



Cas Clinique

Carcinome Cuniculatum : à Propos de deux Cas et Revue de la Littérature

Carcinome cuniculatum: a Report of two cases and literature review

TRAORE Terna¹, TOURE Layes¹, COULIBALY Kalifa², DIALLO Souleymane², DIALLO Aboubacar², HANS-MOEVI Aristote³.

¹Service d'orthopédie et Traumatologie, Etablissement Hospitalier Publique Sikasso (Mali)

²Service d'orthopédie traumatologie CHU de Kati Bamako (Mali)

³Service d'Orthopédie-Traumatologie CNHU-HKM de Cotonou (Benin)

Correspondance :

Dr Terna Traore. Service d'orthopédie et Traumatologie, Etablissement Hospitalier Publique Sikasso : terna.traore@yahoo.fr
Tel : (223)79491342 / 66066943.

Mots clés : Ostéomyélite chronique, jambe, carcinome épidermoïde, transformation maligne, amputation.

Key words: Chronic osteomyelitis, leg, squamous cell carcinoma, malignant transformation, amputation.

RÉSUMÉ

La dégénérescence maligne de l'ostéomyélite chronique est une complication rare, grave et tardive. Son histopathogénie demeure inconnue, les infections chroniques associées aux facteurs inflammatoires locaux sont incriminées dans plus de 25% des processus néoplasiques. La triade clinique de dégénérescence maligne associant la douleur d'aggravation progressive, l'écoulement purulent et l'hémorragie doit suspecter cette pathologie. Le diagnostic est principalement anatomopathologique. La prise en charge rapide et radicale est la solution pour améliorer le pronostic qui reste le plus souvent réservé à cause de la fréquence des récidives.

ABSTRACT

Malignant degeneration of chronic osteomyelitis is a rare, serious and late complication. Its histopathogenesis remains unknown, chronic infections associated with local inflammatory factors are implicated in more than 25% of neoplastic processes. The clinical triad of malignant degeneration associating the pain of progressive aggravation, the suppurating discharge and the haemorrhage must suspect this pathology. The diagnosis is mainly anatomopathological. Rapid and radical management is the solution to improve the prognosis, which is most often reserved due to the frequency of recurrences.

INTRODUCTION

Le carcinome cuniculatum est une dégénérescence maligne de l'ostéomyélite chronique d'origine hémotogène siégeant sur le membre pelvien avec un pronostic réservé [1]. Il s'agit d'une entité de carcinomes verruqueux et d'une variante des carcinomes épidermoïdes cutanés à faible potentiel métastatique [2]. La difficulté diagnostique et la durée du traitement antérieur surtout le traitement traditionnel rendent difficile la prise en charge. Nous rapportons deux cas de carcinome cuniculatum.

OBSERVATION 1

Il s'agit de Monsieur SA âgé de 60 ans, admis au service des urgences en Mars 2017 pour plaie ulcéro-bourgeonnante à la face postérieure de la cheville gauche, hémorragique avec une douleur permanente depuis 2 ans. Il a été opéré à 10 ans et 16 ans pour ostéomyélite chronique. Avec la rechute à l'âge de 21 ans, il entreprit un traitement traditionnel et une automédication non spécifiée.

L'examen clinique a retrouvé une plaie ulcéro-bourgeonnante à fond nécrotique, à berges irrégulières et un écoulement purulent très nauséabond. On notait une

infiltration des parties molles du pied et du 1/3 inférieur de la jambe. Elle était hémorragique au contact, les poulx distaux étaient difficiles à apprécier à cause de l'œdème (Fig. 1).



Fig. 1 : plaie ulcéro-bourgeonnante de la cheville gauche

Résultats des examens biologiques : groupe A et rhésus positif, le taux d'Hb = 10,7 g/l, VS accélérée, CRP = 48 mg/l.

L'examen cyto bactériologique du pus a mis en évidence un champ polymicrobien à type de Streptocoque - Listeria sensible à l'imipénème.

La radiographie standard a objectivé une lyse osseuse postéro-latérale au 1/3 inférieur du tibia associée à une algodystrophie du pied et une ostéoporose (Fig. 2).



Fig. 2 : Radiographie standard avec lyse osseuse et algodystrophie

L'histologie a révélé un carcinome épidermoïde verruqueux (Cuniculatum).

Le bilan d'extension étant normal, l'amputation a été réalisée au 1/3 supérieur de la jambe et la cicatrisation obtenue en 15 jours (Fig.3 et 4). Le patient est décédé en mai 2019 dans un contexte d'accident vasculaire cérébral hémorragique sans récurrence ni métastase de son carcinome.



Fig. 3 : Moignon cicatrisé



Fig. 4 : Radio standard du moignon

OBSERVATION 2

Madame NS, âgée de 25 ans, a été admise au service des urgences en octobre 2018 pour plaie chronique de la jambe gauche avec l'altération de l'état général. Elle a été opérée à l'âge de 10 ans pour ostéomyélite chronique de la même jambe. Devant la rechute, le traitement traditionnel a été adopté.

L'examen clinique a retrouvé une patiente cachexique avec une plaie fétide, bourgeonnante quasi circonférentielle de toute la jambe gauche. On notait une perte de substance osseuse de 13 cm au dépend du tibia, laissant sourdre du pus, et douloureuse à la palpation, un fessum de 45° au genou, une raideur de la cheville, une adénopathie inguinale douloureuse d'environ 4x3 cm, mobile par rapport aux plans profonds (fig.1).



Fig. 1 : Plaie circonférentielle bourgeonnante jambe gauche

Aux examens biologiques, l'on notait un groupe A, Rhésus positif, un taux d'Hb à 4,9 g/l et une valeur de CRP à 24 mg/l.

L'examen bactériologique a retrouvé un *Pseudomonas aeruginosa* sensible à la ciprofloxacine, la gentamycine, l'ofloxacine et l'imipénème.

La radiographie standard a objectivé une perte de substance tibiale, une lyse postéro-latérale fibulaire à son 1/3 inférieur et une ostéoporose diffuse (fig.2).

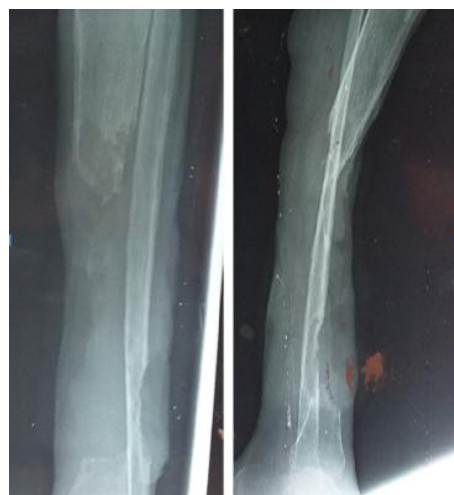


Fig. 2 : Perte de substance tibiale, lyse fibulaire et remaniement des parties molles

La tomographie thoraco-abdominale ne révélant pas de lésion secondaire et après la correction de la volémie, l'amputation a été réalisée au 1/3 inférieur du fémur et la pièce envoyée pour examen anatomopathologique concluant à un carcinome épidermoïde bien différencié (Cuniculatum) et absence de métastase ganglionnaire. La cicatrisation de plaie a été obtenue en 17 jours. Elle a été revue en avril 2019, l'examen du moignon, l'échographie abdominale et la radiographie du thorax de contrôle étaient normales.

DISCUSSION

Dans la littérature, l'incidence des lésions cutanées chez les patients atteints d'ostéomyélite chronique varie entre 0,2% et 1,7% [3]. Il faut souligner que ces chiffres augmentent dans les pays en développement grâce au diagnostic tardif, aux traitements traditionnels et l'avènement des produits cosmétiques dépigmentant [4, 15]. Nos patients ont fait en moyenne 15 ans de traitement traditionnel.

Les traumatismes constituent la cause la plus fréquente d'ostéomyélite [3] : le taux d'infection varie entre 4% et 64% dans les fractures ouvertes des os longs avec une nette prédominance masculine [1, 5].

Toutefois, quelques cas d'ostéomyélite hémotogène aiguë comme confirme nos deux patients peuvent évoluer vers cette entité clinique. Cette chronicité semble être le principal facteur incriminé dans la dégénérescence maligne avec une période de latence variant entre 10 et 70 ans [6]. Il est de 40 ans et 15 ans dans notre cas.

Ces lésions siègent le plus souvent à la jambe et la cuisse et prend naissance à partir de l'épiderme au niveau des berges [7, 8]. Dans nos deux cas elle siégeait à la jambe.

Les signes cliniques alarmants suggérant une transformation maligne comprennent l'apparition d'une suppuration excessive, d'un saignement, l'accentuation de la douleur après plusieurs années d'évolution insidieuse ou l'émergence d'une masse excroissante en regard de la plaie. Aussi, l'odeur fétide émanant de l'ulcération témoigne d'une transformation de flore bactérienne locale, imposant ainsi la réalisation de prélèvements itératifs [9].

Les germes dépistés forment une flore bactérienne polymorphe avec prédominance des cocci Gram positif mais également on peut retrouver des bacilles Gram négatif ou des germes anaérobies [6]. Dans nos deux cas ; un était fait d'un champ polymicrobien à type de Streptocoque – *Listeria* et l'autre de *Pseudomonas aeruginosa*.

Toute fracture pathologique ou image ostéolytique rapidement progressive sur une radiographie standard doivent alerter cette transformation maligne et corroborait nos deux cas.

Le diagnostic est confirmé par étude anatomopathologique et le type histologique le plus fréquemment rencontré est le carcinome épidermoïde [7] faisant diagnostic différentiel avec les ostéosarcomes et les rhabdomyosarcomes [10, 14],

L'imagerie par résonance magnétique et tomographie utile dans la différenciation et la détection de métastases à distance [11] n'ont pas été réalisées chez nos patients.

L'amputation, pratiquée chez nos patients, reste le traitement de choix pour éviter la récurrence locale et les localisations secondaires comme suggèrent plusieurs auteurs [7, 11].

Ce choix implique des problèmes à la fois physiques et psychologiques tels que l'image du corps, l'inconfort social et la dépression [12].

La récurrence dépend essentiellement du délai de la prise en charge ainsi que de la qualité du traitement initial ; toutefois son taux n'est pas négligeable. Dans la série de la Mayo clinic [3] la récurrence locale a été évaluée à 15% des cas. Le taux de métastases post dégénérescence sarcomateuse peut atteindre jusqu'à 60% des cas [13] ; il s'agit le plus souvent de localisations secondaires hépatiques ou pulmonaires. Une surveillance clinique et radiologique régulière et rapprochée pendant les 3 ans après la chirurgie carcinologique est obligatoire [1].

CONCLUSION

La dégénérescence carcinomateuse d'une ostéomyélite chronique d'origine hémotogène est une complication exceptionnelle mais doit être suspectée en présence de toute modification de signes locaux. Le diagnostic est histologique. Le traitement chirurgical radical et précoce demeure la seule clef pour éviter la récurrence locale et les localisations secondaires métastatiques. Cette complication désastreuse rend compte de l'importance de la surveillance adéquate des ostéomyélites chroniques.

CONFLIT D'INTÉRÊT

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêt en rapport avec la rédaction de cet article.

REFERENCES

- 1- Moura DL, Ferreira R, Garruço A. Malignant transformation in chronic osteomyelitis. *Rev Bras Ortop.* 2017 Mar 8 ; 52 (2) : 141- 147.
- 2- McKee PH, Wilkinson JD, Black MM, Whimster IW. Carcinoma (epithelioma) cuniculatum : a clinicopathological study of nine teen cases and review of the literature. *Histopathology.*1981 ;5 :425-36.
- 3- McGrory JE, Pritchard DJ, Unni KK, Ilstrup D, Rowland CM. Malignant lesions arising in chronic osteomyelitis. *Clin Orthop Relat Res.*1999 ;362 :181-9.
- 4-Kerr-Valentic MA, Samimi K, Rohlen BH, Agarwal JP, Rockwell WB. Marjolin's ulcer : modern analysis of an ancient problem. *Plast Reconstr Surg.* 2009 ;123(1) :184-91.
- 5- Lazzarini L, Mader JT, Calhoun JH. Osteomyelitis in long bones. *J Bone Joint Surg Am.* 2004 ; 86 (10) : 2305 - 18.
- 6- Sankaran-Kutty M, Corea Jr, Ali M, Kutty M. Squamous cell carcinoma in chronic osteomyelitis. Report of a case and review of the literature. *Clin Orthop,* 1985, 198, 264-267.
- 7- Li Q, Cui H, Dong J, et al. Squamous cell carcinoma resulting from chronic osteomyelitis : a retrospective study of 8 cases. *Int J Clin Exp Pathol.* 2015 ; 8 (9) :10178-84.
- 8- Sedlin E, Fleming J. Epidermoid carcinoma arising in chronic osteomyelitis foci. *J Bone Joint Surg (Am).* 1963 ; 45 : 827-838.

- 9- Dereure O, Guillot B, Bonnel F, Barneon G, Montpoint S, Guilhou Jj. Dégénérescence carcinomateuse des fistules d'ostéomyélite chronique : Quatre observations. *Ann Dermatol Venerol*. 1993 ; 120 : 675-678.
- 10- Lidgren L. Neoplasia in chronic fistulating osteitis. *Acta Orthop Scand*. 1973 ; 44 : 152-156.
- 11- Theodorou SJ, Theodorou DJ, Bona SJ, Farooki S. Primary squamous cell carcinoma: an incidental toe mass. *AJR Am J Roentgenol*. 2005 ;184 (3 Suppl) : S110-1.
- 12- Mckechnie PS, John A. Anxiety and depression following traumatic limb amputation : a systematic review. *Injury*. 2014 ; 45 (12) :1859-66.
- 13- Fitzgerald RH, Jr, Brewer NS, Dahlin DC. Squamouscell carcinoma complicating chronic osteomyelitis. *J Bone Joint Surg (Am)*. 1976 ; 58 : 1146-1148.
- 14- JM. Mendimi Nkodo, S. Takongmo, D. Akaba, C. Monabang Zoé, A. Fewou, AC. Kabeyene Okono, JL. Essame Oyono. Giant Osteosarcoma of Femur: a Well Documented Case with Management Difficulties in Yaounde (Cameroun). *Health Sci. Dis*. 2013 ; 14 (2) : 1-3.
- 15- Diop K, Ly F, Diop A, Deme A, Diatta BA, Diop MTN, Seck B, Diousse P, Diallo M, Wade NF, Kane A. Carcinomes Épidermoïdes et Dépigmentation Cosmétique Volontaire : Encore de Nouveaux Cas au Sénégal, Plaidoyer pour une Prévention Efficiente ! *Health Sci. Dis*. 2019 ; 20 (6) Suppl 1 : 6.