

Association rare d'actinomyose endobronchique et inhalation de corps étranger chez un enfant

Rare association of endobronchial actinomycosis and foreign body aspiration in a child

Hamdi. B ^(1,4), Jdidi. S ^(1,4), Brahem. E ^(2,4), Khalfallah. I ^(1,4), Ammar. J ^(1,4), Zribi. H ^(3,4)
Berraies. A ^(1,4), Merghli. A ^(3,4), Mezni. F ^(2,4), Hamzaoui. A ^(3,4)

⁽¹⁾ Service de pneumo-pédiatrie, Hôpital Abderrahmen Mami, 2080 Ariana, Tunisie

⁽²⁾ Service d'anatomopathologie, Hôpital Abderrahmen Mami, 2080 Ariana, Tunisie

⁽³⁾ Service de chirurgie thoracique, Hôpital Abderrahmen Mami, 2080 Ariana, Tunisie

⁽⁴⁾ Université de Tunis el Manar, Faculté de médecine de Tunis, Tunis 1007, Tunisie

RÉSUMÉ

L'actinomyose endobronchique associée à un corps étranger souvent méconnu est une situation rare qui a été jusque-là rapportée uniquement chez l'adulte. Son diagnostic est souvent posé sur la biopsie de tissu de granulation. Nous rapportons le cas d'un enfant de 6 ans de sexe masculin porteur d'une actinomyose bronchique greffée sur corps étranger de diagnostic chirurgical. Les présentations cliniques et radiologiques étaient celle d'une dilatation de bronche. Une antibiothérapie à base d'amoxicilline était instaurée pour une durée totale de 6 semaines avec une bonne évolution. L'actinomyose endobronchique associée à une inhalation de corps étranger ayant résidé longtemps dans les voies aériennes est probablement sous-estimée chez l'enfant. L'absence de particularité clinique fait que son diagnostic est souvent de découverte fortuite. Le traitement n'est pas codifié. Un schéma court pourrait être suffisant.

Mots clés : Actinomyces israelii, Actinomyose pulmonaire, corps étranger.

SUMMARY

Endobronchial actinomycosis associated with an often underestimated foreign body is a rare situation that has been previously reported only in adults. His diagnosis is often made on the biopsy of granulation tissue. We report the case of a 6-year-old male child with a past history of foreign body aspiration partially extracted. The clinical and radiological findings were that of a bronchiectasis. The diagnosis of a bronchial actinomycosis grafted on foreign body was made after surgical treatment and subsequent pathologic examination of the resected lung. An antibiotic treatment based on amoxicillin was underwented successfully for a total duration of 6 weeks. Endobronchial actinomycosis associated with foreign body inhalation that has long been resident in the airways is probably underestimated in children. The absence of clinical particularity makes that his diagnosis is often fortuitous discovery. The treatment is not codified. A short diagram might be enough.

Key words: Actinomyces israelii, Pulmonary actinomycosis, foreign body.

INTRODUCTION :

L'actinomyose est une infection granulomateuse rare secondaire à une infection bactérienne à Actinomyces [1]. La forme infantile est décrite mais plus rare [2]. Etant responsable d'une localisation thoracique dans 15 à 20% des cas [3], l'atteinte endobronchique associée à l'inhalation de corps étranger souvent méconnu est rare et de diagnostic difficile à cause de présentations cliniques trompeuses. Cette association n'a pas été décrite chez l'enfant mais pourrait être sous-estimée. Nous rapportons ici, le cas d'un enfant porteur d'une actinomyose bronchique greffée sur corps étranger de diagnostic chirurgical et nous illustrons la rareté de l'association ainsi que la prise en charge thérapeutique.

OBSERVATION :

Il s'agissait d'un garçon âgé de 6 ans correctement vacciné selon le calendrier vaccinal, aux antécédents d'inhalation de corps étranger (pois chiche) à l'âge de deux ans avec syndrome de pénétration. Une bronchoscopie

Auteur correspondant :

Dr. HAMDİ besma

Service de pneumo-pédiatrie, Hôpital Abderrahmen Mami, 2080 Ariana, Tunisie

E-mail : h_besma@yahoo.fr

Déclaration d'intérêts : Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relation avec cet article.

rigide était faite avec extraction incomplète du corps étranger. Depuis, l'enfant gardait une toux sèche prise pour une hyperréactivité bronchique traitée par les corticoïdes inhalés sans amélioration nette. Il se présentait aux urgences pour fièvre, toux sèche et douleurs thoraciques droites évoluant depuis 1 mois. L'examen à l'admission trouvait une température à 38.5 °C, une diminution du murmure vésiculaire de la partie basale du champ pulmonaire droit. L'examen buccodentaire était sans particularité. La radiographie du thorax révélait une opacité de tonalité hydrique hétérogène à limites floues partiellement aérée au niveau du lobe inférieur droit (figure1).

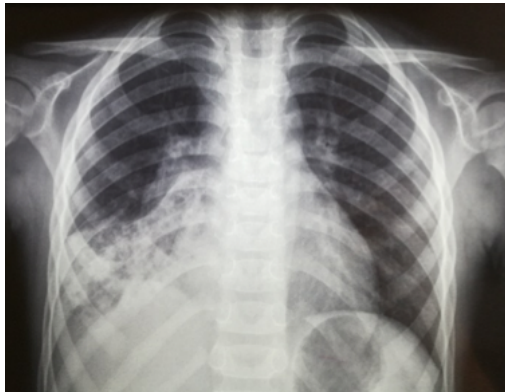


figure 1 : Radiographie de thorax de face montrant une opacité hétérogène floue du tiers inférieur du champ pulmonaire droit partiellement aérée.

Le bilan biologique montrait un syndrome inflammatoire biologique non spécifique avec une vitesse de sédimentation accélérée à 65 mm à la 1ère heure, une concentration de la protéine C-réactive à 53 mg/l. La numération de la formule sanguine montre une hyperleucocytose à 18 860 éléments par millimètre cube à prédominance de polynucléaires neutrophiles (85 %) et une anémie hypochrome microcytaire. Une antibiothérapie de courte durée à base de céphalosporine de troisième génération était instaurée sans amélioration. Ainsi une exploration par tomodensitométrie thoracique mettait en évidence des condensations parenchymateuses des lobes moyens et inférieurs droit avec des bronchectasies cylindriques diffuse avec présence de corps étranger résiduel du tronc intermédiaire (figure 2).

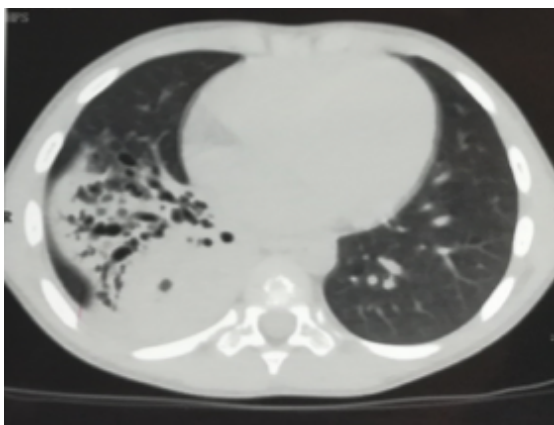


figure 2 : Aspect scanographique montrant une condensation parenchymateuse siège de dilatations des bronches diffuses au niveau du lobe

moyen et du lobe inférieur droit et présence de formation en endobronchique du tronc intermédiaire évocatrice de corps étranger.

Une fibroscopie bronchique a été pratiquée et a montré la présence dans le tronc intermédiaire d'une formation blanchâtre obstruant totalement sa lumière faisant évoquer un corps étranger endobronchique entouré d'une muqueuse granulomateuse. L'examen direct et la culture du liquide d'aspiration bronchique étaient négatifs ainsi que la recherche de bacille de Kock dans le liquide bronchique. Devant la destruction totale des deux lobes moyen et inférieur droit une bi-lobectomie était indiquée. L'examen anatomopathologique de la pièce opératoire montrait des lésions diffuses de dilatation des bronches avec remaniements inflammatoires chroniques granulomateux avec présence de grains actinomycosique faisant évoquer une actinomycose endo-bronchique (figure 3,4).

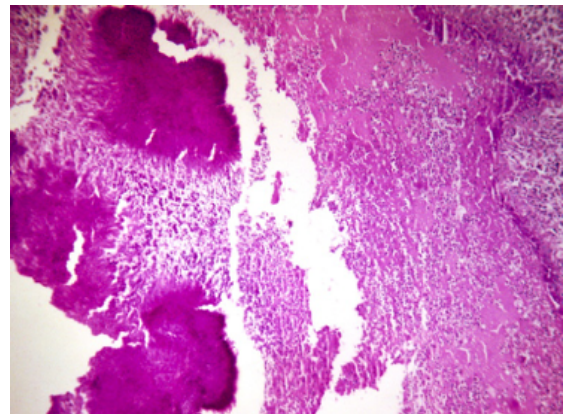


figure 3 : Muqueuse bronchique à revêtement ulcéré renfermant dans sa lumière des grains actinomycosiques (HEx20).

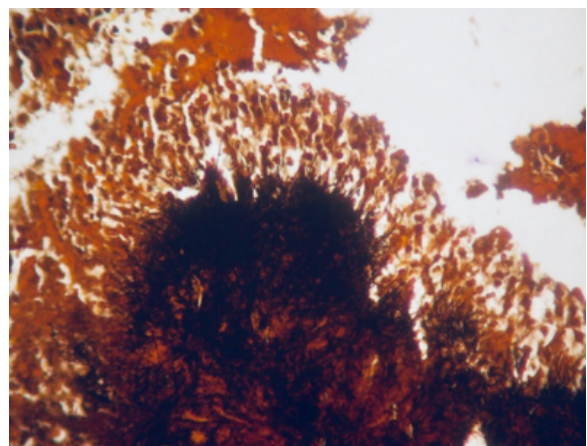


figure 4 : La coloration de Grocott met en évidence un feutrage filamenteux (Grocottx40).

L'enfant était mis sous antibiothérapie à base d'ampicilline par voie intraveineuse puis relayé par l'Amoxicilline per os pendant 1mois avec une bonne évolution clinique.

DISCUSSION :

L'actinomycose est une infection ubiquitaire rare, responsable d'une suppuration chronique granulomateuse. Elle a été identifiée pendant plus d'un siècle, depuis 1876. Elle est due à des bactéries commensales du genre *Actinomyces* présents dans les cavités naturelles surtout au niveau du tartre dentaire, et des intestins. C'est une bactérie bacille gram positif filamenteuse non sporulée. L'infection survient chez des patients éthyliques, tabagiques avec une mauvaise hygiène bucco-dentaire. Différents organes peuvent être atteints dont l'atteinte thoracique représente 15 à 20% des actinomycoses et regroupe des formes pulmonaires, bronchiques ou laryngées [1,3]. La forme endobronchique est extrêmement rare [4].

Il s'agit d'une infection qui peut se voir à tout âge chez le sujet sain comme chez l'immunodéprimé [5]. Elle touche plus souvent l'homme. L'atteinte infantile est non seulement plus rare mais pouvant aussi être sous-estimée surtout en cas de situations particulières comme le cas de notre présentation [2,6,7]. Il y a peu de données concernant la prévalence de cette infection, mais il semble que l'incidence des infections par *Actinomyces* a nettement diminué ces dernières années. Cette diminution pourrait s'expliquer par l'utilisation fréquente des antibiotiques et par une amélioration des conditions d'hygiène notamment de l'hygiène bucco-dentaire. Certaines maladies respiratoires chroniques comme les dilatations des bronches, la bronchopneumopathie chronique obstructive et les séquelles de tuberculose peuvent être aussi des facteurs favorisants [1]. La contamination pulmonaire semble se faire par déglutition des sécrétions infectées ou peut faire suite à une aspiration de matériel infecté à partir de l'oropharynx tel que l'inhalation d'un corps étranger [7-9]. Ceci était le cas de notre observation où l'évènement responsable du développement de l'actinomycose était l'inhalation du corps étranger partiellement extrait et qui était à l'origine de destruction du lobe inférieur droit et l'apparition des dilatations de bronches. Malgré les avancés scientifiques et le développement des moyens d'investigation, le diagnostic reste difficile et retardé responsable des délais diagnostics longs, ceci est en rapport avec le caractère trompeur de ses présentations cliniques et les difficultés d'isolement des *Actinomyces*. En effet, la présentation radioclinique de l'actinomycose pulmonaire n'est pas spécifique. Le début est en général progressif. Aucun signe clinique n'est pathognomonique de l'infection. Les signes les plus fréquemment observés sont des signes généraux tel qu'une perte de poids, une fièvre, des sueurs nocturnes associées à une toux et une expectoration contenant parfois des grains sulfurés. Des douleurs thoraciques et parfois une hémoptysie peuvent également se voir. Parfois, l'infection s'étend vers la plèvre et la paroi thoracique à l'origine des épanchements pleuraux, des abcès costaux ou cutanés, des atteintes vertébrales [6,7]. L'évolution vers l'abcédation est fréquente. Exceptionnellement, des formes disséminées peuvent se voir responsables de localisations secondaires hépatiques et cérébrales [1]. L'association des dif-

férents signes peuvent prêter à confusion essentiellement avec deux formes cliniques trompeuses: l'aspergillome pulmonaire, la tuberculose pulmonaire et le cancer broncho-pulmonaire [10-13]. C'est pour cela le diagnostic d'actinomycose pulmonaire repose sur l'association de signes cliniques, biologiques, microbiologiques et radiologiques ainsi que sur l'efficacité du traitement antibiotique. Parfois, il est nécessaire d'avoir recours à des explorations invasives tel que la fibroscopie voire même la thoracotomie et l'exérèse chirurgicale.

Sur le plan biologique, un syndrome inflammatoire avec parfois une anémie, une hyperleucocytose sans polynucléose et une thrombocytose peuvent être retrouvés [5]. La radiologie conventionnelle ne montre pas de signes spécifiques d'actinomycose. Le scanner thoracique va surtout permettre de localiser l'infection, son extension et éventuellement guider la biopsie et évaluer la réponse au traitement. Les différents aspects scanographiques sont la condensation parenchymateuse, atélectasie, cavitation, opacité en verre dépoli, adénopathies médiastinales [4,14,15]. Une localisation préférentielle dans les lobes inférieurs est plus fréquemment décrite. L'atteinte pariétale avec présence d'encoche costale est très évocatrice de l'infection. Dans la tuberculose endobronchique un épaississement de la paroi bronchique est observé avec parfois visualisation d'une formation endobronchique évocatrice de corps étranger, tel était le cas de notre observation. Peu d'auteurs décrivent l'intérêt de l'18F-FDG PET scanner dans le diagnostic d'actinomycose qui montre une hyperfixation métabolique évocatrice pouvant prêter à confusion avec une tumeur maligne [16].

Une fibroscopie bronchique devra être réalisée pour éliminer des signes en faveur de la malignité et évidemment faire des prélèvements bactériologiques et réaliser des biopsies bronchiques pouvant être concluantes. Dans la situation où le corps étranger est identifié au préalable, la fibroscopie permettra l'extraction du corps étranger après une cure d'antibiothérapie suggérant l'intérêt de l'endoscopie dans le suivi thérapeutique dans l'actinomycose endobronchique. La culture simple des *Actinomyces* aussi bien dans le lavage broncho alvéolaire que dans le crachat n'a pas de valeur diagnostic car ça peut être de la contamination surtout que l'*Actinomyces* représente 30 à 50 % de la flore salivaire normale. Une culture en anaérobiose est recommandée [1]. Les nouvelles méthodes de biologie moléculaire peuvent apporter le diagnostic dans de rares cas d'infections inhabituelles [17]. Le gold standard pour le diagnostic d'actinomycose pulmonaire est l'examen histologique et la culture bactérienne d'une biopsie pulmonaire, obtenus par biopsie percutanée guidée par la tomographie ou par résection chirurgicale. La lésion histologique évocatrice est la présence de grains actinomycosiques jaunes sulfurés, entourés d'un follicule inflammatoire, dont l'extrémité renflée donne un aspect « en rayons de roue » quasi pathognomonique [18]. Le traitement chirurgical est controversé, il permet de faire le diagnostic dans certaines formes trompeuses ou de traiter une complication de la maladie telle qu'une hémoptysie, un drainage d'abcès, dilatation des bronches ou décortication pleurale [12,14]. Dans notre observation le recours à la résection chirurgicale était nécessaire devant la destruction totale du

lobe moyen et du lobe inférieur secondaire aux dilatations des bronches et ce qui a permis de redresser le diagnostic d'actinomycose. Le traitement de choix repose sur une antibiothérapie initiale à base de pénicilline G à fortes doses par voie intraveineuse de 18 à 24 millions unités pendant 2 à 6 semaines, relayée par la pénicilline V par voie orale pendant une durée variant entre 6 à 12 mois. En cas d'allergie à la pénicilline, un traitement par l'érythromycine ou les tétracyclines peut être instauré en l'absence de contre-indication [14]. Quelques auteurs décrivent une bonne évolution sans récurrence après une courte durée d'antibiothérapie associée à l'extraction du corps étranger [19]. Le pronostic de l'actinomycose thoracique est moins bon que dans les autres localisations. Le décès survient dans 60 à 80% des cas en l'absence de traitement.

CONCLUSION :

L'actinomycose endobronchique secondaire à l'inhalation du corps étranger est une situation rare qui devrait être maintenue dans l'esprit pour diagnostic différentiel des cas de présentations cliniques inhabituelle surtout dans un contexte d'infection chronique. Nous illustrons à travers cette observation la difficulté diagnostic, l'importance d'obtenir une preuve histologique pour confirmer le diagnostic. Le traitement est médical dans la majorité des cas. Il doit être instauré le plus tôt possible afin d'éviter des séquelles nécessitant le recours à la chirurgie.

REFERENCES :

[1] Valour F, Sénéchal A, Dupieux C, et al. Actinomycosis: etiology, clinical features, diagnosis, treatment, and management. *Infect Drug Resist*. 2014 Jul 5;7:183-97.

[2] Kabiri M, Zidane A, Arsalane A, et al. L'actinomycose pulmonaire chez l'enfant. *Arch Pediatr*. 2008 Aug;15(8):1312-4.

[3] Msougar Y, Fenane H, Maida M, et al. L'actinomycose thoracique multiple chez l'immunocompétent. *Pan Afr Med J*. 2013 Oct 19;16:59.

[4] Farrokh D, Rezaitalab F, Bakhshoudeh B. Pulmonary Actinomycosis with endobronchial involvement: A Case Report and literature review. *Tanaffos*. 2014;13(1):52-6.

[5] Mabeza GF, Macfarlane J. Pulmonary actinomycosis. *Eur Respir J*. 2003 Mar; 21(3): 545-51.

[6] Aharmim M, Kouismi H, Marc K, et al. Actinomycose pulmonaire fistulisée à la paroi thoracique chez un enfant. *Arch Pediatr*. 2014 Jul;21(7):757-60.

[7] Faillon S, Dubos F, Thumerelle C, et al. Actinomycose thoracique: est-il possible d'y penser plus tôt? *Arch Pediatr*. 2011 May;18(5):558-61.

[8] Chouabe S, Perdu D, Deslée G, et al. Endobronchial Actinomycosis Associated With

Foreign Body Four Cases and a Review of the Literature. *Chest*. 2002 Jun;121(6):2069-72.

[9] Kim YS, Suh JH, Kwak SM, et al. Foreign body-induced Actinomycosis Mimicking bronchogenic carcinoma. *Korean J Intern Med*. 2002 Sep;17(3):207-10.

[10] Pinarli FG, Mutlu B, Celenk C, et al. Pulmonary actinomycosis mimicking chest wall tumor in a child. *Jpn J Infect Dis*. 2005 Aug;58(4):247-9.

[11] Goussard P, Gie R, Kling S, et al. Thoracic actinomycosis mimicking primary tuberculosis. *Pediatr Infect Dis J*. 1999 May;18(5):473-5.

[12] Katsenos S, Galinos I, Styliara P, et al. Primary Bronchopulmonary Actinomycosis Masquerading as Lung Cancer: Apropos of Two Cases and Literature Review. *Case Rep Infect Dis*. 2015;2015:609637.

[13] Higashi Y, Nakamura S, Ashizawa N, et al. Pulmonary Actinomycosis Mimicking Pulmonary Aspergilloma and a Brief Review of the Literature. *Intern Med*. 2017;56(4):449-453.

[14] Kim SR, Jung LY, Oh IJ, et al. Pulmonary actinomycosis during the first decade of 21st century: cases of 94 patients. *BMC Infect Dis*. 2013 May 14;13:216.

[15] Heo SH, Shin SS, Kim JW, et al. Imaging of Actinomycosis in Various Organs: A Comprehensive Review. *Radiographics*. 2014 Jan-Feb;34(1):19-33.

[16] Qiu L, Lan L, Feng Y, et al. Pulmonary Actinomycosis Imitating Lung Cancer on 18F-FDG PET/CT: A Case Report and Literature Review. *Korean J Radiol*. 2015 Nov-Dec;16(6):1262-5.

[17] Fujita Y, Iikura M, Horio Y, et al. Actinomyces graevenitzii infection presenting as organizing pneumonia diagnosed by PCR analysis. *J Med Microbiol*. 2012 Aug;61(Pt 8):1156-8.

[18] Ayadi-Kaddour A, Mlika M, Marghli A, et al. Une suppuration thoracique fistulisante Actinomycose thoracique avec atteinte pulmonaire et pariétale. *Med Mal Infect*. 2008 Apr;38(4):225-7.

[19] Maki K, Shinagawa N, Nasuhara Y, et al. Endobronchial actinomycosis associated with a foreign body-successful short-term treatment with antibiotics. *Intern Med*. 2010;49(13):1293-6.

Remerciements : Les auteurs remercient tous les membres du service de pneumo-pédiatrie et du service de chirurgie thoracique de l'hôpital Abderrahmane Mami de l'Ariana.