



ORIGINAL RESEARCH

Diagnostic and therapeutic features of extra pulmonary thoracic hydatidosis

Aspect diagnostique et particularité thérapeutique de l'hydatidose thoracique extra pulmonaire

S. Rabiou¹, J. Ghalimi¹, M. Lakranbi¹, Y. Ouadnoui^{1,2}, M. Smahi^{1,2}

¹: Service de Chirurgie Thoracique. CHU Hassan II. Fès, Maroc

²: Faculté de médecine et de pharmacie, université Sidi-Mohamed-Ben-Abdellah, Fès, Maroc

ABSTRACT

Introduction. Extra pulmonary thoracic hydatidosis is a rarely reported entity. The aim of our study was to report our experience in the diagnostic approach and therapeutic features of this pathology.

Patients and methods. This was a retrospective study between January 2010 and December 2013 concerning the records of 15 men and 19 women have been supported for extra pulmonary thoracic hydatid disease.

Results. 314 patients operated on in our department for thoracic hydatid disease during the study period, 10.82% had extra pulmonary location and 3 multiple. We noted a history of subsequent surgery for other localizations of hydatid disease in 8 patients. The diagnosis was suspected by preoperative imaging and the exact location of the lesion confirmed preoperatively. Scissurale location was the most frequent (55.88%). The postoperative course was uneventful in all cases. No recurrence was observed during the postoperative follow-up with a 12-month decline.

Conclusion. The extra pulmonary thoracic location of hydatid cyst is a rare entity, even in a highly endemic countries. An early treatment prevents the occurrence of complications. Surgery is the treatment of choice. The additional medical treatment can scoop recidivism.

KEYWORDS: Thoracic hydatid disease, multiple hydatid cyst, mediastinum, pleura, diaphragm.

RÉSUMÉ

Introduction. L'hydatidose thoracique extra pulmonaire est une entité rarement rapportée. Le but de notre travail était de rapporter notre expérience dans l'approche diagnostique et les particularités thérapeutique de cette pathologie.

Patients et méthodes. Il s'agissait d'une étude rétrospective entre janvier 2010 et décembre 2013 concernant les dossiers de 15 hommes et 19 femmes ayant été prise en charge pour hydatidose thoracique extra pulmonaire.

Résultats. Sur 314 patients opérés dans notre service pour kyste hydatique thoracique pendant la période d'étude, 10,82 % avaient une localisation extra pulmonaire, dont 3 multiples. Nous avons noté un antécédent de chirurgie ultérieure pour d'autres localisations de l'hydatidose chez 8 patients. Le diagnostic avait été suspecté en préopératoire par l'imagerie et la localisation exacte de la lésion confirmée en préopératoire. La localisation scissurale était la plus fréquente (55.88%). Les suites opératoires étaient simples dans tous les cas. Aucune récurrence n'a été observée durant le suivi postopératoire avec un recul de 12 mois.

Conclusion. La localisation thoracique extra pulmonaire du kyste hydatique est une entité rare, même dans un pays de forte endémie. Une prise en charge précoce évite la survenue de complications. La chirurgie est le traitement de choix. Le traitement médical complémentaire permet d'éviter la récurrence.

MOTS CLÉS: Hydatidose thoracique, kyste hydatique multiple, médiastin, plèvre, diaphragme.

Corresponding author: Dr Sani RABIOU. Service de Chirurgie Thoracique C1. CHU Hassan II, Fès, Maroc.

Email : rabiou sani2@icloud.com

INTRODUCTION

Le kyste hydatique était connu depuis l'Antiquité. Hippocrate et Galien y font allusion dans leurs écrits et signalent sa présence dans le foie humain. Il s'agit d'une anthroponose due au développement de la forme larvaire d'*Echinococcus granulosus* qui sévit à l'état endémique dans différentes régions du monde notamment dans le pourtour méditerranéen, l'Australie, la Nouvelle Zélande et l'Amérique latine. La localisation thoracique extra pulmonaire est rare et représente 5 à 7,5 % de l'ensemble des localisations thoraciques [1,2]. Dans le but de rapporter notre expérience dans la prise en charge diagnostique et les particularités thérapeutiques, nous rapportons une série de 34 patients.

PATIENTS ET METHODE

L'étude était rétrospective entre janvier 2010 et décembre 2013. Elle concernait les dossiers de 15 hommes et 19 femmes ayant été prise en charge pour hydatidose thoracique extra pulmonaire dans le service de chirurgie thoracique du CHU Hassan de Fès. À travers une fiche d'exploitation, nous avons plus particulièrement recueillis les données suivantes pour chaque patient. Il s'agissait de: L'âge, le sexe, la provenance; Les antécédents chirurgicaux pour d'autres localisations de l'hydatidose; Les signes cliniques, biologiques et radiologiques; La localisation exacte de la lésion; Le geste réalisé ainsi que les éventuelles complications péri et post opératoires; En fin l'évolution des patients.

RESULTATS

Il s'agissait de 15 hommes (44.1%) et 19 femmes (55.9%) ayant un âge moyen de 39,35 ans avec des extrêmes entre 15 et 71 ans parmi lesquels 67.6% provenaient du milieu rural. Ils représentaient 10,82% parmi les 314 patients opérés dans notre service pour kyste hydatique thoracique pendant la période d'étude. Nous avons noté un antécédent de chirurgie ultérieure pour d'autres localisations de l'hydatidose chez 8 patients.

Le *Tableau 1* résume les antécédents de ces patients. La symptomatologie clinique était dominée par la douleur thoracique et la toux dans 64.7% et 55.8% respectivement (*Figure 1*).

Sur le plan biologique, l'hyperéosinophilie avait été retrouvée chez 3 patients et la sérologie hydatique positive dans 8 cas. Le diagnostic de hydatidose avait été évoqué sur la radiographie thoracique réalisée chez tous nos patients. La tomodensitométrie thoracique a été réalisée chez 27 patients (79.4%). Elle avait confirmé le diagnostic de hydatidose chez 25 patients en précisant sa localisation exacte dans 17 cas (*Figure 2*).

TABLEAU 1 Les antécédents des patients

Antécédents	Nombres de patients
Chirurgie pour KHP sur le poumon controlatéral il y'a un an	1 patient
Chirurgie pour KHF avec un intervalle libre ente 7-12 ans	4 patients
Chirurgie pour lésion pariétale dans un hôpital périphérique il y'a 4 ans	2 patients
3 Chirurgies (KHP il y'a 25 ans, KHF il y'a 15 ans, KHR il y'a 3 ans)	1 patient
Aucune notion de prise en charge de la maladie hydatique	26 patients

KHF: kyste hydatique du foie; KHP: kyste hydatique du poumon.

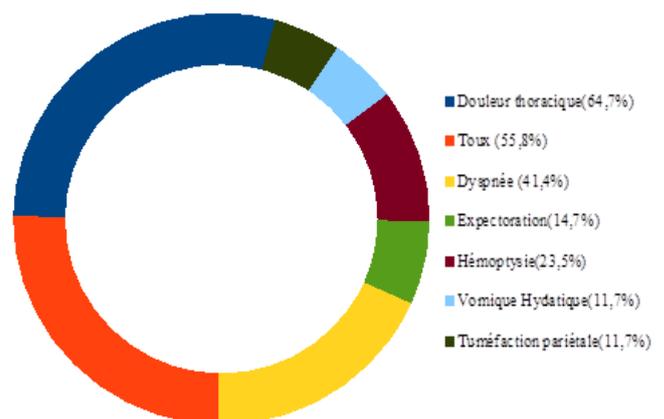


FIGURE 1. Répartition des signes cliniques des patients.



FIGURE 2. Tomodensitométrie thoracique qui montre une masse kystique multicloisonnée extrapulmonaire localisée au niveau de la gouttière costo-vertébrale.

TABLEAU 2 Résultats de l'échographie abdominale		
Résultats de l'échographie	Nombre de cas	Pourcentage
KHF	6	17,6%
KHR	2	5,8%
KHS	1	2,9%
KHS+KHR	1	2,9%
Normale	24	73,3%
KHF: kyste hydatique du foie.	KHR: kyste hydatique du rein.	KHS: kyste hydatique splénique.

TABLEAU 3 Différentes localisations thoraciques extra pulmonaire de la lésion et le geste réalisé			
Localisations	Périkystectomie	Kystectomie	Résection osseuse
Diaphragmatique	3	5	-
Médiastinale	2	2	-
Sous pleurale	1	2	-
Parties molles	1	1	-
Scissurale	17	2	-
Osseuse	-	-	3

Les résultats de l'échographie abdominale réalisée systématiquement chez tous nos malades dans le cadre de bilan de diffusion de la maladie hydatique sont résumés dans le *Tableau 2*.

La prise en charge chirurgicale avait été réalisée par thoracotomie postérolatérale dans 91% des cas. Une thoracotomie antérolatérale, une sternotomie, un abord électif étaient nécessaires dans 3% des cas chacun. Le *Tableau 3* nous donne la localisation thoracique extra pulmonaire de la lésion ainsi que le geste réalisé pour chaque type de lésion (*Figure 3*). Un geste complémentaire était nécessaire chez 33 patients.

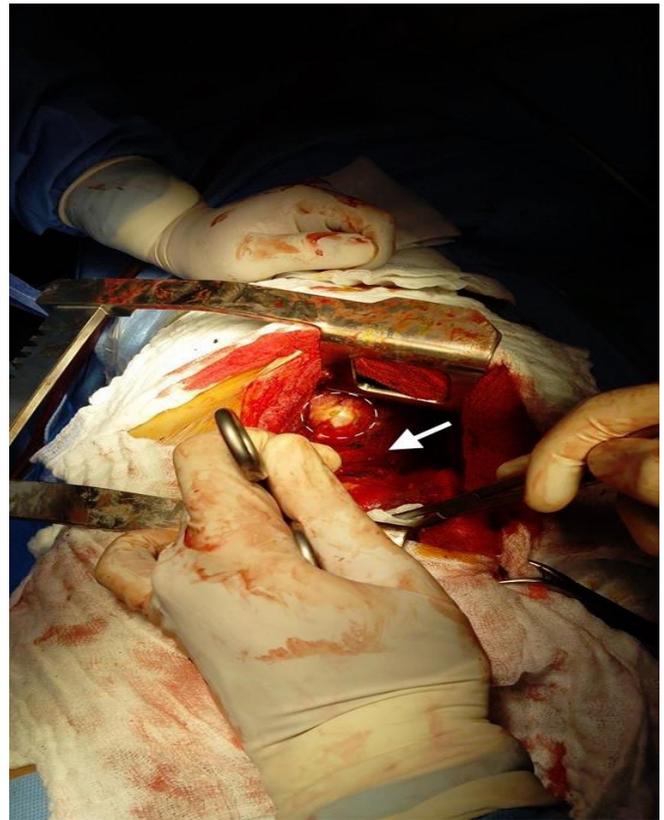


FIGURE 3. Vue opératoire montrant un kyste hydatique diaphragmatique bien individualisé par rapport au diaphragme (flèche).

Il s'agissait d'une déconnexion phréno-pulmonaire dans 2 cas, une phrénoplastie sans interposition d'un matériel prothétique chez 8 patients, une décorication pleurale chez 3 malades, une réfection pariétale par une plaque du polypropylène chez 1 patient ayant un kyste hydatique sterno-costale enfin une fermeture des fistules bronchiques était nécessaire chez 19 patients ayant tous un kyste hydatique scissural. Tous nos patients avaient reçu un traitement médical complémentaire à base d'Albendazole pendant une durée allant de 6 à 12 mois, avec contrôle mensuel du bilan hépatique. Les suites opératoires étaient simples pour 32 patients. Nous avons enregistré 2 cas de suppuration pariétale jugulée par une antibiothérapie adaptée au germe identifié qui était le staphylocoque. Le séjour hospitalier moyen était de 6,6 jours et avec un recul moyen de 12 mois, nous n'avons pas déploré de récurrence à ce jour.

DISCUSSION

L'hydatidose thoracique constitue la seconde localisation de la maladie hydatique de l'adulte [3]. Même si elle peut toucher tous les compartiments thoraciques, sa localisation extra pulmonaire est rare et ne représente que 5 à 7,5 % de l'ensemble des localisations thoraciques [1,2]. Elle représente 10,82% parmi

TABLEAU 4 Les différents signes cliniques de l'hydatidose thoracique extra pulmonaire rapportés par différentes études

Symptômes	BOUCHIKH (41 cas) [4]	SEBIT (13 cas) [5]	GURSOY (13 cas) [6]	ZIDAN (6 cas) [7]	Notre série (34 cas)
Douleur	92 %	38.4%	70%	83.3%	64.7%
Toux	90%	69.2%	0%	16.6%	55.8%
Dyspnée	63%	30.7%	30%	83.3%	41.4%
Expectoration	76%	15.3%	0%	16.6%	14.7%
Hémoptysie	12%	0%	0%	0%	2 3.5%
Vomique hydatique	7%	0%	0%	0%	11.7%
Tuméfaction pariétal	---	0%	---	0%	11.7%
Fièvre	44%	0%	0%	16.6%	0%
Asymptomatique	0%	0%	0%	0%	0%

314 patients opérés dans notre service pour kyste hydatique thoracique pendant la période de notre étude. Cette parasitose présente une diversité de formes anatomo-cliniques et radiologiques liée aux nombreux aspects topographiques et évolutifs des lésions expliquant ainsi le polymorphisme clinique rapporté par plusieurs études [4-7] (Tableau 4).

La radiographie thoracique semble être l'examen de première intention réalisée par la plupart des auteurs [4-7]. Elle permet d'orienter le diagnostic en objectivant une opacité de tonalité hydrique dense, arrondie ou ovale se projetant dans les différents compartiments thoraciques. La tomodensitométrie reste l'examen de choix. Elle peut être demandée d'emblée ou le plus souvent en cas de doute diagnostique [8]. Elle permet de déterminer la nature de la lésion, en précisant surtout son siège et ses rapports [9]. Sur la tomodensitométrie, la lésion se présente comme une masse liquidienne, homogène ou hétérogène, dont le coefficient d'atténuation n'est pas modifié par injection de produit de contraste [9].

Dans notre étude, la tomodensitométrie a confirmé le diagnostic du kyste hydatique dans 92.5% des cas et a précisé sa localisation exacte dans 62.9% des cas. L'imagerie par résonance magnétique peut montrer des signes caractéristiques permettant de distinguer un kyste hydatique d'autres lésions non parasitaires. Son intérêt a été surtout démontré dans l'évaluation des kystes à localisation costovertebrale.

Le kyste apparaît en hypersignal sur les séquences pondérées en T2 avec un halo périphérique d'hyposignal qui correspond au périkyte [10]. Sur le plan radiologique une formation kystique médiastinale fait discuter d'autres diagnostics comme le lymphangiome kystique (il est le plus souvent mal limité, multicloisonné, sa paroi se rehausse après injection de produit de contraste), le kyste bronchogénique (il est accolé aux structures bronchiques, sa paroi ne se rehausse pas après contraste), le kyste entérique (il siège au niveau du médiastin postérieur et est souvent associé à des anomalies vertébrales) [11,12]. Le diagnostic différentiel radiologique d'un kyste hydatique osseux typique est une tumeur bénigne comme un kyste anévrisimal ou une tumeur à cellules géantes, ou bien une tumeur osseuse maligne ou une ostéomyélite chronique à germes banal ou d'origine tuberculeuse dans les formes anciennes remaniées [13]. Dans notre série la voie d'abord chirurgicale était la thoracotomie postérolatérale dans 91% des cas. Nous avons fait le recours à d'autre voie d'abord comme la sternotomie ou la voie élektive en fonction de la localisation de la lésions et/ou des difficultés opératoires prévisibles. Zidane et al. [7] rapporte une série de 80 patients tous opérés par thoracotomie postérolatérale exclusive. A l'ouverture du thorax, après libération des adhérences, la ou les lésions étaient individualisées et de façon générale nous avons effectués une périkysectomie dans 70,5% des cas, une kystectomie dans 20,5% des cas et une résection osseuse dans 8.8% des cas (Tableau 5).

TABLEAU 5

Les différents gestes réalisés par différents auteurs

Techniques	BOUCHIKH [4]	ZIDAN [7]	GURSOY [6]	Notre série
Périkystectomie	-	100%	76,9%	70,5%
Kystectomie	90,2%	-	-	20,5%
Résection osseuse	9,7%	-	23%	8,8%

Chez 2 patients nous avons réaliser une déconnexion phréno-pulmonaire pour traiter une fistule biliobronchique, une phrénoplastie sans interposition d'un matériel prothétique chez 8 malades pour corriger une brèche diaphragmatique, conséquence de traitement du kyste diaphragmatique. Un cas d'une réfection pariétale par plaque du polypropylène a été réalisée pour palier un défaut pariétal suite à une résection pariétale chez un patient ayant un kyste hydatique sterno-costale. La décortication pleurale a été utilisée comme traitement associé aux techniques précédemment décrites chez 3 patients. La même dynamique a été observée chez certains auteurs [4,6,7]. La plupart des études recommandent de faire un traitement médical a base d'antihelminthique en complément du traitement chirurgical: Albendazole 10-15 mg/kg/j en cures de 28 jours avec arrêt du traitement pendant 14 jours entre 2 cures [4]. Un cas d'hydatidose thoracique secondaire traitée avec succès par l'Albendazole seul en raison de contre-indication à la chirurgie a été rapporté [14]. Dans notre série, le traitement antihelminthique

à base d'Albendazole a été indiqué de façon systématique en postopératoire pour tous les malades dont l'efficacité a été déjà démontrée par d'autres études [15,16]. La durée de traitement dépend de la forme de localisation des kystes hydatiques. Une durée de 3 mois est suffisante pour les kystes hydatiques isolés, alors que les kystes hydatiques multiples et associés nécessitent une durée de traitement de 6 mois au minimum. Le taux de récurrence dans notre série est nul, concordant avec les résultats des séries rapportées dans la littérature [5,7,17].

CONCLUSION

L'exérèse chirurgicale sans délais reste le traitement de référence pour la prise en charge des kystes hydatiques thoracique extra pulmonaire. Devant le risque accru de récurrence pour cette entité clinique il serait important de mettre l'accent sur le traitement médical complémentaire. Aucun cas de récurrence n'a été noté dans notre série. Nos résultats sont encourageants bien que notre recul (12 mois) n'est pas assez suffisant et ne permet pas d'écarter cette éventualité.

CONFLIT D'INTÉRÊT

Aucun.

RÉFÉRENCES

1. Majorowski MM, Carabina H Kilani M, Bensalah A: Echinococcosis in Tunisia: a cost analysis. *Trans R Soc Trop Med Hyg* 2005; 99: 268-78.
2. Lahmar S, Debbek H, Zhang LH, McManus DP, Souissi A, Chelly S, Torgerson PR : Transmission dynamics of the Echinococcus granulosus sheep-dog strain (G1 genotype) in camels in Tunisia. *Vet Parasitol* 2004; 121: 151-6.
3. Bahaouala M.-H., Hendaoui L., Charfi M.-R., Drissi C., Tlili-Graies K., Mechmeche R., Kilani T., Hydatidose thoracique, EMC. Radiodiagnostic-Coeur-poumon, 32-470-A-20, 2007
4. Bouchikh M, Ouadnouni Y, Smahi M, Msougar Y, Lakranbi M, Achir A et al. L'hydatidose thoracique extrapulmonaire multiple. *Rev Mal Respir* 2008; 25 : 11106-4.
5. Sebit S, Tunc H, Gorur R, Istimangil T , Yildizhan A, Us MH, et al .The Evaluation of 13 Patients with Intrathoracic Extrapulmonary Hydatidosis. *The Journal of International Medical Research* 2005; 33: 215 – 22.p
6. Gursoy S, Ucvet A, Tozum H, Emin Erbaycu A, Cemil K, Oktay B. Primary intrathoracic extrapulmonary hydatid cysts. *Tex heart inst J* 2009; 36: 230-3.
7. Zidane A, Arsalane A, Atoini F, Kabiri EH. Les kystes hydatiques thoraciques extrapulmonaires. *Rev pneumol clin* 2006 ; 52 : 386-9.
8. A Zidi, S Zannad-Hantous , I Mestiri , H Ghrairi , I Baccouche , H Djilani et K Ben Miled Mrad Kyste hydatique primitif du médiastin *J Radiol* 2006;87:1869-74.

9. Marani SA, Canossi GC, Nicoli FA, et al. Hydatid disease: MR imaging study. *Radiology* 1990; 175:701-6.
10. L. Sfaihia,, F. Kamouna, Y. Hentatib, O. Tissa, T. Kamouna, Z. Mnifb, M. Hachicha, Hydatidose disséminée traitée médicalement par l'Albendazole *Archives de Pédiatrie* 2013;20:685-687
11. Ben Mustapha A, Ben Hamadi F, Bouzaiani A, Ghyoula M, Hassine E, Ben Cheikh M, et al. Kyste hydatique thoracique extrapulmonaire. *Med Tropicale* 1992; 52:399-405.
12. Kabiri el H, al Aziz S, el Maslout A, Benosman A. Hydatid cyst: an unusual disease of the mediastinum. *Acta Chir Belg* 2001;10(6):283-6
13. Y. Ouadnounia, M. Bouchikha, A. Achira, M. Smahia, Y.Msougara, M. Lakranbia,b, A.S. Alaziza, A. Benosmana Hydatidose costale *Revue des Maladies Respiratoires* (2011) 28, 306 – 311
14. Aguilor X, Fernandez-Muixi J, Magarolas R, Sauri A, Vidal F, Richart C. An unusual presentation of secondary pleural hydatidosis. *Eur Respir J* 1998; 11: 243-5.
15. El Malki H. O, El Mejdoubi Y, Mohsine R, Ifrine L, Belkouchi A : Rupture intrapéritonéale du kyste hydatique du foie. *Gastroenterol Clin Biol* 2006 ; 30 : 1214-6
16. Gottstein B, Reichen J : Hydatid lung disease (echinococcosis/hydatidosis). *Clin Chest Med* 2002 ; 23 : 397-408.
17. Ülkü R, Eren N, Çakir O, Balci A, Onat S. Extrapulmonary intrathoracic hydatid cysts. *Canadian medical association* 2004; 47: 95-8.