

Sueurs et larmes sanglantes chez une fille : Quel diagnostic ?

Ben Rabeh. R ^(1,2), **Kaddour. F** ^(1,2), **Sassi. W** ^(1,3), **Hafsi. W** ^(1,3), **Missaoui. N** ^(1,2),
Atitallah. S ^(1,2), **Yahyaoui. S** ^(1,2), **Mazigh. S** ^(1,2), **Boukthir. A** ^(1,2)

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

⁽²⁾ Hôpital d'enfants Béchir Hamza de Tunis, service de médecine infantile C

⁽³⁾ Hôpital LA RABTA, service de dermatologie

OBSERVATION :

Il s'agissait d'une fille âgée de 9 ans, sans antécédents personnels ni familiaux particuliers, qui a été hospitalisée dans notre service pour des sueurs et des larmes sanglantes débutant 10 jours avant l'admission. Elle a présenté des épisodes récidivants de sécrétions cutanées sanglantes spontanées au niveau du visage, du tronc en sous mammaire, de l'extrémité distale de la jambe droite et des paumes des mains. L'interrogatoire a révélé la survenue d'un conflit parental durant cette période avec la perte d'un être cher qui est la grand-mère maternelle. La patiente ne rapportait aucun traumatisme précédent ces épisodes ni d'autres symptômes locaux associés. Quatre épisodes de saignement sont survenus durant le premier jour d'hospitalisation en présence du staff médical et paramédical, ce qui a permis d'éliminer toute simulation ou pathomimie (Figure 1).



Figure 1 : Sueurs sanglantes au niveau du visage et des paumes des mains.

L'examen clinique était sans particularités. L'examen cutané était normal. Les faces palmoplantaires étaient indemnes de lésion.

Question :

Quel est votre diagnostic ?

Quelles autres explorations demanderiez-vous ?

Auteur correspondant :

Dr Ben Rabeh Trabelsi Rania

Mail : raniabenrabeh@gmail.com



Hématidrose et hémolacrie : Maladie exceptionnelle chez l'enfant Diagnostic et prise en charge

**Ben RabeH. R^(1,2), Kaddour. F^(1,2), Sassi. W^(1,3), Hafsi. W^(1,3), Missaoui. N^(1,2),
Atitallah. S^(1,2), Mazigh. S^(1,2), Boukthir. A^(1,2)**

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

⁽²⁾ Hôpital d'enfants Béchir Hamza de Tunis, service de médecine infantile C

⁽³⁾ Hôpital LA RABTA, service de dermatologie

OBSERVATION :

Il s'agissait d'une fille âgée de 9 ans, à la peau brune, sans antécédents personnels et familiaux particuliers. Elle a été hospitalisée pour sueurs et larmes sanglantes débutant 10 jours avant l'admission. Il s'agissait d'épisodes récidivants de sécrétions cutanées sanglantes spontanées au niveau du visage, en sous mammaire, au niveau de l'extrémité distale de la jambe droite et des paumes des deux mains associées à des larmes sanglantes spontanées. L'interrogatoire a révélé la présence d'un conflit parental durant cette période et le décès de la grand-mère maternelle qu'elle l'a élevée. La patiente ne rapportait aucun traumatisme précédent ces épisodes ni d'autres symptômes locaux associés. Quatre épisodes de saignement sont survenus durant le premier jour d'hospitalisation en présence du staff médical et paramédical, ce qui a permis d'éliminer toute simulation ou pathomimie. L'examen clinique était sans particularités. L'examen cutané était normal. Les faces palmoplantaires étaient indemnes de lésion. Le bilan d'hémostase était correct : taux des plaquettes : 236 000/mm³ ; taux de prothrombine : 96% ; temps de céphaline activée rapport patient/témoin : 0,94 ; temps de saignement à 4 minutes par la technique d'Ivy. Une biopsie cutanée a été pratiquée deux jours après le dernier épisode de saignement, au niveau de la face antéro-externe de la partie distale de la jambe droite (là où sont apparues les sécrétions sanglantes). L'examen histologique de la biopsie cutanée a montré un tissu cutané recouvert par un épiderme d'aspect normal sans éléments inflammatoires, des glandes sudoripares et sébacées sans anomalies avec absence d'extravasation d'hématies ou de pigments intracellulaires.

DIAGNOSTIC :

Les hypothèses diagnostiques qui ont été évoquées chez notre patiente après avis des dermatologues étaient principalement deux. La première

était la sécrétion d'une sueur colorée dans le cadre d'une chromidrose qui est très rare ou d'une pseudochromidrose. La deuxième était l'hématidrose qui est également exceptionnelle et qui se distingue de la chromidrose et de la pseudochromidrose par la présence d'éléments figurés du sang, notamment les globules rouges, dans la sueur. Le diagnostic de l'hématidrose a été retenu chez notre patiente devant l'âge, l'anamnèse qui a révélé la présence d'un stress émotionnel, l'association avec une hémolacrie, la normalité des examens clinique et biologique et l'absence de pigments colorés à l'histologie ce qui a permis d'éliminer la chromidrose et la pseudochromidrose. L'absence d'hématies dans la sueur n'élimine pas le diagnostic d'hématidrose d'autant plus que la biopsie cutanée a été faite deux jours après le dernier épisode de saignement. La patiente a été mise alors mise sous Propranolol 40 mg/j avec une prise en charge en pédopsychiatrie et une psychothérapie de soutien. L'évolution était favorable sans récurrence des sécrétions sanglantes avec un recul de cinq mois.

DISCUSSION :

Nous avons rapporté cette observation car l'hématidrose ou hémato-hidrose est maladie exceptionnelle et mystérieuse mais accessible à un traitement. D'abord l'hématidrose est une affection rare dont la pathogénie est incomplètement connue. Elle se manifeste par la survenue d'épisodes de sueurs sanglantes spontanées en provenance d'une peau intacte non traumatisée, des yeux (hémolacrie) ou des oreilles [1,2]. Il s'agit d'une affection bénigne touchant principalement les filles entre 9 et 15 ans. Elle survient souvent après un facteur déclenchant comme un stress émotionnel ou une anxiété sévère [3]. C'était le cas de notre patiente. Les épisodes de saignement sont de fréquence et de durée variables et sont souvent précédés par des symptômes locaux à type de picotements ou de sensation de tension localisée. Ces prodromes n'ont pas été décrits

Auteur correspondant :

Dr Ben RabeH Trabelsi Rania

Mail : raniabenrabeH@gmail.com

par notre patiente. L'hématidrose peut survenir sur tout le corps mais touche préférentiellement le visage, les membres supérieurs et l'ombilic [4]. L'hypothèse étiopathogénique évoquée par certains auteurs stipule que les capillaires péri-glandulaires situés autour des glandes sudoripares subissent une vasoconstriction sous l'effet d'un stress, par activation du système nerveux sympathique, et peuvent se rompre [5, 6]. Le sang s'infiltré dans les glandes sudoripares et se mélange avec la sueur. Le sang extravasé a des composants cellulaires identiques à ceux du sang périphérique [7]. D'autres auteurs ont suggéré une vascularite comme mécanisme pathologique de la maladie [5]. Chez notre enfant, aucune maladie systémique sous-jacente n'a été trouvée, la biopsie cutanée était normale. L'entretien avec le pédopsychiatre a révélé que la fille était anxieuse et qu'elle a exprimé sa peur des disputes parentales répétées et des conflits violents entre les parents. L'hématidrose doit être distinguée de la chromidrose qui est une affection exceptionnelle caractérisée par l'excrétion d'une sueur colorée provoquée par la synthèse de pigments d'une nature inconnue, les pigments lipofuchsiniques. La sueur sécrétée lors d'une chromidrose prend une teinte variable : rougeâtre, jaunâtre, bleuâtre, verdâtre ou noirâtre. Habituellement, cette affection ne nécessite aucun traitement [8,9]. L'hématidrose doit être également distinguée de la pseudochromidrose qui est plus fréquente et qui correspond à une coloration anormale de la sueur par des vêtements colorés ou par une prolifération cutanée bactérienne ou mycosique (*Malassezia Globosa* et *Bacillus* sp. sont les germes les plus fréquemment incriminés). Le diagnostic est facile car la coloration de la peau disparaît lorsque l'on frotte avec un linge mouillé. Un traitement topique de la prolifération bactérienne ou mycosique est proposé [8]. Bien qu'extrêmement rare et n'ayant pas des preuves scientifiques claires pour étayer son mécanisme, l'hémato-hidrose est réelle et a été rapportée pendant des années à travers le monde. Des explications religieuses ont été attribuées à cette affection car La Bible mentionne que Jésus-Christ versa des larmes de sang en priant avant la crucifixion. C'est pour cette raison qu'elle reste une maladie mystérieuse. Le diagnostic repose sur la constatation du saignement, le contexte clinique et la normalité de l'examen cutané ainsi que du bilan d'hémostase. La biopsie cutanée apporte des arguments importants au diagnostic si elle est réalisée immédiatement au décours de l'épisode. La biopsie en dehors des épisodes de saignement ne révèle aucun espace vasculaire rempli de sang, ni de saignement intradermique ni d'anomalies des glandes sébacées ou sudoripares [1]. Le traitement de l'hémato-hidrose n'est pas bien élucidé car les cas rapportés sont sporadiques et isolés. L'efficacité du propranolol a été rapportée [10]. L'atropine transdermique s'est avérée efficace pour diminuer la gravité et fréquence des épisodes d'écoulement sanguin [1,11]. Certains antiépileptiques ont prouvé leur efficacité, tels que le Lorazé-

pam [4]. Chez notre patiente, la rémission a été obtenue grâce au traitement pharmacologique qui est le bêtabloquant et à la psychothérapie de soutien.

CONCLUSION :

Bien que le phénomène de saignement soit effrayant, il ne semble pas affecter l'état de santé général de l'enfant et l'évolution dans la majorité des cas décrits était favorable. L'hématidrose est exceptionnelle chez l'enfant mais doit être considérée comme un diagnostic différentiel des épisodes hémorragiques cutanés chez un enfant présentant un examen physique normal et un bilan d'hémostase correct. Il faut surveiller le malade et objectiver ces épisodes pour ne pas retenir un trouble factice ou une pathomimie et aggraver les troubles psychiques de l'enfant alors qu'il souffre d'une affection réelle qui peut être traitée efficacement.

REFERENCES :

- [1] Shahgholi E. A case series of hematohidrosis: a puzzling medical phenomenon. *Turk J Pediatr.* 2018;60(6):757.
- [2] Tshifularo M. Blood otorrhea: Blood stained sweaty ear discharges: Hematohidrosis; four case series (2001–2013). *Am J Otolaryngol.* 2014;35(2):271–3.
- [3] Cuvelier M, Duret C, Maillard H, Gillard M, Modiano P. Hématidrose : des larmes sanglantes. *Ann Dermatol Vénéréologie.* 2019;146(12):A291.
- [4] Murota H, Kotobuki Y, Yamaga K, Yoshioka Y. Female child with hematohidrosis of the palm: Case report and published work review. *J Dermatol.* 2020;47(2):166–8.
- [5] Jayaraman AR, Kannan P, Jayanthini V. An Interesting Case Report of Hematohidrosis. *Indian J Psychol Med.* 2017;39(1):83–5.
- [6] Jaju B, Phiske M, Lade N, Jerajani H. Hematohidrosis – A rare clinical phenomenon. *Indian J Dermatol.* 2009;54(3):290.
- [7] Manonukul J, Wisuthsarewong W, Chantorn R, Vongirad A, Omeapinyan P. Hematohidrosis: A Pathologic Process or Stigmata. A Case Report With Comprehensive Histopathologic and Immunoperoxidase Studies. *Am J Dermatopathol.* 2008;30(2):135–9.
- [8] Passeron T. Troubles pigmentaires. *EMC - Traité Médecine AKOS.* 2011;6(4):1–10.
- [9] Murray M. CHROMIDROSIS: Report of a Case. *Arch Dermatol Syphilol.* 1940;41(2):379.
- [10] Wang Z, Yu Z, Su J, Cao L, Zhao X, Bai X, et al. A Case of Hematohidrosis Successfully Treated with Propranolol: *Am J Clin Dermatol.* 2010;11(6):440–3.
- [11] Biswas S, Surana T, De A, Nag F. A curious case of sweating blood. *Indian J Dermatol.* 2013;58(6):478.