



Journal Homepage: - www.journalijar.com

INTERNATIONAL JOURNAL OF ADVANCED RESEARCH (IJAR)

Article DOI: 10.21474/IJAR01/17908

DOI URL: <http://dx.doi.org/10.21474/IJAR01/17908>



RESEARCH ARTICLE

XANTHOGRANULOME JUVENILE SIMULANT UN HYGROMA DU COUDE : A PROPOS D'UN CAS ET REVUE DE LA LITTÉRATURE JUVENILE XANTHOGRANULOMA SIMULATING ELBOW HYGROMA: A CASE REPORT AND REVIEW OF LITERATURE

Leila Benbella, Samia Sassi and Najat Lamalmi

Université Mohamed V, Laboratoire D'anatomie Pathologique, CHU Ibn Sina, Rabat, Maroc.

Manuscript Info

Manuscript History

Received: 17 September 2023

Final Accepted: 24 October 2023

Published: November 2023

Key words:-

Juvenile Xanthogranuloma, Hygroma,
Histiocytosis, Case Report

Abstract

Juvenile xanthogranuloma is a non-Langerhansian histiocytosis that is clinically manifested by a yellowish nodule. The objective of this work is to discuss the anatomo-clinical aspects of this condition and its differential diagnoses. We report the case of a 38-year-old patient with juxta-articular swelling of the elbow clinically simulating hygroma. Xanthogranuloma is a benign, self-involutive form of non-Langerhansian histiocytosis that appears early in life. Diagnosis is usually clinical in the most typical forms. In other cases, histological analysis is necessary to support the diagnosis by the demonstration of a dense dermal infiltrate delimiting foamy histiocytes mixed with very characteristic Touton giant cells. The differential diagnosis is made with the other etiologies of histiocytic proliferations namely langerhansian histiocytosis, papularxanthoma and dermato fibroid hence the interest of carrying out an immunohistochemical supplement before retaining the histological diagnosis of xanthogranuloma. To conclude, the diagnosis of juvenile xanthogranuloma is often clinical in the most typical forms. In other cases, histological study is essential to support the diagnosis. The immunohistochemical study, as well as the comparison with clinical and paraclinical data are of great help in eliminating differential diagnoses.

Copy Right, IJAR, 2023.. All rights reserved.

Introduction:-

Le Xanthogranulome juvénile est une prolifération bénigne rare des cellules histiocytaires non langerhansiennes survenant essentiellement chez l'enfant.

Elle se manifeste cliniquement par un nodule unique jaunâtre de petite taille localisé le plus souvent au niveau de la tête et de la nuque.

L'évolution se fait en général vers la résolution spontanée après plusieurs années.

L'objectif de ce travail est de discuter les aspects anatomo-cliniques de cette affection et ses diagnostics différentiels.

Corresponding Author:- Leila Benbella

Address:- Université Mohamed V, Laboratoire D'anatomie Pathologique, CHU Ibn Sina,
Rabat, Maroc.

Patient Et Observation:-

Informations du patient :

Un homme âgé de 38 ans, ayant comme antécédent une méningite bactérienne à l'âge de 4 ans mal traitée et compliquée d'un retard mental ; Le patient consulte pour une tuméfaction du coude, évoluant depuis 3 mois.

Résultats cliniques :

A l'examen physique, il a été retrouvé une tuméfaction juxta-articulaire, indolore, au niveau de la face d'extension du coude droit sans autres signes associés.

Démarche diagnostique et thérapeutique:

Les méthodes de travaux incluent l'imagerie, la biologie et l'étude anatomo-pathologique. L'échographie a objectivé une masse isoéchogène bien limitée mesurant 6.5 cm de grand axe. Le bilan biologique était sans particularité.

Le patient a bénéficié par la suite d'une exérèse chirurgicale avec des suites opératoires simples et une bonne évolution clinique.

L'examen macroscopique de la pièce opératoire a retrouvé une masse nodulaire pesant 29 grammes et mesurant 6.5x6x2.5 cm. A la coupe, il a été noté un aspect homogène de couleur jaunâtre.

L'examen histologique des différents prélèvements réalisés au niveau de la lésion nodulaire montrent sur un fond fibreux, riche en collagène, de nombreux amas de cellules histiocytaires spumeuses. (Figure 1). Celles-ci sont mêlées à des cellules géantes de type Langerhans (figure 2) et de type touton (figure 3). On note aussi, la présence de lymphocytes et de rares plasmocytes à disposition péri vasculaire.

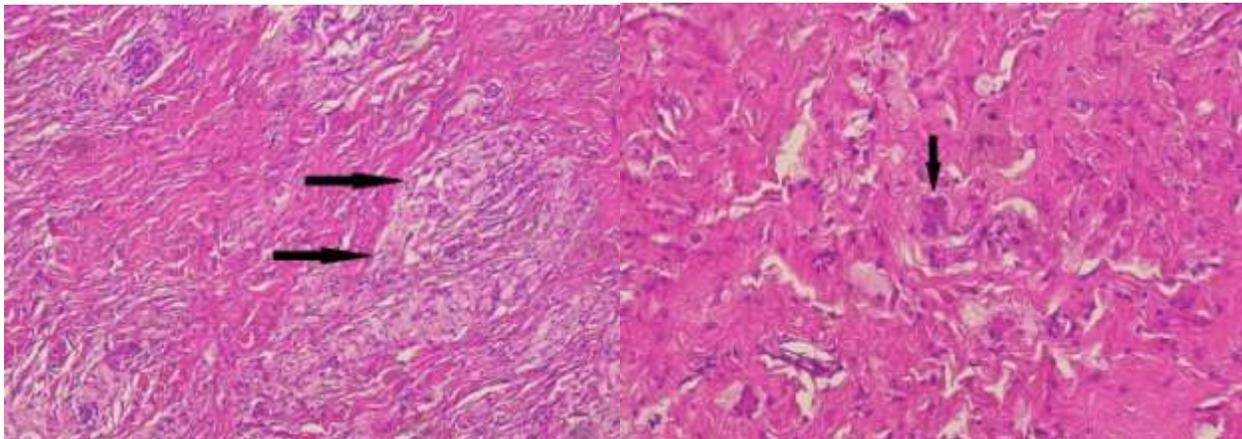


Figure 1:- Placard d'histiocytes spumeux sur un fond fibreux riche en collagène (2 flèches) ; Cellules géantes de type Touton très caractéristique (1 flèche).

Un complément immunohistochimique a été réalisé pour éliminer une tumeur myofibroblastique ; Il a montré des anticorps anti AML, anti ps100, anti desmine et anti-ALK négatifs. Le diagnostic de xanthogranulome des parties molles a été retenu.

Discussion:-

Le xanthogranulome est une forme bénigne auto-involutive d'histiocytose non langerhansienne apparaissant tôt dans la vie ; Il est présent à la naissance dans 5 à 17% des cas et dans les premières années de vie dans 40 à 70 % des cas ; Il est plus rare chez l'adulte [1].

Le Xanthogranulome juvénile se présente comme une papule ferme, ronde, ou un nodule, variant en taille de 5mm à 2cm. Dans notre cas, mis à part l'âge du patient, la taille et la localisation de la prolifération étaient particulières.

Le diagnostic est en général clinique dans les formes typiques ; En effet, l'examen au dermoscope objective le signe du soleil couchant qui correspond à une zone centrale jaune orangée entourée d'un liseré périphérique avec des télangiectasies linéaires ramifiées. [2]

Dans les formes atypiques ou en cas de doute, l'étude anatomo-pathologique est d'un grand apport notamment pour éliminer les différents diagnostics différentiels soulevés cliniquement.

L'étude histologique montre un infiltrat dermique dense et délimité d'histiocytes pouvant s'étendre jusqu'au tissu sous-cutané, des fascias et du muscle dans les grandes lésions.

Les cellules géantes de type Touton sont très caractéristiques.

Des lymphocytes, des plasmocytes, des polynucléaires éosinophiles et neutrophiles peuvent être observés.

Les lésions précoces sont caractérisées par des histiocytes monomorphes avec un cytoplasme éosinophile abondant tandis que dans les lésions plus anciennes les histiocytes développent des lipides intra cytoplasmiques et acquièrent un aspect spumeux. [3]

Sur le plan immunohistochimique, les anticorps anti HAM56, anti CD68, anti Factor XIIIa et anti CD163 sont positifs, tandis que les anticorps anti Langerin (CD207), anti CD1a et anti S100 sont négatifs. [3]

Le diagnostic différentiel se fait avec les autres étiologies des proliférations histiocytaires à savoir l'histiocytose langerhansienne (le marquage par la PS100, CD1a et CD207 est positif), le xanthome papuleux (facteur XII négatif le plus souvent) et le dermo fibrome (anti ALK positif), d'où l'intérêt de réaliser un complément immunohistochimique avant de retenir le diagnostic histologique du xanthogranulome.

Enfin, la maladie d'Erdheim-Chester (MEC), histiocytose non langerhansienne systémique et rare, présente les mêmes aspects histologiques et le même profil immunohistochimique que le xanthogranulome juvénile. Les manifestations cliniques et les aspects radiologiques orientent souvent le diagnostic.

Conclusion:-

Le diagnostic du xanthogranulome juvénile est souvent clinique dans les formes les plus typiques.

Dans les autres cas, l'étude histologique est indispensable pour étayer le diagnostic.

L'étude immunohistochimique, ainsi que la confrontation aux données cliniques et paracliniques sont d'une grande aide pour éliminer les diagnostics différentiels.

Conflits d'intérêts

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêt.

Contributions des auteurs

Collecte des données: LB, SS, SJ.

Analyse et interprétation des données: LB, SS, SJ.

Révision de l'article:

NL

Tous les auteurs ont approuvé la version finale du manuscrit.

Références Bibliographiques:-

[1] :Hernandez-Martin A, Baselga E, Drolet BA, Esterly NB. Juvenile xanthogranuloma. J Am Acad Dermatol. 1997 Mar;36(3 Pt 1):355-67; quiz 368-9. doi: 10.1016/s0190-9622(97)80207-1. PMID: 9091465.

[2] : Oliveira TE, Tarlé RG, Mesquita LAF. Dermoscopy in the diagnosis of juvenile xanthogranuloma. *An Bras Dermatol.* 2018 Jan-Feb;93(1):138-140. doi: 10.1590/abd1806-4841.20186849. PMID: 29641718; PMCID: PMC5871383.

[3]: Hernández-San Martín MJ, Vargas-Mora P, Aranibar L. Juvenile Xanthogranuloma: An Entity With a Wide Clinical Spectrum. *Actas Dermosifiliogr (Engl Ed).* 2020 Nov;111(9):725-733. English, Spanish. doi: 10.1016/j.ad.2020.07.004. Epub 2020 Jul 25. PMID: 32721389.