

UNIVERSITE SIDI MOHAMMED BEN ABDELLAH
FACULTE DE MEDECINE ET DE PHARMACIE

FES



Année 2012

Thèse N° 087/12

**ADENOMYOME DE LA VOIE BILIAIRE PRINCIPALE :
A PROPOS DE TROIS CAS AVEC REVUE
DE LA LITTERATURE**

THESE

PRESENTEE ET SOUTENUE PUBLIQUEMENT LE 01/06/2012

PAR

Mlle. EL KHIYAT IMAN

Née le 02 Avril 1985 à Al Hoceima

POUR L'OBTENTION DU DOCTORAT EN MEDECINE

MOTS-CLES :

Adenomyome - Voie Biliaire Principale - Duodéno pancréatectomie céphalique

JURY

Mme. MAHASSINI NAJAT.....	PRESIDENT ET RAPPORTEUR
Professeur d'Anatomie pathologique	
Mme. AMARTI RIFFI AFAF.....	} JUGES
Professeur d'Anatomie pathologique	
M. MAZAZ KHALID.....	
Professeur de Chirurgie Générale	
M. HARMOUCH TAOUFIQ.....	
Professeur agrégé d'Histologie embryologie cyto génétique	

ABREVIATIONS

ACE	: antigène carcino-embryonnaire
ALAT	: Alanine Amino Transférase
AML	: actine muscle lisse
ASAT	: Aspartate amino transférase
BC	: bilirubine conjuguée
BT	: bilirubine totale
CA19-9	: carbohydrate antigène 19-9
CK	: cytokératine
CPRE	: cholangio-pancréatographie rétrograde
CRO	: compte rendu opératoire
DPC	: duodéno-pancréatéctomie céphalique
FOGD	: fibroscopie-eoso-gastro-duodénale
GG	: ganglions
GGT	: gamma glutamyl tansférase
IHC	: immuno-histo-chimie
LBRCE	: Laboratoire de Bio statistique et de Recherche Clinique et Epidémiologique
MUC6	: mucin 6
MUC5AC	: mucin 5AC
PAS	: acide périodique de Schiff
PAL	: phosphatase alkalines
PC	: produit de contraste
PTCS	: cholangioscopie transhépatique et percutanée
TOGD	: transit eoso-gastro-duodénale
TDM	: tomodensitométrie

PLAN

I- introduction	5
II- anatomie des voies biliaires.....	6
A. Voies biliaires intra-hépatiques :	6
B. Voies biliaires extra-hépatiques :	6
1. Niveau supérieur, convergence biliaire dans la plaque hilare	7
2. Niveau moyen péritonéal :	8
a. La voie biliaire accessoire :	8
b. La voie biliaire principale :	9
3. Niveau inférieur rétroduodéal :	10
a. Portion rétroduodénale :	10
b. Portion pancréatique	10
c. Portion intraduodénale ou intramurale :	11
C. Structure des voies biliaires :	12
D. Vascularisation des voies biliaires :	14
1. Vascularisation artérielle :	14
2. Vascularisation veineuse :	15
3. Drainage lymphatique :	16
E. L'innervation	16
F. Embryologie :	17
III- Historique et physiopathologie	18
IV- Matériels et méthodes	21
1- Consultation du registre du service d'anatomie pathologique.....	21
2- Fiche d'exploitation	22
3- Recherche bibliographique.....	22
4- Calcul statistique	22

5- Les observations cliniques	23
6- Tableau récapitulatif	32
V- Discussion.....	33
A- Données épidémiologiques.....	33
1- Incidence.....	33
2- Répartition selon l'âge et le sexe	35
B- Moyens de diagnostic.....	35
1- Cliniques	35
a- Circonstances de découverte ou motifs d'hospitalisation.....	35
b- Signes cliniques	36
c- Signes physiques	38
2- Biologiques	38
3- Radiologiques.....	39
a- L'échographie hépatique.....	39
b- La TDM abdominale.....	40
c- La CPRE	42
d- L'écho-endoscopie	43
e- La Bili-IRM.....	45
4- Anatomo-pathologiques.....	47
a- La biopsie	47
b- La cytologie	48
c- L'examen extemporané.....	48
d- La pièce opératoire	49
5- En résumé	49
C- Etude anatomo-pathologique	50
1- Localisation.....	50
2- Aspect macroscopique.....	50

3- Aspect microscopique	53
4- Profil IHC.....	54
5- diagnostics différentiels.....	56
a- pathologies tumorales malignes et bénignes.....	56
-Adénocarcinome	56
-Adénome des voies biliaires	57
-Adénofibrome biliaire	58
b- pathologies malformatives	58
-Hyperplasie adenoleiomyomateuse de l'intestin... ..	58
-Ectopie pancréatique.....	59
- Hyperplasie des glandes de Brunner.....	60
-Ectopie de la muqueuse gastrique	61
D- Le risque de transformation maligne.....	61
E- Traitement	61
F- Evolution et complication	62
VI-Conclusion	63
Résumés.....	64
Références.....	69
Annexes	

I-INTRODUCTION

L'adénomyome des voies biliaires est une maladie bénigne rare. Elle est décrite sur tout l'arbre biliaire, en particulier la vésicule biliaire. De siège au niveau de la voie biliaire principale, elle simule cliniquement et radiologiquement une pathologie tumorale maligne pancréatico-biliaire. Ces similitudes conduisent à la réalisation d'une duodéno-pancréatectomie céphalique (DPC), geste lourd et excessif pour une pathologie benigne.

Son incidence globale est estimée à 0,6% de toutes les néoformations des voies biliaires extra-hépatiques. Cependant plusieurs études autopsiques rapportent une incidence de l'adénomyome de l'ampoule de Water proche de 50%. [1]

Nous rapportons une étude descriptive de 03 cas d'adénomyome de la voie biliaire principale diagnostiqués, sur des pièces de duodéno-pancréatectomie céphaliques, au service d'anatomie pathologique de l'hôpital IBN SINA de Rabat sur une période de 5 ans(2007-2011).

A la lumière de notre étude et celle d'une revue de la littérature nos objectifs sont :

- Réaliser une étude analytique des caractéristiques épidémiologiques, cliniques, et radiologiques de l'adénomyome de la voie biliaire principale.
- Préciser l'aspect morphologique de cette entité.
- Discuter les moyens du diagnostic et les diagnostics différentiels afin d'éviter des gestes excessifs pour cette pathologie bénigne.
- Et, enfin proposer une prise en charge thérapeutique de cette pathologie.

II-ANATOMIE DES VOIES BILIAIRES

La bile, sécrétée par les cellules hépatiques, est d'abord collectée par les voies biliaires intra-hépatiques. Elle est ensuite conduite du foie jusqu'au duodénum par les voies biliaires extra-hépatiques.

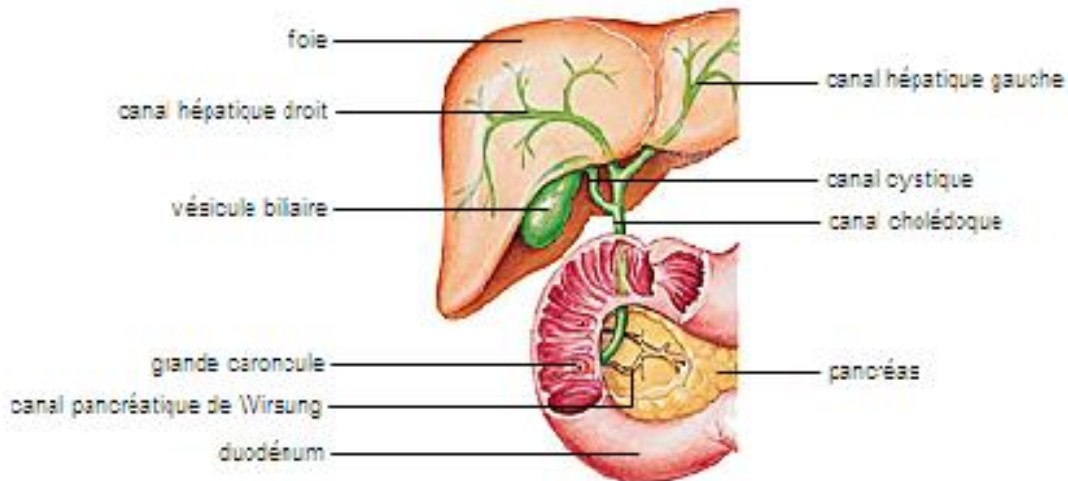


Figure 1: voies biliaires intra et extra-hépatiques [12]

A. Voies biliaires intra-hépatiques :

Ce sont des canalicules intra-lobulaires, cheminant entre les cellules, qui se réunissent en canaux péri-lobulaires; ceux-ci se regroupent entre eux pour former le canal biliaire hépatique droit (qui draine le foie droit) et le canal biliaire hépatique gauche (qui draine le foie gauche).

B. Voies biliaires extra-hépatiques :

L'arbre biliaire extra-hépatique comporte trois secteurs :

- La voie biliaire principale : canaux hépatiques, convergence et cholédoque.
- La voie biliaire accessoire : vésicule et régions cervico-cystique.
- La zone terminale cholédo-oddienne.

Ces secteurs sont disposés sur trois niveaux :

- Un niveau supérieur, dans les limites de la plaque hilaire ;
- Un niveau moyen, péritonéal, pédiculaire ;
- Un niveau inférieur, dans la loge duodéno-pancréatique[12].

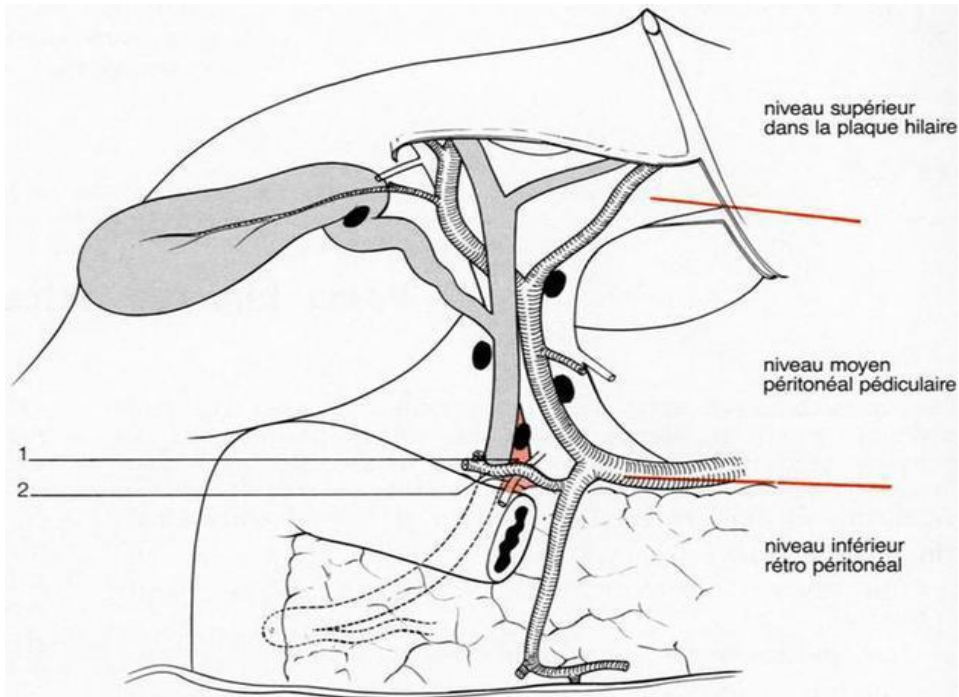


Figure 2 : Les trois niveaux des voies biliaires extra-hépatiques

1. Triangle inter-porto-cholédocien.
2. Artère pancréatico-duodénale postéro-supérieure[12]

1. Niveau supérieur, convergence biliaire dans la plaque hilaire :

La réunion des conduits hépatiques droit et gauche se fait dans le hile du foie (porta hepatis) et constitue le confluent biliaire supérieur ou convergence biliaire. Celle-ci est entourée par la gaine glissonienne dont l'épaississement au niveau du hile hépatique forme la plaque portale.

2. Niveau moyen péritonéal :

C'est la partie des voies biliaires qui est la plus accessible chirurgicalement ; elle est représentée par la voie biliaire accessoire qui se jette dans la voie biliaire principale.

a. La voie biliaire accessoire :

- Vésicule biliaire :

Réservoir musculo-membraneux, la vésicule biliaire est appliquée à la face inférieure du foie, à la limite des foies droit et gauche, dans une fossette.

Longue de 8 à 10 cm, large de 3 à 4 cm, la vésicule biliaire a une morphologie très variable. On lui distingue classiquement trois portions.

Le fond vésiculaire répond à l'échancrure cystique du bord inférieur du foie. Il est entièrement péritonisé, et entre dans sa partie ventrale en rapport avec les espaces péritonéaux entourant le foie, le récessus sous-phrénique droit et le récessus sous-hépatique droit.

Le corps vésiculaire est orienté d'avant en arrière et de dehors en dedans ; à son niveau, la capsule de Glisson du foie est épaissie en une plaque vésiculaire, qui se prolonge directement, en dedans, avec la plaque hilaire.

Sa face inférieure est en rapport, par l'intermédiaire du péritoine viscéral, avec la portion droite du côlon transverse, l'angle supérieur du duodénum et la partie descendante du duodénum.

Le col forme la partie la plus postérieure et la plus étroite de cet organe. Il présente une disposition en siphon en se dirigeant en avant et en bas, en déterminant des bosselures dont la plus visible est le bassinnet.

Le col de la vésicule peut être uni au duodénum ou au côlon par un prolongement du petit omentum formant le ligament cystico-colique ou le ligament cysticoduodéal.

La section de cette formation permet la mobilisation du col vésiculaire et la dissection du conduit cystique.

- Le conduit cystique :

Il prolonge le col vésiculaire, en faisant avec le bassinet un angle ouvert en dedans. De longueur variable, entre 20 et 50 mm, il se dirige en bas et en dedans pour rejoindre le conduit hépatique commun. Son diamètre est de 4 mm environ.

Les modalités d'abouchement du conduit cystique sont très variables puisqu'il peut se jeter dans la voie biliaire principale n'importe où entre la convergence biliaire et l'ampoule de Vater. Exceptionnellement (moins de 2 % des cas), le conduit cystique se jette dans le conduit hépatique droit ou le conduit sectoriel latéral droit. Ainsi se trouvent constitués des conduits hépato-cystiques drainant soit la totalité du foie droit, soit le secteur latéral droit.

b. La voie biliaire principale :

La voie biliaire principale est constituée de deux segments canaux :

- Le conduit hépatique commun : né de la convergence des conduits hépatiques droit et gauche, et se termine à l'abouchement du conduit cystique.
- Le conduit cholédoque : constitué de la fusion des conduits cystiques et hépatiques communs. Il se termine dans la partie descendante du duodénum.

Le trajet de la voie biliaire principale, comme la montre la cholangiographie transcystique, est oblique en bas, à droite et en arrière. La longueur de la voie biliaire principale se situe entre 80 mm et 100 mm ; son diamètre est d'environ 5 mm et augmente légèrement avec l'âge.

La voie biliaire principale, au niveau de l'étage péritonéal, dans sa portion la plus chirurgicale, est située dans le ligament hépato-duodéal.

A l'intérieur du ligament hépato-duodéal la voie biliaire principale descend sur la face antérieure et droite du tronc de la veine porte, qui est elle-même oblique en haut, à droite et en avant.

De ce fait, en arrière du duodénum, la veine porte dessine avec le conduit cholédoque le triangle inter-porto-cholédocien.

L'artère hépatique propre, qui monte contre la partie antérieure et gauche du tronc porte, est située en dedans de la voie biliaire. La division artérielle en rameaux hépatiques droit et gauche se fait en dessous de la convergence biliaire.

Les courants lymphatiques juxta-biliaires longent le cholédoque ; parmi ses éléments les plus constants, figure le noeud rétrocholédocien (noeud du confluent biliaire inférieur).

3. Niveau inférieur rétroduodéal :

La voie biliaire principale, d'une longueur de 40 mm à 60 mm, continue son trajet en bas, à droite et en arrière en trois portions distinctes dans la loge duodéno pancréatique, en situation rétropéritonéale.

a. Portion rétroduodénale :

Sur 10 à 25 mm, le cholédoque vient croiser la face dorsale de la partie supérieure du duodénum fixe, qui masque le bord inférieur du triangle inter-porto-cholédocien.

Le conduit biliaire est croisé par l'artère supraduodénale et, dans un cas sur cinq, par l'artère gastro-duodénale.

b. Portion pancréatique :

D'une longueur de 20 mm environ, le cholédoque est au contact de la face postérieure de la tête du pancréas.

A l'intérieur du pancréas, passe transversalement en avant du cholédoque le conduit pancréatique accessoire (canal de Santorini).

Le tronçon pancréatique du cholédoque se projette sur la deuxième vertèbre lombaire. Le cholédoque pénètre alors dans la partie descendante du duodénum à travers une fenêtre de la tunique musculuse.

c. Portion intraduodénale ou intramurale :

Il descend obliquement, sur 10 à 15 mm environ, à travers les tuniques de la paroi duodénale, en formant avec le conduit pancréatique, ou conduit de Wirsung, un conduit commun (85 % des cas).

Ce conduit hépato-pancréatique de longueur variable débouche au sommet de la papille duodénale majeure. Les deux conduits cholédoque et pancréatique, de même que le conduit commun, possèdent chacun un appareil sphinctérien, circulaire ou spiralé, situé au niveau de leur portion distale : il s'agit du sphincter d'Oddi.

Le sphincter du conduit commun contribue à former la saillie en relief de la papille duodénale majeure. Il se confond avec la muscularis mucosae du duodénum.

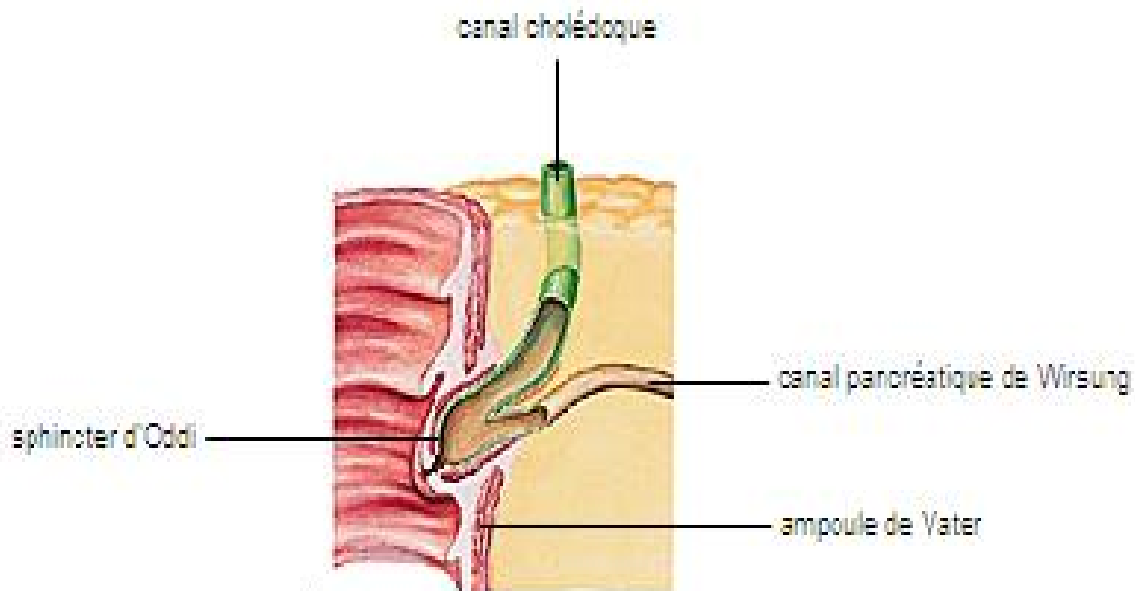


Figure 3 : abouchement du cholédoque[12]

C. Structure histologique des voies biliaires

La voie biliaire principale est formée d'une paroi très mince de 0,5 à 1mm d'épaisseur. Histologiquement [13], la muqueuse est faite d'une seule assise de cellules cylindriques, hautes soulevées en courtes villosités et reposant sur un tissu conjonctif lâche sans musculaire muqueuse individualisée, mais assez riche en fibre élastiques. On trouve dans l'épaisseur de la paroi des groupes de glandes séro-muqueuses, de fibres de collagènes et quelques tractus musculaires longitudinaux ou spiralés inconstants.

Dans la zone terminale de la VBP on distingue deux zones :

- a) le cholédoque terminale, extra et intra duodénale, a une paroi assez épaisse, riche en glandes : la lumière étroite est bordée par une muqueuse cylindrique un peu villose. il existe des fibres musculaires longitudinales et circulaires, autonomes ou issues de la muqueuse duodénale qui forment le sphincter.
- b) L'ampoule est bordée de longues villosités parallèles, à revêtement cylindrique régulier, orientées en épis vers la lumière duodénale. Elle est entourée par de nombreuses fibres musculaires grêles autonomes ou issues de la musculature duodénale et qui montent dans l'axe des villosités.

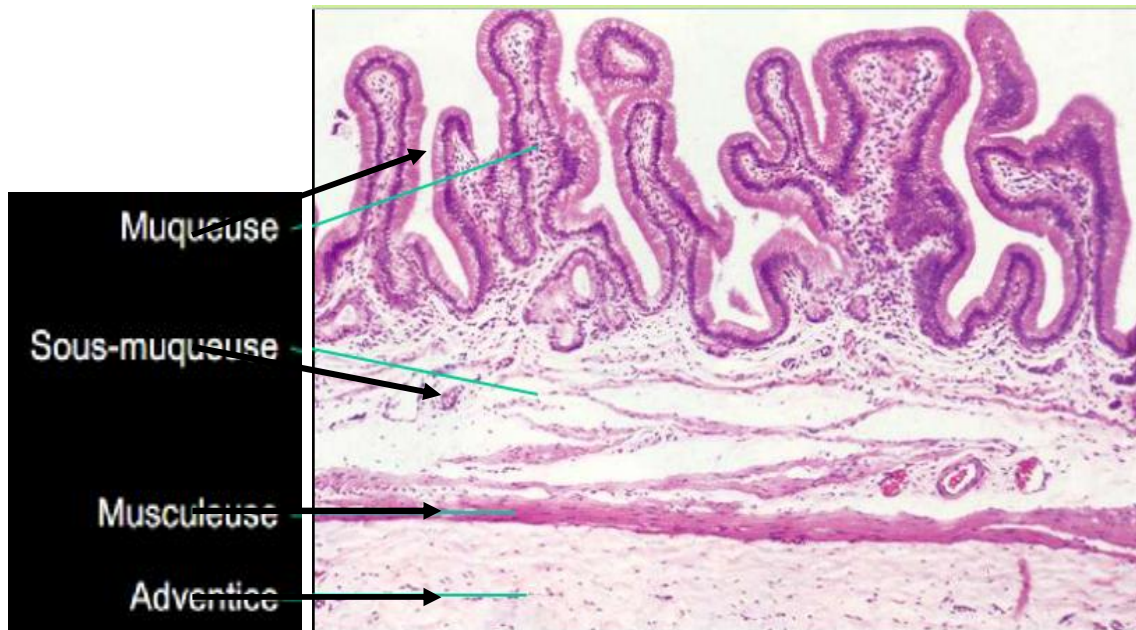


Figure 4 : coupe histologique de la paroi biliaire [14]

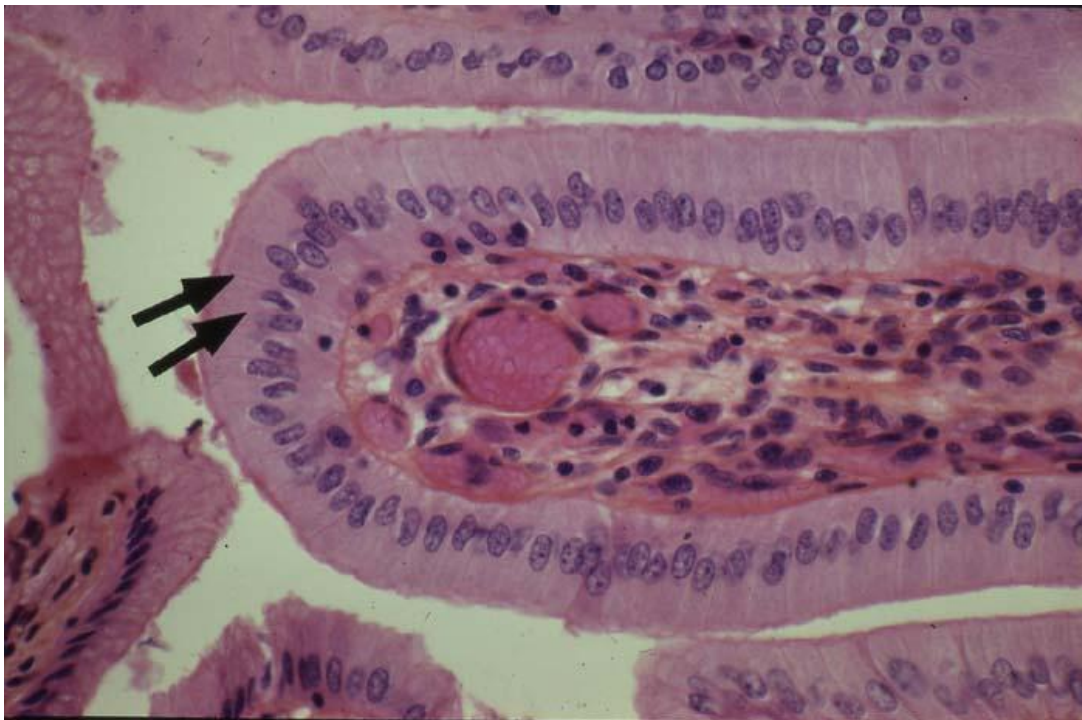


Figure 5 : épithélium prismatique simple [14]

D. Vascularisation des voies biliaires :

1. Vascularisation artérielle :

Les artères de la voie biliaire principale proviennent essentiellement de l'artère pancréaticoduodénale supérieure droite, qui naît de la gastroduodénale et passe à la face antérieure de la voie biliaire. Elle donne à ce niveau plusieurs artéριοles qui s'anastomosent entre elles en un riche réseau. Les deux artéριοles principales ont un trajet parallèle, l'une à droite et l'autre à gauche de la voie biliaire principale.

Ce réseau est doublé par deux autres réseaux intramuraux : l'un dans l'épaisseur de la paroi canalaire, l'autre sous-muqueux.

La voie biliaire accessoire reçoit sa vascularisation de l'artère cystique qui, au niveau du col de la vésicule, se divise en deux branches droite et gauche.

Dans les trois quarts des cas, l'artère cystique est unique et « courte » et provient du rameau droit de l'artère hépatique propre.

Dans un quart des cas, l'artère cystique provient d'un point quelconque de l'artère hépatique propre.

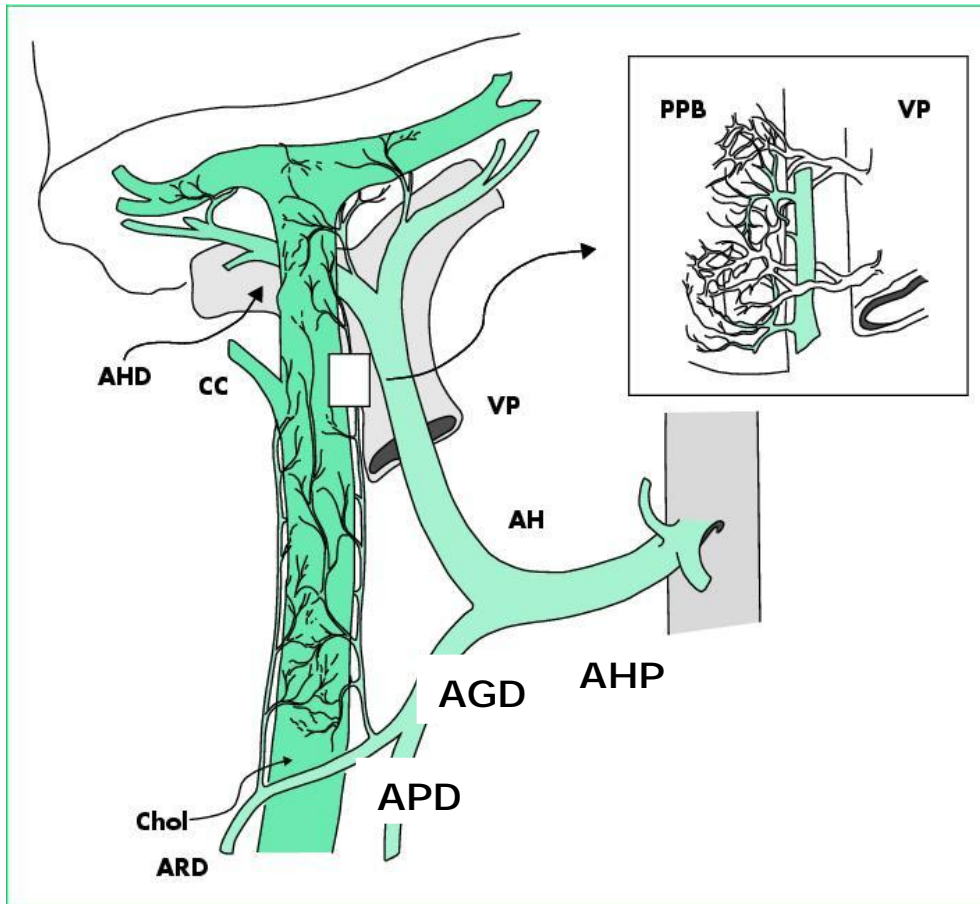


Figure 6 : vascularisation de la VBP (AHC : artère hépatique commune, AHP : artère hépatique propre, AGD : artère gastro-duodénale, APD : artère pancréatico-duodénale, AHD : artère hépatique droite, CC : canal cystique, VP : veine porte, Chol : cholédoque. [12])

2. Vascularisation veineuse :

Les veines cystiques empruntent deux voies de drainage : l'une, venue de la paroi vésiculaire juxta-hépatique, traverse le lit vésiculaire pour gagner directement la circulation veineuse hépatique (veines portes accessoires) ; l'autre, la plus étendue, est constituée des deux veines cystiques qui rejoignent soit la branche droite de la veine porte soit l'arcade para-biliaire.

Les veines de la voie biliaire principale sont tributaires de la veine porte à partir d'une arcade para-biliaire antérieure et interne par rapport au conduit biliaire.

3. Drainage lymphatique :

Le drainage de la voie biliaire accessoire est intriqué avec le drainage du foie. A partir d'un riche réseau muqueux, les vaisseaux lymphatiques gagnent directement un réseau sous-séreux plus superficiel et forment le groupe du bord droit, le groupe de la face inférieure, le groupe du bord gauche et dessinent sur la vésicule la lettre N.

La plupart des collecteurs se rendent soit dans le nœud du col de la vésicule biliaire, soit dans le nœud de l'hiatus, sous le bord libre du ligament hépato-duodéal.

Les lymphatiques de la voie biliaire principale comprennent des éléments ganglionnaires de volume variable attenant à tous les niveaux des voies biliaires extra-hépatiques ; en particulier, le nœud de l'hiatus sur le bord libre de l'hiatus de Winslow en arrière du cholédoque.

E. L'innervation :

L'innervation sympathique, comme l'innervation parasympathique, dépendent du plexus coélique et du tronc vagal antérieur.

La sensibilité douloureuse est transmise par le nerf grand splanchnique droit et par le nerf phrénique droit : ceci explique la projection scapulo-cervicale droite des syndromes douloureux hépatobiliaires.

Les filets nerveux accompagnent les faces antérieure et surtout postérieure de la voie biliaire principale (nerf postérieur du conduit cholédoque). Ils entourent le conduit cystique et suivent enfin les bords latéraux de la vésicule biliaire.

F. Embryologie :

L'organogenèse des voies biliaires est encore mal connue. Deux conceptions tentent d'en éclaircir l'évolution entre la cinquième et la septième semaine de vie embryonnaire. Selon Streeter et Patten [18], le développement des conduits biliaires résulterait de la transformation précoce, cellule par cellule, des hépatocytes en cellules canalaire. Ces conduits biliaires, de disposition plexiforme, seraient orientés dans les 3 plans de l'espace. Ils se continueraient par un conduit hépatique commun rejoignant le conduit cystique dans le prolongement du cholédoque.

Cependant, les conduits biliaires, au lieu de se réunir en un conduit unique, pourraient parfois s'ouvrir séparément dans le conduit cystique.

Selon Lassau et Hureau [12], les conduits biliaires s'individualiseraient plus tardivement à partir de bourgeons de l'axe cholécystique ; ces bourgeons coloniseraient le parenchyme hépatique. L'axe cholécystique déterminerait ainsi la genèse des conduits biliaires.

III-HISTORIQUE ET PHYSIOPATHOLOGIE

La physiopathologie de l'adénomyome des voies biliaires reste encore inconnue. Jusqu'à 1982 l'adénomyome a été considéré comme une forme d'hétérotopie pancréatique qui présente un déplacement du tissu pancréatique dans diverses parties du tube digestif. Quatre-vingt-dix pour cent de ces lésions rapportées par la Clinique Mayo étaient dans l'estomac, duodénum et le jéjunum [2], les structures thoraciques sont généralement moins impliquées. La localisation biliaire est rare, causant une obstruction du cholédoque [3]. Cette néoformation se présente comme une masse composée histologiquement de muscle lisse et de structures épithéliales en quantité variable ce qui rend sa terminologie difficile, d'une part on peut trouver un tissu pancréatique bien différencié avec des acini et des îlots cellulaires et d'autre part des cellules épithéliales indifférenciées formant des tubes. Les glandes de Brunner peuvent être présentes. Lorsque les glandes pancréatiques typiques sont présentes, la lésion est donc attribuée à une hétérotopie ou à un pancréas aberrant, mais quand le muscle lisse est dominant le long des structures glandulaires, le terme d'adénomyome est utilisé. Clarke [4] a proposé le terme d'hamartome myoépithélial pour inclure tout pareil développement. Alors que Cimmino [5] a discuté la terminologie en détail et il a préféré le terme générique d'adénomyosis. Selon Siekan et al [40], l'adénomyome, l'adénomyosis, l'hyperplasie adénomyomateuse, et l'hamartome myoépithélial sont considérés comme des synonymes d'un même processus lésionnel.

En 1995, Imai et al parlent dans leur publication de deux hypothèses pathogéniques de l'adénomyome fondées sur l'observation que les structures et les composantes retrouvées dans l'adénomyome de l'arbre biliaire sont similaires à ceux des sinus de Rokitansky-Aschoff. La première hypothèse suggère qu'elles sont dérivées de diverticule, alors que l'autre hypothèse suggère qu'elles dérivent d'un

hamartome : malformation tissulaire d'aspect tumoral, composée d'un mélange anarchique d'éléments constitutifs normalement présents dans l'organe dans lequel ils se développent.

Tanaka [43] a élucidé la première hypothèse, en expliquant qu'elle est due à une augmentation de la pression intra-luminale de la voie biliaire principale ce qui engendre la formation d'un diverticule de la muqueuse de la voie biliaire dans la paroi de cette dernière. La présence de glandes dans la paroi conduit après un certain temps à une hypertrophie de la musculature et ainsi à la formation d'un adenomyome. Cette hypothèse explique aussi le mécanisme de formation des kystes du cholédoque à long terme, ce qui la rend plus logique et acceptable par Deepak[46].

Deepak est le premier et le seul auteur qui a rapporté un cas d'adenomyome survenant sur un kyste du cholédoque de type I, alors que les autres cas de la littérature, l'adenomyome n'était pas associé à une dilatation kystique de la VBP. Tsukamoto, Cook et Ojima [16, 44, 45] suggèrent que chez ces patients, la pression intra-luminale pourrait juste être suffisante pour former le diverticule sans pour autant être assez suffisante pour former le kyste.

Dans l'autre cas de figure où on a un kyste sans adenomyome, Deepak[46] explique que si le diverticule ne se forme pas au tout début -alors que la voie biliaire se dilate par la pression intraluminale pour former un kyste- la paroi s'épaissit par l'inflammation et la fibrose. Il devient alors beaucoup plus difficile que la muqueuse s'insinue à travers cette paroi fibrosée pour former un adenomyome.

Actuellement les techniques d'immuno-histochimie confirment que l'origine de l'adénomyome est plutôt pancratico-biliaire : les cytokératines 7 et 20 sont des protéines cytoplasmiques constituant la composante majeure du cytosquelette des cellules humaines [6], leur distribution anatomique est généralement limitée à l'épithélium mais aussi à certaines néoplasies épithéliales [6]. L'épithélium

pancréatique normal est positif à l'expression de la CK7 et négatif à l'expression de la CK20 [6, 7,8] .Inversement l'épithélium duodénal normal est CK7 négatif, CK20 positif [7, 9,10]. Dans les cas d'adénomyome de l'ampoule de water ,l'épithélium glandulaire est positif à l'expression de la CK7 et négatif à l'expression de la CK20 confirmant ainsi leur origine pancréatico -biliaire[11].

IV- MATERIELS ET METHODES

Nous proposons dans ce travail une étude rétrospective concernant 3 cas d'adénomyome de la voie biliaire principale colligés au service d'anatomopathologie de l'hôpital IBN SINA à Rabat, au cours de la période allant du mois de septembre 2008 au mois de septembre 2011, soit une période de 3 ans.

Pour cela, on a suivi les étapes décrites ci-dessous :

1-Consultation du registre du service d'anatomie pathologique

On a ressorti toutes les fiches anatomopathologiques portant le diagnostic d'adénomyome des voies biliaires, où on relève les données suivantes :

Nom et prénom du malade

L'âge.

Le sexe.

Numéro d'hospitalisation.

Numéro d'anatomopathologie.

Service d'hospitalisation du patient.

Résultats :

- aspect macroscopique.
- aspect microscopique.
- conclusion.

Puis, on a exploité les dossiers des malades dans les services d'hospitalisation pour préciser tous les renseignements cliniques, les bilans para cliniques et le compte rendu opératoire (CRO) :

Service de chirurgie générale A : 2 cas.

Service de chirurgie générale B : 1 cas.

2- Fiche d'exploitation

Une fiche d'exploitation comprenant les paramètres suivants est établie :

L'âge des patients.

Le sexe

Les renseignements cliniques : les antécédents des malades, les signes fonctionnels et les données de l'examen physique.

Les renseignements paracliniques : les examens biologiques, radiologiques et autres explorations à but diagnostic.

Le compte rendu opératoire

3- La recherche bibliographique

Une recherche exhaustive était menée pour colliger le plus grand nombre de cas d'adenomyome de la voie biliaire principale, différents moteurs de recherche ont été utilisés : google ; science direct, hinari, pubmed, inist,....

4- Calcul statistique

Nos calculs des différents valeurs concernant les cas de la littératures et nos trois cas ont été réalisés au Laboratoire de Bio statistique et de Recherche Clinique et Epidémiologique (LBRCE) à la faculté de médecine et de pharmacie de Rabat ; notre outil statistique était le logiciel SPSS 18.

5- Les observations cliniques

▼ Cas 1

Un homme de 52 ans, ayant comme antécédents un diabète de type 2 sous insuline, une cardiopathie ischémique traitée, et un tabagisme chronique sevré il y a 5 ans, était hospitalisé pour ictère et prurit d'installation rapide, associés à des épigastralgies, le tout évoluant dans un contexte d'amaigrissement non chiffré. Biologiquement, il existait une choléstase ([BT] : 23mg/l ; [BC] :17mg/l ; GGT : 349 U/L; PAL : 341UI/L) et une cytolyse (ASAT :53U/L ; ALAT :62 U/L) .L'antigène CA19-9 était à 207,6 U/L. Le scanner abdominal mettait en évidence une image tissulaire de la paroi antérieure du bas cholédoque, obstruant partiellement la VBP qui était dilatée à 12mm avec une discrète dilatation des VBIH, évoquant un adénome ou un polype. Une écho-endoscopie est réalisée pour approcher le diagnostic et elle a montré une dilatation de la VBP avec suspicion de polype cholédocien. Une deuxième écho-endoscopie était effectuée par un autre opérateur a mis en évidence un ampullome waterien avec extension intra-canalair. L'exploration chirurgicale a objectivé lors de l'ouverture du duodénum un nodule ampullaire et une dilatation de la VBP. Compte tenu de ces résultats une duodéno-pancréatectomie céphalique avec anastomose pancréatico-jéjunale était réalisée.les suites opératoires étaient simples et le malade a quitté l'hôpital au 10ème jour postopératoires.

On a reçu une pièce de DPC fermée, fraîche, non orientée comportant :

- un segment gastrique de 10 cm de long
- un segment duodéнал de 26 cm de long
- le pancréas mesure 6x6, 5x4cm
- le cholédoque mesure 2 cm de long

A l'ouverture du duodénum on a trouvé un aspect tuméfié et boursouflé de l'ampoule de Water. A la coupe du pancréas, une dilatation partielle du canal cholédoque est notée, ce dernier est libre sans lésion tumorale individualisable sur tout son trajet. Par ailleurs, on a constaté un petit épaissement pariétal de la partie terminale du canal cholédoque, et trois prélèvements ont été réalisés à ce niveau. Le pancréas était sans particularité. Le curage ganglionnaire a trouvé 8 ganglions.

L'étude histologique des différentes coupes réalisées au niveau de la zone d'épaississement cholédocien terminal a montré une lésion bénigne faite essentiellement de canaux et de tubes, parfois de glandes, tapissées par des cellules cubiques régulières, au cytoplasme éosinophile et aux noyaux monomorphes, dépourvues de toute atypie cytonucléaire et de mitose. Cette prolifération est mêlée à de nombreux faisceaux musculaires lisses hyperplasiques. Les limites des résections chirurgicales étaient saines, et le curage ganglionnaire a retrouvé 10 ganglions réactionnels. On a conclu à un adénomyome de la voie biliaire principale



Figure 7 : TDM abdominale : Dilatation partielle de la voie biliaire principale (cas 1)

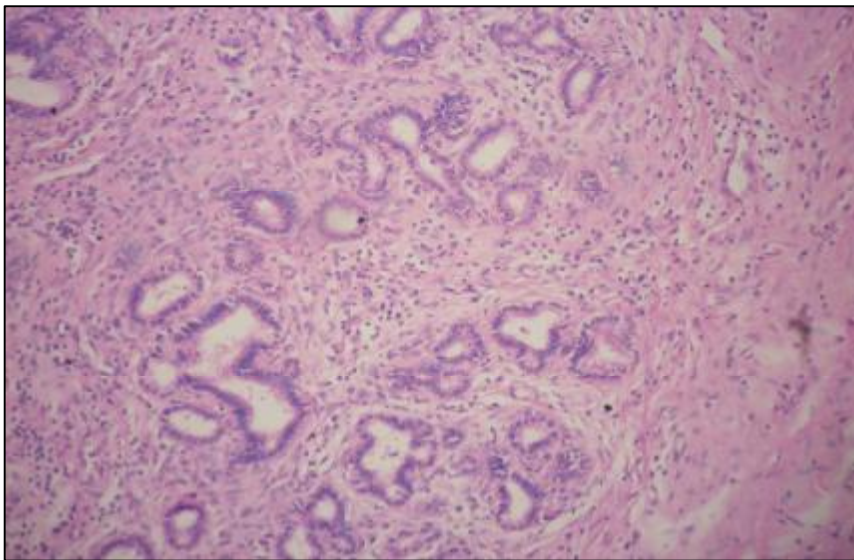


Figure 8 : tubes et glandes tapissées par des cellules cubiques régulières entourées de fibres musculaires lisses hyperplasiques (HE, x 40)(cas 1)

v Cas 2

Il s'agit d'une femme âgée de 52 ans, sans antécédents pathologiques notables, hospitalisée pour des coliques hépatiques chroniques. Elle présentait aussi quelques épisodes de vomissements bilieux, associés à un amaigrissement non chiffré, sans notion d'hémorragie digestive ou d'ictère. L'examen physique était sans particularité. Biologiquement il n'y avait pas de choléstase ni de cytolysse, le marqueur tumoral CA19-9 était légèrement élevé alors que l'ACE était normal. L'échographie abdominale a montré une voie biliaire dilatée à 10 mm dans sa portion proximale. La Bili-IRM a révélé un petit nodule de la tête du pancréas mesurant 18mm de diamètre, avec dilatation de la VBP et du canal de Wirsung en son émergence. L'écho-endoscopie a mis en évidence un pancréas d'aspect normal et un nodule ampullaire de 1 cm envahissant la VBP et le Wirsung qui sont dilatés, évoquant un ampullome waterien avec envahissement bicanalaire. La FOGD a objectivé une petite papille rétractée donnant faiblement issue à la bile sans bourgeon mis en évidence. Une duodéno-pancréatéctomie céphalique a été réalisée, et les suites opératoires étaient simples.

On a reçu une pièce de DPC comportant :

- un pancréas mesurant 9x4x2cm
- un segment gastrique mesurant 4cm de long
- un segment duodénal de 18cm de long
- le cholédoque mesure 6 cm
- et la vésicule biliaire 9cm

A l'ouverture du duodénum, on a noté la présence de deux lésions : la première est une surélévation située au niveau de la papille, mesurant 1x1cm, et tapissée par une muqueuse normale (3 prélèvements). La deuxième est située à 2cm au dessus de la première lésion (un prélèvement). Le curage ganglionnaire a retrouvé 7 ganglions.

Microscopiquement, les coupes réalisées au niveau de la papille montrent une lésion faite de structures tubulaires et glandulaires bordés de cellules épithéliales régulières conservant une polarité cellulaire normale et dépourvues d'atypies cytonucléaires. Ces structures se disposent au sein d'un stroma fibro-musculaire fait de fibres musculaires lisses formant des manchons autour des structures glandulaires. Cet aspect était retrouvé également au niveau de la papille duodénal mineure.

Le parenchyme pancréatique et la muqueuse duodénale étaient de morphologie normale. La vésicule biliaire décrit des lésions de cholécystite chronique non spécifique. Les 7 ganglions retrouvés étaient tous réactionnels. En conclusion c'était un adénomyome de la papille duodénale majeure et mineure sans signe de malignité



Figure 9 : BiliIRM : arrêt de progression du produit de contraste (cas 2)

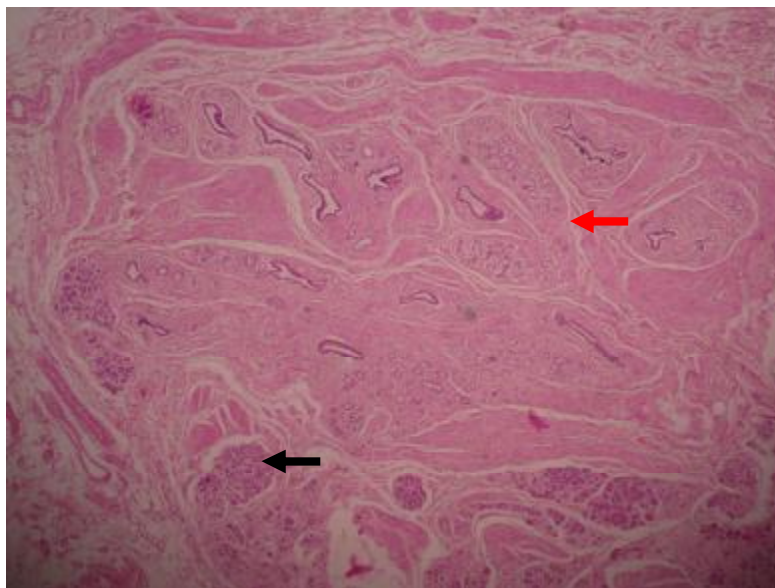


Figure 10 : Photomicrographie à faible grossissement montrant la région de l'ampoule de Vater, siège d'une hétérotopie pancréatique (flèche noire) avec adénomyome (flèche rouge)située dans la paroi duodénale (muqueuse en haut à droite)(HE x 10)(cas2)

v Cas 3

Un homme de 42 ans, ayant comme seul antécédents une gastrite traitée médicalement, était hospitalisé pour ictère d'installation progressif. Le patient rapportait aussi la notion de douleur de l'hypochondre droit, de mélaena avec un amaigrissement non chiffré. L'examen physique trouvait des conjonctives ictériques sans autre signe associé. Biologiquement il existait une choléstase (GGT : 533U/L ; PAL : 313UI/L), et une élévation du marqueur tumoral CA19-9 qui était supérieur à 500U/ml. Une échographie abdominale était réalisée mais le résultat n'a pu être retrouvé dans le dossier. La bili-IRM a montré un processus lésionnel du carrefour bilio-digestif responsable d'une dilatation bi-canaulaire faisant discuter un ampullome vaterien ou une tumeur de la tête du pancréas, la FOGD n'a pas montré d'anomalie ampullaire. L'exploration chirurgicale a retrouvé une tumeur à la jonction entre le cholédoque et le wirsung d'où la réalisation d'une DPC .En post-op immédiat le malade s'est compliqué par un arrêt cardio-circulatoire et un choc hémorragique pour lesquels il a séjourné dix jour au service de réanimation.

Dans notre service on a reçu une pièce de DPC fraîche et fermée contenant :

- Un segment duodéanal mesurant 33cm de long.
- un segment pancréatique mesurant 6x4, 5x3 cm
- et un cholédoque dilaté mesurant 6x1 cm

A l'ouverture, la muqueuse duodénale était érythémateuse.

A la coupe du pancréas on a noté un aspect homogène et lobulé avec présence d'une petite induration de 0, 8 cm de grand axe (3 prélèvements), située à la jonction bilio-pancréatique. Le curage ganglionnaire retrouve 10 ganglions.

Les coupes réalisées au niveau de la zone indurée ont montré une lésion bénigne faite de structures tubulaires et glandulaires, tapissées par des cellules cubiques dépourvues d'atypie cytonucléaire et de mitose, le stroma était fibromusculaire fait de fibres musculaires lisses et hyperplasiques, formant des

manchons autour des structures glandulaires. Le parenchyme pancréatique ainsi que la muqueuse duodénale étaient sans particularité. Les 10 ganglions retrouvés étaient tous réactionnels. On a conclu à un adénomyome du bas cholédoque sans signe de malignité.

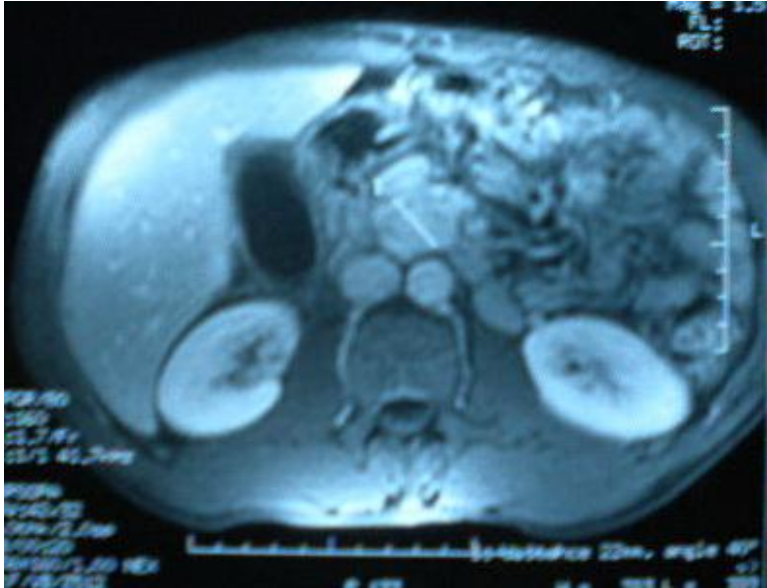


Figure 11 : imagerie par résonance magnétique (IRM) : un processus lésionnel carrefour bilio-digestif mesurant 22 mm de diamètre (cas 3)

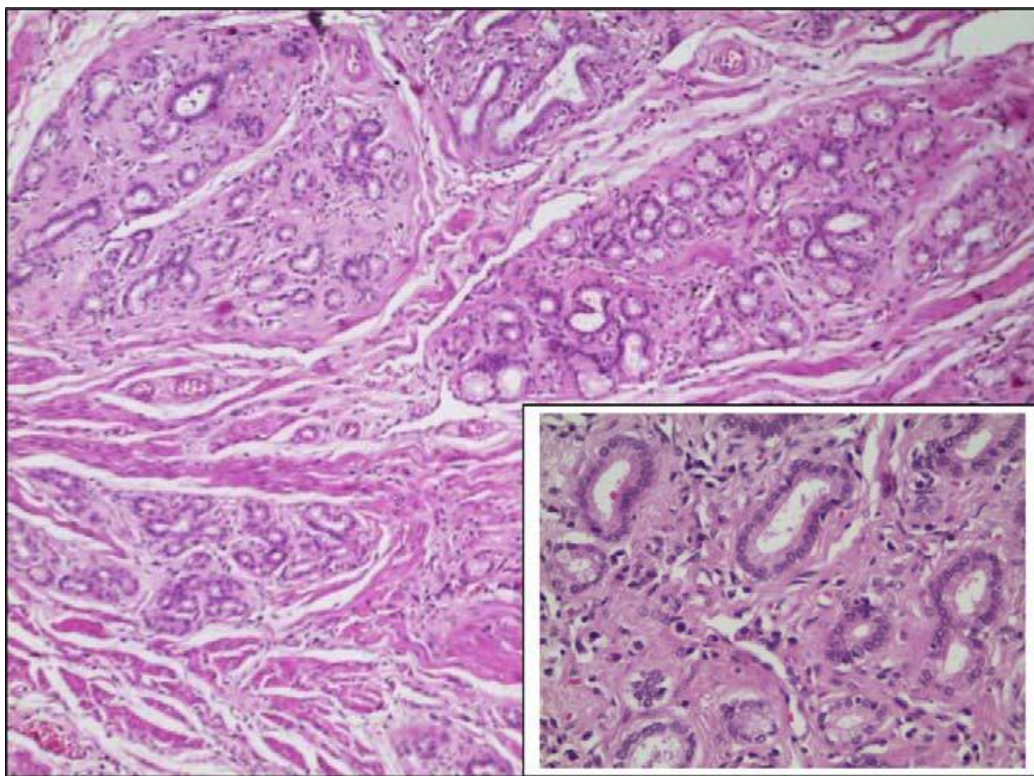


Figure 12 : Photomicrographies montrant une prolifération bénigne à double composante : épithéliale tubulaire revêtue de cellules pourvues de noyaux réguliers à situation basale se disposant au sein d'un tissu conjonctif fait essentiellement de fibres musculaires lisses hyperplasiques(H & E, × 40 et x 100) (cas3)

6- Tableau récapitulatif des observations (voir tableau 1)

Service	patient	age	sexe	Données cliniques			Données paracliniques			Compte rendu opératoire	macroscopie	conclusion
				ATCD	Signes fonctionnels	Examen physique	Biologie Valeurs	Examens rdiologiques	Biopsie Endoscopique			
CH A	Obs 1 : Mr.O mohammed	52 ans	M	- tabac (5ans) -diabète II -cardiopath ischémique	-Ictère et prurit d'installation brutale. - épigastralgies - AMG	normal	BT=23 BC=17 GGT=349 PAL=341 ASAT=53 ALAT=62 CA19-9= 207,6	TDM abdominale : -image intracholedocienne obstruant la VBP évoquant un adénome ou un polype -dilatation VBP -discrète dilatation des VBIH Echo-endoscopie: 1 ^{er} : dilatation de la VBP avec suspicion de polype choledocien 2eme : ampullome vaterien avec envahissement endo-canalair	Non faite	-présence d'un nodule ampullaire -DPC+ APJ+ACJ+ AGJ + curage du pédicule hépatique	Pièce de DPC comportant un seg gastriq de 10 cm,un seg duodenal de 26 cm et un pancréas de 6*6,5*4cm. A l'ouverture du de la voie duodénum : aspect tuméfié et boursoufflé de l'AW. Dilatation partielle du cholédoque avec épaississement pariétal de sa partie terminale Curage : 08 gg	- Adénomyome biliaire principale -Adénites réactionnelles (10N(-)/10N)
CH B	Obs :2 M .J fatna	52 ans	F	RAS	-douleur de l'HCD depuis un 1 An -vomissement -AMG	NORMAL	BT=4 BC=2 GGT=27 PAL=51 ASAT=16 ALAT=9 CA19-9= 51,4 ACE=2,43	Ecographie abdominale ; dilatation de la VBP (10mm) a sa partie terminale sans dilatation des VBIH. -présence d'un nodule du pancréas BILI-IRM ; -VBP dilatée (10mm) de terminaison effilée -discrète dilatation du Wirsung en son émergence -présence d'un nodule (18mm de grand axe) de la tête du pancréas hyposignal en T2 se rehaussant après injection de gadolinium Echo-endoscopie : tête du pancréas est d'aspect normal -la papille est le siège d'un nodule hypo- echogene de 1cm envahissant la paroi de la VBP et du Wirsung qui sont dilatés. Ampullome waterien avec envahissement bicanalaire	Non Faite	DPC+ curage du pédicule hépatique	Pièce de DPC comportant un seg gastriq de 4 cm,un seg duodenal de 18 cm de long et un pancréas de 9*4*2cm.le cholédoque mesure 6cm A l'ouverture du duodenum la papille presente une surelevation mesurant 1*1cm tapissée par une muqueuse située a 2cm d'une 2eme lésion Curage : 07gg	Adenomyome des papilles duodénales majeure et mineure
CH A	Obs :3 Mr.C idrissi	42 ans	M	-gastrite	-douleur de l'HCD -sub-ictère -mélaena -AMG	Ictère conjonctivale	GGT=533 PAL=313 CA19-9 >500 ACE=1,78	Echographie : Faite mais non retrouvée dans le dossier BILI-IRM : processus lésionnel tissulaire du carrefour bilio-digestif mesurant 22mm de diamètre FOGD ; La fibroscopie axiale n'a pas montré d'anomalie papillaire	Non faite	Présence d'une petite tumeur à la jonction entre le cholédoque et le Wirsung DPC+APG+APJ+ cirage des gg de l'AMS et du pedicule hepatique	Même description que le premier cas	Adenomyome du bas cholédoque

V- DISCUSSION

A –Données épidémiologiques

1-Incidence :

L'adénomyome des voies biliaires est excessivement rare. À ce jour, 72 cas d'adénomyome de la voie biliaire ont été rapportés [3, 18, 20-23]. En ajoutant nos trois cas, 75 cas d'adénomyome peuvent être étudiés (tableau 2). Burhans et Myers [23] ont estimé l'incidence de l'adénomyome à 0,1 % de toutes les interventions sur l'arbre biliaire. Sur les voies biliaires extrahépatiques, il constituerait 0,6 % de toutes les néoformations. Cependant, plusieurs études autopsiques ont montré une incidence de l'adénomyome de l'ampoule de Vater proche de 50 % [1] (avec des lésions de 2 à 5 mm de diamètre) voire supérieure (54 % et 70 %) [18, 26].

Dans notre service sur une période de 5ans, 59 pièces de DPC ont été adressées, dont trois étaient des adénomyomes de la voie biliaire principale, soit une fréquence de 5 %

N	Auteur(ref.)	Année	Effectif	Age	Sexe	Angio-cholite	Douleur	Ictère	Localisation	Aspect	Traitement
1	Bravet et al. (17)	1913	1						Papille		
2	Moore et al. (20)	1952	1						VBI gauche		
3	Stenram et al. (76)	1960	1								RE
4	Dowdy et al. (13)	1962	1	38	F	NON	NON	OUI	VBI gauche		RC
5	Roselli et al. (57)	1964	1						VBP Distale		
6	Weber et al (74)	1968	1						VBP		
7	Burhans et al (64)	1971	1	62	F	NON	NON	OUI	VBP prox		RC
8	Oberhofer et al (65)	1975	1						Papille		
9	Koch et al (75)	1978	1						Papille		
10	Canizzaro et al (67)	1981	1	48	F	NON	NON	OUI	Papille	P	A
11	Rosai et al (66)	1981	1			NON	OUI	OUI	VBP dist	S	DPC
12	Gilbert et al (28)	1986	1	70	M	NON	NON	OUI	VBP dist		NC
13	Leese et al (61)	1986	1			NON	OUI	NON	Papille	P	RC
14	Ulich et al (30)	1987	1	66	F	NON	OUI	OUI	Papille	S	DPC
15	Cook et al (44)	1988	1	82	F	OUI	OUI	NON	VBP prox	P	RC
16	Diel et al (62)	1989	1	75	M	NON	OUI	OUI	VBP dist		NC
17	Flejou et al 26 (26)	1989	1			NON	OUI	OUI	Papille	S	DPC
18	Ikei et al[39]	1989	1	52	M	NON	OUI	NON	VBP dist		DPC
19	Thomas et al (32)	1990	1	68	M	NON	OUI	NON	VBP dist	S	DPC
20	Legakis et al (63)	1990	1	55	F		OUI	OUI	VBP	S	ABD
21	Goldmann et al (68)	1991	1						Papille		

22	Sudan et al (69)	1992	1	42	M	OUI	OUI	OUI	VBP dist	S	DPC
23	Matsumoto et al (72)	1992	1	75	M				VBP dist		DPC
24	Huang et al (73)	1993	1	63	M	NON	OUI	OUI	Papille	P	RC
25	Imai et al (38)	1995	1	54	F	NON	OUI	OUI	VBP prox	S	ABD
26	Asch et al (48)	1997	1	67	F	NON	OUI	NON	VBP dist	P	DPC
27	Ligorred et al (71)	1997	1	60	M	NON	NON	OUI	Papille	S	DPC
28	Hammarstrom et al (31)	1997	4	59,7	3FM	OUI (2)	OUI (4)	OUI (4)	Papille	P (4)	RE(3)-RC(1)
29	Lauffer et al (47)	1998	1	69	F	NON	OUI	NON	VBP dist	P	RC
30	Menzel et al (33)	1999	1						Papille	P	A
31	Tsukamoto et al (16)	1999	1	31	F	NON	OUI	OUI	VBP prox	S	ABD
32	Narita et al(70)	1999	1			NON	OUI	OUI	Papille	P	RC
33	Sato et al (15)	2000	1	64	F	NON	NON	NON	VBP	S	RC VBP
34	Ojima et al (45)	2000	1	64	F	OUI	OUI	OUI	VBP prox	S	DPC
35	Kayahara et al (19)	2001	1	42	F	OUI	OUI	OUI	Papille	P	RC
36	Chand et al (58)	2001	1	55	F	NON	OUI	NON	Papille	S	DPC
37	Bedirli et al (18)	2002	1	63	M	NON	OUI	OUI	Papille	P	DPC
38	Colovic et al (77)	2002	1	51	F	NON	OUI	NON	VBP prox	S	RC
39	Handra-luca et al (7)	2003	13	63	6M7F	OUI (1)	OUI (5)	OUI (5)	Papille	P (13)	DPC (13)
40	Miossec et al (59)	2004	1		M	NON	NON	NON	Papille	P	A
41	Aoun et al (21)	2004	4	66-71		NON	OUI (3)	OUI (4)	Papille	P (4)	DPC (4)
42	Martinez Viera et al (60)	2005	1	22	M	NON	NON	OUI	Papille	S	DPC
43	Fukuda et al (23)	2005	1	48	M	NON	NON	NON	Papille Acc	P	RC
44	Iwaki et al (78)	2006	1	62	F	NON	NON	NON	VBP diastale		PPPD
45	Siekan et al (40)	2006	1	50	F	NON	NON	NON	VBP proximale	S	RC
46	Masoon et al (79)	2006	1	73	F	NON	NON	NON	Papille		DPC
47	Plard et al (27)	2007	2	69-68	M	NON	NON	OUI (2)	-Papille -papille +VBP distale	S	DPC
48	Tea-hee et al (80)	2007	1	74	F	OUI	NON	OUI	Papille	S	RE
49	Masakatsu et al (81)	2007	1	54	M	NON	NON	OUI	VBP distale		RC
50	Mulla et al (82)	2008	1	49	F	NON	OUI	OUI	VBP	S	
51	Gui-ming et al (83)	2008	1	51	M	NON	NON	OUI	VBP distale	S	DPC
52	Lehward et al (84)	2010	1	45	M	NON	NON	NON	Papille	S	DPC
53	Deepak et al (46)	2011	1	45	F	NON	OUI	NON	VBP distale		RC
54	Notre étude	2011	3	42-52	2M1F	NON	OUI(3)	OUI(2)	-PDM(2) -PDm(1)	S	DPC

Tableau 2 : les cas d'adenomyome de la VBP reportés par la littérature ainsi que nos trois cas.

VBP : voie biliaire principale ; VBIH = voie biliaire intrahepatique ; P = lésion pédiculée ; S = lésion sténosante ; RE = résection locale endoscopique ; RC = résection locale chirurgicale ; A= ampullectomie ; DPC = duodéno pancréatectomie céphalique ; ABD = anastomose biliodigestive ; NC = non communiqué ; PDM=papille duodénale majeure PDm=papille duodénale mineure ; PPPD=duodeno-pancréatéctomie préservant le pylore

2-Répartition selon l'âge et le sexe

- L'âge

L'adénomyome des voies biliaires est diagnostiqué en général à un âge adulte. Plard et al montrent dans leur étude que l'âge moyen du diagnostic de l'adénomyome chez les deux sexes était de 59 ans [27].

L'étude faite au « LBRCE » (Laboratoire de Biostatistique et de Recherche Clinique et Epidémiologique) sur les 72 cas colligés lors de la recherche bibliographique montre que :

-l'âge moyen de diagnostic est de 60ans \pm 12 ans avec des extrêmes 22 à 82 ans.

Dans nos observations, tous les malades étaient des adultes avec un âge moyen de 49ans. \pm 6 ans

- Le sexe

Dans le monde, les femmes sont trois fois plus atteintes que les hommes [16].

Sur les 72 cas colligés, on a trouvé que le sexe ratio est de 6F/5H

Dans notre série le sexe ratio est : 1F/2H.ce rapport n'est pas fiable vu le nombre limité de nos cas.

B-Moyens de diagnostic

1- Cliniques

a- Les circonstances de découverte ou motifs d'hospitalisation

Les manifestations cliniques sont dues à l'obstruction de la voie biliaire et donc peu spécifiques [27], les raisons du passage vers une forme symptomatique restent inexpliquées et dépendent de la localisation et de la taille de la lésion. Occasionnellement cette lésion peut être retrouvée fortuitement lors de la chirurgie ou durant l'autopsie [28].

Ce tableau résume les signes cliniques ayant motivé l'hospitalisation des malades :

Tableau N 3 : les motifs d'hospitalisation

MOTIFS D'HOSPITALISATION	NOMBRE DE CAS	FREQUENCE EN %
ICTÈRE	32	44,5%
DOULEUR	13	18%
ANGIOCHOLITE	7	10%
TROUBLES DIGESTIFS	2	3%
HYPERAMYLASEMIE	1	1,4%
FATIGUE GENERALE	1	1,4%
FORTUITE LORS D'UNE FOGD	4	5,5%
NON MENTIONNE	12	17%

Lauffer [47] a rapporté d'autres symptômes comme : l'amaigrissement, l'anémie, et l'hémobilie.

Dans nos observations deux patients ont été hospitalisés pour ictère alors que le troisième patient était hospitalisé pour des coliques hépatiques.

b- Les signes cliniques

▼ L'ictère :

La revue de la littérature montre que l'ictère est le signe le plus fréquent. Observé dans 66,7% des cas. Dans 35,5% il s'associe à la douleur, tandis que dans 31,1% il est sous forme d'ictère nu [27].

Sur les 72 cas colligés, l'ictère est retrouvé chez 60,7% des patients

Ce paramètre est présent dans deux cas de nos patients chez lesquels il est associé à la douleur.

▼ La douleur :

La douleur est une plainte courante [13], généralement localisée dans l'hypochondre droit de l'abdomen, parfois elle irradie vers le dos. Dans la littérature le syndrome algique, comme unique symptôme était observé dans 20%des cas [27].

Sur les 72 cas la douleur est retrouvée dans 57,4%

Tous nos malades se plaignaient de douleur abdominale à type de colique hépatique .

▼ L'angiocholite

Dans la littérature l'angiocholite est rapportée dans 13, 3% des cas [27].

Sur les 72 cas l'angiocholite est observée chez seulement 11,7 %.

Dans nos observations aucun cas d'angiocholite n'a été observé

▼ Autre symptômes

D'autres symptômes non spécifiques et peu fréquents ont été rapportés dans les cas colligés. Ils sont représentés dans le tableau ci-dessous

Tableau N 4 : autres symptômes

Vomissements	2 cas
Nausées	2cas
Dyspepsie	1cas
Asthénie	1cas
Anorexie	1cas
Amaigrissement	1 cas

Dans nos observations les trois malades ont rapporté la notion d'amaigrissement, non chiffré avec des vomissements bilieux et des mélaenas chez un patient .

c-Les signes physiques

A part l'ictère cutanéomuqueux, l'examen clinique est le plus souvent pauvre. On observe sur les 72 cas colligés, seulement deux patients avaient une sensibilité de l'hypochondre droit, un patient avait une splénomégalie en rapport avec sa fibrose hépatique congénitale, les autres patients avaient un examen physique normal

Chez nos malades, deux cas avaient un ictère et une légère sensibilité abdominale et le troisième malade avait un examen clinique normal

2-Biologiques

Les perturbations biologiques sont dominées par la choléstase et la cytolyse, signes en rapport avec l'obstruction des voies biliaires sans qu'ils soient spécifiques de l'étiologie elle-même. Dans la littérature le bilan biologique n'était pas rapporté chez 51 cas vu sa non spécificité, chez les 21 cas restants les résultats biologiques retrouvés sont :

- choléstase seule chez 6 cas (28,6%)
- cytolyse seule chez 6 cas (28,6%)
- choléstase+cytolyse chez 4 cas (19%)
- hyperamylasémie+hyperlipasémie sans choléstase chez un seul cas (4,8%)
- hyperamylasémie+hyperlipasémie avec choléstase chez deux cas (9,5%)

Dans notre série, un malade avait une association de choléstase et de cytolyse. Un patient présentait seulement une choléstase. Le troisième avait un bilan biologique normal

- les marqueurs tumoraux

Le CA19-9 est un marqueur tumoral qui n'est ni sensible ni spécifique dans les cancers hépato-bilio-pancréatiques, car même les causes non cancéreuses d'obstruction biliaires peuvent s'accompagner de taux élevés de ce marqueur. Sa

principale utilisation est la surveillance de la réponse des malades aux traitements de ces cancers et la détection de leurs récives et ceci si la tumeur en produit un taux suffisant.

L'antigène carcino-embryonnaire, ou ACE, est une protéine qui participe au mécanisme d'adhésion cellulaire

Dans la revue de la littérature, les marqueurs tumoraux sont réalisés chez 6 cas seulement dont trois avaient des valeurs normales du CA19-9, les trois autres malades présentaient des valeurs élevées de CA19-9 atteignant 306U/ml. Le dosage de l'ACE était réalisé chez seulement 2 malades dont l'un était normal et l'autre était légèrement élevé à 6,8ng/ml.

Chez tous nos malades Le taux du CA19-9 était élevé, il a dépassé 500U /ml chez un malade, par contre l'ACE était strictement normal chez les deux malades pour lesquels il a été requis

3-Radiologiques

Le diagnostic préopératoire de l'adenomyome de la voie biliaire est possible mais reste très difficile.

Gerhard et al rapportent que 15% (20/132) des patients ayant un diagnostic préopératoire de malignité (faux positifs) subissent des résections chirurgicales, alors que l'examen anatomopathologique final révèle des tumeurs bénignes [24] Une autre étude a montré que 22 des 275 (8%) patients ayant une obstruction proximale biliaire présumée être causée par un cholangiocarcinome hilair avaient des lésions bénignes sur l'examen histologique final [25]

a- L'échographie hépatique

Est un examen facile, et non invasif, réalisé en première intention dans les pathologies obstructives hépatobiliaires, il permet de répondre à deux questions :

-Ya-t-il dilatation des voies biliaires ?

-Et où siège l'obstacle ? Sans pour autant permettre d'approcher sa nature bénigne ou maligne devant une lésion tissulaire.

La revue des cas décrits dans la littérature montre que l'échographie a mis en évidence une dilatation des voies biliaires intra ± extra hépatiques, en amont d'un obstacle. Ce dernier était objectivé le plus souvent comme une masse de nature tissulaire et parfois comme un rétrécissement cholédocien.



Fig. 13 – Échographie hépatique montrant un rétrécissement du cholédoque associé à une dilatation d'amont de la voie biliaire principale (VBP) [27].

b-La TDM abdominale

En général l'aspect tomодensitométrique des adénomyomes de la voie biliaire distale est variable, tantôt la tumeur apparaît irrégulière, avec rehaussement hétérogène en C+ [32,48], tantôt elle est homogène, hypodense, bien circonscrite avec une claire démarcation entre la tumeur et le tissu pancréatique normal.

Cette différence d'apparence pourrait être expliquée par les différentes techniques utilisées en scanner [21].

Le scanner non spiralé manque de sensibilité pour la détection des petites tumeurs à cause de la médiocrité de la résolution du contraste .le retard de l'acquisition des images, au moment de l'injection du produit de contraste, permet à la tumeur et au tissu pancréatique normale d'entrer dans l'équilibre; ainsi, une petite lésion peut passer inaperçue jusqu'à ce qu'elle s'élargisse suffisamment pour déformer le contour du pancréas ou devenir hétérogènes.

Cela ne se produit pas dans un scanner en acquisition spiralée, dans lequel même une petite lésion peut être visualisée [21]. En effet Siekan et al [40] considèrent que le scanner hélicoïdal multiphasique est un outil fiable et de grand intérêt, car il permet de différencier entre la nature bénigne et maligne de l'obstacle tumoral : les tumeurs malignes se rehaussent de façon très intense après injection de produit de contraste au cours de la phase artérielle et veineuse. Ce rehaussement était observé dans le temps artériel et veineux chez, respectivement, 27 et 30 patients parmi 32 malades ayant une obstruction d'origine maligne, versus chez 2 et 3 patients parmi 18 malades ayant une obstruction d'origine bénigne.

Dans les cas décrits par la littérature , le scanner montrait dans la plus part des cas une masse de nature tissulaire située au niveau de la tête du pancréas, tantôt limitée ronde et homogène, tantôt kystique.

Chez nos trois malades un seul patient a bénéficié d'une TDM abdominale qui a objectivé une image intra-cholédocienne tissulaire ronde et hypodense se rehaussant après injection de PC.

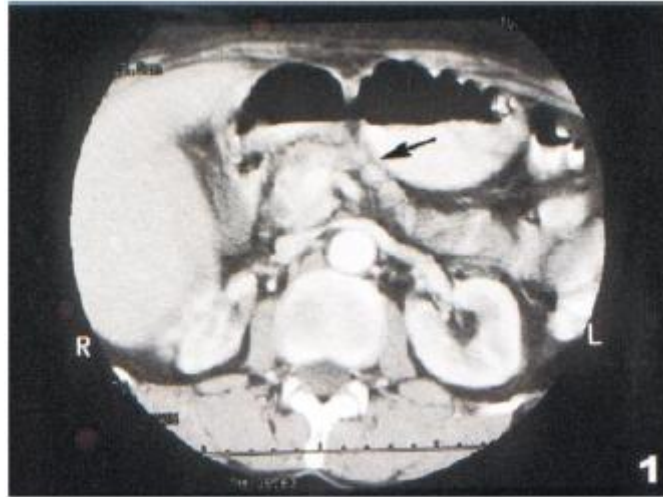


Fig 14 : TDM abdominale montrant une masse tissulaire intéressant le duodénum et la tête du pancréas [58]

c-La cholongio-pancréatographie rétrograde endoscopique

Hammarstrom et al [31] soulignent que 75% des malades avec un adénomyome de la papille ont eu un diagnostic certain à la cholangio -pancréatographie rétrograde par voie endoscopique. Alors qu'Ojima rapporte que bien que la cholangiographie suggère habituellement un processus bénin (rétrécissement régulier ou un défaut de remplissage arrondi simulant un calcul) trois des 22 adénomyomes signalés ont causé un rétrécissement irrégulier ou un épaissement diffus de la VBP, simulant une tumeur maligne sténosante [16, 45,49].

Sur les 72 cas colligés de la littérature la CPRE était l'examen le plus réalisé, (87,8%) montrant le plus souvent un rétrécissement régulier et filiforme de la voie biliaire principale, signe présumé en faveur de la bénignité.

Cet examen n'a été réalisé chez aucun de nos malades.

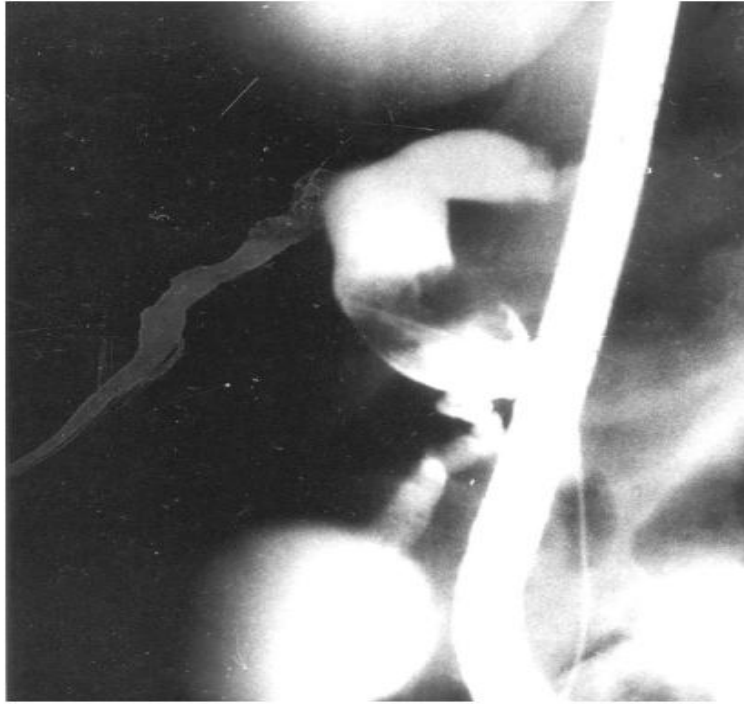


Figure 15 : rétrécissement filiforme de la VBP vu au cours de la CPRE[77]

d-L'écho-endoscopie

L'échoendoscopie biliaire est un examen performant pour le diagnostic des obstacles sur la voie biliaire principale. Son pouvoir de résolution inférieur au millimètre, et le fait qu'elle permet de visualiser la totalité de la voie biliaire principale, mais également la vésicule et notamment le collet et la convergence cysticocholédocienne expliquent ses performances nettement supérieures à l'imagerie traditionnelle non invasive (l'échographie ou le scanner) [29]. Sa précision diagnostique qui est de l'ordre de 95 % ne repose pas sur les signes indirects d'obstacles (dilatation de la voie biliaire principale et/ou des voies biliaires intra hépatiques, et/ou de la vésicule, et/ou des canaux pancréatiques), mais au contraire, sur la mise en évidence de l'obstacle lui-même. Elle offre en outre l'avantage de pouvoir réaliser dans le même temps le bilan d'extension locorégionale et des biopsies. La principale limite de l'écho endoscopie, en matière d'obstacle sur la voie biliaire principale, concerne les cancers du hile hépatique.

AMOUYAL P, PALAZZO L, AMOUYAL G et coll. Place de l'écho-endoscopie et de la cholangiographie rétrograde ou transhépatique dans l'exploration des cholestases extra-hépatiques non diagnostiquées par l'échographie. Gastroenterol Clin Biol 1990 ; 14 (suppl 2 bis) : A71

Palazzo et al affirment que l'échoendoscopie est certainement l'examen le plus performant pour diagnostiquer les adenomyomes de la voie biliaire principale. Alors qu'Aoun [21] rapporte que l'aspect endoscopique (petite taille, solide et hypoéchogène) n'est pas spécifique et il simule une tumeur de la tête du pancréas. Dans certains cas, l'écho-endoscopie n'a pas détecté la tumeur [45]

Selon l'étude de Handra luca menée sur 13 cas [7], l'écho-endoscopie a montré une lésion intra-ampullaire hétérogène obstruant la partie terminale de la VBP. Selon d'autres études la lésion peut être hypoéchogène à limites irrégulières [80] ou légèrement hyperéchogène [23]



Figure 16 : l'écho endoscopie montre une masse hypoéchogène, irrégulière située dans la troisième couche échographique (sous muqueuse) s'étendant jusqu'à la couche 4ème (muscleuse) [23].

Chez nos malades, 2 patients ont bénéficié d'une écho-endoscopie qui a objectivé les aspects suivants :

- Chez le premier cas : la première EE a mis en évidence une formation hyperéchogène sans cône d'ombre postérieur évoquant un polype. La deuxième EE été en faveur d'un ampullome waterien
- Le deuxième cas a mis en évidence une lésion hypoéchogène de 1 cm envahissant la paroi de la VBP et du Wirsung évoquant un ampullome watérien.

e- La bili IRM

Elle représente le meilleur examen pour obtenir de façon non invasive une cartographie complète des voies biliaires intra et extra hépatiques. Elle permet de localiser avec précision l'obstacle (sensibilité supérieure à 95 %), de visualiser les structures canales exclues du fait d'une sténose, précisant ainsi l'extension locale et peut souvent identifier la nature de cet obstacle.

Des séquences complémentaires réalisées dans le plan axial en pondération T1 et T2 permettent d'étudier le parenchyme péricanalaire, et les masses tumorales [34].

Dans les cas rapportés dans la littérature l'IRM était réalisée chez seulement 12% des patients les résultats sont mentionnés dans le tableau suivant :

Tableau N 5 : résultats de l'IRM

Le cas rapporté par :	Résultat de l'IRM
Siekan	Sténose de la bifurcation de la VBP suggérant un cancer hilare
Tae-Hee	Dilatation diffuse de la voie biliaire principale
Gui-ming	Dilatation de la VBP et du canal pancréatique avec sténose excentrique de la partie terminale avec visualisation d'une masse
Deepak	Kyste du cholédoque de type I sans visualisation de la tumeur elle-même

Chez nos trois patients, 2 ont bénéficié d'une IRM dont :

- L'une a objectivé un nodule de la tête du pancréas en hyposignal T2 se rehaussant après injection de gadolinium avec VBP dilatée de terminaison effilée
- l'autre a mis en évidence une lésion tissulaire du carrefour bilio-digestif évoquant un ampullome watérien ou un processus de la tête du pancréas responsable d'une dilatation de la VBP et du Wirsung.



Figure 17 : IRM avec contraste montrant une dilatation de la VBP intra pancréatique[83]

4-anatomo-pathologiques

a- La biopsie

La biopsie sous vision directe lors d'une cholangioscopie transhépatique et percutanée (PTCS) ainsi que le brossage cytologique lors du drainage biliaire ont également été signalé comme une méthode de diagnostic pour l'évaluation de la sténose du canal biliaire [40].

Ponchon et al ont rapporté que la biopsie sous vision directe lors d'une PTCS a une sensibilité de 78% et une spécificité de 100% dans le diagnostic des sténoses malignes [41]. Alors que l'étude de Menzel et al [26] rapporte une sensibilité diagnostique des prélèvements biopsiques endoscopiques de 62% chez les malades avec une tumeur bénigne de l'ampoule de Vater.

La biopsie peut ne pas être contributive au diagnostic. Cela peut être lié à l'anatomie locale, aux facteurs techniques, mais probablement aussi à la méconnaissance de l'endoscopiste de l'éventuelle bénignité de la lésion [21].

Sur les 72 cas colligés la biopsie endoscopique était réalisée chez 19 cas et elle a permis d'éviter une DPC chez six cas, les résultats des prélèvements biopsiques sont mentionnés sur le tableau suivant :

Tableau N 6 : Diagnostics histologiques préopératoires

Diagnostic histologique préopératoire	Nombre de cas
Adénocarcinome	3
Dysplasie	4
Adénome/lésions inflammatoires/ structures musculaires et glandulaires sans atypie	7
Non contributif	1
Non communiqué	4

Aucun de nos malades n'a bénéficié d'une biopsie endoscopique

b- la cytologie

L'examen cytologique n'a de valeur que s'il est positif. Robinovitz et al rapportent, dans leur étude faite sur 65 patients avec sténose biliaire, que la détection de cellules malignes dans un brossage était de spécifique à 100% et que trois brossages négatifs rendent le risque de cancer des voies biliaires nul. La sensibilité de la procédure chutait à 40% si un seul brossage est réalisé [42].

Chez les 72 cas de la littérature, le brossage cytologique était réalisé chez seulement 5 patients, et il a montré chez un seul patient des cellules épithéliales atypiques alors qu'il était négatif pour les autres, d'où l'intérêt de répéter le brossage ou de compléter par des biopsies.

Chez nos malades aucun examen cytologique n'a été réalisé

c- L'examen extemporané

L'examen extemporané est un acte indispensable dans la chirurgie bilio-pancréatique car son résultat peut modifier l'attitude chirurgicale. Sa concordance avec l'examen définitif a atteint 94% dans une étude menée sur 188 patients[85]..

Sa principale indication, qui nous concerne dans cette pathologie, est de déterminer la nature bénigne ou maligne de la lésion [15], les autres indications concernent surtout la pathologie tumorale maligne à savoir : l'exploration des ganglions lymphatiques de voisinage et la détermination des marges de résection chirurgicale.

Chez les 72 cas de la littérature, l'examen extemporané était réalisé chez 32 cas, mais les résultats étaient communiqués chez seulement 6 cas : chez 3 cas l'examen a montré la présence d'éléments dysplasiques, chez 2 cas il n'y avait pas de signe de malignité et chez le dernier cas, il était non concluant. Deux de ces malades ont bénéficié juste d'une résection locale.

Chez nos trois malades aucun examen extemporané n'a été réalisé.

d- la pièce opératoire

Le diagnostic de l'adenomyome est posé dans 95% à 100% sur pièces opératoires , comme dans nos observations .

5-En Résumé

Le diagnostic préopératoire de l'adénomyome des voies biliaires reste difficile [7]. Dans tous les cas rapportés dans la littérature différents examens para-cliniques ont été réalisés pour approcher l'origine de l'obstruction des voies biliaires à savoir : l'échographie hépatique, le scanner abdominal, la bili-IRM, l'écho-endoscopie, la cholangiopancreatographie rétrograde, la biopsie endoscopique, le brossage cytologique, l'examen extemporané et autres comme la FOGD, la TOGD. Tous ces examens n'ont pu trancher de façon formelle sur la nature de la lésion : dans les formes bourgeonnantes avec l'adénome et dans les formes sténosantes avec le cholangiocarcinome ou les cancers de la tête du pancréas, et seul l'examen histologique sur pièce opératoire qui permet de poser le diagnostic.

Hammarstrom et al [31], proposent de réaliser une sphinctérotomie endoscopique et des biopsies multiples Si la lésion se trouve au niveau de la région ampullaire. D'autres auteurs [7,21, 32-33] effectuent une écho-endoscopie pour évaluer l'extension locorégionale de la lésion et permettre la réalisation de prélèvements biopsiques guidés et profonds.

En revanche, si la lésion est localisée au niveau de la VBP ou dans les canaux intra-hépatiques, seul un brossage de l'arbre biliaire lors d'une cholangiographie percutanée ou rétrograde peut permettre d'obtenir du matériel pour une analyse cytologique. Le matériel ainsi recueilli est toutefois superficiel et souvent insuffisant, ne permettant donc pas d'éliminer de façon certaine une pathologie néoplasique.

C-Etude anatomopathologique

1-la localisation

L'adenomyome a une localisation ubiquitaire dans le tractus gastro-intestinal. Mais il est communément retrouvé dans le fond de la vésicule biliaire, et rarement dans les voies biliaires extra-hépatiques, y compris l'ampoule de Water [7].

Parmi les 72 cas de la littérature la localisation de l'adénomyome était dans :

- 42 cas (60%) papillaires,
- 24 cas (34%) dans la VBP
- 2 cas (3%) dans le canal intra-hépatique gauche
- 1 seul cas (1,4%) au niveau de la papille duodénale mineure.
- 1 cas (1,4%) avait une double localisation à la fois papillaire et cholédocienne
- Et non mentionnée chez 2 cas

Dans notre série deux cas d'adénomyome siégeaient au niveau de la VBP , et il était doublement localisé (papilles duodénales majeure et mineure) dans un cas.

2-l'aspect macroscopique

L'adénomyome de la VBP est une lésion nodulaire, solide, blanc-grisâtre, à surface lisse qui se présente sous deux aspects [34] :

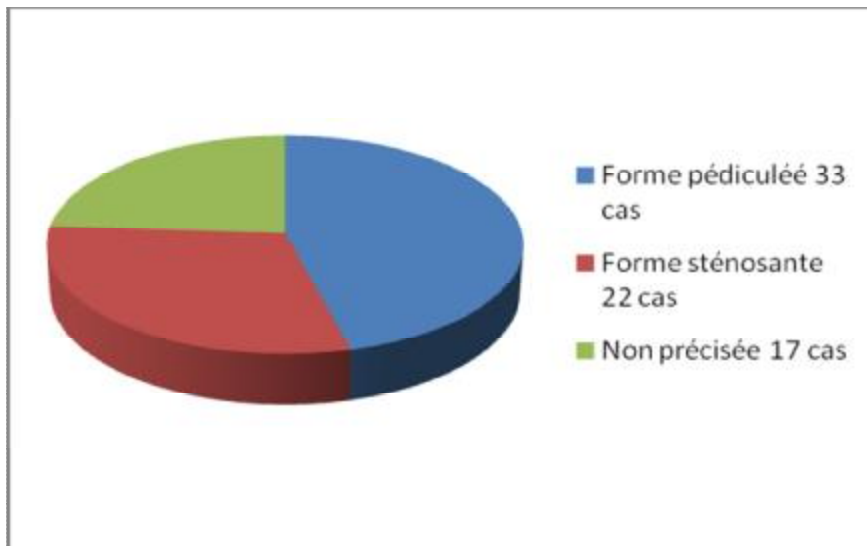
- Soit comme une lésion bourgeonnante aux contours bien définis
- soit comme une forme sténosante, infiltrant la paroi biliaire

Dans les cas de la littérature la taille de la tumeur était en moyenne de 18mm avec des extrêmes entre 7 et 55 mm

Le tableau ci-dessous résume l'aspect macroscopique de l'adénomyome des 72 cas décrits

Tableau N 7 et diagramme montrant le pourcentage de la forme pédiculée et de la forme sténosante

Forme pédiculée	33 cas	46%
Forme sténosante	22 cas	30%
Non précisée	17 cas	24%



Dans notre série l'adenomyome étaient sous forme bourgeonnante dans 2 cas avec une taille de 8 et 10 mm respectivement; et sous forme d'une induration de quelques millimètres de carrefour bilio-pancréatique dans le troisième cas ;



Figure 18 : L'examen macroscopique montre une masse en forme de cordon avec une surface lisse (flèche) et une dilatation de la partie proximale de la voie biliaire principale (a), (b) = duodénum et (c) = pancréas [83]

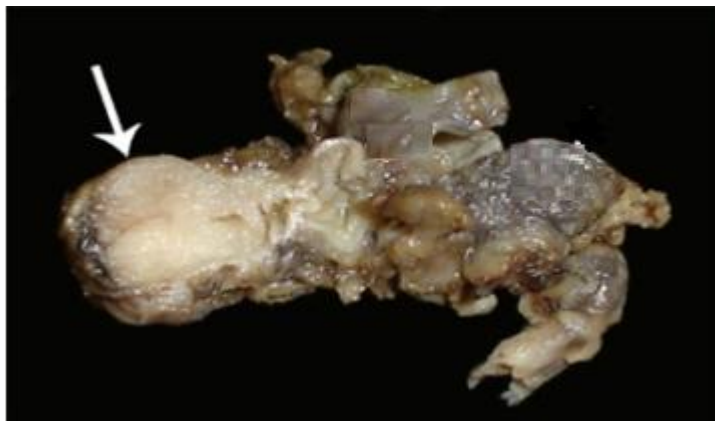


Figure 19 : présence d'une lésion circonscrite nodulaire avec une surface blanc grisâtre et des foyers d'espaces spongieux sans hémorragie ni nécrose (grande flèche) [46]

3-l'aspect microscopique

Du point de vue anatomopathologique, l'Organisation mondiale de la santé a défini en 1991 l'adénomyome comme une lésion composée de structures glandulaires tubulaires, revêtues d'épithélium cylindrique ou cuboïde sans atypie nucléaire ni mitoses, entourées par du tissu conjonctif constitué de fibres musculaires lisses hyperplasiques [35].

Selon Ram et al ces glandes sont généralement de grande taille, parfois kystiques, remplies de mucus, avec une infiltration minimale du stroma par des cellules inflammatoires chroniques mononuclées [37]. On peut observer aussi la présence des foyers d'hétérotopie pancréatique (en continuité avec l'adenomyome) constituée de la composante exo et/ou endocrine, comme chez notre deuxième malade.

Imai et al rapportent que cette prolifération tumorale bénigne peut s'étendre jusqu'à la séreuse [38].

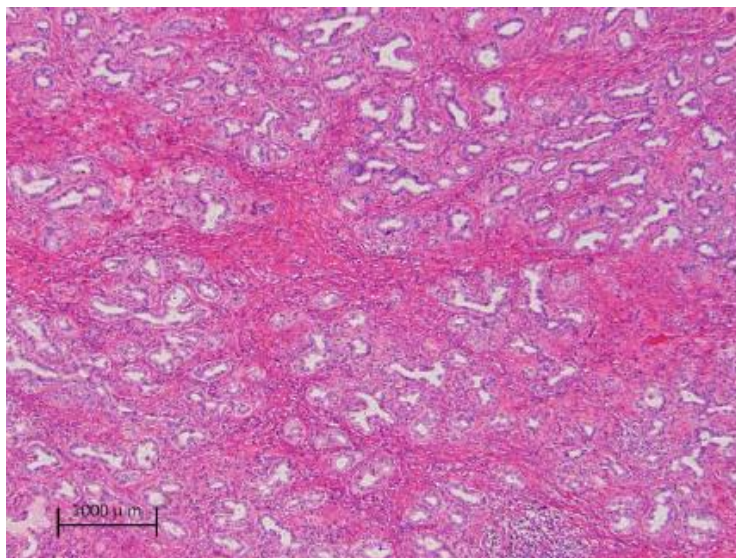


Figure 20 : L'examen histologique, montre la présence de plusieurs glandes hyperplasiques sans atypie, avec prolifération des fibres musculaires lisses, et infiltration locale par des cellules inflammatoires (H & E, × 40) [81]

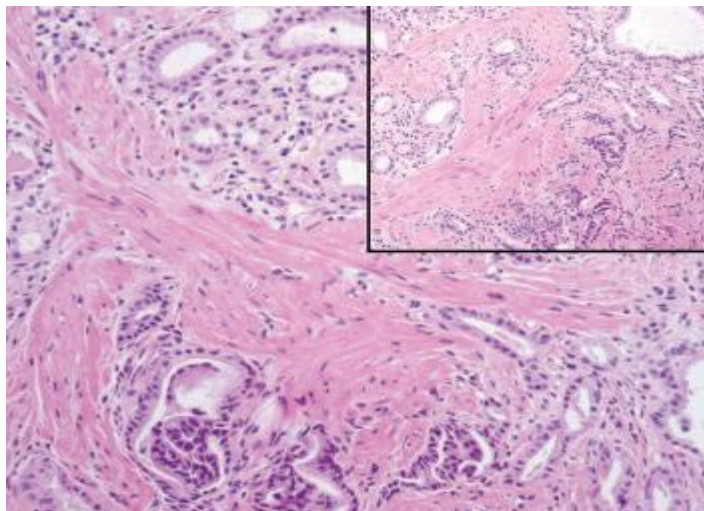


Figure 21 : cette microphotographie montre une prolifération sous -muqueuse de nombreuses glandes et des cellules (HE, x 20). Les glandes sont été tapissées par des cellules épithéliales régulières (HE, x 200) [80].

4-le profil immuno-histochimique

Handra- luca et al ont mené une étude sur 13 patients présentant un adenomyome du système vatrien. Les résultats IHC étaient comme suite [7] :

- L'activité proliférative estimée par l'anticorps Ki67 était de 2%(marquage nucléaire des cellules épithéliales) = semblable à l'épithélium normal du conduit pancréatique et plus faible que l'adénome, où elle est comprise entre 10 et 40%.les cellules myofibroblastiques n'ont pas exprimé ce marqueur.
- les cellules épithéliales glandulaires ont exprimé la cytokératine 7 alors qu'elles sont négatives pour la cytokératine 20, ce dernier marqueur est important dans le diagnostic différentiel puisqu'il est fortement exprimé dans la muqueuse duodénale et dans les adénomes de dysplasie de bas grade.

Les cellules musculaires lisses avaient une forte expression cytoplasmique de l'actine musculaire lisse sans expression de la desmine. Mais quelques rares cellules

fusiformes ont co-exprimé la desmine et certaines cellules étaient AML (-) et desmine négative.

Ce profil IHC (CK7+ ; CK20- ; AML+ ; et Ki67<10%) devrait être pris en compte dans l'analyse des biopsies ampullaires pour différencier l'adenomyome des autres tumeurs cancéreuses ampullaires.

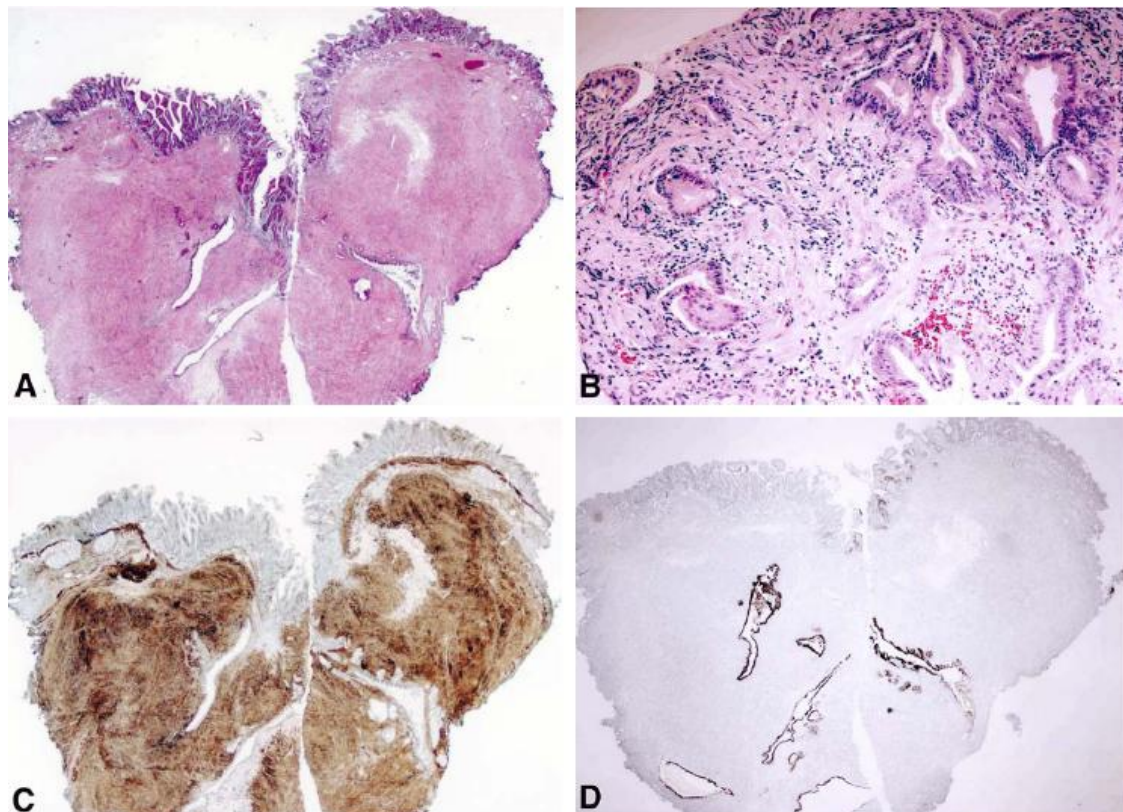


Figure 22 : A=Microphotographie de la lésion chirurgicale, montrant une tumeur sous-muqueuse recouverte par une muqueuse duodénale normale (H & E x 10). B= Microphotographie montrant que la tumeur sous-muqueuse se compose de structures glandulaires entourés par une prolifération des cellules musculaires lisses (H & E x 100). C=Microphotographie montrant que les cellules musculaires lisses sont marquées par l'anticorps AML (x 10). D= Microphotographie montrant que les cellules glandulaires au sein de la tumeur sont marquées par la cytokératine 7 anticorps (x 10). [23]

5- Le diagnostic différentiel

Le diagnostic différentiel de l'adénomyome de la voie biliaire principale inclue des pathologies tumorales malignes et bénignes et des pathologies malformatives :

a- Pathologies tumorales malignes et bénignes

-Adénocarcinome

Le cholangiocarcinome extra-hépatique est le plus souvent de type "infiltration périductale" (IP) moins souvent de type "croissance intra-ductale"(CI) [36]

Macroscopiquement le premier type a une extension tumorale infiltrant la paroi biliaire réalisant un épaissement pariétal diffus. Alors que le deuxième type est de forme polypoïde endo-luminale.

Dans le type IP, la prolifération carcinomateuse est habituellement bien différenciée, d'architecture tubuloglandulaire sous-tendue par un stroma fibro-hyalin plus ou moins abondant, parfois oedémateux. Les structures carcinomateuses s'insinuent entre les glandes péribiliaires normales constitutives des voies biliaires de grand calibre.

Dans le type CI, la prolifération tumorale s'agence en papilles bordées par des cellules carcinomateuses plus ou moins différenciées, souvent de grande taille, cylindriques. Les axes papillaires sont fibro-congestifs, infiltrés de cellules inflammatoires.

Dans les deux formes, les atypies cytonucléaires sont très marquées. Et le profil immuno-histochimique est : CK7+, CK20+ et CK19+.

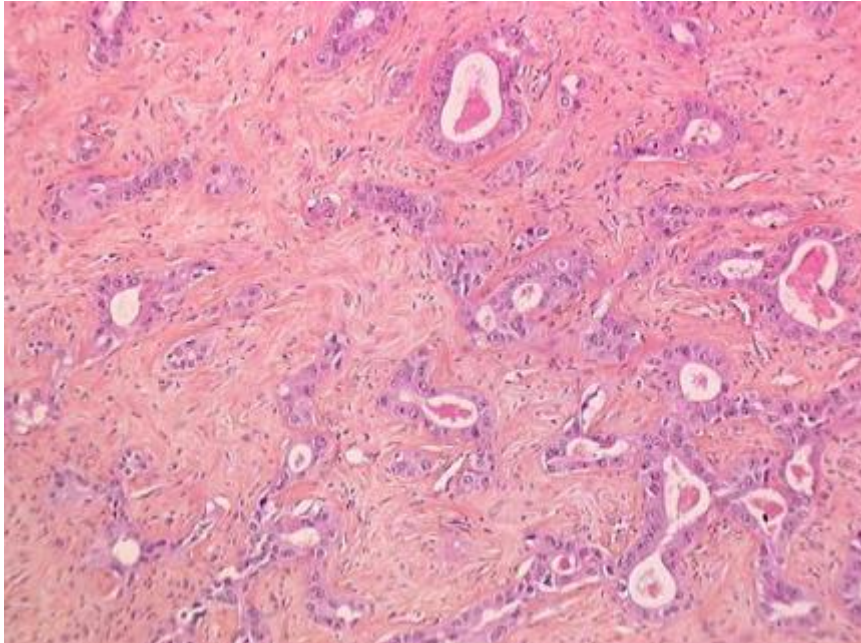


Figure 23 : Aspect microscopique d'un cholangiocarcinome bien différencié (coloration Hématéine Éosine Safran, $\times 20$) : Prolifération de glandes carcinomateuses disposées dans un stroma fibreux dense et abondant. [86]

-l'adénome des voies biliaires

Est une tumeur bénigne bien limitée incorporée dans la lamina propria et recouverte d'épithélium biliaire normal. Elle est composée de lobules qui contiennent des glandes dont certaines peuvent être kystiques. Les cellules épithéliales sont cylindriques ou cubique comportant des noyaux réguliers et un cytoplasme éosinophile [52]. Il n'y a pas d'hyperplasie des fibres musculaires lisse

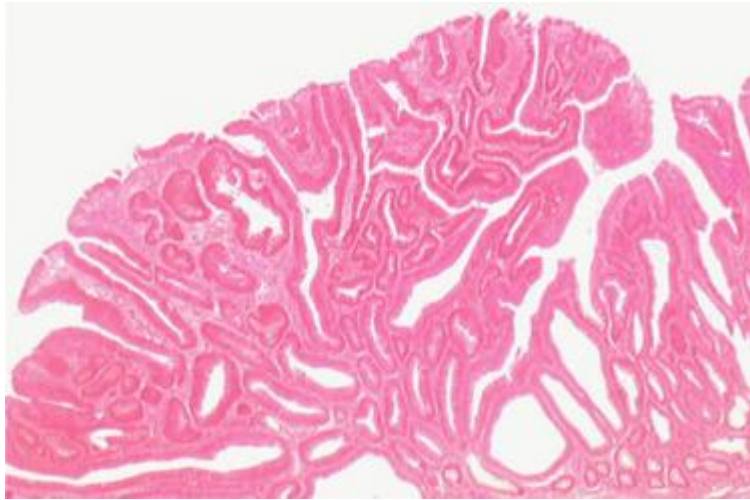


Figure 24 : adénome tubuleux de la voie biliaire principale (coloration Hématéine Éosine Safran, ×40) [86]

- l'adénofibrome biliaire

Tumeur rare rappelant l'aspect des complexes de Von Meyenburg (multiples micro-hamartomes biliaires)

Macroscopiquement, la tumeur est solide et ou kystique ; de teinte beige blanchâtre avec des foyers rougeâtres

Sur le plan histologique ; la composante épithéliale est constituée de structures tubulées et kystiques ; bordées de cellules cylindriques de type biliaire ; non sécrétantes, siégeant au sein d'un stroma abondant fibroblastique [54].

b- pathologies malformatives

- l'hyperplasie adénoleiomyomateuse de l'intestin (de localisation papillaire)

Prolifération bénigne à double composante épithéliale et musculaire lisse mais dont l'origine est intestinale c.-à-d. qu'elle exprime la CK20 et n'exprime pas la CK7 à la différence de l'adenomyome qui est CK20- CK7+.

-l'ectopie pancréatique

Sa fréquence est très diversement appréciée selon qu'il soit découvert in vivo, ou par une recherche nécropsique systématique .Parmi l'ensemble des pancréas aberrants la localisation duodénale est la plus fréquente (30% des cas).

Macroscopiquement, il s'agit d'un épaississement localisé de la paroi digestive ou, plus souvent, d'un nodule intra-pariétal, recouvert d'une muqueuse normale, déprimé en son centre, de coloration blanchâtre, d'aspect homogène de consistance ferme.

Histologiquement, les structures exocrines (acineuses et canalaire) et endocrines peuvent être isolés ou associées de façon variée, les ilots de Langerhans n'existent que dans 1/3 des cas ; les canaux excréteurs sont souvent dilatés ; plus rarement des amas de glandes de Brunner sont observés [53], à la différence avec l'adenomyome, le pancréas aberrant ne montre pas une hypertrophie des fibres musculaires lisses.

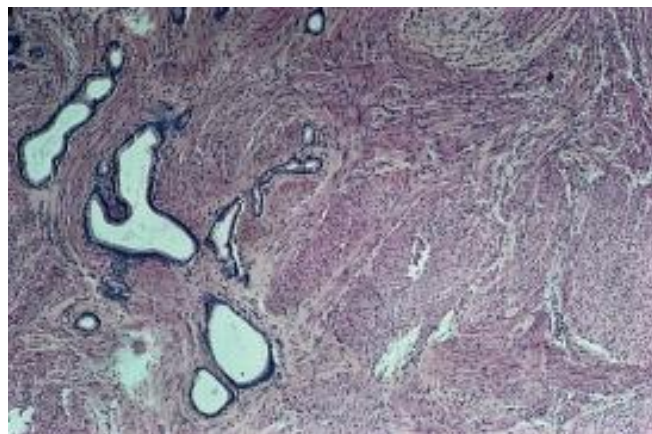


Figure 25 : Hétérotopie pancréatique : présence de quelques canaux excréteurs pancréatiques (coloration Hématéine-Éosine-Safran, ×20) [87]

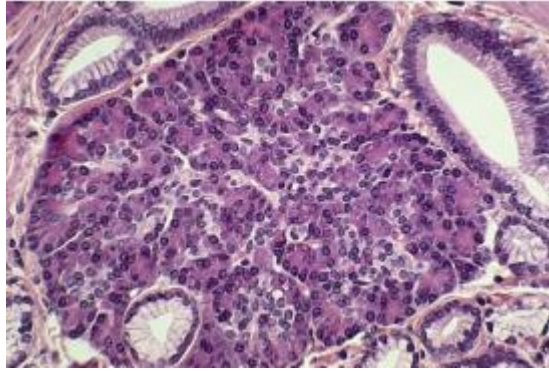


Figure 26 : les acini pancréatiques au fort grossissement (coloration Hématéine Éosine Safran) [87]

- l'hyperplasie des glandes de Brunner ou adénome Brunnerien

Il représente 10,6% des lésions bénignes duodénales. De siège surtout bulbaire, il est d'aspect polyploïde et mesure quelques millimètres à quelques centimètres

Histologiquement, la lésion est faite de grappes de glandes de Brunner normales ou kystiques, séparées par des faisceaux de fibres musculaires lisses. Ces cellules se colorent par le par le PAS et le bleu-alcian, et elles sont MUC6+ et MUC5AC- [55].

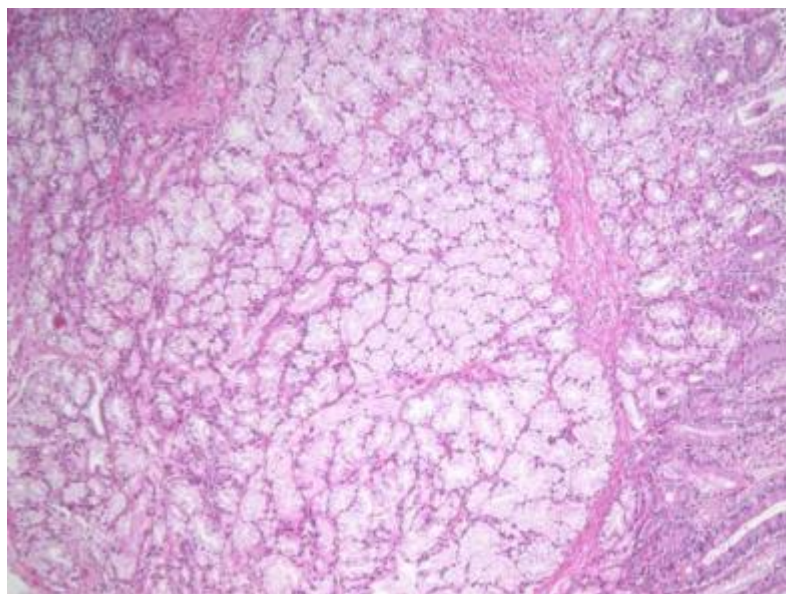


Figure 27 : adénome de Brunner (coloration Hématéine Éosine Safran, ×20) [88]

- l'ectopie de la muqueuse gastrique

Elle siège sur la face antérieure du premier duodénum, et s'observe dans 0,1% des endoscopies. Il s'agit de multiples petits polypes rouges rosés, de 0,2 à 0,3 mm, plus rarement d'un nodule unique plus volumineux et rougeâtre ou d'un aspect en galets. Ces lésions contrastent toujours par leur couleur plus foncée sur le fond pale du duodénum

Histologiquement, les villosités effacées sont remplacées par un épithélium superficiel de type gastrique et des glandes fundiques contenant des cellules principales et pariétales [50,51]

D- le risque de transformation maligne

Le potentiel dégénératif est largement évoqué dans les localisations vésiculaires, avec un risque relatif multiplié par deux en cas d'adenomyome et association fréquente de l'adenomyome et du cancer vésiculaire [56]

Même si le risque de transformation maligne n'a jamais été décrit au niveau de la VBP, la question mérite d'être posée et étudiée par assimilation [27]

E- Le traitement

La stratégie thérapeutique définitive n'est pas encore établie. Les méthodes thérapeutiques les plus utilisées, dépendent de la localisation de la tumeur.

Ainsi pour les adénomyomes de la partie proximale du canal hépatique, la résection est le traitement adéquat, mais elle peut être difficile voir impossible sans résection hépatique majeure [58].

Pour les adénomyomes de la partie distale de la VBP, les résections locales (chirurgicales ou endoscopiques) et les ampullectomie se déroulent avec plus de succès et apportent un meilleur rapport bénéfice / risque [58].

Selon Plard parfois la simple surveillance est bénéfique pour le patient [27].

Dans les cas où la possibilité d'une tumeur maligne ne peut être exclue, Deepak et Gui ming shu affirment que la chirurgie extensive est nécessaire pour établir un diagnostic positif définitif [46, 83].

Dans les cas décrits de la littérature la moitié ont subis une DPC, car les examens paracliniques préopératoires n'ont pas pu éliminer une origine maligne. Les autres cas ont eu différents type de traitements chirurgicaux : résection locale chez 32% des cas, l'anastomose bilio-digestive chez 5,5%, et une simple surveillance chez 2,7% (9,8% de cas manquants). Les résections locales incluent : la résection chirurgicale de la VBP, la résection locale endoscopique, la résection locale chirurgicale ou l'ampullectomie[27, 46].

Nos 3 malades ont eu tous une DPC.

F- Evolution et complications

Dans les cas de la littérature, la durée de suivi était variable d'un malade à l'autre. La plus longue s'étalait sur une période de 6 ans. On a noté en post opératoire une infection de la paroi et une perforation jéjunale chez deux des patients ayant eu un traitement conservateur.

Les autres patients, qui ont subi une DPC, ont développé les complications classiquement retrouvées pour ce geste, à savoir la fistule pancréatique et les complications hémorragiques.

Chez nos malades un patient a eu un choc hémorragique immédiat, il a séjourné en réanimation pendant 10 jours avant sa sortie, les autres malades n'ont pas présentés de complications dans les 20 jours postopératoires.

CONCLUSION

Les trois cas décrits et l'analyse de la littérature montrent que l'adénomyome de la voie biliaire principale est une pathologie bénigne rare pouvant simuler cliniquement, radiologiquement et même chirurgicalement une pathologie tumorale maligne. Il doit être inclus dans les diagnostics différentiels des tumeurs distales de la voie biliaire principale, afin de pousser les explorations invasives.

La généralisation de l'écho-endoscopie avec biopsie devrait améliorer dans l'avenir le diagnostic de cette pathologie ampullaire et biliaire bénigne.

La stratégie thérapeutique n'est pas encore établie, le traitement conservateur est le plus approprié pour cette pathologie à condition de faire le diagnostic.

RESUME

L'adenomyome de la voie biliaire principale est une pathologie bénigne extrêmement rare, son incidence est estimée à 0, 1% de toutes les interventions sur l'arbre biliaire. Il simule cliniquement et radiologiquement une pathologie tumorale maligne, ces similitudes conduisent le plus souvent à la réalisation d'une duodéno pancréatécotomie céphalique, geste morbide et excessif.

Notre étude portant sur la revue de la littérature et sur 3 cas d'adénomyomes de la voie biliaire principale colligés au service d'anatomopathologie de l'hôpital IBN SINA à Rabat (2007-2011) avait pour objectif de :

- Réaliser une étude descriptive des caractéristiques épidémiologiques, cliniques, et radiologiques,
- Préciser l'aspect morphologique de cette entité,
- Discuter les moyens du diagnostic et les diagnostics différentiels afin d'éviter des gestes excessifs pour une pathologie bénigne.
- Et, enfin proposer une prise en charge thérapeutique de cette pathologie.

L'adénomyome est diagnostiqué chez des malades adultes (âge moyen de 60 ans), les deux sexes sont atteints de la même façon. Les manifestations cliniques sont dues à l'obstruction des voies biliaires. L'ictère était le signe le plus fréquent. L'examen clinique est souvent pauvre. Les perturbations biologiques sont dominées par la cholestase et la cytolyse ; L'imagerie devrait orienter vers une pathologie bénigne. Les biopsies pré et per-opératoires sont discriminantes, mais peuvent parfois être non concluantes.

Du point de vue anatomopathologique l'adénomyome est défini comme une lésion composée de structures glandulaires tubulaires, revêtues d'un épithélium cylindrique ou cuboïde sans atypies nucléaires ni mitoses, entourées par du tissu

conjonctif constitué de fibres musculaires lisses hyperplasiques. Actuellement l'adenomyome ne figure pas parmi les tumeurs de la voie biliaire dans la classification de l'OMS 2011.

La stratégie thérapeutique n'est pas bien codifiée. La DPC, qui est le traitement chirurgical le plus employé, est un geste excessif pour une pathologie bénigne. Le traitement conservateur reste le traitement de choix avec la condition d'une présomption diagnostique pré-opératoire.

Abstract

The adenomyoma of the common bile duct is extremely rare benign disease ; its incidence is estimated at 0, 1% of all interventions on the biliary tree. It simulate clinically and radiologically a malignant tumor, these similarities usually result in the realization of a caudal pancreaticoduodenectomy, a morbid and excessive gesture .

Our study of the literature review and three cases of adenomyoma of the common bile collected in the department of Pathology of IBN SINA hospital in Rabat (2007-2011) aims to:

- Conduct a descriptive study of the characteristics epidemiological, clinical, and radiological;
- Clarify the morphological appearance of this entity
- Discuss the means of diagnosis and differential diagnosis to avoid excessive gestures for benign pathology.
- And finally propose a therapeutic management of this disease.

The adenomyoma was diagnosed in adult patients (mean age 60 years) both sexes are affected equally. The clinical manifestations are due to biliary obstruction. Jaundice was the most common sign. Clinical examination is often poor. Biological disturbances are dominated by cholestasis and cytotoxicity; Imaging should move towards a benign pathology. Biopsies pre-and intraoperative are discriminatory, but can sometimes be inconclusive.

histologically, the adenomyoma is defined as a lesion composed of tubular glandular structures, lined with cuboidal or columnar epithelium without nuclear atypia or mitosis, surrounded by connective tissue composed of hyperplastic smooth muscle. Adenomyoma is not currently among tumors of the bile duct in the 2011 WHO classification.

The therapeutic strategy is not well codified. The pancreaticoduodenectomy , which is the most widely used surgical treatment, is an excessive gesture for benign disease. Conservative treatment remains the treatment of choice with the condition of a preoperative diagnostic presumption.

ملخص

العضلوم الغدي المتعلق بالقناة الصفراوية المشتركة هو مرض حميد نادر جدا, و تقدر نسبة حدوثه ب 0.1% من جميع التدخلات على التفرعات الصفراوية. سريريا و إشعاعيا فهو يشبه الأورام الخبيثة. هذا التشابه كثيرا ما يؤدي إلى استئصال الاثني عشر و المنطقة الراسية للبنكرياس . هذه العملية تعد صعبة و مفرطة. دراستنا الخاصة بالمراجعة الأدبية و بالحالات الثلاث لهذا الورم و التي تم جمعها في مصلحة التشريح المرضي الدقيق بمستشفى ابن سينا في الرباط(2007-2011) تهدف إلى :

- إجراء دراسة للأوصاف الوبائية و السريرية و الإشعاعية .
- توضيح المظهر المورفولوجي .
- بحث وسائل التشخيص و التشخيص التفريقي لتجنب العمليات المفرطة لهذه الأمراض الحميدة.
- و في الأخير اقتراح الطرق العلاجية.

تم تشخيص العضلوم الغدي لدى المرضى البالغين(متوسط أعمارهم 60 سنة) من كلا الجنسين . المظاهر السريرية هي ناتجة عن انسداد القنوات الصفراوية. كان اليرقان العلامة الأكثر شيوعا. الفحص السريري غالبا ما يكون عاديا, و تتميز الاضطرابات البيولوجية بركود صفراوي و انحلال خلوي. يمكن التصوير الإشعاعي من التفكير في مرض حميد. الخزعات قبل و أثناء العملية تميزية و يمكن ان تكون في بعض الأحيان غير حاسمة.

من الناحية التشريحية , يعرف العضلوم الغدي بأنه آفة تتألف من غدد أنبوبية مكونة من ظهارة مكعبية أو عمودية دون لا نمطية نووية و بدون انقسام. تحيط بهذه الغدد نسيج ضام مفرط مؤلف من ألياف عضلاتية ملساء.

لم يتم حتى الآن وضع إستراتيجية علاجية. استئصال الاثني عشر و المنطقة الراسية للبنكرياس هو علاج مفرط بالنسبة لمرض حميد. في حين أن العلاج المحافظ يبدو أكثر نجاعة بشرط إفتراض تشخيص قبل العملية.

REFERENCES

- [1] baggenstoss AH. Major duodenal papilla :variations of pathologic interest and lesions of mucosa. *Arch pathol* 1938 ;26 :853-68
- [2] DOLAN RV, REMINE WH, DOCKERTY MB: The fate of heterotopic pancreatic tissue. *Arch Surg* 109:762, 1974
- [3] PEARSON S: Aberrant pancreas: review of the literature and report of three cases, one of which produced common and pancreatic duct obstruction. *Arch Surg* 63:168, 1951
- [4] CLARKE BE: Myoepithelial hamartoma of the gastrointestinal tract. *Arch Pathol* 30:143, 1940
- [5] CiMMINO CV: Gastric adenomyosis vs aberrant pancreas. *Radiology* 65:73, 1955
- [6] Moll R, Franke WW, Schiller DL, Geiger B, Krepler R. The catalog of human cytokeratins: pattern of expression in normal epithelia, tumor and culture cells. *Cell* 1982;31:11-24.
- [7] Handra-Luca A, Terris B, Couvelard A, Bonte H, Flejou JF. Adenomyoma and adenomyomatous hyperplasia of the Vaterian system: clinical pathological, and new immunohistochemical features of 13 cases. *Mod Pathol* 2003;16:530-6.

[8] Bouwens L. Cytokeratins and cell differentiation in the pancreas. *J Pathol* 1998;184:234-9.

[9] Moll R, Lowe A, Laufer J, Franke WW. Cytokeratin 20 in human carcinomas. A new histodiagnostic marker detected by monoclonal antibodies. *Am J Pathol* 1992;140:427-47.

[10] Miettinen M. Keratin 20: immunohistochemical marker for gastrointestinal, urothelial, and Merkel cell carcinoma. *Mod Pathol* 1995;8:384-8.

[11] Feyrter F. The argyrophilia of macrocystic neuroma of the minor duodenal papilla (Santorini). *Frankf Z Pathol* 1967;77:160-7.

[12] Anatomie des voies biliaires extra-hépatiques Y Bouchet : Professeur d'anatomie, chirurgien des hôpitaux, chef de service de chirurgie digestive
JG Passagia : Assistant en anatomie, assistant en chirurgie JF Lopez : Assistant en anatomie, assistant en chirurgie
CHU de Grenoble, BP 217 X, 38 043 Grenoble Cedex France

[13] E, Martin histopathologie du foie et des voies biliaires, chapitre XXI page 311

[14] atlas d'histologie humaine et animale

[15] Sato Y, Shirai Y, Date K, Iwaya A, Hatekeyama K. Asymptomatic adenomyoma of the common hepatic duct discovered during a medical checkup: report of a case. *Hepato- Gastroenterol* 2000; 47:636-8.

- [16] Tsukamoto T, Kinoshito H, Hirohaski K et al. Adenomyoma of the common bile duct. *Hepato-Gastroenterol* 1999;46: 1627-30.
- [17] Bravet G. Les tumeurs bénignes des voies biliaires extrahépatiques ; Thèse. Lyon, 1913.
- [18] Bedirli A, Patiroglu T, Sozuer EM, Sakrak O. Periampullary adenomyoma: report of two cases. *Surg Today* 2002;32:1016-8.
- [19] Kayahara M, Ohta T, Kitagawa H, Miwa K, Urabe T, Murata T. Adenomyomatosis of the papilla of Vater: a case illustrating diagnostic difficulties. *Dig Surg* 2001;18:139-42.
- [20] Moore SW, McElwee RS, Romiti C. Benign tumours of the biliary tract. *JAMA* 1952;150:999-1003.
- [21] Aoun N, Zafatayeff S, Smayra T, Haddad-Zebouni S, Tohme C, Ghossain M. Adenomyoma of the ampullary region: imaging findings in four patients. *Abdom Imaging* 2005;30:86-9. 12. Albores-Saavedra J, Henson DE, Sobin LH. Histological
- [22] Winter JM, Cameron JL, Campbell KA, Arnold MA, Chang DC, Coleman J, et al. 1423 pancreaticoduodenectomies for pancreatic cancer: A single-institution experience. *J Gastrointest Surg* 2006;10: 1199-210; discussion:1210-1.
- [23] Fukuda A, Yazumi S, Sawada M, Seno H, Nabeshima M, Fujii H. Adenomyoma of the minor duodenal papilla. *Gastrointest Endosc* 2005;61:475-9.

[24] Gerhards MF, Vos P , van Gulik TM, Rauws EA, Bosma A ,Gouma DJ.Incidence of benign lesions in patients resected for suspicious hilar obstruction.Br J Surg 2001;88:48-51)

[25] Corvera CU, Blumgart LH, Darcis F , Klimstra DS ?, DeMatteo, Fong Y, et al, Clinical and pathologic features of proximal biliary strictures masquerading as hilar cholangiocarcinoma. J Am Coll Surg 2005 ;201:862-9).

[26] Flejou JF, Molas G. L'adénomyome de la papille, une tumeur exceptionnelle d'origine pancréatique (res). Gastroenterol Clin Biol 1989; 13:A 300.

[27] L. PLARD, S. LEONE, J. ROD, L. CHICHE adenomyoma of the main biliary tract: a real diagnostic trap. two cases and a review of the literature (gastroenterol Clin Biol 2007;31:1005-1009)

[28] Gilbert LA, Park YS, Ally KM. Partial biliary obstruction due to adenomyoma of the terminal common bile duct. Clin Med. 1986;11:216-217.

[29] Laurent Palazzo , Jean Vitaux, Joseph-Antoine Paolaggi Echoendoscopie des voies biliaires et du pancréas Hépatologie [7-010-A-15]

[30] Ulich TR, Kollin M, Simmons GE, Wilczynski SP, Waxman K. Adenomyoma of the papilla of Vater. Arch Pathol Lab Med. 1987;111:388-390

[31] Hammarstorm LE, Holmin T, Stenram U. Adenomyoma of the ampulla of Vater: an uncommon cause of bile duct obstruction. Surg Laparosc Endosc 1997;7:388-93.

[32] Thomas P, Delpero JR, Monges G, Houvenaeghel G, Capobianco C, Andreu JM, *et al.* Adénomyome du bas cholédoque. Une cause exceptionnelle de sténose de la voie biliaire principale. *Gastroenterol Clin Biol* 1990;14:283-5.

[33] Menzel J, Poremba C, Dietl KH, Bocker W, Domschke W, Tumors of the papilla of Vater –inadequate diagnostic impact of endoscopic forceps biopsies taken prior to and following sphincterotomy. *Ann oncol* 1999;10:1227-31

[34] Place respective de l'IRM et de l'échoendoscopie dans la prise en charge des maladies biliopancréatiques *Respective place of MRI and EUS for taking care of biliopancreatic diseases* B. Pujol 40, cours Gambetta, 69007 Lyon, France (Disponible sur Internet le 3 avril 2009)

[35] Albores-Saavedra J, Henson DE, Sobin LH. Histological typing of tumors of the gallbladder and extrahepatic bile duct. World Health Organization, Berlin: Springer-Verlag, 1991

[36] Nathalie Guedja, b, *, Pierre Bedossa, b, Valérie Paradis a, Anatomopathologie des cholangiocarcinomes Pathology of cholangiocarcinoma *Annales de pathologie* (2010) 30, 455—463

[37] Ram MD, Midha D : Adenomyomatosis of the gallbladder. *Surgery* 1975; 78: 224-229

[38] Imai S, Uchiyama S, Suzuki T, Arita A, Yochida K, Kodama H, Scheurer U, Sato T, Akimaro K, Shibuya T, Kameda H : Adenomyoma of the common hepatic duct. *J Gastroenterol* 1995;85:503-513

[39]Ikei S, Mori K, Yamane T, Katafuchi S, Hirota M, Akagi M: Adenofibromyomatous hyperplasia of the extrahepatic bile duct – a report of two cases. *Jpn J Surg* 1989; 19:576–582.

[40]Siekhan Hai, Satoshi Y, Hiromu T, Shigeru Kazu Tet al.adenomyoma of the common hepatic duct mimicking bile duct cancer: report of one case .*Surgery today* (2007) 37:608-611

[41]Ponchon T, Genin G, Mitchell R, Henry L , Bory RM, Bodnar D, et al .Methods, indications, and results of percutaneous choledochoscopy: a series of 161 procedures .*Ann Surg* 1996;223:26-36.

[42]Rabinovitz M, Zajko AB, HassaneinT, Shetty B, Bron KM, Schade RR et al Diagnostic value of brush cytology in the diagnosis of bile duct carcinoma: a study in 65 patients with bile duct stricture. *Hepatology* 1990; 12: 77-52

[43] Tanaka M, Ikeda S, Kawakami K, Nakayama F. The presence of a positive pressure gradient from pancreatic duct to choledochal cyst demonstrated by duodenoscopic microtransducer manometry: Clue to pancreaticobiliary reflux. *Endoscopy* 1982;14:45-7.

[44] Cook DJ, Salena BJ, Vincic LM: Adenomyoma of common bile duct. *Am J Gastroenterol* 1998;83:432-4.

[45] Ojima H, Talenoshita S, Nagamachi Y. Adenomyoma of the common bile duct: Report of a case. *Hepatogastroenterology* 2000;47:132-4.

[46] Deepak Kumar Singh¹, Archana Rastogi², Puja Sakhuja², Ranjana Gondal²
Adenomyoma of common bile duct arising in a type I choledochal cyst CASE REPORT
Year : 2011 Volume : 54 Issue : 2 Page : 365-367

[47] Joergm. Lauffer, md, Hansu. Baer, md, Christoph A. Maurer, md, Stephan Feo Hling, Ulrich Scheurer, md, Arthur Zimmermann, md, and Markus W. Buechler, md
Adenomyoma of the Distal Common Bile Duct Mimicking Cholangiocarcinoma
Digestive Diseases and Sciences, Vol. 43, No. 6 (June 1998), pp. 1200 ± 1204

[48] Asch MR, Yu J, Margolis M, Redston M (1997) Adenomyoma of the common bile duct imaged with endoscopic ultrasonography: case report. Can Assoc Radiol J 48:101-104

[49] Legakis NC, Stamatiadis AP, Papadimitriou-Karapanou C, Apostolidis NS (1990) Adenomyoma of the common bile duct. Arch Surg 125:543

[50] Lessells (A. M.) et Martin (D. F.) – Heterotopic gastric mucosa in the duodenum. J. Clin. Pathol. 1982. 35. 591-595.

[51] Spiller (R. C.) Shousha(S) et Barrison (I. G.) Heterotopic gastric tissue in the duodenum. A case report of eight cases. Dig ,dis, sci. 1982 . 27. 880-883

[52] Stanley R. Hamilton Lauri A. Aaltonen Pathology and Genetics of Tumours of the Digestive System WHO2000)

[53] F,Cabane J.L Bonenfant. Anatomie pathologique spéciale 2eme édition

- [54] Camilo A ; Thomas , P ; Mémonto de pathologie. 3 eme édition
- [55] Denis Chatelain a , Jean-Francois Fléjou b,* Pathologie œsophagienne et gastrique : lésions néoplasiques précoces. Cas n o7. Adénome pylorique de l'estomac *Annales de pathologie* (2011) 31, 385—389)
- [56] (Aldridge MC, Gruffaz F, castaing D, Bismuth H. Adenomyomatosis of the gallbladder. A pre-malignant lesion? *Surgery* 1991;109:107-10.).
- [57] Roselli A, Paulino F. Adenomyoma of the distal common bile duct. *Hospital (RioJ)* 1964;65:909-15.
- [58] Chand EM, Caudell P. Pathologic quiz case. Patient with duodenal strictures and a mass at the head of the pancreas. *Arch Pathol Lab Med* 2001;125:701-2.
- [59] Miossec S, Parc R, Paye F. Ampullectomy in benign lesion: indications and results. *Ann Chir* 2004;129:73-8.
- [60] Martinez Vieira A, Duran Ferreras I, Gomez Bravo MA, Tamayo Lopez MJ, Garcia Gonzalez I, Serrano Diez-Canedo J, et al. Obstructive jaundice in a 22-year-old man. *Rev Est Enferm Dig* 2005;97:460-1.
- [61] Leese T, Neoptolemos JP, West KP, Talbot IC, Carr-Locke DL. Tumours and pseudotumours of the region of the ampulla of Vater: an endoscopic, clinical and pathological study. *Gut* 1986;27:1186-92.

- [62] Diel R, Hamborg V, Kruger C. Primary adenomyomatosis of the choledochus as a rare cause of obstructive jaundice. *Z Gastroenterol* 1989;27:228-32.
- [63] Legakis NC, Stamatiadis AP, Papadimitriou-Karapanou C, Apostolidis NS. Adenomyoma of the common bile duct. *Arch Surg* 1990; 125:543.
- [64] Burhans R, Myers. Benign neoplasms of the extrahepatic biliary ducts. *Am Surg* 1971;37:161-6.
- [65] Oberhofer B, Mlinaric I, Soljan N, Knezevic-Krivak S. Adenomyoma papillae vateri. *Acta Chir Jugosl* 1975;22:15-21.
- [66] Rosai J. *Akerman's surgical pathology*. CV Mosby, St. Louis 1981:670.
- [67] Cannizzaro MA, Imme A, Cutrona D, Sciuto M, Caglia P, Lanzafame S. Case of adenomyoma of Oddi's sphincter. *Chir Ital* 1981;33:354-71.
- [68] Goldmann A, Schnarkowski P, Buchler M, Friedrich JM. A rare case of a peripapillary adenomyoma with accompanying duodenitis. *Rontgentpraxis* 1991;44:247-8.
- [69] Sudan N, Lafon J. Papillomatose bénigne du canal de Wirsung associée à un adénomyome du bas cholédoque. *Gastroenterol Clin Biol* 1992;16:701-4.
- [70] Narita T, Yokoyama M. Adenomyomatous hyperplasia of the papilla of Vater: a sequela of chronic papillitis? *Ann Diagn Pathol* 1999;3:174-7.

[71] Ligorred L, Morollon MJ, Aragon J, Gonzalez G, Munilla E, Garcia Omedes A, et al. Ictericia obstructiva secundaia a un adenomioma de la ampolla de Vater. Rev Esp Enferm Dig 1997;89:411-2.

[72] Matsumoto Y, Fujii H, Miura K, Inoue S, Sekikawa T, Aoyama H, et al. Successful pancreatojejunal anastomosis for pancreatoduodenectomy. Surg Gynecol Obstet 1992;175:555-62.

[73] Huang HL, Liu CL, Yang TL, Lin HJ. Adenomyoma of the papilla of Vater: a case report. Zhonghua Yi Xue Za Zhi 1993;51:386-8.

[74] Weber CM, Zito PF, Becker SM. Heterotopic pancreas: an unusual cause of obstruction of the common bile duct. Am J Gastroenterol 1968;49:153-9.

[75] Koch H. Follow-up after endoscopic papillotomy. Endoscopy 1978; 10:140.

[76] Stenram U, Franssib K. Adenomyosis of the papilla of Vater: report of a case. Acta Pathol Microbiol Scan 1960;49:156-64.

[77] R Colovic, M Micev, J Markovic, S Zogovic, N Či olovic and M Stojkovic ´Adenomyoma of the common hepatic duct 2002 Martin Dunitz Volume 4, Number 4 187-190

[78] KENTARO IWAKI, KOHEI SHIBATA, MASAYUKI OHTA, YUICHI ENDO, HIROKI UCHIDA, MASAYUKI TOMINAGA, RYOKI OKUNAGA, SEIICHIRO KAI, and SEIGO KITANO Adenomyomatous Hyperplasia of the Common Bile Duct: Report of a Case Surg Today (2008) 38:85-89 DOI 10.1007/s00595-007-3558-9

[79] Massoom et al ; symptomatic adenomyoma of vaterian system: a pathologic curiosity with a potential for misdiagnosis; journal compilation APMIS 114:559-61; 2006

[80] Tae-Hee Kwon, Do Hyun Park, Kwang Yeon Shim, Hyun-Deuk Cho, Jeong Hoon Park, Suck-Ho Lee, Il-Kwun Chung, Hong-Soo Kim, Sang-Heum Park, Sun-Joo Kim Ampullary adenomyoma presenting as acute recurrent Pancreatitis *World J Gastroenterol* 2007 May 28; 13(20): 2892-2894

[81] Masakatsu Numata .Soichiro Morinaga .Takuo Watanabe. Hiroshi Tamagawa. Naoto Yamamoto Manabu Shiozawa. Yoichi Kameda. Shinichi Ohkawa Yasushi Rino. Makoto Akaike. Munetaka Masuda. A Case of Adenomyomatous Hyperplasia of the Extrahepatic Bile Duct *Case Rep Gastroenterol* 2011;5:457-462

[82] M. G. Mulla, V. Srivastava, I. Hopper, J. Klein, M. Larvin and R. Hall Diagnosis of biliary adenomyomatosis *European Surgery* Volume 40, Number 2, 81-82, DOI: 10.1007/s10353-008-0396-

[83] Gui-Ming Shu, Yi-Jun Wang, Zhi Du, Dong-Yan Li, Chang-Li Liu Bile tract adenomyoma: A case report *World J Gastroenterol* 2008 January 28; 14(4): 647-650

[84] Nadja Lehwald¹, Kenko Cupisti, Stephan E Baldus, Patric Kröpil, Jan Schulte am Esch , Claus F Eisenberger, Wolfram T Knoefel *Journal of Medical Case Reports* 2010, 4:402

[85] A Couvelard ; R Kianmanesh ; P Hammel ; N Colnot ; P Lévy ; P Ruzniewski ; J Belghiti ; P Bedossa ; A Sauvanet ; © SNFGE, 2005) L'examen extemporané de la tranche pancréatique dans la chirurgie des tumeurs intracanalaires papillaires et mucineuses du pancréas est utile et fiable : évaluation prospective

[86] Stanley R. Hamilton Lauri A. Aaltonen Pathology and Genetics of Tumours of the Digestive System WHO2000)

[87] *Anne JOURET, J. HAOT Service d'Anatomie Pathologique, CHR, Tournai (Belgique)ET Service d'Anatomie Pathologique, Hôpital Erasme, ULB, Bruxelles (Belgique)*

About a few pseudotumours of the digestive tract Acta Endoscopica Volume 33 - N° 3 - 2003

[88] Pathologie œsophagienne et gastrique : lésions néoplasiques précoces. Cas n° 07. Adénome pylorique de l'estomac Denis Chatelain a , Jean-Francois Fléjou b, Annales de pathologie (2011) 31, 385—389