

Amoebome colique : une pseudo-tumeur inflammatoire exceptionnelle chez l'enfant

Colonic amoeboma : a rare Inflammatory Myofibroblastic Tumor in children

Ben RabeH Trabelsi. R ^(1,2), Atitallah. S ^(1,2), Ben Othman. A ^(1,2), Missaoui. N ^(1,2), Mazigh Mrad. S ^(1,2), Sghairoun. N ^(1,3), Doghri. R ^(1,4), Mrad. K ^(1,4), Jouini. R ^(1,3), Boukthir. S ^(1,2)

⁽¹⁾ Université de Tunis El Manar, Faculté de médecine de Tunis, 1007, Tunis, Tunisie

⁽²⁾ Hôpital d'enfants Béchir Hamza, service de pédiatrie C, 1006, Tunis, Tunisie

⁽³⁾ Hôpital d'enfants Béchir Hamza, service de chirurgie pédiatrique A, 1006, Tunis, Tunisie

⁽⁴⁾ Institut Salah Azaiz de cancérologie, Service de cytologie et d'anatomie pathologique, 1006, Tunis, Tunisie

INTRODUCTION

Les tumeurs coliques chez l'enfant représentent un groupe rare de pathologie néoplasique infantile. Les tumeurs coliques malignes, particulièrement, constituent une pathologie pédiatrique exceptionnelle, dont la survenue doit absolument faire chercher une origine génétique. L'adénocarcinome colique, très rare chez l'enfant, est cependant l'une des tumeurs solides du tube digestif de l'enfant la plus fréquente. Vu la rareté de ces tumeurs, il faut impérativement éliminer les diagnostics différentiels mimant un adénocarcinome colique chez l'enfant, tels que les pseudotumeurs inflammatoires du colon qui sont également rares à cet âge. L'étiopathogénie exacte de ces tumeurs coliques rares, reste inconnue mais certaines hypothèses étiopathogéniques ont été avancées : parasitaire, post-infectieuse, post-traumatique, ...etc [1]. L'amoebome colique (AC) est une pseudotumeur inflammatoire rare, d'origine parasitaire, causée par l'Entamoeba histolytica, la seule amibe pathogène pour l'homme. Elle se voit généralement en Amérique latine et en Afrique du Sud [2,3]. L'amoebome colique (AC) est une forme anatomo-clinique rare de l'amibiase intestinale et c'est une affection exceptionnelle chez l'enfant. Sa symptomatologie clinique est peu spécifique rendant son diagnostic difficile [4]. Nous rapportons une observation pédiatrique originale d'une pseudotumeur inflammatoire colique d'origine parasitaire, pour rappeler à travers ce fait clinique les caractéristiques cliniques, diagnostiques et thérapeutiques de cette entité chez l'enfant.

OBSERVATION

Il s'agissait d'un garçon âgé de 12 ans, sans antécédents pathologiques notables personnels ni familiaux, originaire du nord-ouest du pays, issu d'un milieu rural défavorisé, qui avait présenté durant une année des douleurs abdominales localisées au niveau de la fosse iliaque droite, à type de coliques, intermittentes, à prédominance nocturne, associées à un amaigrissement non chiffré. Ces douleurs étaient associées à des épisodes de diarrhée glairosanglante alternant avec des épisodes de constipation. Le tout évoluait dans un contexte d'apyrexie.

A l'examen, l'enfant était apyrétique, il avait un poids à 29 Kg (-2 Z-score) et une taille à 142 cm à la moyenne pour l'âge. L'examen abdominal a mis en évidence une masse au niveau de la fosse iliaque droite oblongue, mesurant 9 cm de grand axe, dure non douloureuse, fixe par rapport au plan profond et mobile par rapport au plan superficiel, sans hépatosplénomégalie. Les aires ganglionnaires étaient libres. L'examen de la marge anale était sans anomalies. Le bilan biologique a montré une CRP à 37 mg/l, une vitesse de sédimentation à 55 mm à la 1ère heure ; à l'hémogramme, le taux de leucocytes à 11700/mm³ (PNN : 7010/mm³, lymphocytes : 1950/mm³, PNE: 2240/mm³), le taux d'hémoglobine à 9,1 g/dL, VGM à 73 µ³, TCMH à 21 pg et le taux des plaquettes à 512000/mm³. L'intradermoréaction à la tuberculine était négative. L'échographie abdominale a montré un épaississement digestif iléocolique hypoéchogène et irrégulier mesurant 117 mm, non vascularisé associé à une infiltration importante de la graisse mésentérique avec multiples adénopathies mésentériques.

Auteur correspondant :

Dr Ben RabeH Trabelsi Rania

Mail : raniabenrabeH@gmail.com

Le scanner abdominal a montré un important épaissement pariétal, circonférentiel et régulier étendu de la partie distale du colon transverse jusqu'au caecum et la dernière anse iléale, qui atteint 16 mm par endroit. Cet épaissement était spontanément hypodense et se rehaussait de façon intense et hétérogène après injection du produit de contraste, avec présence de plusieurs ganglions mésentériques d'allure inflammatoire (figure 1).



Figure 1 : TDM abdominale coupe coronale montrant un épaissement pariétal, circonférentiel et régulier du colon droit (flèche jaune).

A ce stade, le diagnostic de maladie inflammatoire chronique de l'intestin (MICI), en l'occurrence une maladie de Crohn, a été évoquée. La colonoscopie a montré une masse colique droite de 50 mm de grand axe, à surface régulière, non bourgeonnante, obstruant la lumière colique. La muqueuse était fragile en contact de l'endoscope (figure 2). L'examen anatomopathologique des biopsies étagées a montré un remaniement inflammatoire non spécifique. L'examen histologique des biopsies de la masse concluait à une colite subaiguë érosive avec absence de signes de malignité. Les marqueurs tumoraux CA 19-9 et ACE étaient négatifs. Les ANCA étaient négatifs.

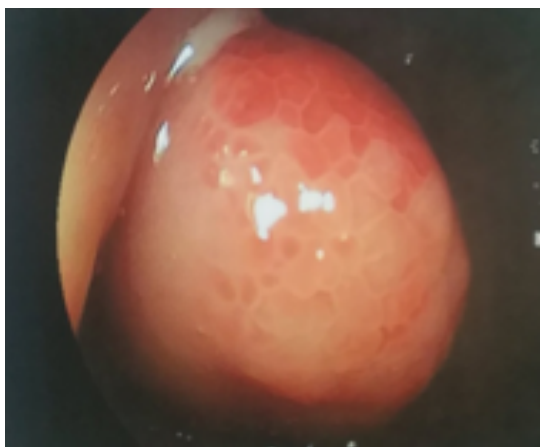


Figure 2 : aspect endoscopique de la tumeur : masse colique droite de 5 cm de grand axe, à surface régulière, non bourgeonnante, bien circonscrite, obstruant la lumière colique.

Pour avancer, nous avons décidé d'explorer à ciel ouvert. La laparotomie exploratrice a révélé la présence d'une masse caecale de 15 cm de grand axe, dure très adhérente au péritoine pariétal. Une résection de la masse a été réalisée avec anastomose iléocolique droite termino-terminale. L'examen anatomopathologique de la masse a conclu à une pseudotumeur inflammatoire de la paroi colique d'origine amibienne en montrant la présence d'un tissu fibro-inflammatoire contenant de nombreuses amibes. Les suites opératoires étaient simples. L'enfant a reçu après le résultat de la biopsie le Métronidazole FLAGYL®, 1,5 g/j en 3 prises pendant 15 jours. L'examen parasitologique des selles était négatif. La sérologie de l'amibiase est revenue positive avec un titre d'anticorps à 1/200 à l'immunofluorescence indirecte. L'évolution était favorable sur les plans clinique et endoscopique avec un recul de six ans. La sérologie de l'HIV était négative, la sérologie de l'hépatite B révélait un profil vaccinal et le bilan de déficit immunitaire : dosage pondéral des immunoglobulines, test au NBT et phénotypage lymphocytaire, était sans anomalies.

DISCUSSION

Nous avons rapporté cette observation car elle présente plusieurs particularités originales. En effet la pathologie tumorale colique est rare chez l'enfant, notamment les tumeurs malignes coliques dominées par l'adénocarcinome colique. Ces tumeurs surviennent souvent au hasard, sans cause particulière. Dans seulement 10% des cas, un facteur favorisant est identifié tel que une maladie inflammatoire chronique du tube digestif, une polypose digestive ou un syndrome à caractère héréditaire sans polype: les syndromes de Lynch I et II. Vue la rareté de ces tumeurs malignes, des diagnostics différentiels doivent être recherchés. Notre observation illustre un des diagnostics différentiels : les pseudotumeurs inflammatoires du côlon qui sont des lésions bénignes très rares, d'étiologie inconnue et dont le diagnostic différentiel est difficile avec les adénocarcinomes. Plusieurs dénominations ont été proposées pour ces tumeurs, celle qui a été finalement retenue en 1990 est la tumeur myofibroblastique inflammatoire (Inflammatory myofibroblastic tumors IMT) [5]. La tumeur myofibroblastique inflammatoire (IMT) est une tumeur rare d'étiologie inconnue qui survient généralement chez les enfants et les adolescents. Elle est composée de cellules fusiformes myofibroblastiques associées à des cellules inflammatoires [6]. Le site de prédilection de ces tumeurs est le poumon, les localisations extra pulmonaires peuvent inclure : le mésentère, les voies aériennes supérieures, le tractus génito-urinaire, le rétro péritoine, le cerveau, le pancréas et le foie. La localisation digestive est exceptionnellement rapportée [7]. C'est la première particularité de notre observation. Les facteurs étiologiques responsables du développement des IMT ne sont pas clairement établis [8]. En effet les IMT peuvent être la conséquence d'une réponse immunologique à un agent infectieux ou non infectieux, ou il peut s'agir d'une véritable tumeur. Plu-

sieurs agents infectieux ont été incriminés tels que *Campylobacter Jejuni*, le virus Epstein-Barr, *Escherichia coli* et des parasites comme *Entamoeba histolytica* [7,8]. D'autres facteurs ont été rapportés tels que les traumatismes, l'utilisation de stéroïdes, la chirurgie abdominale et des facteurs génétiques ont été également signalés, mais la pathogenèse exacte des IMT reste floue. Chez notre malade l'IMT était d'origine parasitaire : un amoebome colique. Donc une recherche étiologique s'impose devant une IMT et particulièrement l'enquête infectieuse doit être exhaustive surtout devant des signes d'orientation comme chez notre patient qui avait dès le bilan initial une hyperéosinophilie qui devrait faire rechercher une pathologie parasitaire entre autre. Ainsi, tenant compte de notre contexte épidémiologique, il faudrait évoquer une cause parasitaire chez tout enfant présentant une IMT [9]. L'amoebome colique est une pathologie exceptionnelle chez l'enfant et c'est ce qui constitue la deuxième particularité de cette observation originale. En effet, l'amibiase est une maladie universelle, endémique en Afrique. On estime que 20% de la population mondiale est infestée par *Entamoeba histolytica*. Cependant, seulement une faible proportion (4% à 10%) des patients infectés, développe une amibiase invasive, essentiellement sous forme d'amibiase intestinale et d'abcès du foie mais aussi d'autres atteintes ont été décrites : pulmonaire, pleurale, cérébrale...[10]. L'amibiase constitue également la 3ème cause parasitaire de mortalité dans le monde [11]. En Tunisie, l'amibiase est une infection parasitaire rare. La prévalence du parasitisme intestinal par *Entamoeba histolytica* ou *Entamoeba dispar*, dans notre pays, a été estimé entre 0,85% et 1,86% [12,13] et l'incidence était de 2,15 cas par an au nord du pays [14]. L'amoebome colique représente une complication rare de l'amibiase intestinale observée dans 1,5% des cas [2]. Il peut être inaugural de la maladie ou compliquer une amibiase intestinale aiguë après une période variable pouvant aller de quelques semaines à plusieurs mois. Chez notre malade, l'amoebome était inaugural de la maladie, il a été révélé par des douleurs abdominales récurrentes d'allure organique, associées à une diarrhée glairosanglante et une altération de l'état général. En effet, la symptomatologie de l'amoebome colique est variable, polymorphe et non spécifique faite de douleurs abdominales chroniques, diarrhée sanglante, rectorragies, constipation, altération de l'état général, syndrome pseudo-occlusif, masse abdominale. Parfois l'amoebome peut mimer une urgence chirurgicale, tel qu'un syndrome pseudo-appendiculaire [15]. Chez notre malade l'amoebome était coecal. En effet, l'amoebome colique siège, par ordre de fréquence, au niveau du cæcum, de l'appendice et du sigmoïde [16]. L'amoebome colique survient selon la littérature durant la 2ème et la 5ème décennie de la vie [17]. Nous rapportons ainsi une des rares observations pédiatriques. Sur le plan physiopathologique, les tumeurs d'origine parasitaire sont la conséquence de réactions inflammatoires et/ou immunologiques granulomateuses qui visent à circonscrire et éradiquer le parasite en cause. Ainsi, l'amoebome résulte de l'intensité de la réaction

inflammatoire et de la sclérose secondaire au voisinage des ulcérations amibiennes. Ceci entraîne la formation des pseudotumeurs obstruant progressivement la lumière colique [2,15]. Le diagnostic de l'amoebome colique est difficile, il pose un problème de diagnostic car les signes cliniques, radiologiques et endoscopiques peuvent mimer en tout point un adénocarcinome colique surtout chez l'adulte, mais chez l'enfant d'autres maladies telles que la tuberculose iléo-caecale hypertrophique, une maladie de Crohn iléo-caecale, l'actinomyose pseudo tumorale...[18]. Le diagnostic repose sur l'examen anatomopathologique des biopsies per-coloscopiques de la masse. Cependant cet examen ne permet de poser le diagnostic de certitude que dans 60% des cas [19] ; le taux de faux négatifs est donc de 40%. C'était le cas de notre patient chez qui les biopsies réalisées lors de la coloscopie, n'étaient pas concluantes. Dans ce cas, la sérologie amibienne permettrait d'apporter le diagnostic de certitude. Chez notre patient nous avons eu recours à la chirurgie d'emblée sans réaliser la sérologie car nous n'avons pas pensé à ce diagnostic vu sa rareté. Ainsi le diagnostic a été confirmé par l'examen histologique de la pièce opératoire en mettant en évidence un agglomérat inflammatoire de tissu de granulation comportant la forme végétative du parasite : les trophozoïtes. Chez notre patient, la sérologie a été réalisée après avoir reçu le résultat de l'histologie. Pour la prise en charge thérapeutique, le traitement de l'amoebome colique rejoint celui de l'amibiase intestinale et se base sur la prescription des amoebicides tissulaires actifs sur les formes trophozoïtes dans les tissus, qui sont les dérivés 5-nitro-imidazolés dont le chef de file est le Métronidazole (FLAGYL®) 1,5 à 2 g/j en trois prises pendant 10 à 20 jours. Le traitement médical suffit pour faire fondre l'amoebome [2,4,15]. La chirurgie est indiquée dans les formes occlusives d'amoebome ou en cas d'affections associées [4]. Ainsi chez notre patient, si le diagnostic d'amoebome colique avait été suspecté et la sérologie amibienne était réalisée, nous aurions pu éviter la chirurgie. Certains facteurs de risque d'infection amibienne ont été rapportés dans la littérature, tels que l'hépatite B et l'infection à HIV. Notre malade n'avait pas ces facteurs de risque.

CONCLUSION

Les tumeurs coliques sont rares en milieu pédiatrique. En Tunisie il faut toujours penser aux causes infectieuses, en particulier aux amoebomes coliques et demander une sérologie amibienne, d'autant plus qu'il existe un traitement médical efficace pouvant épargner une chirurgie aux malades. L'amoebome colique, surtout dans son siège colique droit ou caecal, est de diagnostic préopératoire difficile ; il peut mimer, sur le plan morphologique et endoscopique, diverses pathologies. L'examen anatomopathologique des biopsies per-coloscopiques, permet de confirmer le diagnostic mais s'associe à un taux élevé de faux négatifs, d'où l'intérêt de la sérologie amibienne qui reste le test le plus fiable.

REFERENCES

- [1] Rey P, Perret JL, Carrere C, Casassus-Builhe D, Debonne JM, Klotz F. Tumeurs rectocoliques d'origine parasitaire. *Gastroentérol Clin Biol.* 2003;27:1116-25.
- [2] Almalki M, Yaseen W. Cecal ameboma mimicking obstructing colonic carcinoma. *J Surg Case Rep.* 2018;6:1-3.
- [3] Rouas L, Amrani M, Reguragui A, Gamra L, Belabbas MA. Amoebome colique : Difficultés diagnostiques, à propos d'un cas. *Med Trop.* 2004;64:176-8.
- [4] Ayari H, Rebi S, Ghariani W, Daghfous A, Hasni R, Rehaïem R, et al. Colonic amoebiasis simulating a cecal tumor: case report. *Med Sante Trop.* 2013;23(3):274-275.
- [5] Ehirchiou A, El Barni R, Tahiri H, Laraoui H, Yaka M, Miko I et al. Les pseudotumeurs inflammatoires du côlon. *Maroc med.* 2006;28(3):164-168.
- [6] Mirshemirani A, Khaleghnejad Tabari A, Sadeghian N, Shariat-Torbaghan S; Pourafkari M, Mohajezadeh L. Abdominal Inflammatory Myofibroblastic Tumor: Report of Four Cases and Review of Literature. *Iran J Pediatr.* 2011;21(4):543-548.
- [7] Oeconomopoulou A, De Verney Y, Kanavaki K, Stefanaki K, Pavlakis K, Salakos C. Inflammatory myofibroblastic tumor of the small intestine mimicking acute appendicitis: a case report and review of the literature. *J Med Case Rep.* 2016.10:1-4.
- [8] Dalton BG, Thomas PG, Sharp NE, Manalang MA, Fisher JE, Moir CR, et al. Inflammatory myofibroblastic tumors in children. *J Pediatr Surg.* 2015. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2015.11.015>.
- [9] El Brahmi Y, Najih M, Njoumi N, Ehirchiou A, Zentar A. Pseudo-tumeur inflammatoire du caecum : à propos d'un cas. *J Afr Hépatol Gastroentérol.* 2015;9:194-196.
- [10] Sengupta M, Mitra S, Ray S, Saha K. Amoeboma of colon mimicking colonic carcinoma. *Tropical Parasitology.* 2014;4(2):122.
- [11] Ritchie J, Harper A, Malykh V, Rowland J. Amoebic liver abscess imitating metastatic caecal carcinoma. *Age and ageing* 2005;34:527-528.
- [12] Fathallah A, saghrouni F, madani B, ben rejeb N, ben said M. Digestive parasitism in sousse area. Results of a 16 years retrospective study. *Tunis med.* 2004;82(4):335-43.
- [13] Makni F, Sellami H, Sellami A, Cheikhrouhou F, Ayadi H, Ben Jemaa M, Ayoub A, Beyrouti I, Ayadi A. L'amibiase viscérale : bilan dans le CHU de Sfax. *Rev Tun Infectiol.* 2007;1(2):20-4.
- [14] Bouratbine A, maamouri N, ben abddallah R, aoun k, haouet S, boubaker J et al. Données épidémiologiques, cliniques et parasitologiques concernant l'amibiase intestinale dans le nord de la tunisie. *Tun Med.* 2003;81(5):318-322.
- [15] Sengupta M, Mitra S, Ray S, Saha K. Amoeboma of colon mimicking colonic carcinoma. *Trop Parasitol.* 2014;4(2):122-124.
- [16] Rouas L, Amrani M, Reguragui A, Gamra L, Belabbas MA. Amoebome colique : difficultés diagnostiques, à propos d'un cas. *Med Trop.* 2004;64:176-178.
- [17] Haque R, Huston CD, Hughes M, Houpt E, Petri WA Jr. Amebiasis. *N Eng J Med* 2003;348:1565-73.
- [18] Majeed SK, Ghazanfar A, Ashraf J. Caecal amoeboma simulating malignant neoplasia, ileo-caecal tuberculosis and Crohn's disease. *J Coll Physicians Surg Pak* 2003;13(2):116-7.
- [19] Fernandes H, D'souza C, Wethadri GK, Naik A. Ameboma of the colon with amebic liver abscess mimicking metastatic colon cancer. *Indian J Pathol Microbiol.* 2009;52(2): 228-230.