

Allogreffe massive dans une échinococcose pelvienne infectée. A propos d'un cas

Massive allograft in infected pelvic echinococcosis. A case report

Traoré A.¹, Galant C.², Tribak K.¹, JC Yombi J.C.³, Rasmont Q.¹, Cornu O¹.

1- Service de Chirurgie Orthopédique et Traumatologie. Cliniques Universitaires Saint-Luc UCL, Bruxelles - Belgique

2- Service d'Anatomo-pathologie. Cliniques Universitaires Saint-Luc UCL, Bruxelles - Belgique

3- Service de Médecine Interne, maladies infectieuses et tropicales. Cliniques Universitaires Saint-Luc UCL, Bruxelles - Belgique

CORRESPONDANCE: **Dr Alidou TRAORÉ**

Service de Chirurgie Orthopédique et Traumatologie (niveau -2/P5) Cliniques Universitaires Saint-Luc UCL ,
10, avenue Hippocrate, B-1200 - Bruxelles, Belgique.

E-mail: tralidou@yahoo.fr / olivier.cornu@uclouvain.be

RÉSUMÉ

L'échinococcose est une pathologie rare qui se localise de façon élective au niveau du foie et du poumon. L'atteinte osseuse est rare et pose un triple problème, diagnostique, thérapeutique et pronostique. Le diagnostic est le plus souvent tardif du fait de l'absence de spécificité clinique et radiologique. Le traitement reste controversé mais est toujours médicochirurgical. Le traitement médical encadre le traitement chirurgical qui doit être carcinologique. Nous rapportons un cas de coxarthrose de hanche associée à une hydatidose pelvienne compliquée d'un sepsis après l'arthroplastie de hanche. Le traitement a consisté à une chirurgie en deux temps avec ablation de la prothèse, une hémipelvectomy et une reconstruction secondaire par allogreffe massive. Le patient garde une bonne mobilité de sa hanche à 36 mois post opératoire.

ABSTRACT

Echinococcosis is a disease tends to develop in the liver and lung. Osseous hydatidosis is rare infection posing diagnosis, treatment and prognosis challenge. The diagnosis is often delayed due to lack specific clinical and radiological. The treatment remains controversial but still medical and surgical. Medical treatment frames the surgery to be lesion.

We report a case of osteoarthritis of the hip associated with a pelvic bone hydatidosis complicated by sepsis after hip arthroplasty. The treatment consisted of a two-stage surgery with removal of the prosthesis, a hemipelvectomy and reconstruction by massive pelvic allograft secondary. The patient keeps a good mobility of the hip at 36 months postoperatively.

I. INTRODUCTION

L'hydatidose est une affection parasitaire causée par l'échinococcus granulosus. C'est une affection qui sévit de façon endémique dans certains pays du pourtour méditerranéen, en Australie, en Amérique du nord, en Nouvelle Zélande et en Amérique du sud [1-3]. Elle survient chez l'homme de façon accidentelle à l'occasion d'une impasse parasitaire et se localise préférentiellement au foie et au poumon [1-4]. Sa localisation osseuse est rare, principalement rachidienne et ne représente que 0,9 à 2,5% des localisations [1-2]. Elle est caractérisée par sa latence clinique remarquable, la discrétion des symptômes non spécifiques, une imagerie rarement caractéristique posant ainsi un triple problème diagnostique, thérapeutique et pronostique [5]. Le traitement de l'échinococcose pelvienne comme toutes les localisations osseuses, est médico-chirurgical. Le traitement chirurgical reste difficile malgré les progrès de la chirurgie reconstructrice. Ce traitement consiste en un curetage unique ou multiple associé à un traitement adjuvant en plus de l'anti helminthique [6-9] ou à une résection et à une arthrodeuse fémoro-pubienne et sacrée [3]. Nous rapportons un cas d'échinococcose osseuse de localisation pelvienne, infectée après une arthroplastie de hanche et traitée par une hémipelvectomy et d'une reconstruction en deux temps par allogreffe massive.

II. OBSERVATION

Patient âgé de 70 ans d'origine turque, admis en urgence en 2003 dans une autre institution pour des douleurs de plus en plus invalidantes sur une coxarthrose gauche connue et suivie depuis un an. Le bilan radiologique confirme la coxarthrose et met en évidence une ostéolyse de l'aile iliaque gauche. Le bilan de cette lésion ostéolytique n'a pas établi de diagnostic formel avec cependant une suspicion de lésion tuberculeuse ou d'une échinococcose osseuse pelvienne (Figures 1A et 1B).

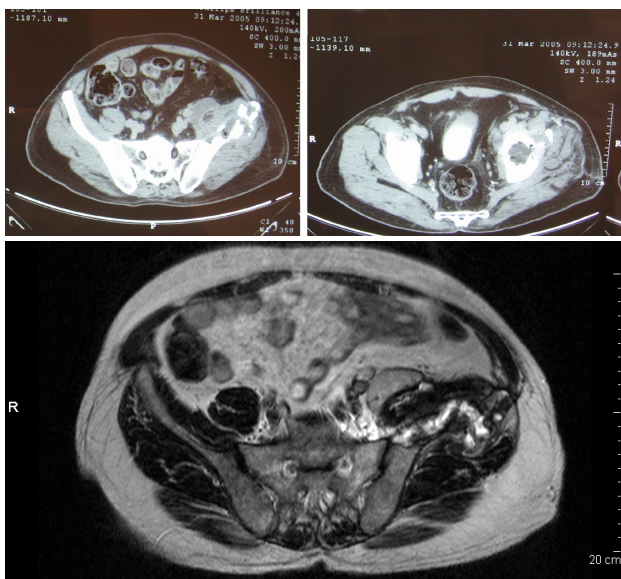


Figure 1: Ostéolyse extensive de l'aile iliaque avec extension extraosseuse au niveau du muscle iliaque et au petit fessier avec plusieurs collections à parois vascularisées, péri-articulaires (1A au scanner, 1B à l'IRM)

La CRP était légèrement augmentée à 3mg/dl, la sérologie hydatidique par la technique Elisa était douteuse et

négative par la technique IHA (inhibition de l'hémagglutination). L'échographie abdominale et la radiographie pulmonaire étaient normales et aucun argument clinique et biologique n'était en faveur de la tuberculose. La ponction-biopsie osseuse et l'examen histologique mettaient en évidence plusieurs fragments osseux dévitalisés et une absence d'exsudat inflammatoire et de matériel d'origine parasitaire. Il a été décidé d'une arthroplastie totale de la hanche associée à une biopsie chirurgicale de la lésion et des tissus environnants (Figure 2).



Figure 2: Radiographie post opératoire de l'arthroplastie de hanche avec l'ostéolyse du bassin.

L'examen histologique de ces biopsies multiples a confirmé le diagnostic de l'échinococcose par la mise en évidence d'un tissu fibromusculaire squelettique remanié par des kystes de taille variable. Ces kystes avaient un contenu le plus souvent largement nécrotique au sein duquel on reconnaît des segments plus ou moins longs de membrane hyaline parasitaire. Ces membranes étaient largement fragmentées et parfois calcifiées. Ces kystes étaient bordés d'une réaction inflammatoire granulomateuse de résorption constituée de macrophages à disposition palissadique et de nombreuses cellules géantes de résorption. On notait également, dans la paroi fibro-inflammatoire des kystes, des accumulations focales de macrophages spumeux et une réaction inflammatoire folliculaire lymphoïde parfois intense (Figure 3).

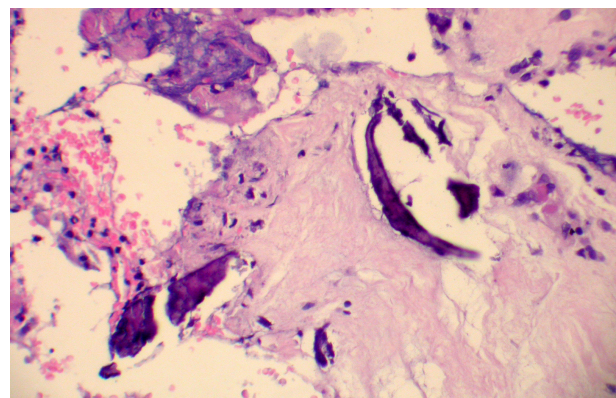


Figure 3: Résultat histopathologique composé avec un tissu fibromusculaire squelettique remanié par des kystes de taille variable. Ces kystes avaient un contenu le plus souvent largement nécrotique au sein duquel on reconnaît des segments plus ou moins longs de membrane hyaline.

Un traitement anti parasitaire à base d'albendazole a été instauré. Le patient a continué à éprouver des douleurs

importantes et a développé un sepsis à staphylocoque doré. Face à la persistance des phénomènes douloureux et du sepsis, le patient a été adressé dans notre institution. Une nouvelle mise au point est effectuée. A l'IRM, l'on notait plusieurs collections à parois vascularisées, péri-articulaires, associées à une large destruction de l'os iliaque, avec une extension extra-osseuse au niveau du muscle iliaque, petit fessier, et probablement à la partie antéro-supérieure du muscle moyen fessier gauche compatible avec des kystes hydatiques. L'arthro-scanner de la hanche gauche mettait en évidence un descellement de la pièce cotyloïdienne de prothèse de hanche gauche, une communication entre la cavité articulaire et une collection para-articulaire pertrochantérienne sous cutanée ainsi qu'avec la volumineuse lésion kystique occupant l'aile iliaque gauche. L'examen bactériologique du liquide de ponction a mis en évidence un staphylocoque aureus oxacilline sensible. Il a été décidé après discussion, d'une hémipelvectomie gauche, d'une ablation de la prothèse et de la mise en place d'un spacer en ciment (Figure 4). La pièce de la résection de l'aile iliaque a été adressée en anatomo-pathologie pour examen histologique qui a confirmé l'échinococcose.



Figure 4: Radiographie de face du bassin avec l'espaceur en ciment, remplaçant l'hémi bassin et comblant l'espace médullaire de la hanche gauche. L'espaceur n'est volontairement pas articulé en raison du risque excessif de luxation secondaire.

Une médication associant une bi-antibiothérapie et de l'antiparasitaire, eskazole (albendazole) a été instauré. Une reprise chirurgicale a été faite 6 semaines plus tard avec une reconstruction du bassin par allogreffe massive et également, une reprise de la prothèse de la hanche. La reconstruction de la hanche a été faite par une prothèse avec cotyle à double mobilité, cimenté, s'appuyant sur la greffe pelvienne par l'intermédiaire d'un anneau de Kerboul. La greffe est solidarifiée au bassin par des plaques de reconstruction (figure 5).

L'évolution postopératoire a été marquée par un réveil infectieux à staphylocoque blanc méticilline résistant et à pseudomonas. Il a été décidé d'une deuxième reprise en deux temps. Une ablation de la prothèse associée à une résection de l'allogreffe pelvienne a été réalisée le 07/12/2007 suivi d'une bi-antibiothérapie. Le patient a été repris 6 semaines plus tard, après normalisation des paramètres biologiques, le 11/01/2008 avec une reconstruction de l'hémi-bassin et une reprise de l'arthroplastie.

L'évolution a été simple, marquée par une luxation, réduite orthopédiquement. Au dernier contrôle, à 36 mois de la dernière reprise, la CRP est normale, les sérologies bactériennes sont négatives. Les radiographies ainsi que la fonction de la hanche sont jugées acceptables (figure 6).



Figure 5: Radiographie post opératoire de face du bassin de la première reconstruction par allogreffe massive et de l'arthroplastie de la hanche



Figure 6: Radiographie à 36 mois post opératoire avec incorporation de l'allogreffe massive pelvienne et reconstruction prothétique de hanche gauche.

III. DISCUSSION

L'échinococcose osseuse est rare, 0,5 à 2,9% des hydatidoses humaines. Tous les os peuvent être intéressés mais il existe une prédominance des atteintes vertébrales, de l'os iliaque et du fémur [1-2, 8]. L'atteinte vertébrale siège plus volontiers à l'étage dorsal. L'atteinte cervicale est plus rare mais de pronostic plus réservé [1-2, 8]. L'atteinte pelvienne concerne l'os iliaque dans la plupart des cas. Cette localisation pelvienne est le plus souvent de mauvais pronostic fonctionnel du fait de la possible extension à l'articulation coxo-fémorale et plus rarement au sacrum. Des abcès peuvent se propager dans la région sacro-coccygienne ou au niveau de la cuisse et être responsables de compression de nerfs réalisant des tableaux de névralgie crurale, de sciatique ou de troubles sphinctériens. L'échinococcose pelvienne, comme toutes les échinococcoses osseuses, est caractérisée par sa latence clinique remarquable et la discrétion des symptômes non

spécifiques. Les signes cliniques orientent rarement vers l'affection causale. Il peut s'agir de douleur, d'une tuméfaction, de fractures ou de signes de compression dans les localisations rachidiennes [1-4, 7-10]. Cette latence clinique explique le diagnostic tardif avec des lésions très extensives [9].

L'examen radiologique est l'élément essentiel dans l'exploration de l'échinococcose osseuse. Il peut être révélateur lorsque la lésion est encore asymptomatique mais les images radiographiques peuvent s'assimiler à plusieurs processus pathologiques osseux notamment la tuberculose, le chondrosarcome, l'histiocytome fibreux malin, le myélome, les tumeurs à cellules géantes, la dysplasie fibreuse, l'enchondrome, le kyste osseux anévrysmal, ou les métastases osseuses [5, 11].

L'aspect le plus caractéristique de l'origine hydatique d'une lésion osseuse sans être pathognomonique est l'aspect lacunaire multigéodique, aréolaire en nid d'abeille, infiltrant la pièce osseuse sans réaction périostée. La condensation perilésionnelle ne se voit qu'en cas de surinfection. Il n'y a pas de limite nette entre la lésion et la région saine [5, 11]. Certains examens paracliniques peuvent être contributifs particulièrement dans le bilan lésionnel. L'échographie permet d'explorer les parties molles à la recherche des abcès extra-osseux ou de d'autres localisations viscérales [8]. La tomodensitométrie (TDM) permet de dresser un bilan lésionnel complet mais elle est supplantée par l'IRM qui permet non seulement de faire un meilleur bilan régional de la lésion, mais constitue surtout le meilleur examen de la surveillance post thérapeutique [8, 10-11].

Au plan biologique, la VS est fréquemment augmentée avec souvent une hyperéosinophilie. Cette hyperéosinophilie n'est présente que dans 25% des cas. L'immunologie qu'elle soit à visé cellulaire ou humorale est d'un grand appoint mais fait souvent défaut comme chez notre patient. Ces tests immunologiques sont utiles dans la surveillance postopératoire [8, 11-12].

L'échinococcose osseuse, avec sa clinique insidieuse, ses images radiologiques, souvent non spécifiques et sa biologie quelque fois non contributive, reste de diagnostic difficile et seul l'examen histologique de la biopsie percutanée ou de la pièce d'exérèse permet de confirmer le diagnostic. Cependant cet examen anatomo-pathologique peut être d'interprétation difficile lorsqu'il s'agit liquide clair retenu dans une ponction stérile [8, 13].

Le traitement de l'échinococcose osseuse reste difficile malgré les progrès de la chirurgie et doit être adapté à chaque localisation. Son traitement est médico-chirurgical. Le traitement médical encadre le traitement chirurgical avec pour buts, la réduction de la taille des kystes, la stérilisation de leur contenu avant et après la chirurgie pour traiter les petits kystes passés inaperçus [11, 14-15]. Le traitement médical est également destiné aux formes inopérables ou de mauvais pronostic.

Ce traitement médical reste sujet à controverses quant à son efficacité, sa posologie et sa durée. Il a consisté, jusqu'au début des années 1980, en un dérivé de benzimidazole, le mebendazole qui a connu un succès va-

riable en raison de sa mauvaise absorption et sa faible concentration dans le sérum et les kystes. L'introduction d'un autre vermifuge, l'albendazole, caractérisée par une meilleure absorption et des niveaux plus élevés de son principe actif, le sulfoxyde d'albendazole, dans les kystes et le sang. L'Albendazole, du fait de son effet tératogène, démontré chez certains animaux, doit être évité durant la grossesse et sa prise limitée à de courtes périodes [14]. La complication majeure du traitement demeure les récurrences fréquentes, 30 à 45%, raison pour laquelle l'échinococcose osseuse est considérée par beaucoup d'auteurs comme une tumeur maligne locale d'où son nom de « cancer blanc » [7]. La chirurgie constitue le principal traitement. Il consiste à une exérèse carcinologique. Cependant, cette chirurgie carcinologique n'est pas toujours aisée dans certaines localisations, comme le fémur ou le bassin. Cet exérèse large entraînant une mutilation importante, certains auteurs ont proposé des curetages locaux successifs, curetages associés au vermifuge et à un traitement adjuvant avec l'alcool absolu, le formol 10%, du nitrate d'argent 0,5%, la pavidone iodée 10%, ou une solution saline hypertonique 20%. Ce traitement adjuvant est souvent palliatif et ne détruirait pas microscopiquement tous les kystes [6-7, 15]. L'hémipectomie est licite dans une hydatidose pelvienne mais la difficulté demeure la reconstruction [3]. L'arthrodèse fémoro-pubienne et sacrée ou l'utilisation de mégaprothèses restent des options de reconstruction. L'arthrodèse est marquée par un taux élevé de pseudarthrose et des résultats fonctionnels insuffisants [7, 10].

L'allogreffe massive reste une alternative intéressante à condition de disposer d'une banque de tissus. Elle permet non seulement de combler la perte de substance osseuse, mais aussi de donner une stabilité mécanique immédiate [16].

L'utilisation des allogreffes de bassin dans les tumeurs malignes du bassin est connue [17]. Nous n'avons pas trouvé de cas d'allogreffe de bassin dans les techniques de reconstruction de l'hydatidose pelvienne dans la littérature. Le choix d'une double mobilité a été retenu pour réduire le risque de luxation après l'important sacrifice musculaire consenti dans la résection de la tumeur pelvienne. Les complications comme dans toutes les reconstructions par allogreffes, sont la résorption osseuse, la fracture de stress ou la pseudarthrose [18]. A 36 mois postopératoire, nous n'avons noté de signe radiologique en faveur d'une pseudarthrose ou d'une résorption de l'allogreffe.

La résection et la reconstruction en deux temps chez le patient, obéit au principe de prise en charge d'infection chronique d'arthroplastie [19-20]. Le risque majeur, reste le réveil infectieux comme ce fut le cas chez notre patient. Après 36 mois de sa dernière reprise, la CRP est normale, les sérologies parasitaires sont négatives et le pronostic fonctionnel est jugé satisfaisant. Malgré les techniques de reconstruction, le fonctionnel est souvent compromis.

IV. CONCLUSION

Hydatidose osseuse pose un triple problème, diagnos-



tique, thérapeutique et pronostique. La TDM et l'IRM sont d'un apport important pour apprécier l'étendue locorégionale et un excellent moyen de surveillance de l'évolution de la maladie. Les sérologiques et les tests immunologiques sont généralement négatifs durant les premiers stades de l'hydatidose osseuse. Il est parfois impossible d'établir un diagnostic définitif préopératoire. Ce diagnostic n'est souvent établi que lors de la chirurgie ou de la biopsie de la lésion. La chirurgie consiste à une exérèse carcinologique encadrée par le traitement médical. Les techniques de reconstruction sont variables mais les allogreffes massives constituent une alternative intéressante pouvant améliorer le pronostic fonctionnel, qui reste dans la plus part des cas réservé.

V. RÉFÉRENCES

- 1) Eckert J, Deplazes P. Biological, epidemiological, and clinical aspects of echinococcosis, a zoonosis of increasing concern. *Clin Microbiol Rev* 2004; 17:107-35.
- 2) Herrera A, Martinez AA. Extraplural bone hydatidosis. *J Bone Joint Surg* 2003; 85A:1790-94.
- 3) Gdoura F, Trigui M, Zribi W, Ellouze Z, Bouzidi R, Ayedi K., Keskes H. Hydatidose osseuse pelvienne: à propos d'un cas et revue de la littérature. *Rev Chir Orthop* 2010; 96:99-104.
- 4) Bel Hadj Youssef D, Loussaief C, Ben Rhomdhane F, Chakroun M, Abid AZ, Bouzouaia N. Kyste hydatidique primitif intraosseux: à propos de deux cas. *Rev Med Int* 2007; 28:255-8.
- 5) Smida M, Jalel C, Mrad K et al. Signes radiologiques inhabituels de l'échinococcose osseuse chez l'enfant. *J Radiol* 2001; 82:589-92.
- 6) Yildiz Y, Bayrakci K, Altay M, Saglik Y. The use of polymethylmethacrylate in the management of hydatid disease of bone. *J Bone Joint Surg* 2001; 83B:1005-8.
- 7) Loudiye H, Aktoua S, Hassikou H et al. hydatose osseuse: etude de 11 cas. *Rev Rhum* 2003; 70:732-5.
- 8) Zlitni M, Ezzaouia K, Lebib H, Karray M, Kooli M, Mestiri M. Hydatid cyst of bone: diagnosis and treatment. *World J Surg* 2001; 25:75-82.
- 9) Kabi E, Benyahya E, Faiz S, Bennis R, Mkinsi O. Echinococcose de l'os iliaque (à propos d'un cas). *Rev Maroc Chir.Orthop Traumatol* 2005; 23:53-5.
- 10) Demir MK, Heybeli N, Atay T, Ozdemir H. Hydatid disease: a rare cause of pelvic pain. *Eur Radiol* 2008; 18:1757-9.
- 11) Ladjouze-Rezig A. Hydatidose osseuse. *Rev Rhum* 2002; 69: 835-41.
- 12) Belzunegui J, Maiz O, Lopez L, Plazaola I, Gonzalez C, Figueroa M. Hydatid disease of bone with adjacent joint involvement. A radiological follow-up of 12 years. *Br J Rheumatol*; 1997; 36:133-5.
- 13) Yildiz K, Gurbuz Y, Buluc L, Cirpici Y. Diagnostic clues in fine needle aspiration biopsy of hydatid disease of bone. *Acta Cytol* 2006; 50:353.
- 14) Senyuz OF, Yesildag E, Celayir S. Albendazole therapy in the treatment of hydatid liver disease. *Surg Today*; 2001; 31:487-91.
- 15) Masse A, Parola PG, Del Prever EMB, Gallinaro P. Hydatidosis of the pelvis: a case report with a 25-year follow-up. *Arch Orthop Trauma Surg* 2004; 124:203-5.
- 16) Neogi Ds, Kumar V, Malhotra R. femoral allograft in the management of osseous hydatidosis presenting as femoral shaft non-union. *Arch Orthop Trauma Surg* 2009; 129:1627-32.
- 17) Delloye C, Banse X, Brichard B, Docquier PL, Cornu O. Pelvic reconstruction with a structural pelvic allograft after resection of a malignant bone tumor. *J Bone Joint Surg* 2007; 89A:579-87.
- 18) Kohles SS, Markel MD, Rock MG, Chao EY, Vanderby EJr. Mechanical evaluation of six types of reconstruction following 25, 50 and 75% resection of the proximal femur. *J Orthop Res* 1994; 12:834-43.
- 19) Zimmerli, Ochsner P.E. Management of infection associated with prosthetic joints. *Infection* 2003; 31:99-108.
- 20) Matthews PC, Berendt A.R., McNally M.A., Byren I. Diagnosis and management of prosthetic joint infection. *BMJ* 2009; 338:1378-83.

