



Clinical case

Découverte Fortuite d'un Kyste Bronchogénique Associé à une Séquestration Pulmonaire chez un Adulte : À Propos d'un Cas

Découverte Fortuite d'un Kyste Bronchogénique Associée à une Séquestration Pulmonaire chez un Adulte : À Propos d'un Cas

H Harmouchi^{1,*}, M. Lakranbi^{1,2}, L Belliraj¹, S Rabiou¹, FZ Ammor¹, I. Issoufou¹, Y Ouadnouni¹, M Smahi^{1,2}

RÉSUMÉ

1. Service de chirurgie thoracique Hassan II de Fès-Maroc
2. Faculté de médecine et de pharmacie, Université Sidi Mohammed Ben Abdellah, Fès-Maroc

3.
(*): **Auteur correspondant** : Harmouchi
Service de chirurgie thoracique
CHU Hassan II de Fès-Maroc
Email :

harmouchi.hicham@gmail.com

Tel :00212664153156

BP : 30000

Mots-clés. Malformation pulmonaire congénitale, kyste bronchogénique, séquestration pulmonaire, Maroc

Les malformations pulmonaires congénitales sont des affections rares et polymorphes résultant d'accident de développement du système bronchopulmonaire. Actuellement, la plupart de ces malformations sont de diagnostic précoce pendant la période anténatale ou au cours de la petite enfance, surtout avec le développement des moyens de dépistage anténatal. Parmi ces malformations congénitales, on trouve le kyste bronchogénique et la séquestration pulmonaire. L'association de ces deux affections est très rare, et témoigne d'une origine embryologique commune. Nous rapportons cette observation concernant un adulte de 22 ans qui présente une association de ces deux pathologies découverte fortuitement.

ABSTRACT

Congenital pulmonary malformations are rare polymorphous entities resulting from developmental accidents during the embryogenesis of the bronchopulmonary system. Because of the tremendous development of prenatal medicine, early diagnosis tends to be the rule, either during pregnancy or during childhood. Bronchogenic cyst and pulmonary sequestration are among the most common, but their association is infrequent and may lead to the hypothesis of a common origin. We report the case of one young adult who has an association of bronchogenic cyst and pulmonary sequestration which was discovered incidentally.

INTRODUCTION

Le kyste bronchogénique et la séquestration pulmonaire font partie des malformations congénitales bronchopulmonaires. Le kyste bronchogénique est considéré comme un bourgeon bronchique aberrant à partir du tube digestif primitif. Leur localisation est le plus souvent soit pulmonaire, ou médiastinale au niveau du médiastin moyen surtout au-dessous de la bifurcation trachéale, cependant d'autres localisations restent possibles (pleurale, diaphragmatique, rétropéritonéale ...) [1]. La séquestration est une malformation congénitale non héréditaire, survenant au cours de l'organogénèse pulmonaire, et elle est soit intralobaire ou extralobaire [2]. L'association des deux pathologies est extrêmement rare, et suggère une origine embryologique commune.

OBSERVATION

Il s'agit d'un patient de 22 ans, sans antécédent pathologique notables, notamment pas de tuberculose ni notion de contagement tuberculeux. Dans le cadre professionnel du patient, une radiographie thoracique de face et profil a été demandée objectivant une image rétrocardiaque arrondie homogène (**figure 1**). Le bilan a été complété par une TDM thoracique qui a mis en évidence un nodule rond et purement liquidien mesurant 28 mm, siégeant au niveau de la gouttière costo-vertébrale, avec absence de rehaussement par le produit de contraste. La TDM thoracique a révélé également, juste au-dessous du kyste, un aspect rétracté du parenchyme pulmonaire (**figure 2**).

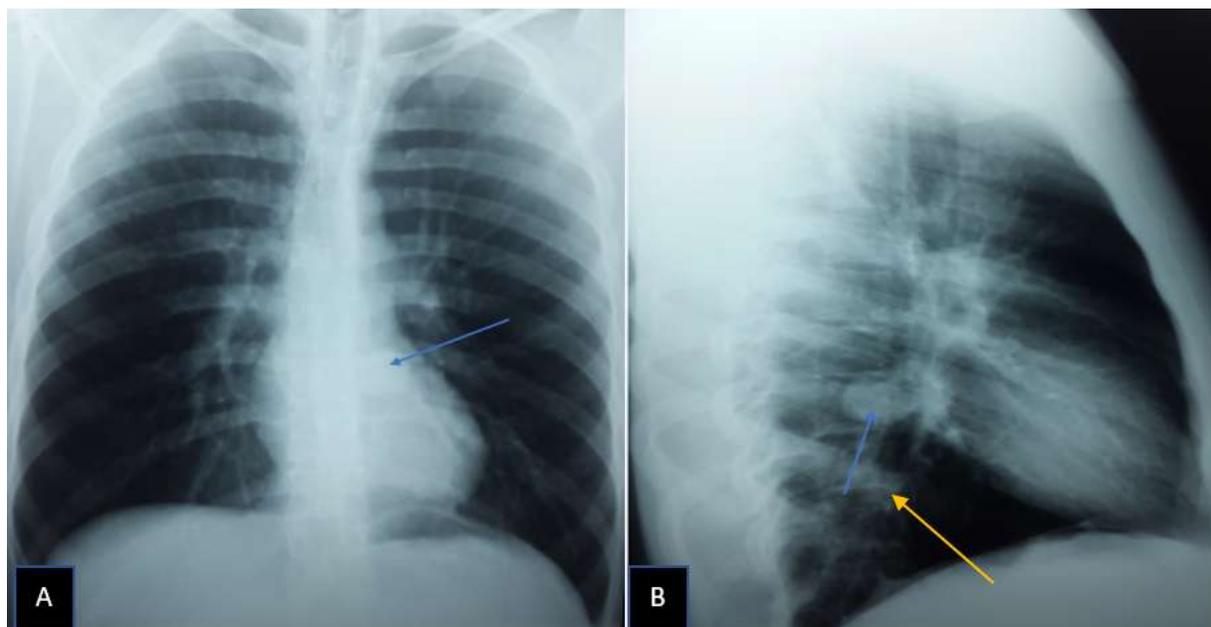


Figure 1 : Radiographie de face (A) qui montre une opacité retrocardiaque homogène arrondie bien limitée correspondant à un kyste bronchogénique médiastinal (flèche bleu). Sur la radiographie thoracique de profil (B) on note la présence de cette même opacité arrondie homogène dans le médiastin postérieur (flèche bleu), avec une opacité au-dessous correspondant à une séquestration (flèche jaune).



Figure 2 : TDM thoracique en fenêtre parenchymateuse (A) et médiastinale (B) montrant un kyste bronchogénique médiastinal (flèche verte) avec au-dessous une rétraction du parenchyme pulmonaire correspondante à une séquestration (flèche orange).

La décision d'opérer le patient a été retenue, et une thorcotomie postérolatérale gauche conservatrice du muscle grand dorsal a été réalisée. L'exploration chirurgicale a trouvé un kyste médiastinal à proximité de la bronche lobaire gauche, à contenu liquidien mucoïde et épais, évoquant en premier un kyste bronchogénique médiastinal. Le complément de l'exploration a objectivé également une séquestration postéro-basale gauche intralobaire, dont l'artère correspondante prenant origine de l'aorte thoracique a été disséquée et ligaturée. L'étude anatomopathologique du kyste était en faveur d'une formation kystique bordée par un épithélium

respiratoire régulier et généralement conservé, et reposant sur une paroi fibreuse composée de quelques vaisseaux congestifs et un discret infiltrat inflammatoire essentiellement lymphocytaire. L'histologie de la zone séquestrée reséquée parle d'un parenchyme pulmonaire fait de quelques bronches tapissées d'un épithélium respiratoire régulier, avec des zones du parenchyme œdémateuses et congestives. Les suites opératoires du patient étaient simples, et la durée du suivi à long terme était d'un an, sans aucune complication.

DISCUSSION

L'association d'un kyste bronchogénique médiastinal et d'une séquestration pulmonaire intralobaire est rarement décrite dans la littérature, et témoigne d'une origine embryologique commune par trouble d'organogénèse bronchopulmonaire. La découverte est le plus souvent précoce pendant la période anténatale ou au cours de la petite enfance, surtout avec le développement de l'échographie et l'imagerie par résonance magnétique fœtale [3]. Néanmoins, certains cas restent asymptomatiques et ne sont diagnostiqués qu'à l'âge adulte de façon fortuite, comme dans notre cas, ou à l'occasion d'une complication. Le kyste bronchogénique, qui appartient aux malformations entéro-bronchopulmonaires, présente environ 50 à 60 % de l'ensemble des kystes médiastinaux [4]. Il s'agit d'une pathologie congénitale bénigne, qui peut être asymptomatique dans près de 15 % des cas, et qui siège essentiellement le long de l'arbre trachéobronchique, le plus souvent en situation sous-carinaire [5, 6]. La symptomatologie clinique est différente selon le siège du kyste bronchogénique, de sa taille, et de la survenue d'éventuelles complications [7, 8]. Sur la radiographie de face, l'aspect du kyste bronchogénique est généralement une opacité ronde homogène dans le médiastin moyen ou postérieur près de la carène. Sur la TDM thoracique, il s'agit typiquement d'une masse ronde ou ovale, homogène, de densité variable selon le contenu, avec une paroi fine ne se réhaussant pas après injection du produit de contraste, avec parfois des calcifications pariétales ou intrakystiques. La TDM permet également d'étudier les rapports avec les organes de voisinage médiastinaux [9]. A l'étude anatomopathologique, il s'agit macroscopiquement d'une formation kystique, avec une paroi fibreuse et un contenu mucoïde. Microscopiquement, la paroi est de type bronchique, tapissée sur son versant interne d'un épithélium respiratoire cilié sécrétant du mucus à l'origine du contenu liquidien épais.

La séquestration pulmonaire, présentant 0,15% à 6,4% des malformations pulmonaires congénitales, est une affection définie comme un territoire pulmonaire caractérisée par une déconnexion de toute élément bronchique et vasculaire normale, et dont la vascularisation est assurée par une artère systémique aberrante [2, 10]. Il existe deux types de séquestration pulmonaire : intralobaire qui présente 75% des séquestrations pulmonaires, recouverte par la plèvre viscérale du parenchyme pulmonaire normal, et dont la vascularisation provient d'une artère systémique, et un retour veineux qui se draine dans le système veineux pulmonaire normal attestant leur situation intralobaire. Cependant le type extralobaire, représentant 25% des séquestrations, est développé dans sa propre plèvre viscérale en dehors du parenchyme pulmonaire normal, avec une vascularisation artérielle provenant d'une artère systémique, et un drainage veineux le plus souvent se jetant dans le système azygos. Il n'est pas possible de différencier l'aspect radiologique de ces deux types de séquestration qu'avec un scanner thoraco-abdominal avec injection de produit de contraste, et qui permet parfois de montrer un drainage veineux dans le système veineux pulmonaire normal, attestant du caractère intralobaire de la séquestration. Ramey et al, qui avait rapporté trois cas de kystes bronchogéniques associés à des séquestrations pulmonaires intralobaires, a remis en question que la forme intralobaire des séquestrations survient seulement en cas d'inflammation ou d'infection chronique, et suggère qu'ils

peuvent être des lésions congénitales [11]. Les principales complications du kyste bronchogénique sont la compression des organes médiastinaux, la surinfection, l'hémorragie intrakystique ou exceptionnellement la dégénérescence maligne. Cependant pour les séquestrations, les complications sont le plus souvent des infections récurrentes, parfois une hémoptysie fatale, ou rarement un hémothorax spontané massif [12]. La chirurgie reste la meilleure option thérapeutique pour le kyste bronchogénique et la séquestration pulmonaire, même s'ils sont asymptomatiques, du fait de leurs risque des complications qui sont parfois potentiellement graves, et l'absence de certitude diagnostique avant l'examen anatomopathologique [12, 13, 14].

CONCLUSION

Le kyste bronchogénique et la séquestration pulmonaire font partie des affections pulmonaires congénitales. Leurs découvertes se fait généralement à un stade précoce. Notre cas était particulier puisqu'il associe ces deux pathologies, qui ont été découvertes fortuitement chez un adulte.

Conflit d'intérêt : Les auteurs déclarent n'avoir aucun conflit d'intérêt avec ce manuscrit.

RÉFÉRENCES

- [1] A. Hadchouel, C. Delacourt. Physiopathologie, diagnostic et prise en charge des malformations pulmonaires de l'enfant. La Lettre du Pneumologue. Vol. XV - n°5 - septembre-octobre 2012, 126-131.
- [2] E.-H. Kabiri, F. Atoini, A. Zidane, M. Jidal, A. Arsalane, M. Rguibi, K. Alaoui-Tahiri, H. Taobane. Séquestration du segment postérobasal du lobe pulmonaire inférieur droit. Annales de chirurgie 131 (2006) 547-549.
- [3] A. Hadchouel-Duvergé, G. Lezmi, J. de Blic, C. Delacourt. Malformations pulmonaires congénitales : histoire naturelle et hypothèses pathogéniques. Revue des Maladies Respiratoires (2012) 29, 601-611.
- [4] A. El Madi, M.A. Oukhouya, Y. Nhamoucha, K. Khattala, M. Rami, Y. Bouabdallah. Kyste bronchogénique du médiastin traité par thoracoscopie. À propos d'un cas. Chirurgie Thoracique et Cardio-Vasculaire 2014 ; 18(4) : 240-241.
- [5] F. Le Pimpec-Barthes, A. Cazes, P. Bagan, A. Badia, C. Vlas, A. Hernigou, C. Pricopi, M. Riquet. Les kystes du médiastin : approche diagnostique et traitement Mediastinal cysts: Clinical approach and treatment. Revue de Pneumologie clinique (2010) 66, 52-62.
- [6] Houser WC, Dorff GJ, Rosenzweig DY, Aussem JW. Mycobacterial infection of a congenital bronchogenic cyst. Thorax 1980 ;35 :312-3.
- [7] Lemarié E, Diot P, Magro P, de Muret A. Tumeurs médiastinales d'origine embryonnaire. EMC-Pneumologie 2005 ;2 :105-25.
- [8] Le Floch H, Niang A, Rivière F, Bonnichon-Py A, Mairovitz A, Staub E, et al. Une péricardite atypique. Rev Mal Respir 2007 ;24(9) :1147-50.
- [9] H Ropion-Michaux, JB Noel, M Besnard, M Prevot, PJ Sauvage. Séquestration extra-lobaire associée à un kyste bronchogénique : à propos d'une observation. Journal de radiologie Vol 91, N° 11-C1 - novembre 2010. pp. 1164-1167.
- [10] Lloyd Petty DO MPH, Arthur Joseph DO MPH, Jose Sanchez MD. Case report : Pulmonary sequestration in an adult. Radiology Case Reports 2017 ; 21-23.
- [11] Ramey L, Wilsona, Christopher J, Lettierib, Thomas M, Fitzpatrickb, Andrew F, Shorrb. Intralobular bronchopulmonary sequestrations associated with bronchogenic cysts. Respiratory Medicine (2005) 99, 508-510.
- [12] Li-Kuo Huang, MD, Ming-Ji Tsai, MD, Heng-Sheng Chao, MD, Chun-Ku Chen, MD, Shi-Chuan Chang, MD, PhD. Role of Doppler Sonography in the Diagnosis of Pulmonary Sequestration in an Elderly Patient : A Case Report. Journal Of Clinical Ultrasound. 2010 ; 296-300.
- [13] Lemarié E, Diot P, Magro P, de Muret A. Tumeurs médiastinales d'origine embryonnaire. In : EMC-Pneumologie 2. Paris:Elsevier Masson, 2005:105-25.
- [14] Le Floch H, Niang A, Rivière F et al. Une péricardite atypique. Rev Mal Respir 2007 ;24(9) :1147-50.