Le carcinome muco-épidermoïde survient à un âge plus précoce par rapport au CAK, avec un Age moyen de 30 à 40 ans [14, 120]. Mais il peut survenir à toutes les décades de la vie de la première à la huitième. Notre patient avait 48 ans au moment du diagnostic.

Le Carcinome épithélial-myoépithélial touche préférentiellement les patients de 30 à 70 ans avec un âge moyen de 50 ans [18].

Pour l'adénome pléomorphe l'âge de diagnostic de cette tumeur est généralement entre 35 et 74 ans [9]. Cependant, la plupart des cas signalés étaient dans les sixièmes et septièmes décennies [15,16]. En effet, un cas a été signalé chez un enfant de 8 ans de sexe masculin [17].

Le tableau suivant récapitule l'âge au diagnostic de chaque type histologique chez nos patients :

Type histologique	Age au diagnostic
CAK	21 ans
	46 ans
	56 ans
	49 ans
Carcinome muco-épidermoïde	48 ans
Adénome pléomorphe	49 ans
	38 ans

Le tableau suivant résume l'âge au diagnostic selon le type histologique dans d'autres études :

Type histologique		Carcinome muco-épidermoïde		Carcinome adénoïde kystique		Carcinome épithélial myoépithélial	
Etude	Durée d'étude	Nombre de cas	Moyenne d'âge	Nombre de cas	Moyenne d'âge	Nombre de cas	Moyenne d'âge
Wang et al, 2020 [14]	52 ans	115	40 ans	191	48.7 ans	-----	-----
Zhu et al, 2013 [25]	12 ans	69	47.5	12	47.5 ans	7	63 ans
Kang et al, 2011 [26]	14 ans	26	37.9	20	43.6 ans	2	57 ans
Jeong et al, 2007 [27]	4 ans	7	44 ans	5	45 ans	-----	-----
Benissan et al, 2020 [13]	11 ans	-----	-----	137	54 ans	-----	-----

2. Sexe

Le sexe ne semble pas être un facteur prédisposant pour la survenue de ce type de tumeurs [18, 13,14]. Cependant dans notre série 6 patients sur 7 étaient de sexe masculin.

3. Tabagisme et alcoolisme

Une étude japonaise affirme l'existence d'une association significative entre la consommation du tabac et la survenue des cancers de type glande salivaire en général. Cependant l'impact du tabagisme semble être limité aux sous types histologiques autres que le carcinome muco-épidermoïde [19]. A l'encontre d'autres études américaine française et canadienne qui n'ont trouvé aucune association entre le tabagisme et ce type de cancers [20, 21,22]. De même il n'existe pas d'association entre la consommation de l'alcool et la survenue des tumeurs des glandes salivaires. [21,22]

Deux patients de notre série cas 1 (CME) et cas 3 (CAK) étaient tabagiques chroniques, un patient était éthylique occasionnel (cas 1). Le patient porteur du CAK (cas 3) est décédé 5 ans après la chirurgie de la trachée d'un cancer de l'œsophage.

III. Anatomie–pathologie

1. Classification OMS des tumeurs de la trachée [24]

Table 1. Tumeurs nouvelles à la classification révisée de l'OMS

<u>Tumeurs épithéliales</u>	
Bénin	
Adénome pléomorphe	
Adénome basocellulaire (basaloïde)	
Malin	
Carcinome adénoïde kystique	Carcinome dans l'adénome pléomorphe
Carcinome épidermoïde basaloïde	Carcinome épithélial–myoépithélial
Carcinome à cellules acineuses	Carcinome à cellules claires
Carcinome muco–épidermoïde	Carcinome adéno–squameux
Carcinome du canal salivaire	Tumeur carcinoïde atypique
<u>Tumeurs des tissus mous</u>	
Bénin	Malin
Fibromatose agressive	Histiocytome fibreux malin
Myxome	Liposarcome
Histiocytome fibreux	Léiomyosarcome
Hémangiopericytome	Hémangiopericytome malin
Lymphangiome	Tumeur de la gaine nerveuse maligne
	Sarcome de la partie molle alvéolaire
	Sarcome synovial
	Sarcome d'Ewing
<u>Tumeurs osseuses et cartilagineuses</u>	
Malin	
Ostéosarcome	
<u>Tumeurs diverses</u>	
Bénin	Malin
Tératome mature	Mélanome malin
	Tumeurs malignes des cellules germinales

Table 2. Tumeurs de glandes salivaires ajoutées à la classification révisée de l'OMS

Carcinome à cellules acineuses
 Carcinome adénoïde kystique
 Carcinome muco-épidermoïde
 Carcinome dans l'adénome pléomorphe
 Carcinome épithélial-myoépithélial
 Carcinome à cellules claires
 Carcinome du canal salivaire

Le tableau suivant résume les types histologiques retrouvés dans notre étude en comparaison avec d'autres études :

Etude	Effectif	CAK	CME	CEM	Adénome pléomorphe
Wang el al, 2020 [14]	306	62.41%	37.58%	----	----
Bo-Guen Kim et al, 2020 [28]	181	57.5%	39.2%	3.3%	----
Pandey el al, 2015 [33]	7	57.1%	42.9%	----	----
Zhu et al, 2013, [25]	88	13.6%	78.4%	7.9%	----
Molina et al, 2007 [36]	62	64.5%	32.3%	----	----
Notre étude	7	4 cas	1 cas	----	2 cas

Selon Bo-Guen Kim, Wang, Pandey et Molina, le CAK est le type histologique le plus fréquent, suivi du CME, ce qui n'est pas le cas pour Zhu et al où le CME vient en premier, ceci pourrait être expliqué par le fait que, dans cette étude [25], même les tumeurs de type glandes salivaires de l'arbre bronchique et du poumon ont été incluses.

Le CAK touche préférentiellement la trachée et les 2 bronches souches, alors que le CME est plus fréquent au niveau des bronches segmentaires et du poumon. [38]

Le carcinome épithélial myoépithélial est le type histologique le moins retrouvé dans toutes les séries, il représente avec l'adénome pléomorphe des entités très rares qui n'ont été documentés que sporadiquement.

Dans notre étude le CAK vient en premier, ce qui concorde avec les données de la littérature, suivi de l'adénome pléomorphe puis du CME. Aucun cas de CEM n'a été retrouvé.

2. Description histologique des sous types histologiques

2.1 Carcinome adénoïde kystique :

Selon la classification de l'OMS, le CAK est défini comme une tumeur basaloïde formée de cellules épithéliales et myoépithéliales, selon différents agencements morphologiques incluant le modèle tubulaire, cribriforme et solide.

- Aspect macroscopique : Cette tumeur se présente souvent sous forme de croissance exophytique et nodulaire, qui conduit à la sténose de la lumière trachéale (figure 8).
- Aspect microscopique : Le CAK est formée de deux types cellules principaux : des cellules canalaire (luminale) et des cellules myoépithéliales (abluminale).

Leur disposition permet de reconnaître 3 sous-groupes (figure 09) :

- Type tubulaire : prolifération préférentielle de cellules épithéliales glandulaires
 - Type cribiforme : prolifération préférentielle de cellules myoépithéliales à l'origine du stroma mucoïde
 - Type solide : peu différencié, les cellules myoépithéliales étant remplacées par des « nids » épithéliaux avec de larges plages de nécrose centrale.
- La propagation péri neurale locale est une caractéristique du CAK (50% des cas) (figure 09 bis).

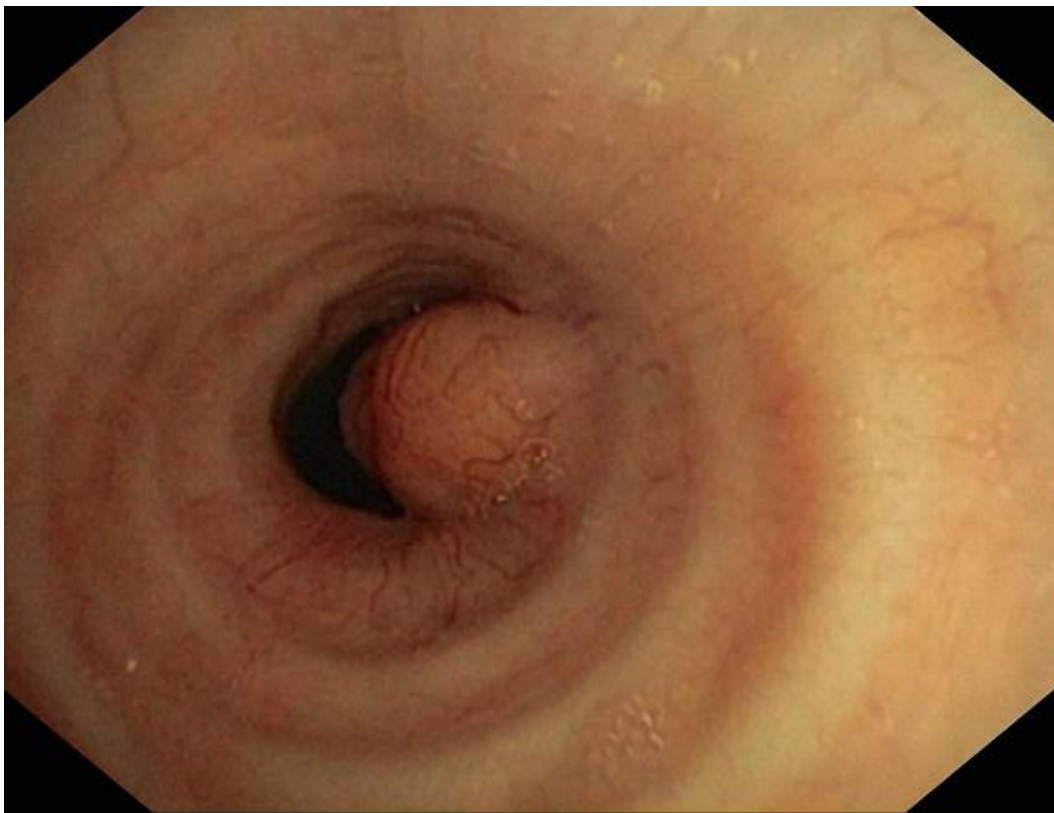


Figure 08 : Aspect macroscopique d'un CAK sous forme de croissance exophytique et nodulaire de la paroi latérale gauche, avec obstruction de plus de 50 % de la lumière trachéale

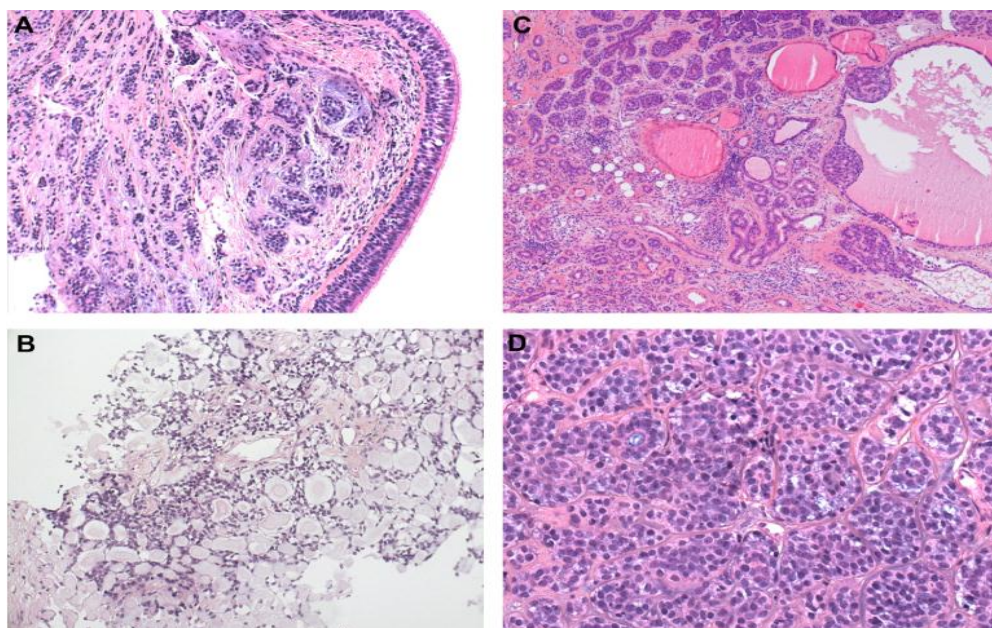


Figure 9 [18] : Carcinome adénoïde kystique. A. Biopsie bronchique, présence du CAK sous muqueuse saine (HES $\times$ 10). B. Biopsie Trans bronchique (HES $\times$ 10). C. Forme trabéculaire et cribriforme (HES $\times$ 10). D. Forme massive (HES $\times$ 40).

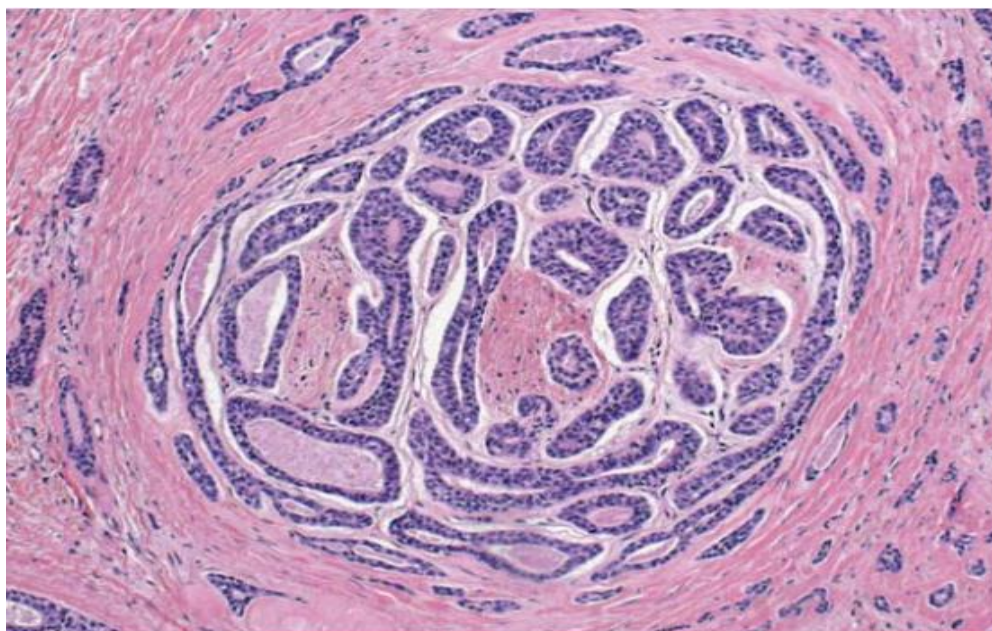


Figure 9 bis [29] : carcinome adénoïde kystique dans sa forme tubulaire avec envahissement nerveux (coloration HES)

2.2 Le carcinome muco-épidermoïde :

- Aspect macroscopique : Le CME est une tumeur des glandes péri-bronchique le plus souvent autour des bronches de gros calibre. Certaines tumeurs ont une extension intra bronchique, elles sont alors polypoïdes ou sessiles. Des calcifications peuvent être décrites, ainsi que d'exceptionnelles cavitations.
- Chez le patient de notre série le CME (cas1) avait un développement sous muqueux visible sous forme d'un bombement de la muqueuse trachéale, saignant au moindre contact.
- Aspect microscopique : trois types cellulaires en proportion variable, composent cette tumeur (figure 10) [18] :
 - Les cellules à mucus, cylindriques à pôle muqueux ouvert ;
 - Les cellules malpighiennes, de grande taille au cytoplasme éosinophile avec une différenciation kératosique peu abondante ;
 - Les cellules intermédiaires, de taille moyenne au cytoplasme éosinophile.

Ces différentes cellules s'agencent en lobules souvent kystisés et séparés par des travées conjonctives fibreuses plus ou moins denses. La proportion de ces trois types cellulaires varie d'une tumeur à l'autre mais aussi au sein d'une même tumeur.

Dans le poumon, deux grades histologiques sont retenus par l'OMS [30] :

- CME de bas grade : les trois types cellulaires sont observés, avec présence de secteurs kystiques riche en cellules à mucus peu atypique, et de secteurs plus solides de cellules malpighiennes et intermédiaires. Le stroma sous-jacent peut être le siège de remaniements inflammatoires suite à l'extravasation de mucine.
- CME de haut grade : prédominance de cellules malpighiennes ou intermédiaires avec présence de remaniements nécrotiques, augmentation de l'index mitotique et des irrégularités nucléaires marqués. Proportion variable de cellules mucosécrétantes.

Les carcinomes de bas grade sont de bon pronostic avec un risque métastatique de 5 %.

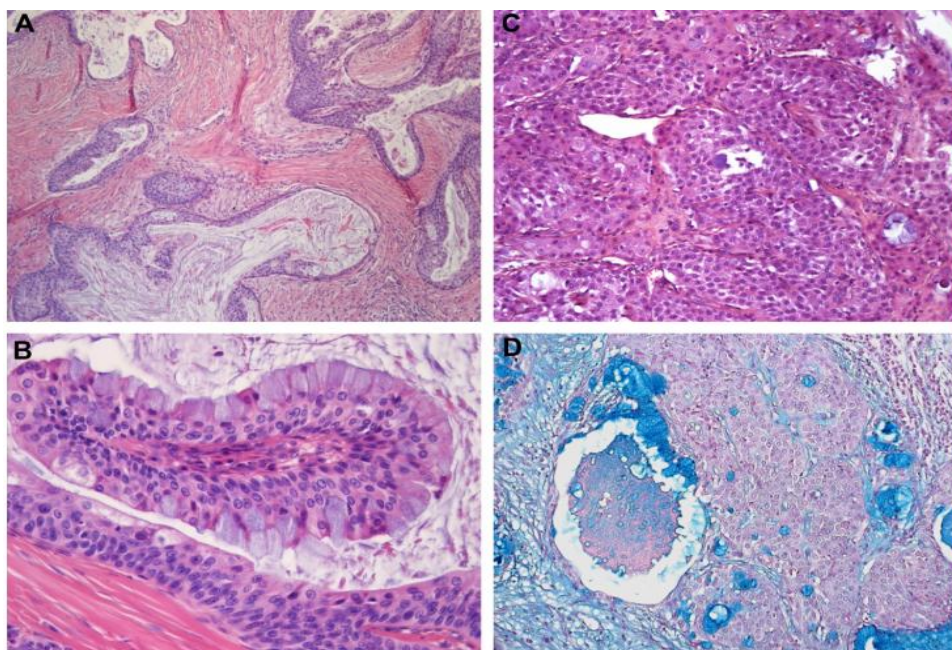


Figure 10 : Carcinome muco-épidermoïde. A. MEC de bas grade, kystique avec plus de 50 % de cellules mucosécrétantes (HES $\times$ 10). B. cellules intermédiaires et mucosécrétantes (HES $\times$ 20). C. MEC de haut grade (HES $\times$ 20). D. Coloration par le bleu alcian soulignant les cellules mucosécrétantes (HES $\times$ 40).

2.3 Carcinome épithélial myoépithélial [18, 29] :

Cette néoplasie est constituée d'une double population cellulaire formant des structures canalaire. La couche interne est constituée par un contingent épithélial de cellules peu atypiques de petite taille et la couche externe par un contingent myoépithélial de cellules plus grandes au cytoplasme clair (figure 11).

Dans certains cas, cet Aspect « en deux couches » est cependant moins net et la lésion peut prendre des aspects pseudo-cribriformes. Il existe parfois une prédominance des cellules myoépithéliales formant des plages de cellules solides ou fusiformes. Aucune modification moléculaire caractéristique n'a été mise en évidence pour ces cancers. Le diagnostic différentiel se fait avec les autres carcinomes des glandes salivaires, notamment avec le carcinome adénoïde kystique lorsque le pattern architectural n'est pas caractéristique.

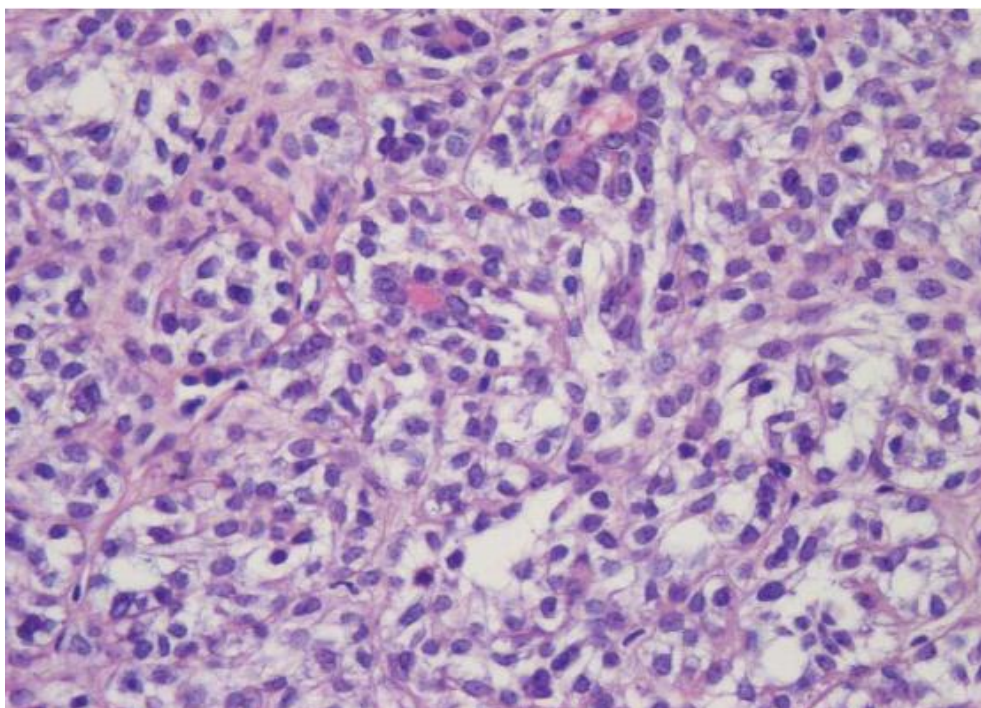


Figure 11 : (HES X 400). Carcinome épithélial-myoépithélial constitué d'une double population cellulaire épithéliale et myoépithéliale formant des tubes. Les cellules myoépithéliales sont externes, ont un cytoplasme abondant, clarifié

2.4 L'adénome pléomorphe [18] :

Comme la plupart des tumeurs de type « glandes salivaires », ces lésions présentent de façon caractéristique un double contingent de cellules :

- les cellules épithéliales cuboïdales à chromatine condensée, exprimant les cytokératines AE1 /AE3 et la cytokératine 7 ;
- les cellules myoépithéliales à noyau hyper chromatique et anguleux avec cytoplasme clarifié. Ces cellules coexpriment les marqueurs épithéliaux et des marqueurs de différenciation musculaire lisse (actine muscle lisse, desmine, caldesmone) et la PS100. Ces cellules expriment également des marqueurs de cellules basales (p63, p40)

L'adénome pléomorphe est ainsi constitué de structures épithéliales agencées en structures glanduliformes au sein d'un stroma myxoïde, voire chondroïde, associées à des îlots de cellules myoépithéliales (figure 13).

Comme au niveau des glandes salivaires, il peut se produire une transformation maligne, sur le contingent épithélial (« carcinome ex-adénome pléomorphe ») ou plus rarement sur les 2 contingents (« tumeur maligne mixte »). Ces cas restent cependant exceptionnels [31]. D'après l'OMS 2015, les critères de transformation maligne sont définis par la présence de nécrose, d'atypies cytonucléaires, de mitoses (> 5 pour 2 mm^2) et l'invasion vasculaire.

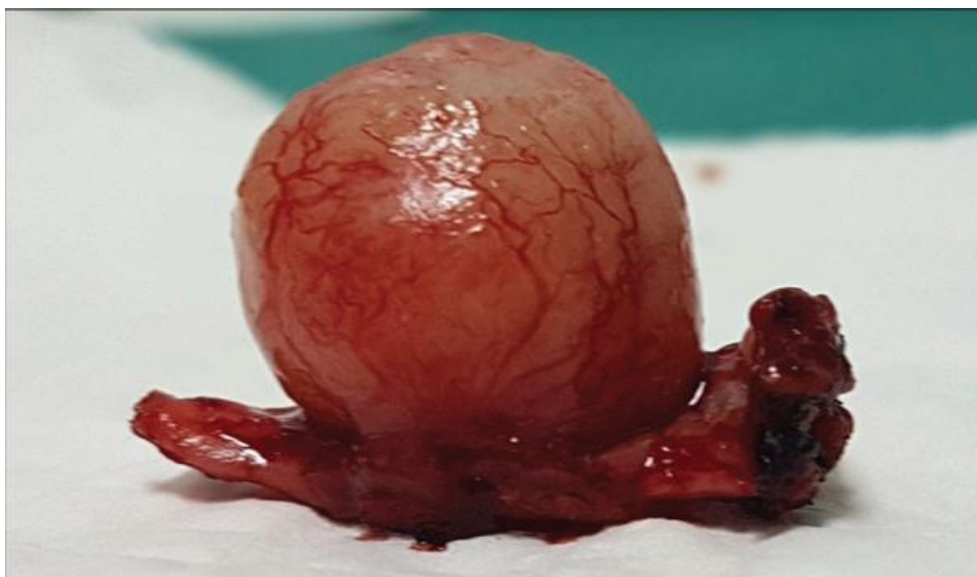


Figure 12 [9] : Pièce opératoire d'un adénome pléomorphe. L'examen global a montré une masse solide bien délimitée qui était recouverte d'une muqueuse intacte sans nécrose

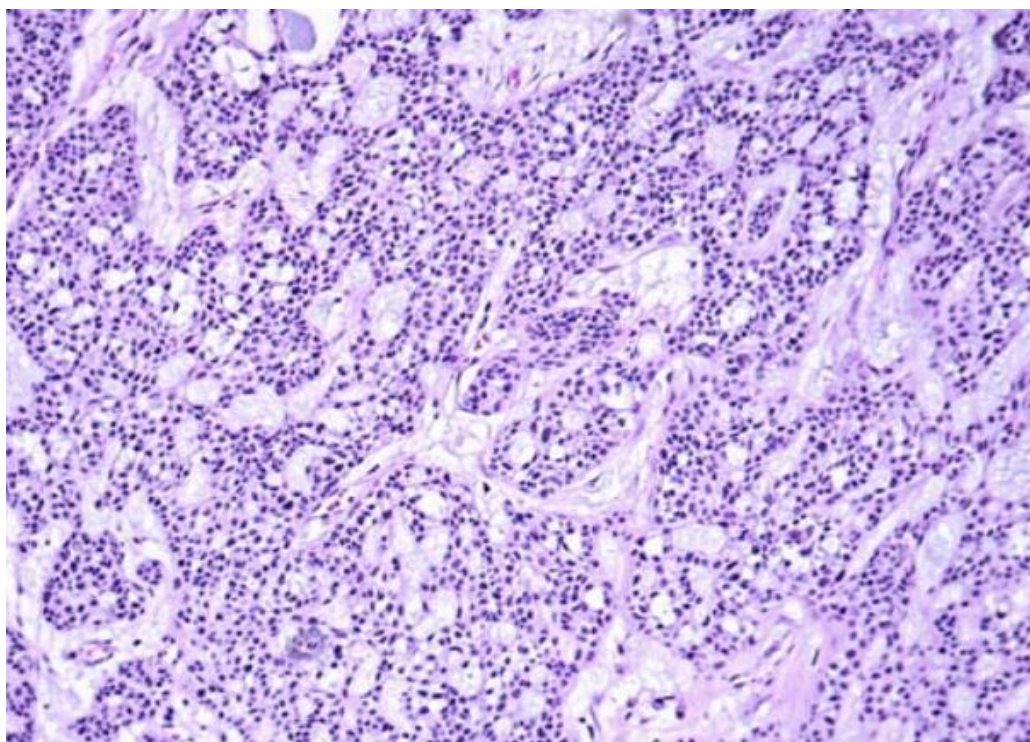


Figure 13 [32] : adénome pléomorphe de composante bi phasique constitué par les cellules épithéliales et myoépithéliales disposées dans un trabéculum. Le modèle tubulaire est entouré d'une matrice myxoïde et d'un épithélium respiratoire.

Le Tableau suivant résume les caractéristiques histologiques des différents sous types des tumeurs des glandes salivaires :

Type histologique	Description anatomopathologique
CAK	Cellules cribriformes, tubulaires ou solides ; monomorphes
CME	Cellules mucoïdes, épidermoïdes (malpighiennes) et intermédiaires
Adénome pléomorphe	Cellules épithéliales/myoépithéliales, structures ductulaires, stroma chondromyxoïde
CEM	Structures ressemblant à des conduits avec un aspect bi phasique : cellules épithéliales internes, cellules myoépithéliales externes

IV. Clinique

1. Les signes cliniques :

Comme la plupart des tumeurs trachéales, les tumeurs primitives de type glandes salivaires sont caractérisées par une symptomatologie non spécifique tels une dyspnée, une toux chronique et un wheezing, d'évolution insidieuse. Les signes cliniques peuvent varier en fonction de la taille de la tumeur, sa localisation, ainsi qu'en fonction du sous type histologique.

En raison de la croissance lente de ces tumeurs et devant une radiographie pulmonaire le plus souvent normale, elles sont souvent traitées à tort comme un asthme ou une BPCO. Ceci est à l'origine du retard diagnostique et explique que l'extension tumorale soit importante lorsque le diagnostic est posé. En fait les symptômes sont rarement présents avant que la lumière trachéale ne soit obstruée à 50 % [34]. Ainsi une symptomatologie faite de toux, dyspnée et hémoptysie peut mener à poser à tort le diagnostic de tuberculose pulmonaire surtout dans les pays d'endémie, et les patients peuvent recevoir un traitement antituberculeux pendant une longue durée avant la découverte de la tumeur. [33]

L'apparition récente d'un asthme ou de difficulté respiratoire chez un adulte jeune, ainsi que la non réponse aux traitements par bronchodilatateurs et corticoïdes, doivent faire rechercher une tumeur de la trachée et imposent la réalisation d'examens complémentaires notamment une fibroscopie et une TDM thoracique. [37]

Dans de rares cas, et suite à une évolution clinique lente, certains patients peuvent se présenter dans un tableau clinique bruyant avec des signes de détresse respiratoire nécessitant une prise en charge urgente [35].

Le tableau ci-dessous montre les symptômes cliniques retrouvés dans notre étude en comparaison avec d'autres études :

Etude	effectif	Dyspnée	Wheezing	Toux chronique	Hémoptysie	Douleur thoracique	Dysphagie	Détresse respiratoire	Fièvre	asymptomatique
Molina et al	62	31 51.7 %	23 38.3 %	42 70 %	17 28.3 %	4 6.7%	5 8.9 %	-----	10 16.7%	-----
Bo-Guen Kim et al	181	49 27.1 %	14 7.7 %	39 21.5 %	32 17.7 %	-----	-----	-----	-----	47 26 %
Han.X et al [38]	32	13 40.6 %	-----	17 53.1 %	2 6.3 %	5 15.6 %	2 6.3 %	-----	-----	3 9.4 %
Wang et al [39]	191	57 31.3 %	-----	70 38.5 %	10 5.5 %	1 0.5 %	-----	10 5.2 %	9 4.9 %	9 4.7 %
Notre étude	7	6	5	3	1	1	0	1	1	-----

Dans notre étude et de façon comparable à la littérature, la dyspnée, la toux chronique et le wheezing suivis de l'hémoptysie, représentent les principaux symptômes de ce type de tumeurs. D'autres symptômes moins fréquents peuvent exister comme la dysphagie, la dysphonie et la douleur thoracique et représentent la traduction clinique de l'envahissement des structures avoisinantes.

Parfois, la présence d'une douleur thoracique et d'une fièvre accompagnant la dyspnée, peut être interprétée à tort comme une infection respiratoire, c'est le cas de notre patient qui avait un CAK de la BSD dont le diagnostic a été posé 3 mois après les premiers symptômes (cas 7).

Des cas de tumeurs asymptomatiques ont été rapportés par la littérature, et la découverte de la tumeur dans ces cas-là était fortuite, lors d'un examen systématique.

Dans la série de wang et al, 10 patients sur 191 avaient nécessité une prise en charge urgente. Dans notre étude 1 patient sur 7 avait présenté des signes de détresse respiratoire.

Dans notre étude un seul patient a été traité à tort pour asthme pendant une durée de 6 mois, sans amélioration, avant la découverte de la tumeur (Cas 6).

2. Le délai diagnostic :

La particularité des tumeurs trachéale est la latence clinique qui est très souvent supérieure à 1 an [41]. Ceci pourrait être dû à la croissance lente de ces tumeurs et la non spécificité des symptômes.

Les symptômes se développent sur plusieurs mois et années, et les patients peuvent être traités à tort par des bronchodilatateurs inhalés et des corticoïdes oraux [4].

Etude	Wang et al, 2019 [39]	Jakhetiya et al, 2017 [40]	Clough et Clarke 2006 [64]	Gaissert et al, 2004 [4]	Notre étude
Délai diagnostic moyen	7 mois	12 mois	16 mois	15 mois	9 mois
Extrêmes	-----	4mois-24mois	1 semaine-60 mois	-----	3mois-24mois

V. Paraclinique

1. Radiographie thoracique

Le premier examen réalisé chez un patient ayant une suspicion de tumeur de la trachée en détresse respiratoire est la radiographie thoracique standard [37]. Elle est, cependant, le plus souvent normale, elle ne diagnostique que 18–28% des tumeurs trachéales [42]. En effet, la radiographie thoracique est surtout utile pour éliminer les diagnostics différentiels.

Lors de l'interprétation de cet examen, l'attention devrait être dirigée vers la lumière trachéale et les bronches souches surtout chez les patients présentant un stridor, un wheezing, un asthme aigu grave à l'âge adulte ou jugée réfractaire au traitement, une pneumonie récurrente ou une hémoptysie [42, 44].

Dans notre étude, la radiographie thoracique a pu détecter la tumeur dans un seul cas, il s'agissait d'une tumeur de la carène et de la BSD entraînant un processus médiastino-hilaire (cas 7).



Figure 14 [23]: radiographie thoracique standard de face montrant un processus médiastino- hilaire droit, en faveur d'un CAK de la carène et de la BSD (cas 7).

2.Tomodensitométrie

La TDM thoracique injectée avec images de reconstruction est devenue de nos jours l'examen clé et incontournable pour le diagnostic et le bilan d'extension.

Elle permet d'une part de préciser la topographie et les mensurations de la tumeur, d'évaluer le degré de l'obstruction de la lumière trachéale, de chercher une extension locorégionale ou des métastases ganglionnaires ou à distance.

D'autre part la TDM thoracique aide à déterminer la résécabilité de la tumeur, l'approche chirurgicale, et la nécessité éventuelle d'un traitement adjuvant.

Cependant, les techniques de TDM conventionnelles peuvent sous-estimer l'atteinte de la paroi trachéale ainsi que l'invasion des structures médiastinales adjacentes, ce qui a conduit dans certaines études à des interventions chirurgicales futiles [45]. Shadmehr et al. [46] ont décrit une étude prospective dans laquelle 9% des tumeurs jugées résécables par TDM ont finalement été jugées non résécables à l'exploration chirurgicale.

Grâce aux nouvelles techniques d'acquisition d'images qui ont permis des reconstructions tridimensionnelles, la TDM thoracique pourrait remplacer l'endoscopie bronchique dans le diagnostic des tumeurs trachéo-bronchiques par la réalisation d'une endoscopie virtuelle.

L'endoscopie virtuelle est une technique 3D qui offre une vue en perspective réaliste de la lumière des structures explorées (arbre bronchique, vaisseaux), permettant une exploration en temps réel et d'interagir avec l'anatomie extraluminale inaccessible à l'endoscopie réelle [59]. Ceci est très utile chez les patients auxquels la bronchoscopie est contre-indiquée ou chez les patients avec des lésions empêchant le passage du bronchoscope [47]. Mais l'avantage indéniable de l'endoscopie reste la réalisation de biopsies tumorales, même si ces dernières ne sont pas obligatoires lorsque la tumeur est jugée résécable [48].

la TDM avec l'endoscopie virtuelle ont été sensibles dans 90 % des cancers endoluminaux et 100 % dans le cas des tumeurs obstructives des voies respiratoires [49].

Le carcinome adénoïde kystique se développe généralement dans la moitié inférieure de la trachée et l'axe principal des bronches, avec une croissance à la fois endo et extraluminale [50]. Il a une propagation sous-muqueuse microscopique et périneurale, qui est difficile à détecter à l'imagerie [51]. À part la forme d'une masse endoluminale de tissu mou, il peut aussi se manifester sous forme d'un épaissement circonférentiel ou diffus de la paroi avec ou sans sténose, mieux apprécié sur des coupes coronales et sagittales [52,53].

Le carcinome muco-épidermoïde apparaît comme un nodule intraluminal ovalaire ou multilobé qui suit dans son développement l'arborescence des voies respiratoires. Il se développe rarement au niveau de la trachée ou des bronches principales, étant le plus souvent l'apanage des bronches segmentaires. À l'examen TDM, cette tumeur est homogène et présente un rehaussement faible à l'administration de produit de contraste [54].

Dans notre étude, tous les patients ont bénéficié d'une TDM thoracique réalisée dans un premier temps, confirmant l'existence d'une tumeur trachéale. Cet examen permet de mieux préparer la réalisation de la bronchoscopie, ainsi, préciser les modalités chirurgicales.



Figure 15 [23]: Tomodensitométrie avec Reconstruction coronale montrant une tumeur de l'angle trachéo-bronchique (carcinome muco-épidermoïde) (cas 1)

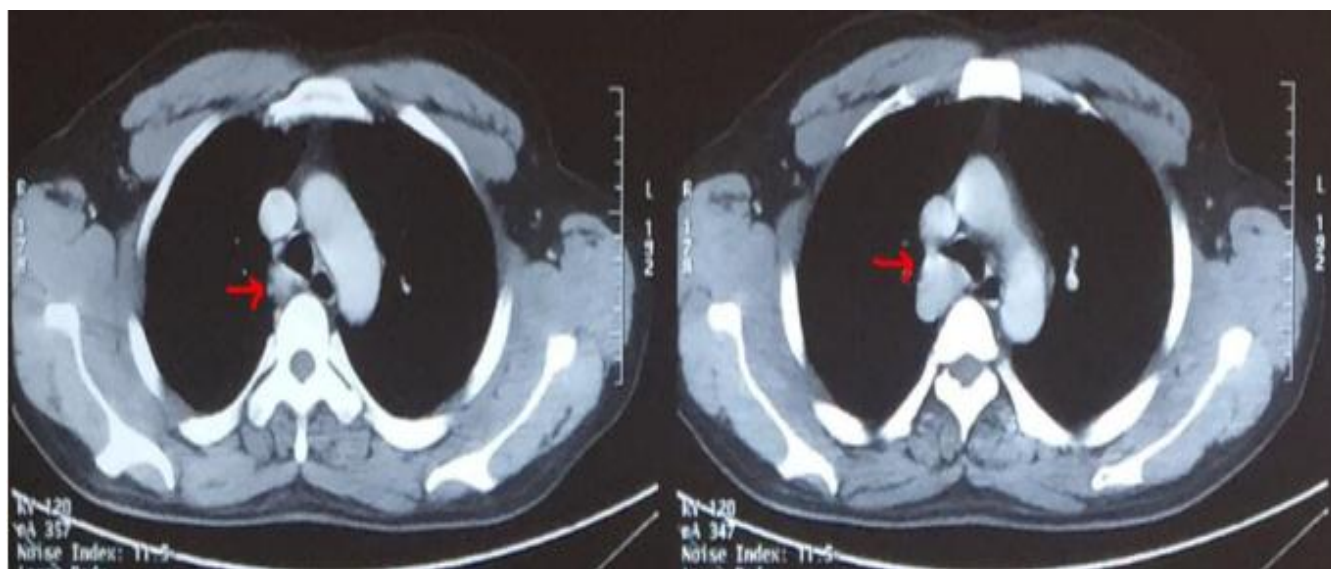


Figure 16 [23]: Tomodensitométrie en coupe axiale montrant un CAK sous et retro-carinaire droit prenant le contraste, refoulant la paroi postérieure de la bronche souche droite et englobant la crosse de l'azygos (flèche), (cas 1)



Figure 17 [23]: Reconstruction sagittale de la trachée montrant un CAK se présentant sous forme d'un épaissement de la paroi du tiers moyen de la trachée (cas 2)



Figure 18 [23]: Tomodensitométrie en coupe axiale montrant un CAK du tiers moyen de la trachée mesurant 4 cm et obstruant 90 % de la lumière trachéale, sans signe d'extension locorégionale (flèche), (cas 3)

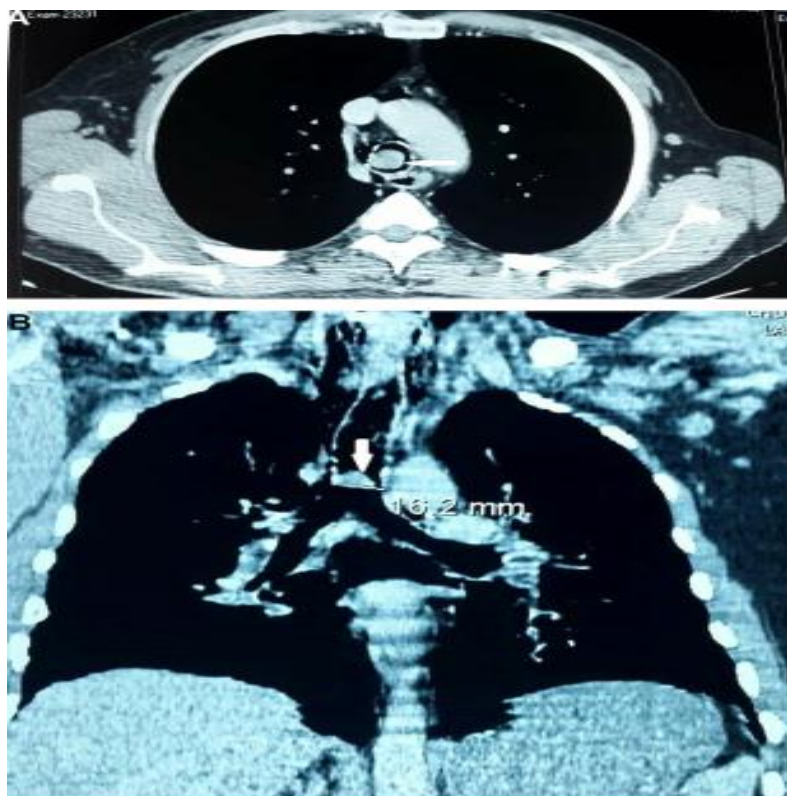


Figure 19 [23]: Tomodensitométries en coupe axiale (A) et coronale (B) montrant un processus tumoral pédiculé mesurant 16,2 mm, obstruant 80 % de la lumière trachéale et se situant à 6 mm de la carène (adénome pléomorphe) (flèche) (cas 4)

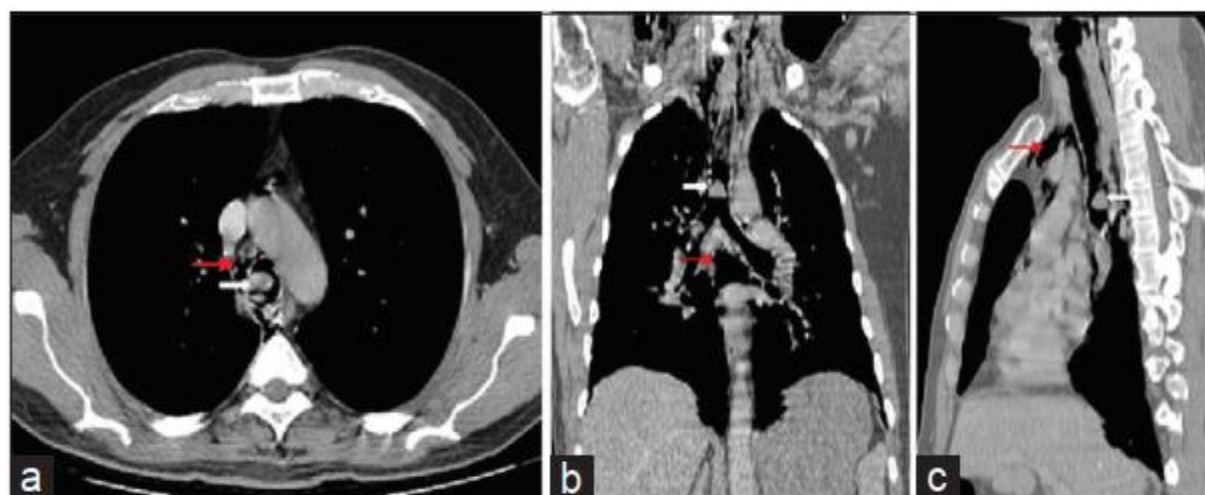


Figure 20 [9]: TDM thoracique, (a) coupe axiale avec reconstructions coronales et sagittales (b) et (c). Les images montrent un adénome pléomorphe sous forme d'une lésion endo-trachéale bien limitée mesurant 1,5 cm x 1,2 cm x 1,8 cm localisée dans la trachée distale, immédiatement au-dessus de la carène, avec une obstruction presque totale de la lumière (cas 6)

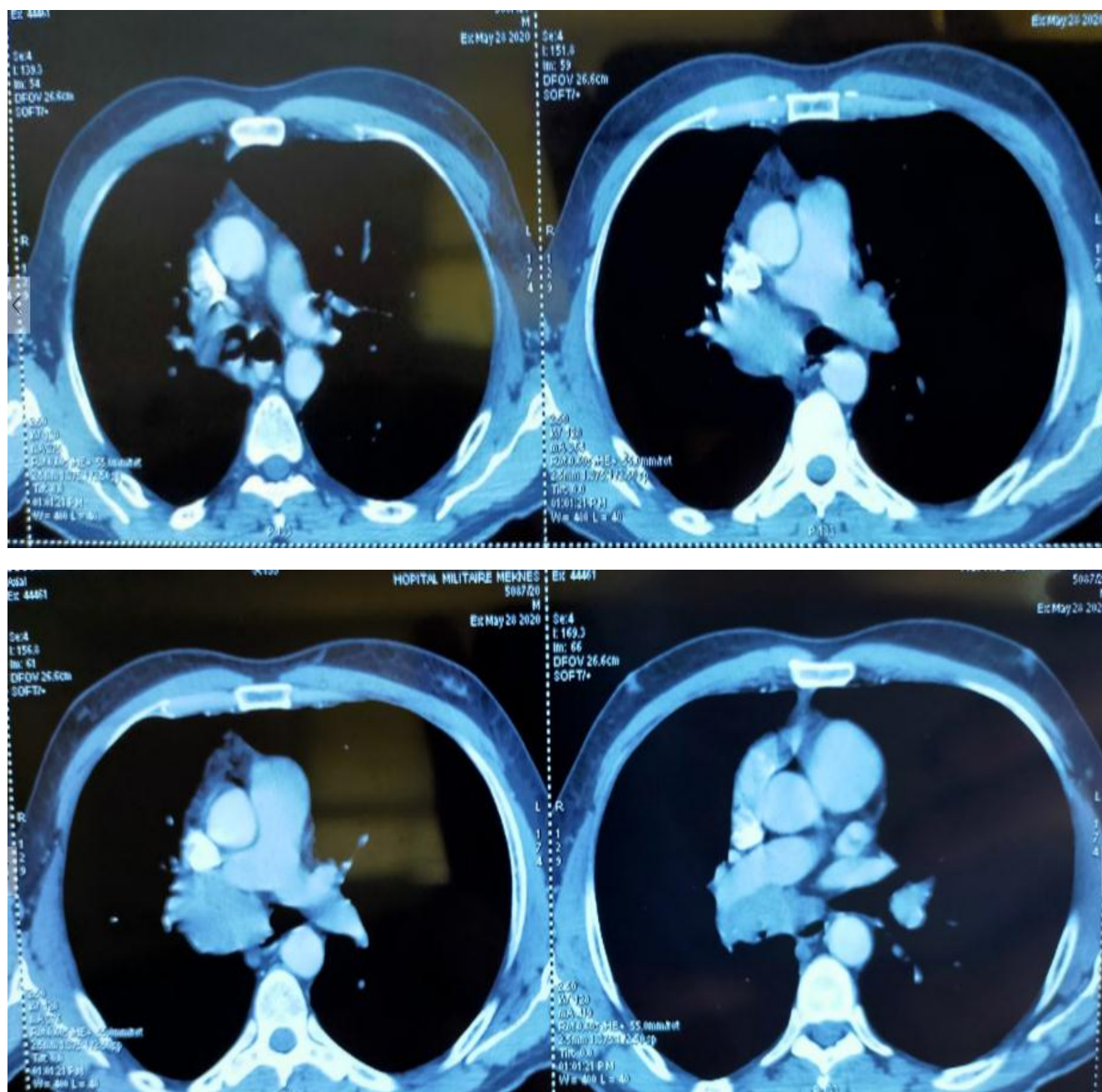


Figure 21 [23] : tomodensitométrie en coupe axiale montrant un CAK sous forme d'un processus hilair droit englobant totalement la BSD, de contours irréguliers, envahissant l'artère pulmonaire droite, à moins de 1 cm de la carène, faiblement rehaussé au PDC (cas 7)

3. Endoscopie trachéale

Il s'agit d'un examen essentiel dans le cadre du bilan d'une tumeur de la trachée. Elle est réalisée en général après l'exploration radiologique et permet d'effectuer des biopsies de la tumeur et d'informer sur l'étendue de la lésion.

Le diagnostic de lésion tumorale, que celle-ci soit bénigne ou maligne, est évoqué devant un aspect anormal de la muqueuse, plus ou moins bourgeonnant, plus ou moins lisse, de taille et de couleur variable, parfois ulcérée. L'utilisation de la technique spectroscopique pendant la bronchoscopie permet de différencier entre les lésions muqueuses bénignes et malignes [56].

Néanmoins, c'est la bronchoscopie rigide qui apporte le plus d'informations sur l'extension intraluminaire de la tumeur, l'exploration étant de meilleure qualité et les mesures plus précises. Cet examen est réalisé sous anesthésie générale avant l'intervention chirurgicale [55]. En plus de l'exploration endotrachéale et de multiples biopsies, la bronchoscopie a un intérêt thérapeutique, elle peut permettre la résection partielle de tissu tumoral en cas d'obstruction aiguë, le contrôle d'un saignement, la dilatation de sténoses tumorales ou la mise en place d'endoprothèses en cas de fistule œso-trachéale.

Certes, la bronchoscopie souple est généralement bien tolérée, elle peut être insérée par voie nasale ou par voie orale, chez le patient éveillé ou anesthésié. Mais elle peut provoquer toux, œdème et saignement des voies aériennes, ce qui pourrait aggraver leur obstruction. Chez les patients souffrant de détresse respiratoire aiguë, l'utilisation de bronchoscopie rigide est conseillée.

Il faut noter que la fibroscopie ne fait pas toujours le diagnostic car la biopsie n'est pas toujours réalisable. Dans ce cas, il ne faut pas hésiter à opérer un malade chez qui la tumeur est jugée résécable, le diagnostic histologique se fera alors sur la pièce chirurgicale. Des études ont démontré qu'une procédure interventionnelle palliative dans les tumeurs de trachée n'avait aucun intérêt chez les patients candidats à une chirurgie d'exérèse tumorale [61].

L'échographie par l'utilisation d'une sonde endo bronchique (EBUS), améliore la sensibilité de la bronchoscopie dans l'évaluation de la profondeur de l'infiltration de la paroi trachéale et de l'invasion des structures de voisinage. Malgré cela son utilisation ne fait pas partie des évaluations de routine dans les tumeurs trachéales. [57, 58]

Bien que l'utilisation de la bronchoscopie que ça soit souple ou rigide, soit répandue, très utile et généralement sans danger, il existe de nombreuses complications potentielles qui peuvent survenir. Les complications mécaniques de la bronchoscopie sont principalement liées à la manipulation des voies respiratoires ou à des hémorragies. Les complications systémiques résultent de la procédure elle-même, l'administration de médicaments (principalement la sédation) ou les comorbidités du patient. Le Taux de mortalité attribuable à cet examen reste faible à $< 0,1 \%$ pour la bronchoscopie souple et rigide. [62]

La plupart des CAK se manifestent sous la forme de tumeurs iceberg ou de tumeurs montrant des lésions circonférentielles et croissance infiltrante, alors que la plupart des CME se présentaient comme un nodule intraluminal.

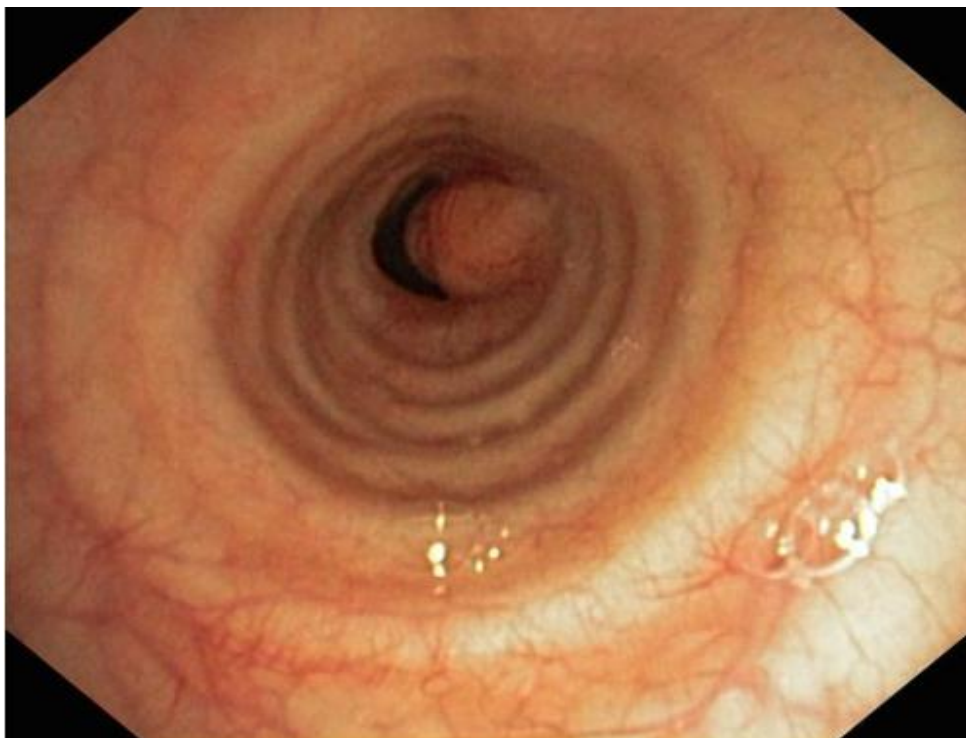


Figure 22 [23]: Aspect endoscopique d'un CAK de la paroi latérale gauche, avec obstruction presque totale de la lumière trachéale

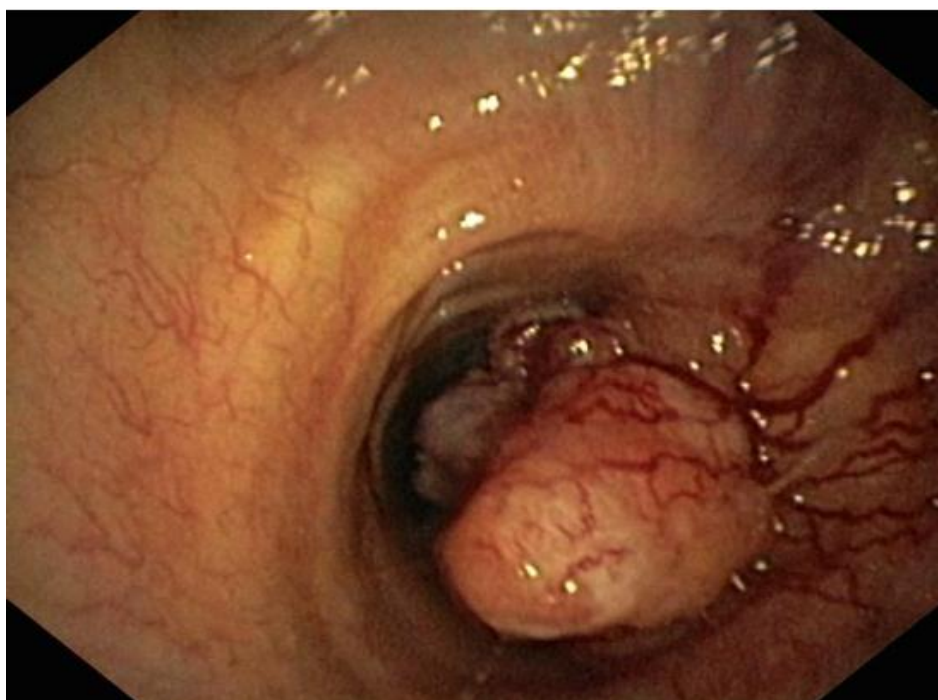


Figure 23 [23]:Aspect endoscopique d'un CAK : Présence au niveau du bord latéral gauche de la trachée d'un bourgeon lisse traversé de lacis veineux, obstruant la trachée à 80%



Figure 24 [23]: Aspect endoscopique d'un bombement sous muqueux, rougeâtre, saignant au contact, développé au dépend de la trachée basse et le départ de la bronche souche droite. CME (cas 1)

Table [60]: Avantages et inconvénients de la bronchoscopie souple vs bronchoscopie rigide

Bronchoscopie souple

Pour

Elle peut être faite au chevet du patient

Elle ne nécessite pas d'anesthésie générale et peut être effectuée sous la sédation consciente

Elle nécessite une ventilation spontanée

Faite en position debout

Elle peut être manœuvré vers les zones périphériques du poumon pour une meilleure visualisation

Contre

Risque d'œdème laryngé, de saignement et de pneumothorax

Nécessite la fragmentation du corps étranger avant son retrait

Petite taille du canal d'aspiration

Bronchoscopie rigide

Pour

Lorsque la perméabilité des voies aériennes est compromise par la granulation du tissu tumoral, le bronchoscope rigide est le seul instrument qui peut être inséré au-delà de l'obstruction

Faite en position couchée

Contre

Faite en salle d'opération

Nécessite une ventilation

Les dents peuvent être endommagées

Visualisation limitée

Les caractéristiques fibroscopiques des tumeurs retrouvées chez nos patients en comparaison avec d'autres séries peuvent être résumées dans le tableau suivant :

Etude	Effectif	Type histologique	Taille moyenne de la tumeur (extrêmes)	Localisation centrale (trachée et bronches souches)
Molina et al	62	CAK (64.5%) CME (32.3%)	2.4 cm	70.7%
Zhu et al	88	CME (78.4%) CAK (13.6%) CEM (7.9%)	2.5 cm	15.9%
Mondal et al, [70]	7	CAK (100%)	(2.6–3.8cm)	----
Kang et al	48	CME (54.1%) CAK (41.7%) CEM (4.2%)	3.4cm (0.5–12cm)	37.5%
Pandey et al	7	CAK (57.1%) CME (42.9%)	3.5cm (1.7–8cm)	100%
Notre étude	7	CAK (4 cas) CME (1 cas) AP (2 cas)	(1.62–4cm)	100%

3.1 Taille de la tumeur

Les données du tableau ci-dessus qui regroupe plusieurs études montrent que la taille de la tumeur variait entre 0.5 cm et 12 cm. Il n'existe pas de différence de taille entre les différents sous type histologique. Cependant, une étude chinoise avait trouvé que la taille moyenne des tumeurs à localisation périphérique était nettement plus importante que celle des tumeurs centrales. Ceci pourrait être expliqué par 2 raisons. Premièrement, les lésions centrales provoquent plus souvent une obstruction des voies respiratoires, ces lésions deviennent symptomatiques à un stade plus précoce que les lésions périphériques. En conséquence, les patients atteints de tumeurs centrales ont tendance à être diagnostiqués avant que la tumeur ne devienne grosse. Deuxièmement, les voies respiratoires limitent la croissance des tumeurs centrales mais pas des tumeurs périphériques. [38]

3.2 Localisation de la tumeur

La plupart des tumeurs primitives de la trachée, tous types confondus, chez l'adulte surviennent dans la Partie distale de la trachée [67].

Selon les différentes séries, La localisation des tumeurs primitives de type glande salivaire a été signalée comme étant des voies aériennes centrales (trachée et bronches souches) dans 15,9 % à 100 % des cas. Le CAK semble être plus central que le CME (61,3 % contre 26,5%). [65, 71]

Le CAK Occupe la deuxième place parmi toutes les tumeurs trachéales après le carcinome épidermoïde [1]. La plupart des CAK sont principalement observés dans le tiers inférieur de la trachée et au niveau des bronches souches. Une localisation périphérique ou segmentaire est peu fréquente (10 % des cas). Les CME sont plus souvent localisés dans les bronches segmentaires, rarement dans la trachée et le tronc trachéo-bronchique [66]. Ils représentent moins de 1 % des tumeurs de la trachée [68]. Abdennadher et al. Ont recensé pendant 29 ans 22 cas de carcinomes muco-épidermoïdes trachéobronchiques, dont 2 seulement étaient de localisation trachéale [69]. Wang et al, dans une étude comparative entre le CAK et le CME, Parmi les 115 patients inclus dans cette étude 13 cas (11,3 %) dans le groupe des CME avaient des tumeurs dans la trachée, contre 124 des 191 cas (64,9%) dans le groupe des CAK qui étaient de localisation trachéale [14].

Dans notre étude, toutes les tumeurs de type glandes salivaires retrouvées étaient de localisation centrale, avec 7 cas au niveau de la trachée et un cas au niveau de la BSD étendu à la carène.

4. Explorations Fonctionnelles Respiratoires [43]

Les tests fonctionnels respiratoires sont un outil accessible et non invasif qui peut être facilement effectué et peuvent offrir des indices importants pour le diagnostic des tumeurs trachéales (figure 25).

L'effet des lésions anatomiques sur le débit d'air maximal dépend du site, et de l'étendue de l'obstruction anatomique. Chez les patients avec une obstruction extra thoracique, le débit inspiratoire maximum est diminué. Une obstruction fixe se traduira par une diminution du DEP au peak flow.

En outre, le débit inspiratoire maximal à 50% de la capacité vitale forcée (MIF50) sera diminué et égale approximativement au débit expiratoire maximal à 50% de la capacité vitale (DEM50). Ceci par conséquent résultera d'un rapport MIF50/DEM50 d'approximativement 1.

Par contre, une obstruction non-fixée extra-thoracique se traduira par une diminution du (MIF50) mais un débit expiratoire de pointe normal ou diminué, et par conséquent un rapport MIF50 / DEM50 réduit de généralement moins de 1.

Une obstruction des voies aériennes intra-thoracique est caractérisée par un DEP diminué, une MIF50 normale ou diminué, et par conséquent un rapport MIF50 / DEM50 supérieur ou égal à 1.

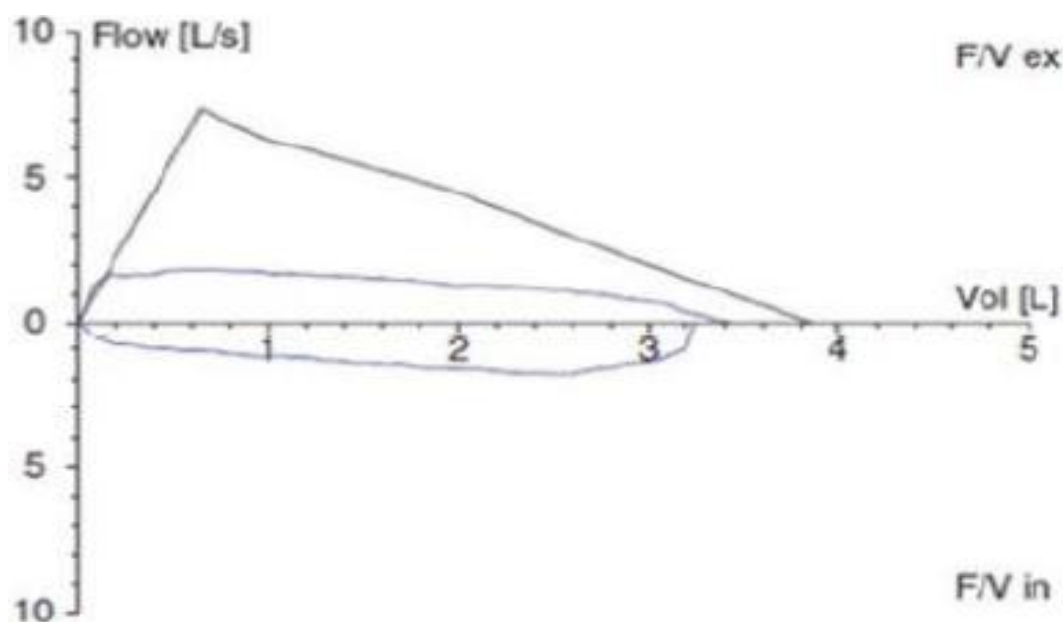


Figure 25: Courbe débit-volume montrant une obstruction sévère de la voie aérienne causée par une tumeur intra-trachéale. Notez l'aspect de cassure des courbes d'inspiration et d'expiration.

Dans notre série, deux patients ont bénéficié d'une spirométrie pré- opératoire revenant en faveur d'une obstruction fixée intra-trachéale chez le premier patient, un trouble ventilatoire d'allure restrictif chez le second.

5. Imagerie par résonance magnétique

L'utilisation de l'IRM pour l'imagerie de la trachée présente de nombreux avantages et inconvénients. Cependant La tomodensitométrie reste supérieure à l'IRM en raison de sa rapidité et sa grande disponibilité, ainsi, en termes de sa résolution spatiale et généralement moins d'artefacts par rapport à l'IRM. Parmi les avantages de l'IRM, c'est qu'elle offre un contraste supérieur des tissus mous, notamment pour délimiter les plans entre la trachée et les structures adjacentes. En outre, l'IRM permet une meilleure visualisation des structures vasculaires, qui est très utile en cas d'insuffisance rénale ou une allergie aux produits de contraste iodés qui contre indiquent l'utilisation de ces derniers [72]. Egalement L'IRM est supérieure au scanner en ce sens qu'il n'y a pas de radiation ionisante, ce qui la rend très utilisée dans le cas des enfants ou des jeunes adultes qui ont besoin d'imageries répétées, afin de diminuer les risques associés à l'exposition aux rayonnements.

Une étude chinoise, affirme que l'IRM a été très utile dans les cas de CAK, permettant l'évaluation avant traitement et l'évaluation de la réponse thérapeutique en termes de récurrence possible de la maladie et de changements induits par les radiations [38]. Dans notre étude, l'IRM a été réalisée chez deux patients, le résultat était en faveur d'un processus tumoral hilaire droit localement avancé, classé T4N0M0 avec envahissement de l'artère pulmonaire droite et la carène (cas 7); tumeur précarinaire droite sans envahissement vasculaire (cas 1).

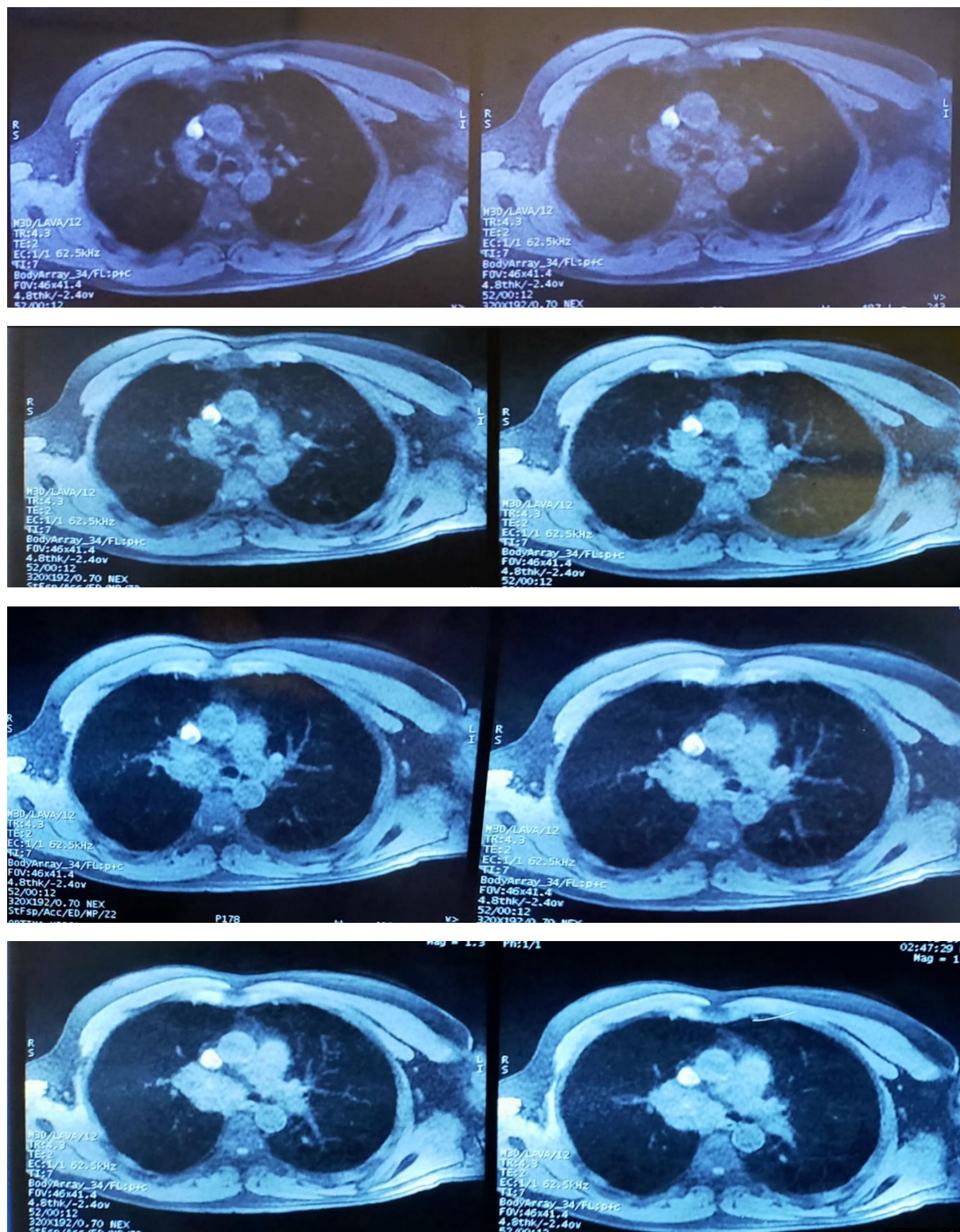


Figure 26 [23] : IRM thoracique montrant un processus tumoral hilair droit localement avancé, classé T4N0M0 avec envahissement de l'artère pulmonaire droite et la carène (CAK) (cas 7)

VI. Prise en charge thérapeutique :

Trois modalités thérapeutiques peuvent être utilisées seules ou associées [73] :

- La chirurgie
- La radiothérapie
- Et l'endoscopie interventionnelle

Un avis chirurgical doit systématiquement être demandé dans le cas des tumeurs trachéales.

Dans notre série, aucun patient n'a bénéficié d'endoscopie interventionnelle.

1. Evaluation pré-anesthésique :

Tous les patients ont bénéficié d'une consultation pré anesthésique ainsi que des bilans pré opératoires qui en découlent. Le dossier de chaque patient candidat à une résection anastomose trachéale ou bronchique a été discuté en réunion de concertation pluridisciplinaire réunissant chirurgiens thoraciques, pneumologues et oncologues. Une fois l'indication chirurgicale est retenue, le dossier est discuté avec les anesthésistes réanimateurs afin de décider des modalités d'intubation trachéo-bronchique et ventilation préopératoire.

2. Prise en charge opératoire :

2.1 La chirurgie :

Les problèmes posés par le traitement des pathologies de la trachée ont été progressivement résolus, sous l'impulsion de l'équipe de Grillo, pour permettre, de nos jours, une chirurgie trachéale parfaitement standardisée et sécurisée pour les lésions inférieures à 5–6 cm [74, 75].

La technique chirurgicale de référence est la résection–anastomose trachéale. Ainsi, la sélection des patients est primordiale en fonction de la taille de la tumeur, son étendue, sa localisation, l'existence ou non de métastase ganglionnaires ou à distance, et en fonction des comorbidités du patient. Cette approche, couplée ou non à un traitement par radiothérapie, améliore de façon significative la survie à long terme et peut même être un traitement curatif radical chez les malades. La chirurgie peut également jouer un rôle diagnostique chez les patients dont le diagnostic histologique n'a pas été fait sur biopsie, mais qui sont jugés opérables.

Comme la plupart des tumeurs trachéale, la chirurgie reste la meilleure option thérapeutique pour le traitement des tumeurs de type glande salivaire y compris les formes bénignes de ces tumeurs, comme l'adénome pléomorphe qui malgré une résection endoscopique possible, la chirurgie ouverte est souvent indiqué en raison de l'incidence élevé des récurrences, et du risque de transformation maligne [95, 97].

2.1.1 Installation du malade :

- Quand le processus est situé dans la moitié supérieure de la trachée, le malade est placé en décubitus dorsal avec un billot sous les épaules mettant le cou en hyper extension.
- Quand le processus est situé dans la moitié inférieure de la trachée, le patient est placé en décubitus latéral gauche, tête antéfléchie.

2.1.2 Choix de la technique de ventilation

	Avantages	Inconvénients
Intubation conventionnelle suivie d'une intubation à travers le champ opératoire	– Protection partielle contre l'issue de sang dans le segment trachéal distal	– Ventilation difficile (si sténose très serrée) avant l'ouverture trachéale – Risque d'extubation lors de l'installation si la sténose n'est pas franchie – Risque de ventilation uni pulmonaire lors de l'utilisation de la sonde du champ opératoire
intubation conventionnelle avec un tube de petit diamètre	– Diminution de l'encombrement du champ opératoire facilitant le geste chirurgical – Protection totale contre l'issue de sang dans le segment trachéal distal	– Nécessité d'une dilatation trachéale préalable (si sténose trachéale très serrée) – Risque d'intubation sélective – Risque de lésion du ballonnet obligeant à changer de sonde
Jet-ventilation à haute fréquence	– Champ opératoire libre facilitant le geste chirurgical	– Risque d'hypoventilation et/ou d'hypoxie – Absence de protection contre l'issue de sang dans le segment trachéal distal – Risque de barotraumatisme en cas de déplacement en distalité de l'extrémité du catheter

Dans notre étude, pendant le temps de résection trachéale et d'anastomose, la ventilation du bout trachéal inférieur était assurée par l'intubation du bout inférieur à travers le champ opératoire chez l'ensemble de nos malades, sauf pour un patient ayant une tumeur envahissant la carène et la BSD qui a bénéficié d'une CEC.

2.1.3 voies d'abord :

Les voies d'abord des tumeurs de la trachée peuvent être résumées comme suit :

➤ Voie cervicale et cervico-thoracique haute : La voie d'abord est une large cervicotomie en « V » dont la pointe inférieure amorce une éventuelle incision pour sternotomie partielle ou totale. Après décollement cutané vers le haut et le bas, on sectionne verticalement l'aponévrose cervicale au niveau de la ligne blanche. Le danger de cette voie d'abord est représenté surtout en haut par les récurrents qui sont situés à proximité de l'angle trachéo-œsophagien. Un bon moyen de les protéger consiste à passer au plus près de la trachée, quitte à en laisser un fragment et à éviter la région cricotrachéale postérieure.

➤ Voie thoracique haute : La voie d'abord est une cervico-manubriotomie ou une cervico-sternotomie totale. Au niveau du médiastin supérieur, l'accès de la trachée est barré par deux vaisseaux, le tronc veineux innominé qui peut être lié, et le tronc artériel brachio-céphalique qui, lui, ne peut être que mobilisé dans sa graisse.

➤ Voie thoracique basse : Au niveau thoracique bas, trois types d'incisions sont possibles : la sternotomie médiane totale, la thoracotomie postérolatérale droite dans le quatrième espace intercostal et la voie de Grillo

Dans la série de Scheider [76], avec 7 cas de CAK, 2 cas de CME, 1 cas d'adénome pléomorphe, et 4 cas de type histologique autre que le type glande salivaire, 8 patients ont bénéficié d'une cervico-sternotomie, la thoracotomie postéro-latérale a été réalisée chez 3 patients, et la sternotomie totale chez 1 patient.

Dans notre série, 4 patients ont bénéficié d'une thoracotomie postéro-latérale droite, 1 patient d'une cervicotomie avec manubriotomie, une cervicotomie seule a été réalisée chez 1 patient (figure 27) et une sternotomie totale chez 1 patient.

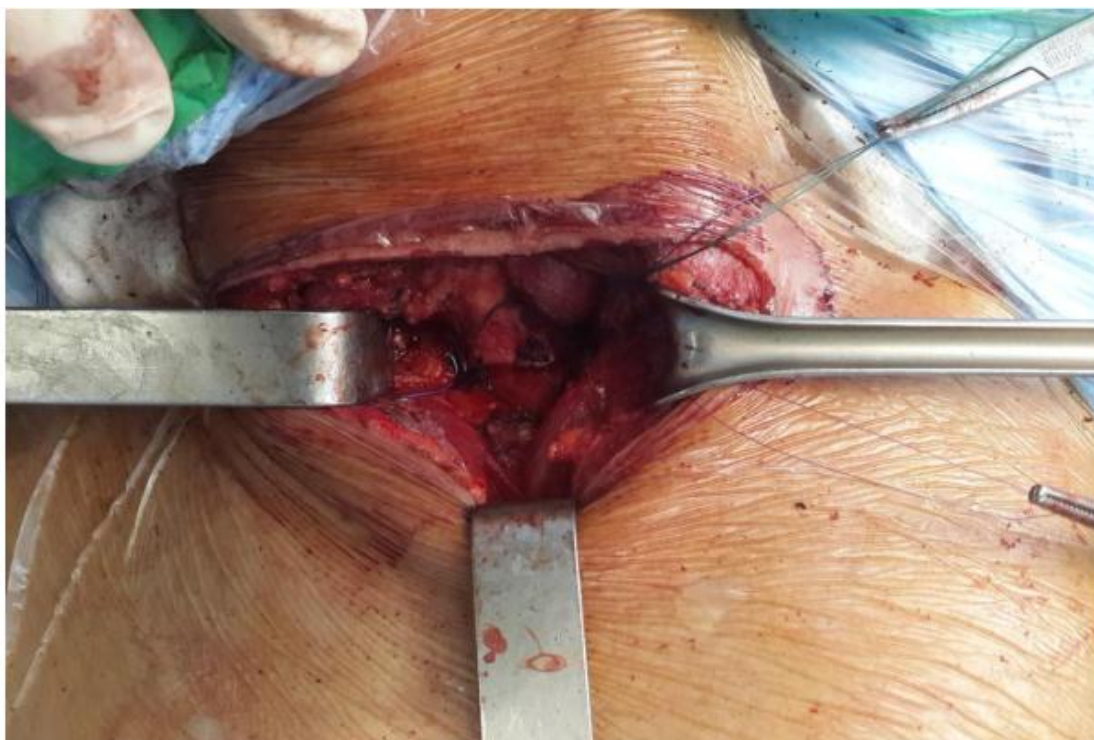


Figure 27 [23]: Cervicotomie chez un patient porteur d'un CAK au niveau du tiers supérieur de la trachée

2.1.4. Technique chirurgicale : La résection-anastomose

La technique chirurgicale de référence est la résection-anastomose trachéale. Elle possède cependant quelques variantes selon la localisation et l'étendue de la tumeur. Après résection trachéale en zone saine (avec vérification anatomopathologique extemporanée si doute concernant l'envahissement des marges de résection), une anastomose « bout-à-bout » est réalisée, idéalement par surjet sur la membraneuse et points séparés sur le cartilage au fil résorbable. Des techniques de plastie trachéale ont été décrites pour lutter contre d'éventuelles incongruences. Des techniques de mobilisation laryngée ou médiastinale sont également utilisées pour diminuer le risque de tension anastomotique et donc de fistule. Cette chirurgie nécessite une très bonne évaluation des risques (comorbidités) en préopératoire et une préparation intensive des malades sur le plan respiratoire.

[37]

La chirurgie est contre indiquée quand la résection complète de la tumeur pourrait excéder 50% de la longueur de la trachée, ou si la taille de la tumeur est > 5-6 cm ce qui résulterait d'une tension excessive sur cette dernière, mais aussi quand la tumeur a envahi d'autres organes de voisinage (aorte, cœur), que le médiastin ait déjà reçu de hautes doses d'irradiation, ou une invasion importante des ganglions lymphatiques.

Il faut noter que dans le cas du CAK, et vu son développement très lent, une résection chirurgicale peut quand même être envisagée dans ces cas et être bénéfique pour le malade.

Dans l'étude de Schneider, la résection-anastomose a été utilisée chez tous les patients. Dans notre série, 71% des patients ont bénéficié d'une résection anastomose proprement dite, 14% d'une résection latérale avec plastie en « V » sur la carène, 14% d'une pneumonectomie droite élargie à la carène avec anastomose trachée-BSG sous CEC.

Le tableau suivant illustre les procédures chirurgicales utilisé dans d'autres séries pour les tumeurs de type glandes salivaires de l'arbre trachéo bronchique :

Etude	Procédures chirurgicales
Molina et al	Lobectomie (44.2%) Résection trachéale (25.6%) Pneumonectomie (18.6%) Résection élargie (9.3%)
Maziak et al [77]	Résection trachéale (93.7%) avec résection de la carène ± résection pulmonaire (40%)
Kang et al	Lobectomie élargie (31.2%) bi lobectomie élargie (27.1%) Résection trachéale (16.7%) Pneumonectomie (14.6%) Résection de la carène élargie (10.4%)
J. Honings et al [94]	Résection laryngo- trachéale (11%) Résection trachéale (47%) Résection trachéale avec trachéostomie permanente (6%) Résection de la carène sans résection pulmonaire (24%) Résection de la carène avec résection pulmonaire (11%)
Notre étude	Résection anastomose trachéale (71%) Résection latérale avec plastie en « V » sur la carène (14%) Pneumonectomie droite élargie à la carène (14%)

2.1.5. Temps chirurgicaux

➤ Premier temps : La libération de la trachée

La libération de la trachée par dissection doit être atraumatique afin d'obtenir des extrémités saines et bien vascularisées.

Après avoir abordé la face antérieure de la trachée, on la libère au doigt sur ses faces antérieures et latérales en respectant les angles postérolatéraux riches en vaisseaux.

➤ Deuxième temps : La Résection

La résection doit passer dans des zones saines, et ne pas hésiter à demander un examen extemporané à cette fin, si l'étendue de la résection peut être élargie.

➤ Troisième temps : L'anastomose

L'assistance ventilatoire après incision trachéale a été assurée par une intubation à travers le champ opératoire dans 6 cas, le septième cas avait bénéficié d'une CEC.

Toute l'opération doit être menée avec un grand souci d'asepsie : aspiration des sécrétions trachéo-bronchiques, protection du champ opératoire pour éviter toute souillure cervico-médiastinale, lavage du champ opératoire à l'aide d'eau et/ou d'antiseptiques.

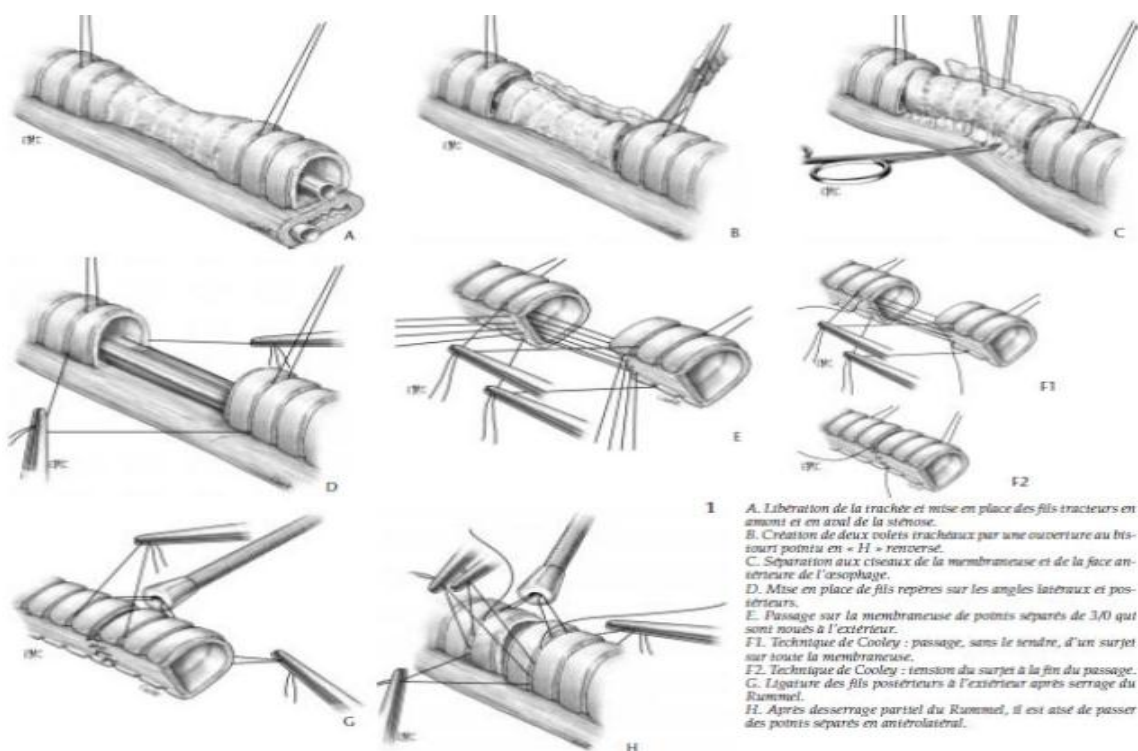


Figure 28 [78] : Résection anastomose termino-terminale de la trachée

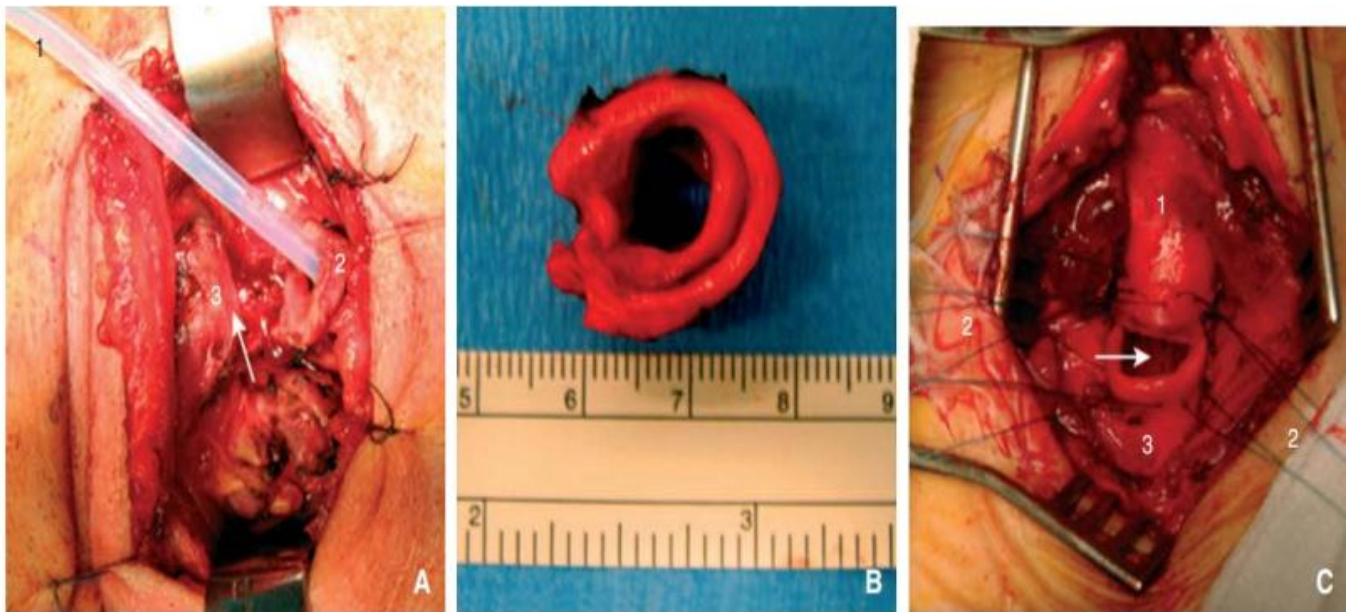


Figure 29 [79]: Résection anastomose

_ Problèmes de congruence : La différence de calibre entre les deux extrémités à anastomoser nécessite des artifices techniques simples (figure 30) : Au niveau de la membraneuse, ceci ne pose jamais de problème car elle est extensible ou au contraire, elle peut être plissée (figure 30 A). Au niveau cartilagineux, une section oblique ou en «V» est toujours possible (figure 30 B).

Dans tous les cas, trois repères restent fixes : les deux angles latéraux et le milieu du cartilage. C'est là que sont placés les premiers points qui servent de tracteurs.

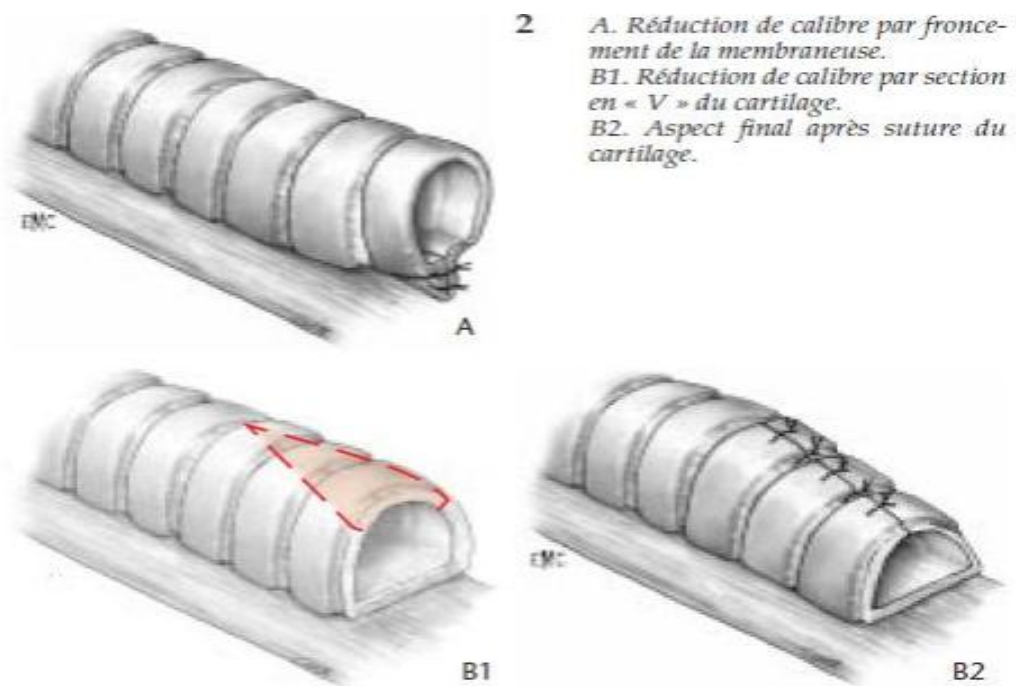


Figure 30 [98]

2.1.6. Techniques de mobilisation

Jusqu'à 3 cm de résection, la simple libération trachéale permet une anastomose sans traction excessive. Entre 3 cm et 6 cm, on a recours à des artifices per- et postopératoires.

Pendant l'intervention la libération de la trachée peut porter sur deux extrémités :

- Libération de la portion inférieure : Section des ligaments triangulaires [80]
- Libération de la portion supérieure : Abaissements laryngés (Dedo Montgomery)

Chaque fois qu'une cervicotomie est réalisée, il est possible d'abaisser le larynx grâce à deux types de manœuvres :

– Technique de Dedo-Fishman [81]

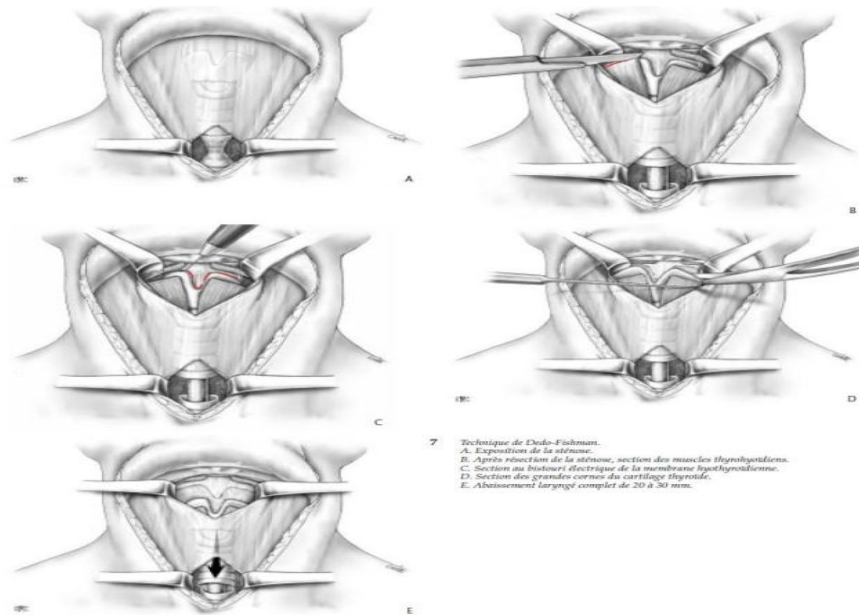


Figure 31 [98]: Technique de Dedo-Fishman

- A. Exposition de la sténose.
- B. Après la résection de la sténose, section des muscles thyro-hyoïdiens.
- C. Section au bistouri électrique de la membrane hyo-thyroïdienne.
- D. Section des grandes cornes du cartilage thyroïde.
- E. Abaissement laryngé complet de 20 à 30 mm

– Technique de Montgomery [82]

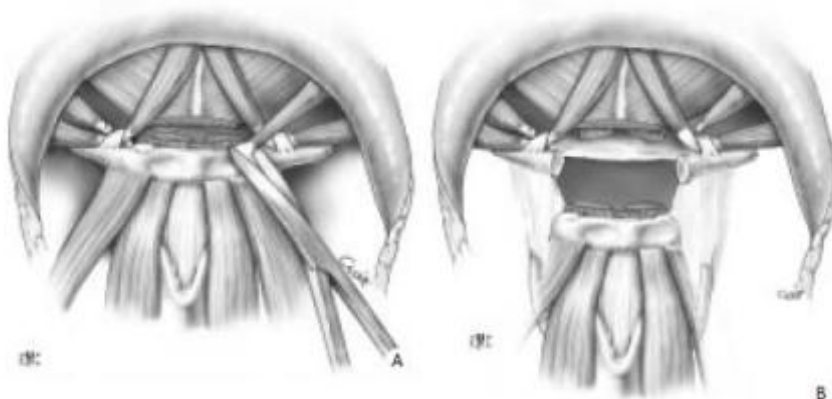


Figure 32 [98]: Technique de Montgomery

- A. Section des petites cornes de l'os hyoïde et des muscles insérés sur sa face postérieure.
- B. Section et mobilisation du corps central de l'os hyoïde en dedans des grandes cornes

2.1.7 Mesures postopératoires

Toute résection étendue nécessite une position de relaxation de la trachée : tête fléchie. Lors de résections étendues, cette position doit être maintenue pendant 5 à 7 jours par de simples coussins chez le patient coopérant, par un fil sterno-mentonnier ou une gouttière plâtrée dans les autres cas.

Dans notre série, un fil sterno-mentonnier a été mis en place chez quelques patients, ceux avec une RAT de plus de 3 cm, afin de maintenir l'anastomose trachéale en place. L'ablation des fils s'est faite vers le 7ème jour.

2.1.8. Problèmes particuliers des résections de carène

Le problème est différent selon que l'on envisage une exérèse pulmonaire associée ou non.

- Résection partielle de la carène dans le cadre d'une pneumonectomie droite

Nous avons réalisé une pneumonectomie droite élargie à la carène avec anastomose trachée-BSG chez un patient qui avait un CAK de la BSD (cas 7).

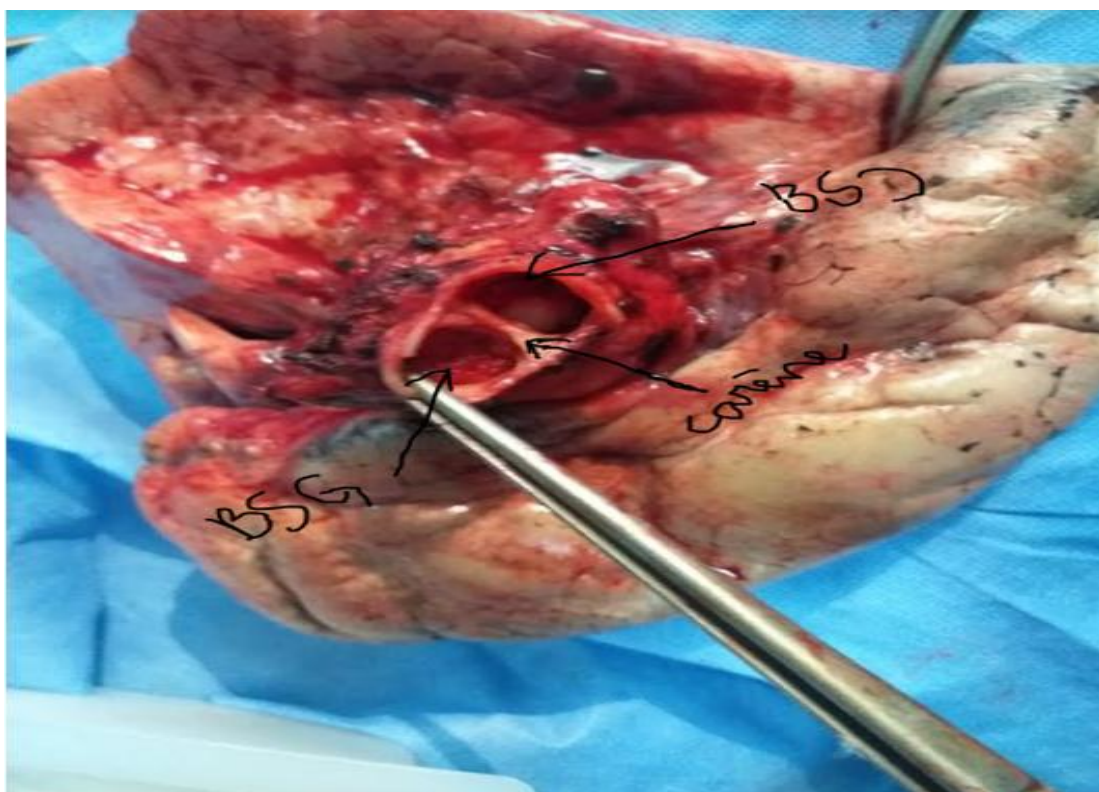


Figure 33 [23] : Pièce opératoire de la pneumonectomie droite élargie à la carène (CAK de la BSD) (cas 7)



Figure 33 bis [23] : Image de la tumeur (CAK) au niveau du hile pulmonaire (flèche)
(cas7)

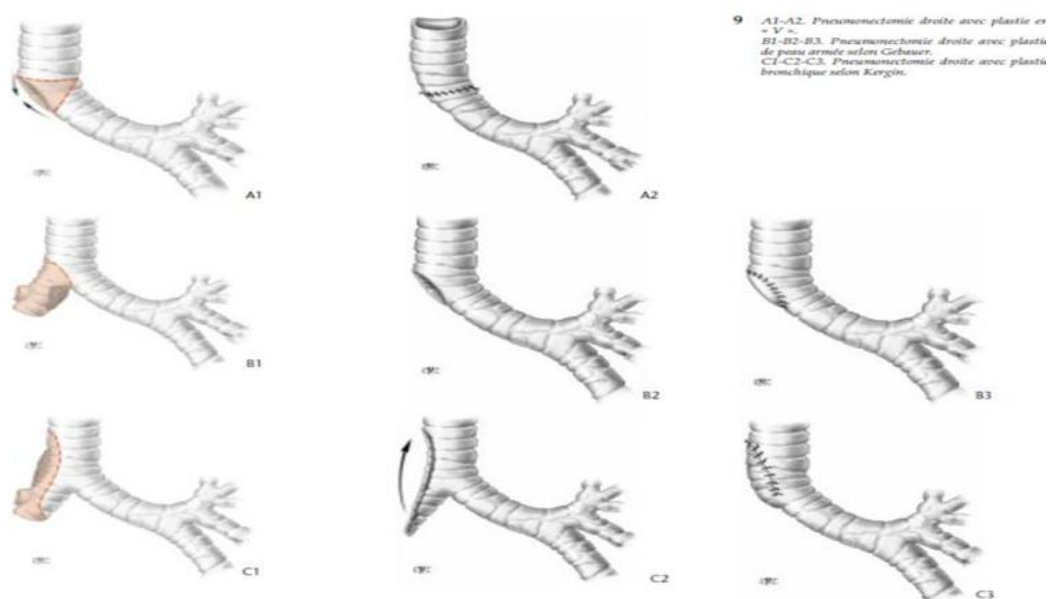


Figure 34 [98]

A1, A2 : Pneumonectomie droite avec plastie en V.

B1, B2, B3 : Pneumonectomie droite avec plastron de peau armée de Gebauer

C1, C2, C3 : Pneumonectomie droite avec plastron bronchique selon Kergin

➤ Résection complète de la carène

Opération de Barclay type (figure 35)

Cette technique n'est possible que si la bronche souche droite est laissée suffisamment longue. Elle est en tout cas difficile, car l'anastomose inter bronchique doit se faire sur la face médiastinale de l'arbre bronchique droit. Ce n'est enfin possible que si la ventilation peropératoire du poumon droit est réduite au maximum. En pratique, cette quasi-impossibilité a conduit certains auteurs à décrire les variantes suivantes.

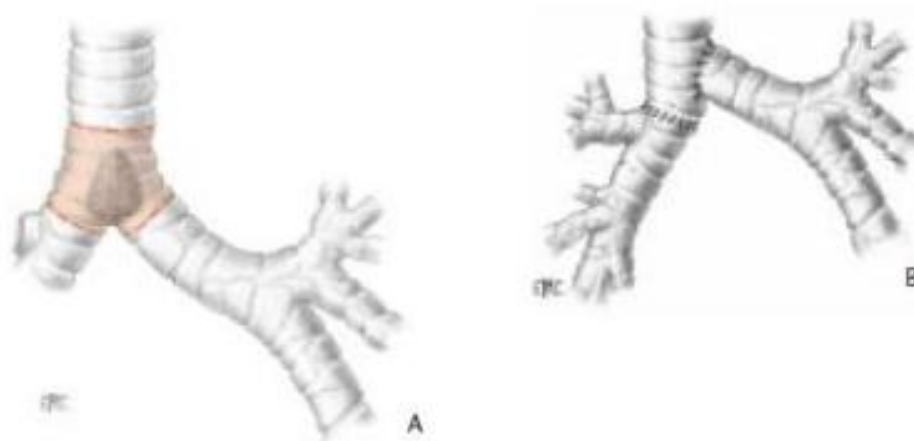


Figure 35 [98]

A. Résection de la carène avec plastie selon Barclay

B. Anastomose termino-terminale droite et latéro-terminale gauche

❖ Opération de Barclay inversée (figure 36 A, B)

Décrite par Eschapasse, elle consiste à anastomoser la bronche souche gauche à la trachée inférieure et la bronche souche droite sur la gauche. C'est la seule technique possible si la résection à droite est étendue à toute la souche avec ou sans lobectomie supérieure droite associée. Cette intervention n'est possible que si la résection trachéo-bronchique gauche ne dépasse pas 2 cm.

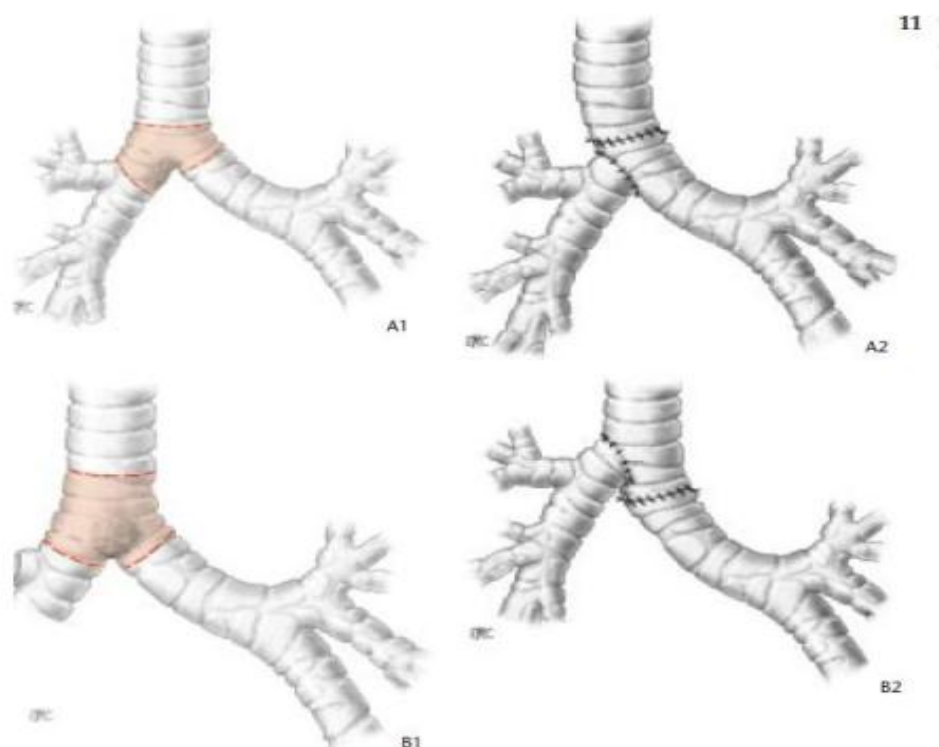


Figure 36 [98] : Technique de Barclay « inversée » selon Echapasse

A1 : Bronche souche droite courte.

A2 : Anastomose de la bronche souche droite sur la bronche souche gauche en terminolateral

B1 : Bronche souche droite longue.

B2 : Anastomose de la bronche souche droite sur la trachée en terminolateral

❖ Opération de Mathey [87] (figure 37)

Les deux bronches souches sont anastomosées en « canon de fusil » à la trachée basse, réalisant ainsi une néo carène. Cette technique n'est possible que si les bronches sont souples.

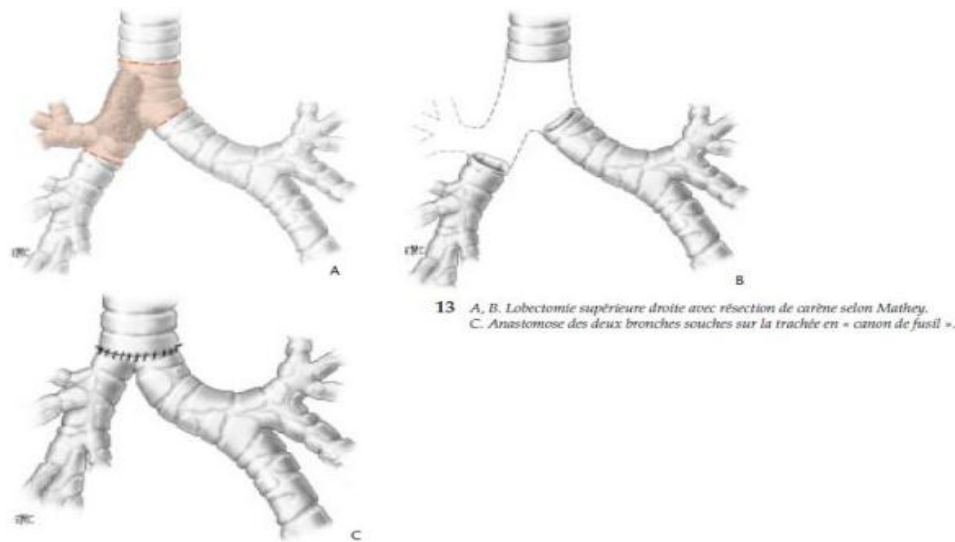


Figure 37 [98]

A, B : Lobectomie supérieure droite avec résection de la carène selon Mathey
C : Anastomose des deux bronches souches sur la trachée en « canon de fusil »

❖ Opération de Grillo [80] (figure 38)

Dans ce cas, l'anastomose de l'une des deux bronches est réalisée, non pas sur l'autre bronche, mais directement sur la trachée.

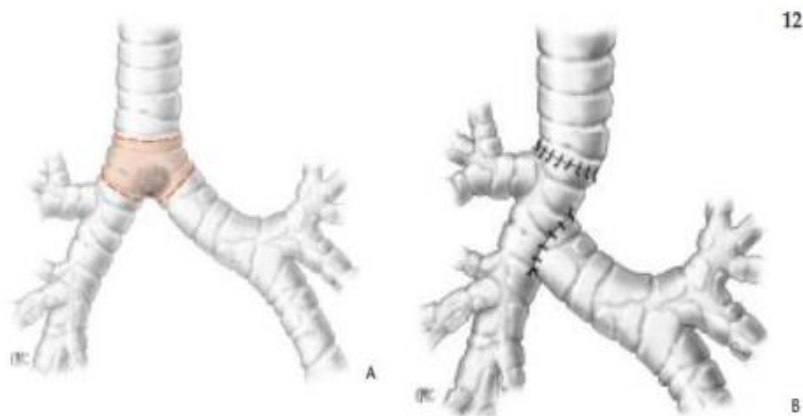


Figure 38 [98]

A. Résection de la carène selon Grillo

B. Anastomose de la bronche souche gauche sur la bronche souche droite en termino- latéral



Figure 39 [23]: Pièce d'exérèse chirurgicale d'un CME

2.1.9. Fin d'intervention

2.1.9.1. Étanchéité

L'étanchéité de la suture est vérifiée de deux manières : soit en remontant la sonde d'intubation au-dessus de l'anastomose, soit en dégonflant le ballonnet et en utilisant un packing buccal.

2.1.9.2. Couverture

Une couverture des sutures est recommandée afin de les isoler des structures vasculaires telles que le tronc artériel. On utilise en général les tissus de voisinage (muscle, plèvre, péricarde, espace intercostal, thyroïde) ou des tissus synthétiques tels que collagène et filets étanches associés ou non à de la colle biologique.

2.1.9.3. Drainage

Un drainage aspiratif type Redon au voisinage de l'anastomose est nécessaire, car il permet d'éviter les hématomes et éventuellement de parfaire l'étanchéité de la suture par accolement des tissus de voisinage.

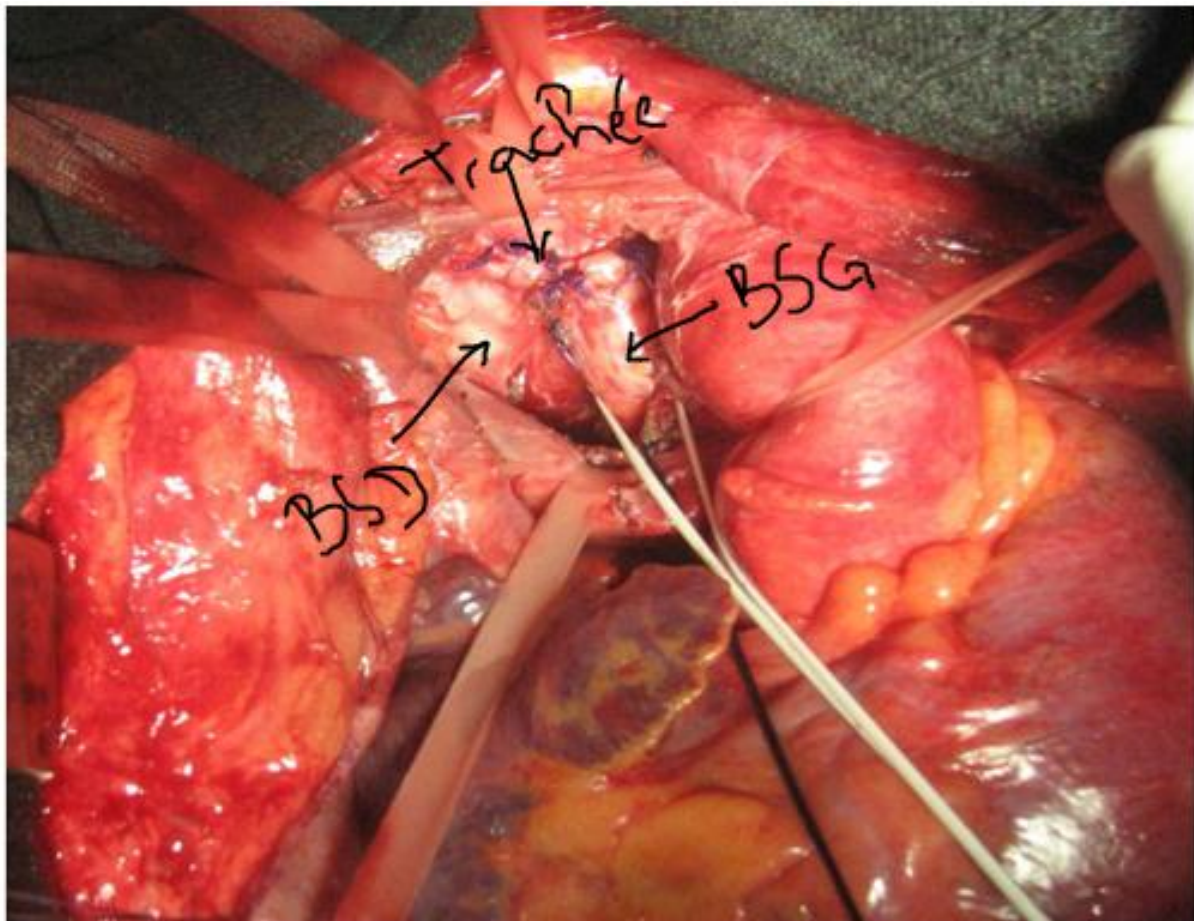


Figure 40 [23]: Photographie montrant la fin de l'intervention avec les sutures trachéales (technique de mathey)

2.1.10 Gestes chirurgicaux associés

Le rôle du curage ganglionnaire n'est toujours pas clair dans la prise en charge des tumeurs trachéo- bronchiques de type glandes salivaires, en raison de la faible fréquence d'atteinte des ganglions lymphatiques, qui varie de 0 à 20 % selon les études. [65]

Malgré cela, Le curage ganglionnaire médiastinal lors de l'intervention sur la trachée était le choix à faire, dans la plupart des séries, afin de pallier à toute éventualité d'envahissement ganglionnaire. Ce curage se doit de ne pas être trop extensif, afin de ne pas compromettre la vascularisation trachéale et aboutir à des complications anastomotiques [88]. Pandey et al, avaient réalisé un curage ganglionnaire pour tous les patients. Cependant, en aucun cas, un ganglion métastatique n'a été retrouvé.

Molina et al, ont conclu que le CAK est plus susceptible d'avoir une implication des ganglions lymphatiques que le CME. Ceci concorde avec Kang et al, qui ont trouvé que 35.3% des patients avec un CAK avaient un envahissement ganglionnaire, contre seulement 8.7% des patients avec un CME.

Dans notre série, un patient a bénéficié d'un curage de ganglions latéro-trachéaux emportés avec la pièce opératoire, qui se sont révélés négatifs à l'examen histologique. Il faut noter qu'un patient (cas 7), avait des ganglions sous carinaires envahis par contiguïté, ces derniers ont été prélevés en monobloc avec la pièce opératoire.

Le tableau suivant résume le pourcentage des ganglions envahis dans notre étude en comparaison avec d'autres études (tous types histologiques confondus) :

Etude	Pourcentage de l'envahissement ganglionnaire
Molina et al	20%
Zhu et al	11.4%
Maziak et al	13.4%
Kang et al	19%
Pandey et al	0%
Notre étude	1 cas (CAK)

2.2. Endoscopie interventionnelle

La chirurgie reste la pierre angulaire dans le traitement des tumeurs de la trachée, mais l'endoscopie interventionnelle trouve aussi certaines indications :

Elle est utilisée comme moyen thérapeutique d'urgence, avant la chirurgie, dans le cas de tumeur obstructive entraînant une détresse respiratoire aiguë, ce qui permet de gagner du temps pour préparer l'acte chirurgical.

D'autre part, elle pourrait fournir un traitement définitif curatif, dans certains cas de tumeurs bénignes ou de faible grade de malignité, chez des patients jugés non opérables pour comorbidités associées.

L'endoscopie est également utilisée à visée palliative, dans le cas de tumeur non résecable ou malade inopérable. Lorsqu'elle est associée à une radiothérapie, dans un but palliatif, elle permet d'obtenir une survie médiane de moins de 12 mois [89].

Dans notre étude aucun patient n'a bénéficié d'une endoscopie interventionnelle.

VII. Prise en charge post-opératoire

1. Extubation

La majorité des études suggèrent une extubation en post-opératoire immédiatement sur table pour éviter des lésions induites par le ballonnet au contact des sutures, et dont le succès témoigne de la réussite de la chirurgie [92].

Dans notre série, tous les patients ont été extubés sur table opératoire.

2. Traitement médical

Certaines études suggèrent la nécessité d'instaurer un traitement antibiotique à large spectre pour éviter la surinfection de la plaie et donc le lâchage de sutures.

La corticothérapie est à éviter dans les 72 premières heures puisqu'elle peut compromettre une cicatrisation correcte et efficace [93].

Dans notre étude, tous les patients ont bénéficié d'une antibiothérapie postopératoire faite d'Amoxicilline-Acide clavulanique. Aucun patient n'a bénéficié de corticothérapie systématique post-opératoire.

VIII. Suites opératoires

1. Suites simples

En règle générale, les suites d'une résection trachéale et/ou bronchique ont toutes les chances d'être simples si les deux conditions suivantes sont remplies:

- Maintien de la vacuité des voies aériennes grâce à une physiothérapie active associée à une analgésie efficace et au moindre doute, l'indication de fibroscopies permettant le nettoyage bronchique et la vérification des sutures;
- Maintien d'un bon niveau nutritionnel par l'utilisation quasi systématique d'une nutrition précoce, continue et normo calorique.

2. Suites compliquées

Les principales complications de la chirurgie de résection trachéobronchique sont étroitement liées à la qualité des sutures. Tout défaut, toute dévascularisation, peuvent entraîner :

- Dans l'immédiat : un lâchage responsable d'un emphysème cervico-médiastinal extensif avec infection cervicale et/ou médiastinale, hémorragies par ulcérations vasculaires (TABC);
- Secondairement : une sténose cicatricielle.

2.1. Lâchage précoce des sutures :

Le lâchage précoce est heureusement rare et dû le plus souvent à une faute technique en rapport : soit avec une nécrose des berges de la suture, soit avec une traction excessive au niveau des zones de sutures.

2.2. Sténose cicatricielle

La resténose tardive semble résulter également d'une suture avec traction excessive au niveau des deux berges.

Les possibilités thérapeutiques sont toujours difficiles. Parfois, un recalibrage par laser est suffisant. Une nouvelle résection-anastomose peut être proposée à certains patients, surtout lorsque la première résection trachéale a été de faible longueur et que les techniques de mobilisation laryngée n'ont pas été utilisées. Sinon, la mise en place d'une endoprothèse est possible par voie endoscopique.

2.3. Hémorragies par ulcération

Dans ce cas, le TABC est le vaisseau le plus exposé. Cette complication est devenue heureusement rare depuis que les dissections restent imitées à la région juxta-sténotique, que le tronc artériel brachiocéphalique n'est plus disséqué dans sa gaine, et que l'on réalise systématiquement une interposition, le plus souvent musculaire, entre la suture trachéale et ce vaisseau. Dans notre étude, tous les patients ont bénéficié d'une protection de l'anastomose trachéale.

Dans notre série, nous n'avons noté aucune complication concernant l'anastomose trachéale.

IX. Radiothérapie et chimiothérapie

1. Radiothérapie

En général, les traitements néo adjuvants ne trouvent pas d'indication dans les tumeurs de la trachée. La radiothérapie peut compromettre la vascularisation trachéale exposant ainsi à la déhiscence voire la désunion de l'anastomose [48].

Par contre, pour les patients présentant une marge de résection positive, en postopératoire la radiothérapie peut prolonger de manière significative la survie globale en réduisant le risque de récurrence locale, permettant ainsi d'obtenir une survie similaire à celle des personnes ayant subi une résection complète [99].

La radiothérapie peut aussi être utilisée comme thérapie primitive pour les tumeurs non résécables, ou dans le cas de patients inopérables. Certaines études plus récentes indiquent que des résultats plus satisfaisants peuvent être obtenus avec des doses plus élevées d'irradiation [100]. Bien que les perspectives générales demeurent peu favorables pour les patients présentant des tumeurs de stade avancée et inopérables, Les taux de survie à cinq ans de 25–30% peuvent être obtenus avec la radiothérapie dosée de manière adéquate, ce qui indique qu'il existe un sous-groupe de patients qui peuvent être guéris [100].

En utilisant des doses plus élevées, le risque de complications est augmenté. Les techniques modernes telles que la radiothérapie conformationnelle et la RTMI peuvent réduire le risque de doses élevées en abaissant le volume du tissu exposé. Quand la radiothérapie externe est utilisée dans un but curatif, une dose d'au moins 60 Gy et, si possible, jusqu'à 70 Gy en fractions quotidiennes de 1,8–2,0 Gy est

recommandée [96, 100]. Une dose de 60 Gy est recommandée pour les lésions résiduelles microscopiques en cas de traitement adjuvant [96].

Une autre approche consiste à délivrer la dose grâce à une curiethérapie intraluminale. A cet effet, l'utilisation d'un applicateur spécial qui assure le positionnement central de la source dans la lumière de la trachée est obligatoire. Le positionnement central du cathéter de curiethérapie au niveau de la lumière permet une distribution de dose homogène et empêche l'administration de doses élevées au contact de la muqueuse trachéale.

Ainsi, la radiothérapie primaire devrait être considérée comme une option curative pour les patients inopérables en bon état général et pour les patients ayant une lésion résécable mais non adaptée pour la chirurgie.

Dans d'autres cas, la radiothérapie peut être utilisée à visée palliative avec une bonne amélioration des symptômes. L'amélioration de l'hémoptysie a été rapportée dans les trois quarts des patients et la réduction de la dyspnée et la toux dans environ la moitié des cas [101].

Le taux de survie à 5 ans varie dans les séries chirurgicales, avec ou sans radiothérapie, entre 65 et 97% (tableau). La résection chirurgicale complète R0, est associé à un pronostic favorable et un taux de survie plus important. Plusieurs études avaient rapporté des récurrences tardives pouvant aller jusqu'à 27 ans après la résection initiale [102, 103]. Certains auteurs préconisent systématiquement une radiothérapie [102], alors que d'autres ne proposent ce traitement que lorsque les tranches de sections sont envahies [5]. Un délai d'un mois au moins est recommandé après la chirurgie et il peut être utile de réaliser une fibroscopie bronchique afin de s'assurer de la cicatrisation [104].

Il faut noter que dans le cas du CAK, les marges de résection chirurgicale sont histologiquement positif dans 40 à 50 % des cas [77, 105], compte tenu de cela, et du

caractère potentiellement récurrent de cette tumeur, malgré des marges d'exérèses et un curage ganglionnaire négatif, une radiothérapie postopératoire est le plus souvent indiqué.

Pour le CME Le rôle du traitement adjuvant lorsqu'il est réséqué de façon optimale n'est pas bien défini. Bien qu'il soit clair que le CME de bas grade, ne nécessite aucun traitement adjuvant, après une résection sans marges, la question de savoir si un CME de haut grade nécessite un traitement adjuvant reste sans réponse et justifie des études plus approfondies. Conlan et al. ont suggéré que les patients atteints de CME de grade 1 subissent la chirurgie seule, alors que les patients de grade 2 et 3 devraient également bénéficier d'un traitement adjuvant. [106]

2. Chimiothérapie

En l'absence d'essais comparatifs randomisés prospectifs, le rôle de la chimiothérapie systémique comme traitement primaire ou comme traitement d'appoint reste incertain [107]. Cependant, des cas récents ont été rapportés, qui ont démontré des résultats positifs avec une combinaison de chimiothérapie avec la radiothérapie chez les candidats non chirurgicaux. La thérapie combinée pourrait être une option appropriée pour les patients atteints de tumeurs non résécables ou qui ne sont pas candidats à la chirurgie [107].

Le tableau suivant résume les modalités thérapeutiques utilisées dans différentes séries ainsi que les taux de survie à 5 et à 10 ans :

Etude	Effectif	Modalités thérapeutiques	Taux de survie
Molina et al	62	Chirurgie 71.3% RT adjuvante 23.7%	A 5 ans 65% A 10 ans 53%
Zhu et al	88	Chirurgie 95.4% RT adjuvante 11.4% CT adjuvante 8%	A 5 ans 86% A 10 ans 80.6%
Maziak et al	38	Chirurgie + RT adjuvante 42.1% RT neoadjuvante + chirurgie 23.6% Chirurgie seule 18.4% RT seule 15.7 %	Moyenne 85 mois
Mondal et al	7	Chirurgie seule 85.7 % Chirurgie + RT 14.3 %	-----
Kang et al	48	Chirurgie primaire 97.9 % Traitement neoadjuvant 12.5% (CT=5, RCC=1) Traitement adjuvant (RT=12, CT=7)	A 5 ans 97.6% A 10 ans 86.7%
Moran et al, [114]	16	Chirurgie seule 81.2 % Chirurgie + CT 12.5% CT seule 6.3 %	-----
Pandey et al	7	Chirurgie seule 100 %	85.7 % en vie
Notre étude	7	Chirurgie seule 85.7 % Chirurgie + RT 14.2 %	A 4 ans 85.7 % A 10 ans 71.4 %

Dans notre étude, un patient seulement a bénéficié d'une radiothérapie adjuvante. Il s'agissait d'un CAK dont la marge inférieure d'exérèse était envahie, l'évolution était marquée par une sténose post-radique pour laquelle il a bénéficié à plusieurs reprises d'une dilatation avec pose de prothèse endo-trachéale. La dernière tentative était un échec et il est décédé après 2 ans de la chirurgie par une perforation trachéale qui a mené à un tableau de détresse respiratoire.

X. Mortalité et Pronostic

En général, les patients atteints de tumeur trachéale ont un pronostic défavorable, avec une survie à 5 ans de 57% chez les patients traités chirurgicalement seulement, et de 6–11% chez les patients traités par radiothérapie seule, tous types histologiques confondus [43].

Les facteurs pronostics les plus importants dans les tumeurs malignes primitives de la trachée sont le diagnostic précoce, le stade de la tumeur, le type histologique et les modalités thérapeutique [4, 68, 108,109]. Néanmoins, la survie chez les patients présentant des tumeurs résécables est meilleure que chez les patients avec des tumeurs non résecables, surtout après une résection histologiquement complète. Ainsi, la sélection des patients pour une chirurgie définitive est le facteur le plus important dans l'amélioration du pronostic pour les patients atteints de malignités trachéales primitives [43, 108, 110].

A cause de leur modèle de croissance locale prédominant, les tumeurs malignes de type glandes salivaires montrent un meilleur résultat en comparaison avec d'autres types histologiques [2]. Leur taux de survie à 5 ans et 10 ans est de 65 % et 53 % respectivement [36]. Toutefois, un bon pronostic n'indique pas toujours une tumeur indolente. Azar et ses collaborateurs [105], ont suggéré que la récurrence locale du CAK se produit en moyenne 51 mois après le premier traitement. Chin et ses collaborateurs [111], ont constaté que ces tumeurs peuvent récidiver sur une période pouvant aller jusqu'à 30 ans.

Plusieurs études, rapportent un taux de mortalité élevé chez les patients atteints de CAK [112, 113], généralement lié au stade avancé de la maladie au moment du diagnostic, le caractère très envahissant, le taux de métastases ganglionnaires qui atteint les 20%, et le caractère incomplet de la résection avec des marges envahies dans presque la moitié des cas. Inversement, il a été démontré que les patients atteints de

CME, en particulier les tumeurs de bas grade, avaient un meilleur pronostic [114]. Le grade de la tumeur a été suggéré, non seulement, comme marqueur pronostic, mais aussi comme un facteur déterminant du choix thérapeutique, en particulier pour les CME. Yousem et Hochholzer, en séparant les CME en tumeurs de bas grade et de haut grade avaient rapporté un taux de survie de 95% chez 41 patients avec des tumeurs de bas grade, dont le suivi a duré entre 2 mois et 272 mois. Cependant, parmi les 13 patients atteints de CME de haut grade, près de 25% ont connu des récives et sont morts de leur maladie. [115]

Après résection chirurgicale, la mortalité postopératoire est inférieure à 10 % en cas de lésion uniquement trachéale mais supérieure à 10 % lorsque la carène est envahie [37]. Dans une grande série de cas, la résection de tumeurs trachéales près de la carène avait signalé des taux de mortalité et de morbidité allant jusqu'à 13 % et 39%, respectivement [116].

Dans notre étude, nous avons noté 1 décès qui n'avait pas de rapport avec la chirurgie trachéale. Il s'agissait d'un patient porteur d'un CAK, pour lequel il a bénéficié d'une radiothérapie car la marge d'exérèse inférieure était envahie. La suite fut marquée par la survenue d'une sténose post-radique pour laquelle il a bénéficié à plusieurs reprises de dilatations endoscopiques dont la dernière s'est compliquée d'une perforation, et le patient est décédé 2 ans après la chirurgie dans un tableau de détresse respiratoire. Un autre patient (cas 3) est décédé après 5 ans d'un cancer de l'œsophage, alors que le CAK de la trachée dont il a été opéré a été contrôlé.

Dans notre étude, le recul moyen est de 38 mois. Une bonne évolution a été marquée chez 5 patients qui sont vivants à ce jour et revus régulièrement en consultation.

Les récurrences locorégionales sont rares dans les tumeurs trachéo-bronchique de type glandes salivaires après une résection complète R0. Cependant Une surveillance active doit être assurée au cours de la période de suivi pour détecter les récurrences précoces pouvant être sauvées. Le CAK s'étend généralement au-delà de la tumeur visible en raison de la dissémination sous-muqueuse et de l'invasion péri neurale, ce qui entraîne des taux plus élevés de positivité des marges et de récurrence de la tumeur par rapport au CME. Dans notre série aucun patient n'a présenté une récurrence tumorale.

Le tableau suivant montre le recul moyen et le taux de récurrence dans notre étude en comparaison avec d'autres études :

Etude	Recul moyen/ Extrêmes	Taux de récurrence
Zhu et al	49 mois	Locale : 4.5 % A distance : 12.5 %
Kang et al	59.8 mois	A distance : 4.1 %
Moran et al	2 mois_ 10 ans	Locale : 7.6 % A distance : 7.6 %
Pandey et al	5 mois	aucune
Notre étude	38 mois	aucune

CONCLUSION

Les tumeurs primitives de la trachée de type glandes salivaires sont rares, Leur description dans la littérature est largement limitée à quelques séries de cas. Ainsi en raison de leur faible incidence, leur comportement et leurs caractéristiques pronostiques ne sont pas clairement définis. Ces tumeurs ont tendance à se produire chez les jeunes patients et sont non associées au tabagisme.

Le type histologique le plus fréquent est le CAK, qui représente environ deux tiers des cas, alors que le CME représente environ un tiers et seulement quelques cas de CEM et d'adénomes pléomorphes de la trachée ont été décrits dans la littérature.

Les signes cliniques sont peu spécifiques avec une latence clinique souvent importante. Une grande partie des patients porteurs de ces tumeurs trachéales sont diagnostiqués et traités à tort pour un asthme ou même une BPCO et mis sous bronchodilatateurs et corticothérapie au long cours sans résultats.

La radiographie du thorax est souvent peu contributive. Les examens de référence restent la TDM thoracique, l'endoscopie trachéale conventionnelle ou virtuelle et l'anatomopathologie qui pose le diagnostic final.

La résection chirurgicale reste la méthode privilégiée pour le diagnostic et le traitement curatif de ces tumeurs. Le principal facteur pronostique est le caractère complet ou non de la résection. Ces tumeurs ont généralement un bon pronostic par rapport aux autres types histologiques comme l'adénocarcinome et le carcinome épidermoïde. La radiothérapie postopératoire peut parfois être indiquée en fonction de l'état des marges d'exérèses, l'existence ou non d'un envahissement ganglionnaire, ou de façon systématique selon les équipes.

RESUME

RESUME

Introduction :

Les tumeurs trachéales de type glandes salivaires sont une entité pathologique rare, dont le diagnostic est habituellement retardé du fait de la latence clinique. Le carcinome adénoïde kystique représente le type histologique le plus fréquent de ces tumeurs. Il existe des entités malignes et des entités bénignes. La tomodensitométrie permet le diagnostic et l'orientation thérapeutique. La technique chirurgicale qui consiste en une résection-anastomose trachéale associée ou non à un traitement adjuvant, est la thérapie de référence assurant la meilleure survie à long terme.

Matériel et méthode

Ce travail est une étude rétrospective portant sur une série de 7 patients admis pour tumeur de la trachée de type glandes salivaires, au service de chirurgie thoracique du CHU Hassan II de Fès, durant une période étalée sur 10 ans, entre Décembre 2010 et Décembre 2020.

Résultats

Nous avons colligé 7 patients, il s'agissait de 6 hommes et 1 femme, d'âge moyen de 43.8 ans avec des extrêmes de 21 et 56 ans au diagnostic, dont 2 seulement étaient tabagiques. La dyspnée et le wheezing étaient les principaux signes révélateurs (5 patients). Tous les patients ont bénéficié d'une TDM thoracique. 5 patients ont bénéficié d'une fibroscopie bronchique diagnostique, qui a mis en évidence un processus bourgeonnant chez la totalité des patients, il concernait la partie inférieure de la trachée chez 3 patients et sa partie moyenne chez 2 patients. La quasi-totalité de la lumière trachéale était obstruée chez 6 patients. Le sixième cas était très gêné au niveau respiratoire.

Le traitement était chirurgical avec intubation à travers le champ opératoire chez tous les patients, sauf pour un patient qui avait bénéficié d'une CEC à cause d'une sténose infranchissable de la BSD. Il s'agissait de 5 résection-anastomose trachéale, une résection latérale et plastie en V sur la carène et une pneumonectomie droite avec anastomose trachée-BSG. Le type histologique le plus fréquent était le carcinome adénoïde kystique il a été retrouvé chez 4 patients, l'adénome pléomorphe chez 2 patients et le carcinome muco-épidermoïde chez 1 patient. Aucun cas de CEM n'a été retrouvé dans notre série. Un patient seulement a bénéficié d'un traitement adjuvant. Les suites opératoires étaient simples chez tous les patients. Aucune complication spécifique n'a été notée. Le recul moyen est de 38 mois. On a noté un décès à 2 ans suite à une sténose trachéale post-radique lors d'une séance de remplacement de la prothèse. Un autre décès est survenu 5 ans après, et qui n'a pas été en rapport avec la chirurgie, c'était à cause d'un cancer de l'œsophage alors que le CAK de la trachée dont il a été opéré a été contrôlé.

Conclusion

Les localisations trachéales primitives des tumeurs des glandes salivaires sont rares. Leur diagnostic est le plus souvent tardif du fait de leur symptomatologie non spécifique et leur évolution assez lente. La tomодensitométrie permet le diagnostic et l'orientation thérapeutique. La résection anastomose trachéale reste la meilleure option thérapeutique avec un meilleur pronostic lorsque la résection est complète. La place du traitement adjuvant n'est pas encore clairement établie, la radiothérapie semblant améliorer le contrôle local dans les formes malignes, notamment le carcinome adénoïde kystique.

Abstract

Introduction

Primary salivary gland type tumors of the trachea are a rare disease, whose diagnosis is usually delayed due to clinical latency. Cystic adenoid carcinoma is the most common histological type of these tumors. There are malignant and benign entities. CT scans are used for diagnosis and therapeutic orientation. The surgical technique, which consists on tracheal resection–anastomosis with or without adjuvant treatment, is the reference therapy ensuring the best long–term survival.

Material and method

This work is a retrospective study of a population of 7 patients who underwent tracheal surgery for salivary gland type tumors, at the thoracic surgery department of CHU HASSAN II Fez, over a period of 10 years, from December 2010 to December 2020.

Results

We collected 7 patients, 6 males and 1 female, with an average age of 43.8 years ranged from 21 to 56 years at diagnosis, of which only 2 were smokers. Dyspnea and wheezing were the main trigger signs (5 patients). All the patients have undergone thoracic CT scan. 5 patients benefited from a bronchial fibroscopy diagnostic, which showed a budding process in all the patients, it concerned the lower part of the trachea in 3 and its middle part in 2 patients, obstructing the lumen of the trachea in almost all patients (6 patients). The sixth case was presented with a respiratory distress.

The treatment was surgical with intubation through the surgical field in all patients, except for one who had received CEC because of a very tight stenosis of the right main bronchus. These were 5 tracheal resection–anastomosis and 2 plasties (one lateral resection and V–plasty on the carina and one tracheo–bronchial

anastomosis with Kergin-type plasty). The most frequent histological type was adenoid cystic carcinoma, which was found in 4 patients, pleomorphic adenoma in 2 patients and mucoepidermoid carcinoma in 1 patient. No cases of EMC have been found in our series. one patient received adjuvant treatment. Post-operative outcomes were simple in all patients. No specific complications were noted. The average follow-up time was 38 months. One death was noted at 2 years following a complication of post-radiation tracheal stenosis during a prosthesis replacement session. Another death occurred 5 years later, which was not related to the surgery, it was due to cancer of the esophagus, while the CAK of the trachea he was operated on was controlled.

Conclusion

Primary tracheal localizations of salivary gland tumors are rare. They are usually diagnosed late due to their non-specific symptomatology and slow progression. CT scans are used for diagnosis and therapeutic orientation. Tracheal anastomosis resection remains the best therapeutic option with a better prognosis when resection is complete. The place of adjuvant treatment is not yet clearly established, as radiotherapy seems to improve local control in malignant forms, notably adenoid cystic carcinoma.

ملخص:

المقدمة

أورام القصبة الهوائية التي تشبه الغدد اللعابية هي مرض نادر، وعادة ما يتأخر تشخيصه بسبب الكمون السريري. السرطان الكيسي اللحمي هو النوع النسيجي الأكثر شيوعاً لهذه الأورام. هناك كيانات خبيثة وكيانات حميدة. يسمح التصوير المقطعي بالتشخيص والتوجيه العلاجي. إن التقنية الجراحية، التي تتكون من قطع مفاعة في القصبة الهوائية، سواء كانت مرتبطة بالعلاج المساعد أم لا، هي العلاج المرجعي الذي يضمن أفضل بقاء على المدى الطويل.

المواد والطريقة

هذا العمل عبارة عن دراسة استعادية على سلسلة من 7 مرضى تم قبولهم لعلاج ورم القصبة الهوائية من نوع الغدة اللعابية، في قسم جراحة الصدر بالمستشفى الجامعي الحسن الثاني بفاس، لمدة 10 سنوات، بين ديسمبر 2010 وديسمبر 2020

النتائج

جمعنا 7 مرضى، 6 رجال وامرأة، بمتوسط عمر 43.8 سنة مع 21 و56 سنة عند التشخيص، من بينهم اثنان فقط من مستخدمي التبغ. كان ضيق التنفس والصفير من العلامات الرئيسية (5 مرضى). خضع جميع المرضى للتصوير المقطعي المحوسب على الصدر. خضع 5 مرضى للتنظير الليفي القصبي التشخيصي، والذي كشف عن عملية ناشئة عند جميع المرضى، وهو يتعلق بالجزء السفلي من القصبة الهوائية في ثلاث حالات والجزء الأوسط في حالتين. تم إعاقه تجويف القصبة الهوائية تقريباً عند 6 مرضى. الحالة السادسة كانت مخرجة جدا على مستوى الجهاز التنفسي.

كان العلاج جراحياً بالتنبيب من خلال المجال الجراحي في جميع المرضى باستثناء مريض واحد خضع للدورة الدموية خارج الجسم بسبب تضيق القصبة الهوائية الرئيسية اليمنى. كانت هذه 5 قطع مفاعة و2 من اللصقات (استئصال جانبي واحد ورأب على شكل حرف على الكارينا ومفاعة واحدة للقصبة الهوائية مع رأب من نوع كيرجين). كان النوع النسيجي الأكثر شيوعاً هو السرطان الغداني الكيسي وتم العثور عليه عند 4 مرضى، والورم الحميد متعدد الأشكال في حالتين وسرطان الجلد المخاطي عند مريض واحد. لم يتم العثور على أي حالة لسرطان ظهاري عضلي في سلسلتنا. تلقى مريض واحد العلاج المساعد. كانت متابعة ما بعد الجراحة هادئة عند جميع المرضى. لم تلاحظ أية مضاعفات محددة. متوسط المتابعة ثمانية وثلاثون شهراً. كانت هناك حالة وفاة واحدة في عامين من تضيق القصبة الهوائية بعد العلاج الإشعاعي أثناء جلسة استبدال الطرف الاصطناعي. حدثت وفاة أخرى بعد 5 سنوات، ليس لها علاقة بالجراحة، بسبب سرطان المريء.

الخلاصة

المواقع الأولية في القصبة الهوائية لأورام الغدد اللعابية نادرة. غالباً ما يكون تشخيصهم متأخراً بسبب أعراضهم غير المحددة وتطورهم البطيء نوعاً ما. يسمح التصوير المقطعي بالتشخيص والتوجيه العلاجي. يظل استئصال-مفاعة القصبة الهوائية هو الخيار العلاجي الأفضل مع تشخيص أفضل عند اكتمال الاستئصال. لم يتم تحديد مكان العلاج المساعد بشكل واضح حتى الآن، حيث يبدو أن العلاج الإشعاعي يحسن السيطرة الموضعية في الأشكال الخبيثة، وخاصة سرطان الغدد الكيسي.

BIBLIOGRAPHIE

- [1] Ahn Y, Chang H, Lim YS, et al. Primary tracheal tumors review of 37 cases. *J Thorac Oncol* 2009;4:635—8.
- [2] Junker K. Pathology of tracheal tumors. *Thorac Surg Clin* 2014;24:7–11.
- [3] Perelman MI, Koroleva NS. Primary tumors of the Trachea. In: Grillo HC, Eschaspasse H, editors. *Major challenges, International trends in general thoracic surgery*, Vol. 2. Philadelphia: Saunders, 1987. pp. 91–106.]
- [4] [Gaissert HA, Grillo HC, Shadmehr MB, Wright CD, Gokhale M, Wain JC, et al. Long-term survival after resection of primary adenoid cystic and squamous cell carcinoma of the trachea and carina. *Ann Thorac Surg* 2004;78:1889–97.]
- [5] [Regnard JF, Fourquier P, Levasseur P. Results and prognostic factors in resections of primary tracheal tumors: a multicenter retrospective study. The French Society of Cardiovascular Surgery. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1996;111:808–13.]
- [6] Chappidi S, Bal chander S, Mukhopadhyay S, et al. Adenoid cystic carcinoma of trachea. *Eur J Radiol (Extra)* 2004;52:107—9
- [7] Peter J. Lancionea , Bhavna Kumarb , Songzhu Zhaoc , Edmund A. Mrozb , Guy Brockc , James W. Roccob , Ricardo L. Carraub , Amit Agrawalb , Nolan Seimb , Stephen Y. Kangb , Enver Ozerb , Matthew O. Oldb, □ A potential protective effect of metformin in adenoid cystic carcinoma 1368–8375/ © 2020 Published by Elsevier Ltd.
- [8] Badoual C. Classification 2014 des carcinomes bronchopulmonaires : nouveautés et implications cliniques. Cas no 8 : les carcinomes muco-épidermoïdes pulmonaires. *Ann Pathol* 2013;33:332—4
- [9] Alami B, Boujraf S, Smahi M, Serraj M, Lamrani MY, Boubbou M, et al. Obstructive tracheal neoplasm: Imaging and therapeutical features of pleomorphic adenoma. *Formos J Surg* 2019;52:92–5.

- [10] Aribas OK, Kanat F, Avunduk MC. Pleomorphic adenoma of the trachea mimicking bronchial asthma: report of a case. *Surg Today* 2007; 37: 493–5.
- [11] Di Palma S. Carcinoma ex pleomorphic adenoma, with particular emphasis on early lesions. *Head Neck Pathol* 2013; 7 Suppl 1: S68–S76 [PMID: 23821206 DOI: 10.1007/s12105-013-0454-z]
- [12] Madariaga ML, Gaissert HA. Overview of malignant tracheal tumors. *Ann Cardiothorac Surg* 2018;7(2):244–254. doi: 10.21037/acs.2018.03.04
- [13] Benissan-Messan DZ, Merritt RE, Bazan JG, D'Souza DM, Abdel-Rasoul M, Moffatt-Bruce SD, Kneuertz PJ, National Utilization of Surgery and Outcomes for Primary Tracheal Cancer in the United States *The Annals of Thoracic Surgery* (2020), doi: <https://doi.org/10.1016/j.athoracsur.2020.03.048>
- [14] Wang Y et al. Treatment outcomes of patients with tracheobronchial mucoepidermoid carcinoma compared with those with adenoid cystic carcinoma, *European Journal of Surgical Oncology*, (2020) <https://doi.org/10.1016/j.ejso.2020.04.020>
- [15] Ko JM, Jung JI, Park SH, Lee KY, Chung MH, Ahn MI, et al. Benign tumors of the tracheobronchial tree: CT-pathologic correlation. *AJR Am J Roentgenol* 2006;186:1304–13.
- [16] Goto T, Maeshima A, Akanabe K, Hamaguchi R, Wakaki M, Oyamada Y, et al. Bronchial pleomorphic adenoma coexisting with lung cancer. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 2011;17:174–7
- [17] Baghai-Wadji M, Sianati M, Nikpour H, Koochekpour S. Pleomorphic adenoma of the trachea in an 8-year-old boy: A case report. *J Pediatr Surg* 2006;41:e23–6
- [18] Gibault, L., & Badoual, C. (2016). Tumeurs de type glandes salivaires du poumon. *Annales de Pathologie*, 36(1), 5562. doi:10.1016/j.annpat.2015.11.003

- [19] Sawabe, M., Ito, H., Takahara, T., Oze, I., Kawakita, D., Yatabe, Y., ... Matsuo, K. (2017). Heterogeneous impact of smoking on major salivary gland cancer according to histopathological subtype: A case-control study. *Cancer*, 124(1), 118–124. doi:10.1002/cncr.30957
- [20] Muscat JE, Wynder EL. A case/control study of risk factors for major salivary gland cancer. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1998;118:195—8.
- [21] Radoï, L., Barul, C., Menvielle, G., Carton, M., Matrat, M., Sanchez, M., ... Luce, D. (2018). Risk factors for salivary gland cancers in France: Results from a case-control study, the ICARE study. *Oral Oncology*, 80, 56–63. doi:10.1016/j.oraloncology.2018.03.019
- [22] Pan SY, De Groh M, Morrison H. A case-control study of risk factors for salivary gland cancer in Canada. *J Cancer Epidemiol* 2017;2017:12
- [23] Images per-opératoires, radiologiques et endoscopiques. Courtoisie du Pr Smahi Mohammed, Service de Chirurgie Thoracique, CHU Hassan II, Fès, Maroc
- [24] Ferlito, A. (1993). The World Health Organization's Revised Classification of Tumours of the Larynx, Hypopharynx, and Trachea. *Annals of Otology, Rhinology & Laryngology*, 102(9), 666–669.
- [25] Zhu, F., Liu, Z., Hou, Y., He, D., Ge, X., Bai, C., ... Li, S. (2013). Primary Salivary Gland-Type Lung Cancer: Clinicopathological Analysis of 88 Cases from China. *Journal of Thoracic Oncology*, 8(12), 1578–1584.
- [26] Kang, D.-Y., Yoon, Y. S., Kim, H. K., Choi, Y. S., Kim, K., Shim, Y. M., & Kim, J. (2011). Primary salivary gland-type lung cancer: Surgical outcomes. *Lung Cancer*, 72(2), 250–254.

- [27] Jeong, S. Y., Lee, K. S., Han, J., Kim, B.-T., Kim, T. S., Shim, Y. M., & Kim, J. (2007). Integrated PET/CT of Salivary Gland Type Carcinoma of the Lung in 12 Patients. *American Journal of Roentgenology*, 189(6), 1407–1413. doi:10.2214/ajr.07.2652
- [28] Kim B-Guen, Lee K, Um S-Won, Han J, Cho JH, Kim J, Kim H, Jeong B-Ho, Clinical outcomes and the role of bronchoscopic intervention in patients with primary pulmonary salivary gland-type tumors, *Lung Cancer* (2020),
- [29] Badoual, C., Cros, J., Roussel, H., Wassef, M., & Cucherousset, J. (2013). Les carcinomes des glandes salivaires : description histologique des principaux sous-types histologiques. *Revue Francophone Des Laboratoires*, 2013(448), 55–61.
- [30] Travis WD, Brambilla E, Burke AP, Marx A, Nicholson AG, editors. WHO classification of tumours of the lung, pleura thymus and heart. 4th Ed. Lyon: IARC; 2015.
- [31] Weissferdt A, Moran CA. Pulmonary salivary gland-type tumors with features of malignant mixed tumor (carcinoma ex pleomorphic adenoma) a clinicopathologic study of five cases. *Am J Clin Pathol* 2011;136:793—8
- [32] Casillas-Enríquez, J. D., Álvarez-Maldonado, P., Salguero-Cruz, L., Navarro-Reynoso, F., Cicero-Sabido, R., & Redondo, C. N.-P. (2014). Pleomorphic Adenoma of the Trachea. *Journal of Bronchology & Interventional Pulmonology*, 21(1), 51–53.
- [33] Pandey, D., Garg, P. K., Jakhetiya, A., Pandey, R., Bhorwal, S., Nath, D., & Kumar, S. (2015). Surgical experience of primary salivary gland tumors of lung: A case series. *International Journal of Surgery*, 21, 92–96
- [34] Brand-Saberi B, Schafer T. Trachea. *Thorac Surg Clin* 2014; 24:1–5.
- [35] Issoufou I, et al. La chirurgie des tumeurs primitives de la trachée de type glande salivaire. *Revue des Maladies Respiratoires* (2018), <https://doi.org/10.1016/j.rmr.2019.01.001>

- [36] Molina, J. R., Aubry, M. C., Lewis, J. E., Wampfler, J. A., Williams, B. A., Midthun, D. E., ... Cassivi, S. D. (2007). Primary salivary gland-type lung cancer. *Cancer*, 110(10), 2253–2259. doi:10.1002/cncr.23048
- [37] Seguin A., Radu D., Destable MD., Brillet PY., Martinod E. (2011) Tumeurs malignes de la trachée. In: *Oncologie thoracique. Oncologie pratique*. Springer, Paris. https://doi.org/10.1007/978-2-287-99041-0_17
- [38] Han, X., Zhang, J., Fan, J., Cao, Y., Gu, J., & Shi, H. (2019). Radiological and Clinical Features and Outcomes of Patients with Primary Pulmonary Salivary Gland-Type Tumors. *Canadian Respiratory Journal*, 2019, 1–10. doi:10.1155/2019/1475024
- [39] Wang, Y., Cai, S., Gao, S., Xue, Q., Mu, J., Gao, Y., ... He, J. (2019). Tracheobronchial adenoid cystic carcinoma: 50-year experience at the National Cancer Center, China. *The Annals of Thoracic Surgery*. doi:10.1016/j.athoracsur.2019.03.065
- [40] Jakhetiya, A., Garg, P., Deo, S., Shukla, N., Pandey, D., Ray, M., ... Kumar, S. (2017). P1.08–029 Surgical Experience of Primary Salivary Gland Tumors of Lung: Experience from Tertiary Care Cancer Center in North India. *Journal of Thoracic Oncology*, 12(1), S748–S749. doi:10.1016/j.jtho.2016.11.996
- [41] [E.Martinod Cas clinique n=4 Tumeur maligne primitive de la trachée Revue des maladies respiratoires Actualités (2015) 7, 26–29.]
- [42] Honings J, Gaissert H, Verhagen A, et al. Undertreatment of tracheal carcinoma : multidisciplinary audit of epidemiologic data. *Ann SurgOncol* 2009;16:246–253
- [43] Honings, J., Gaissert, H. A., van der Heijden, H. F. M., Verhagen, A. F. T. M., Kaanders, J. H. A. M., & Marres, H. A. M. (2010). Clinical aspects and treatment of primary tracheal malignancies. *Acta Oto-Laryngologica*, 130(7), 763–772. doi:10.3109/00016480903403005

- [44] Manninen MP, Pukander JS, Flander MK, et al: Treatment of primary tracheal carcinoma in Finland in 1967–1985. *ActaOncol* 32:277–282, 1993
- [45] Diaz–Mendoza, J., Debiase, L., Peralta, A. R., & Simoff, M. (2019). Tracheal tumors. *Current Opinion in Pulmonary Medicine*, 25(4), 336–343. doi:10.1097/mcp.0000000000000585
- [46] Shadmehr MB, Farzanegan R, Graili P, et al. Primary major airway tumors; management and results. *Eur J CardiothoracSurg* 2011; 39:749–754
- [47] [Koletsis EN, Kalogeropoulou C, Prodromaki E, et al: Tumoral and nontumoral trachea stenoses: Evaluation with three–dimensional CT and virtual bronchoscopy. *J Cardiothorac Surg* 2:18, 2007]
- [48] Gaissert, H. A., Honings, J., & Gokhale, M. (2009). Treatment of Tracheal Tumors. *Seminars in Thoracic and Cardiovascular Surgery*, 21(3), 290–295. doi:10.1053/j.semtcvs.2009.06.001
- [49] [Finkelstein SE, Schrump DS, Nguyen DM, et al: Comparative evaluation of super high–resolution CT scan and virtual bronchoscopy for the detection of tracheobronchial malignancies. *Chest* 124:1834–1840, 2003]
- [50] Kwak SH, Lee KS, Chung MJ, et al: Adenoid cystic carcinoma of the airways : Helical CT and histopathologic correlation. *Am J Roentgenol* 183:277–281, 2004]
- [51] Spizarny DL, Shepard JA, McLoud TC, et al: CT of adenoid cystic carcinoma of the trachea. *Am J Roentgenol* 146:1129–1132, 1986
- [52] Javidan–NejadC : MDCT of trachea and main bronchi. *RadiolClin North Am* 48:157–176, 2010]
- [53] Kim TS, Lee KS, Han J, et al: Sialadenoid tumors of the respiratory tract: Radiologic–pathologic correlation. *Am J Roentgenol* 177:1145–1150, 2001
- [54] Kim TS, Lee KS, Han J *et al.* (1999) Mucoepidermoid carcinoma of the tracheobronchial tree: radiographic and CT findings in 12 patients. *Radiology* 212: 643–8

- [55] Grillo H (2004) Diagnostic Endoscopy. Surgery of the Trachea and Bronchi. Hamilton: BC Decker Inc: 161–72
- [56] Williamson JP, Mclaughlin RA, Phillips MJ, et al. Using optical coherence tomography to improve diagnostic and therapeutic bronchoscopy. Chest 2009; 136:272–276
- [57] Haas AR, Vachani A, Serman DH. Advances in diagnostic bronchoscopy. Am J Respir Crit Care Med 2010;182:589–97
- [58] Bauer TL, Berkheim DB. Bronchoscopy: diagnostic and therapeutic for nonsmall cell lung cancer. Surg Oncol Clin N Am 2016; 25:481–491.
- [59] Ferretti GR, Vining DJ, Knoploch J, et al. Tracheobronchial tree: three-dimensional spiral CT with bronchoscopic perspective. J Comput Assist Tomogr 1996;20:777–81.
- [60] Chadha M, Kulshrestha M, Biyani A. Anaesthesia for bronchoscopy. Indian J Anaesth [serial online] 2015 [cited 2020 Nov 16];59:565–73. Available from: <https://www.ijaweb.org/text.asp?2015/59/9/565/165851>
- [61] Khalid Sherani, AbhayVakil, ChetanDodhia, and Alan Fein, Malignant tracheal tumors: a review of currentdiagnostic and management strategies, www.copulmonarymedicine.com
- [62] Stahl DL, Richard KM, Papadimos TJ. Complications of bronchoscopy: A concise synopsis. Int J Crit Illn Inj Sci 2015;5:189–95.
- [63] B.D. Qin, X.D. Jiao, K. Liu, Y. Wu, X. He, J. Liu, et al.Clinical, pathological and treatment factors associated with the survival of patients with primary pulmonary salivary gland-type tumors Lung Cancer, 126 (2018), pp. 174–181
- [64] Clough, A., & Clarke, P. (2006). ADENOID CYSTIC CARCINOMA OF THE TRACHEA: A LONG-TERM PROBLEM. ANZ Journal of Surgery, 76(8), 751–753. doi:10.1111/j.1445-2197.2006.03848.x

- [65] Pankaj Kumar Garg, Gopal Sharma, Shreyash Rai, and Ashish Jakhetiya Primary salivary gland-type tumors of the lung: A systematic review and pooled analysis Lung India. 2019 Mar-Apr; 36(2): 118-122. doi: 10.4103/lungindia.lungindia_284_18
- [66] ElNayal, A., Moran, C. A., Fox, P. S., Mawlawi, O., Swisher, S. G., & Marom, E. M. (2013). Primary Salivary Gland-Type Lung Cancer: Imaging and Clinical Predictors of Outcome. American Journal of Roentgenology, 201(1), W57-W63. doi:10.2214/ajr.12.9579
- [67] Choudhury BK, Barman G, Singh S, Ahmed K. Adenoid Cystic Carcinoma of the Upper Trachea: A Rare Neoplasm. J Clin Imaging Sci 2013;3:39. Available FREE in open access from: <http://www.clinicalimagingscience.org/text.asp?2013/3/1/39/119021>
- [68] Licht PB, Friis S, Pettersson G. Tracheal cancer in Denmark: a nationwide study. Eur J Cardiothorac Surg 2001;19:339—45.
- [69] Abdennadher M, Rivera C, Gibault L, et al. Tumeurs mucoépidermoïdes trachéobronchiques chez l'adulte. À propos d'une série de 22 cas. Rev Pneumol Clin 2015, <http://dx.doi.org/10.1016/j.pneumo.2014.09.007> [In press].
- [70] Mondal A, Saha DK. Primary adenoid cystic carcinoma of the lung: A clinicopathologic study. Indian J Thorac Cardiovasc Surg. 2009;24:240-3
- [71] N. Falk, A. Weissferdt, N. Kalhor, and C. A. Moran, "Primary pulmonary salivary gland-type tumors," *Advances in Anatomic Pathology*, vol. 23, no. 1, pp. 13-23, 2016.
- [72] McInnis, M. C., Weisbrod, G., & Schmidt, H. (2018). *Advanced Technologies for Imaging and Visualization of the Tracheobronchial Tree. Thoracic Surgery Clinics*, 28(2), 127-137. doi:10.1016/j.thorsurg.2018.01.005
- [73] C. Le Péchoux, P. Baldeyrou, I. Ferreira, M. Mahé. Cylindromes thoraciques. Doi :10.1016/j.canrad.2005.07.010

- [74] Grillo HC (1989) Notes on the windpipe. *Ann Thorac Surg* 47: 9–26
- [75] Grillo HC (2003) Development of tracheal surgery: a historical review. Part 1: Techniques
- [76] Paul Schneider*, Joachim Schirren, Thomas Muley, Ingolf Vogt–Moykopf: Primary tracheal tumors: experience with 14 resected patients, *European Journal of Cardio–thoracic Surgery* 20 (2001) 12–18
- [77] Maziak DE, Todd TR, Keshavjee SH, Winton TL, Van Nostrand P, Pearson FG. Adenoid cystic carcinoma of the airway: thirty–two–year experience. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 1996;112:1522–31.
- [78] Dahan M, Régnard JF, Berjaud J, Magdeleinat P et Bouchet L. Chirurgie de la trachée et des bronches (I). *Encycl Méd Chir Editions Scientifiques et Médicales Elsevier SAS, Paris, Techniques chirurgicales – Thorax*, 42–135, 2002, 5 p.
- [79] C.A. Righini, G. Ferretti, C. Pison, E. Reyt
Sténoses trachéales de l'adulte
EMC – Oto–rhino–laryngologie 1 Volume 10 > n° 1 > février 2015
- [80] Grillo HC, Dignan EF, Miura T. Extensive resection and reconstruction of mediastinal trachea without prosthesis or graft : anatomical study in man *J ThoracCardiovascSurg* 1964 ; 48 : 741–749
- [81] Dedo H, Fishmann N. Laryngeal release and sleeve resection for tracheal stenosis. *Ann OtoRhinolLaryngol* 1969; 78:285–296
- [82] Montgomery WW. The surgical management of supraglottic and subglottic stenosis. *Ann OtoRhinolLaryngol* 1968;77:534–546
- [83] Eschapasse H, Vahdat F, Gaillard J. Réflexions sur la resection de la trachée inférieure et de la bifurcation bronchique. *Ann ChirThoracCardiovasc* 1967;6:63–70
- [84] Kergin FG. Carcinoma of the trachea. *J ThoracSurg* 1952 : 164–168

- [85] Gebauer PW. Reconstructive surgery of the trachea and bronchi. Late results with dermal graft. JThoracSurg 1951; 22:568–584
- [86] Barclay RS, Mac Swann N, Welsh TM. Tracheal reconstruction without the use of grafts. Thorax 1957;12:177–180
- [87] Mathey J. Tumeur bénigne de l'éperon trachéal, résection et réfection du carrefour trachéo-bronchique. Sem Hôp Paris 1951; 27:2699–2703
- [88] C. Le Péchoux, P. Baldeyrou, I. Ferreira, M. Mahé. Cylindromes thoraciques. Doi :10.1016/j.canrad.2005.07.010
- [89] Nouraei SM, Middleton SE, Nouraei SA, et al. Management and prognosis of primary tracheal cancer: a national analysis. Laryngoscope 2014; 124:145–150.
- [90] M.J. Licker, I. Widikker, J. Robert, J.G. Frey, A. Spiliopoulos, C. Ellenberger, et al, Operative mortality and respiratory complications after lung resection for cancer: impact of chronic obstructive pulmonary disease and time trends. The Annals of thoracic surgery 81 (2006) 1830–1837
- [91] B.D. Kozower, S. Sheng, S.M. O'Brien, M.J. Liptay, C.L. Lau, D.R. Jones, et al. STS database risk models: predictors of mortality and major morbidity for lung cancer resection. The Annals of thoracic surgery 90 (2010) 875–881; discussion 881–873.
- [92] PESKIND SP, STANLEY RB, THANGATHURAI D. Treatment of the compromised trachea with sleeve resection and primary repair. Laryngoscope 1993;103:203–1
- [93] LACCOURREYE H, PECH A, PIQUET JJ, HAGUENAUER JP, NARCY Ph, JUNIEN-LAVILLAUIROY C, GEHANNO P, GUERRIER B, THOMASSIN JM. Les sténoses laryngo-trachéales de l'adulte et de l'enfant. Rapport de la Société Française d'ORL 1985 Arnette, Paris pp 29–155

- [94] Honings, J., Gaissert, H. A., Weinberg, A. C., Mark, E. J., Wright, C. D., Wain, J. C., & Mathisen, D. J. (2010). *Prognostic value of pathologic characteristics and resection margins in tracheal adenoid cystic carcinoma. European Journal of Cardio-Thoracic Surgery, 37(6), 1438–1444.*
- [95] Sim DW, Oh IJ, Kim KS, et al. Pleomorphic adenoma of the trachea. J Bronchol Intervent Pulmonol 2014;21:230—3.
- [96] Macchiarini P. Primary tracheal tumours. Lancet Oncol 2006;7:83
- [97] Gao HX, Li Q, Chang WL, Zhang YL, Wang XZ, Zou XX. Carcinoma ex pleomorphic adenoma of the trachea: A case report. *World J Clin Cases* 2019; 7(17): 2623– 2629
- [98] Encyclopedie Medico-Chirurgicale Techniques Chirurgicales Thorax
- [99] L. Zhao,¹ Y. Zhao,¹ X.W. Cai,¹ X.L. Fu,² and H. Zhao¹; ¹Shanghai Chest Role of Postoperative Radiotherapy in the Treatment of Adenoid Cystic Carcinoma of the Trachea and Bronchus with Positive Surgical Margin: Rethinking about the Resection Range Hospital, Shanghai Jiaotong University, Shanghai, China, ²Shanghai Chest Hospital, Shanghai Jiao Tong University, Shanghai, China
- [100] Jeremic B, Shibamoto Y, Acimovic L, Milisavljevic S. Radiotherapy for primary squamous cell carcinoma of the trachea. Radiother Oncol 1996;41:135–8.
- [101] Makarewicz R, Moss M. Radiation therapy alone in the treatment of tumours of the trachea. Lung Cancer 1998;20: 169–74.
- [102] Grillo HC, Mathisen DJ. Primary tracheal tumors: treatment and results. Ann Thorac Surg 1990;49: 69–77.
- [103] FG, Pearson. In discussion of Re ´gnard F, Fourquier P, Levasseur P, et al. Results and prognostic factors in resections of primary tracheal tumors: a multicenter retrospective study. J Thorac Cardiovasc Surg 1996;111:808–14.
- [104] Mathiesen DJ. Primary tracheal tumors management. SurgOncolClin N Am 1999;8:307–26

- [105] Azar T, Abdul-Karim FW, Tucker HM. Adenoid cystic carcinoma of the trachea. *Laryngoscope* 1998;108: 1297–300.
- [106] Conlan AA, Payne WS, Woolner LB, Sanderson DR. Adenoid cystic carcinoma (cylindroma) and mucoepidermoid carcinoma of the bronchus: factors affecting survival. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 1978;76:369–377.
- [107] Kunhiparambath H, Das P, Kumar R, et al. Unresectable basaloid squamous carcinoma of the trachea treated with concurrent chemoradiotherapy: a case report with review of literature. *J Cancer Res Ther* 2010; 6:321–322.
- [108] Honings J, van Dijck JA, Verhagen AF, et al. Incidence and treatment of tracheal cancer: a nationwide study in the Netherlands. *Ann SurgOncol* 2007;14:968–76
- [109] Yang KY, Chen YM, Huang MH, et al. Revisit of primary malignant neoplasms of the trachea: clinical characteristics and survival analysis. *Jpn J ClinOncol* 1997;27:305–9
- [110] Li Y, Peng A, Yang X, et al. Clinical manifestation and management of primary malignant tumors of the cervical trachea. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2013
- [111] H. W. Chin, T. Demeester, R. Y. Chin, and B. Boman, “Endobronchial adenoid cystic carcinoma,” *Chest*, vol. 100, no. 5, pp. 1464–1465, 1991.
- [112] Heitmiller RF, Mathisen DJ, Ferry JA, Mark EJ, Grillo HC. Mucoepidermoid lung tumors. *Ann Thorac Surg.* 1989;47:394–399.
- [113] Leonardi HK, Jung-Legg Y, Legg MA, Neptune WB. Tracheobronchial mucoepidermoid carcinoma: clinicopathological features and results of treatment. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 1978;76:431–438.
- [114] Moran CA, Suster S, Koss MN. Primary adenoid cystic carcinoma of the lung. A clinicopathologic and immunohistochemical study of 16 cases. *Cancer.* 1994;73:1390–1397.

- [115] Yousem SA, Hochholzer L. Mucoepidermoid tumors of the lung. *Cancer*. 1987;60:1346–1352.
- [116] Mitchell JD, Mathisen DJ, Wright CD, et al. Clinical experience with carinal resection. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 1999;117:39–52; discussion 3
- [117] Jaso J, Malhotra R. Adenoid cystic carcinoma. *Arch Pathol Lab Med* 2011;135:511–5.
- [118] Maziak DE. Biology of adenoid cystic carcinoma of the tracheobronchial tree and principles of management. *Thorac Surg Clin* 2018; 28:145–148.
- [119] Barsky SH, Martin SE, Matthews M, et al. Low grade mucoepidermoid carcinoma of the bronchus with high grade. *Cancer* 1983;51:1505–9.
- [120] Motoi, N., & Ishikawa, Y. (2014). *Salivary gland-type neoplasm of the lung. Diagnostic Histopathology*, 20(10), 398–404. doi:10.1016/j.mpdhp.2014.09.010
- [121] Dong, H., Tatsuno, B. K., Betancourt, J., & Oh, S. S. (2015). Tracheal epithelial–myoepithelial carcinoma associated with sarcoid–like reaction: A case report. *Respiratory Medicine Case Reports*, 14, 34–36. doi:10.1016/j.rmcr.2014.11.009

أستاذ مساعد في الجراحة الصدرية