

L'hydatidose scapulohumérale : à propos d'une nouvelle observation en Tunisie

Scapulohumeral hydatidosis: a new case in Tunisia

W. Hamdi · Y. Jeridi · M. Bouaziz · D. Kaffel · M.M. Ghannouchi · M.M. Kchir

Reçu le 02 2011 ; accepté le 21 2011
© Société de pathologie exotique et Springer-Verlag France 2011

Résumé Les localisations osseuses de l'hydatidose représentent 0,5 à 2,5 % des cas. L'atteinte des articulations périphériques est rare et celle de la scapulohumérale est exceptionnelle. Une patiente âgée de 39 ans, vivant en milieu rural, consulte pour douleur et tuméfaction de l'épaule droite apparues une semaine après un traumatisme minime. À l'examen, l'épaule droite est tuméfiée et douloureuse avec un blindage de sa face antérieure et limitation de la mobilité articulaire. Les radiographies de l'épaule, la TDM et l'IRM ont montré des images lacunaires, multiples, de taille variable, intéressant la scapula, la partie supérieure de l'humérus avec présence d'une fracture du col chirurgical de l'humérus associée à de multiples lésions kystiques calcifiées musculaires très évocatrices d'hydatidose scapulohumérale. La sérologie hydatique par hémagglutination indirecte était positive (1/280). Un traitement radical par désarticulation a été proposé mais refusé par la patiente. Un traitement antiparasitaire à base d'albendazole lui a été prescrit, mais arrêté pour toxicité hépatique après la troisième cure. L'hydatidose scapulohumérale est très rare, extensive, agressive et assimilée à une tumeur à malignité locale de traitement difficile. *Pour citer cette revue : Bull. Soc. Pathol. Exot. 104 (2011).*

Mots clés Hydatidose · Scapula · Humerus · TDM · IRM · Manouba · Tunisie · Maghreb · Afrique du Nord

Abstract Osseous hydatidosis is reported in only 0.5–2.5% of the cases. The scapulohumeral localization is extremely rare. A 39-year-old woman, born in a rural area of Tunisia, presented swelling and tenderness of the left shoulder with limited motion 7 days after a minor trauma. Plain radio-

graphs, CT and MRI showed osteolytic scapulohumeral lesions, cortical rupture and multiple cysts in the muscles, which were suggestive of hydatidosis. Indirect haemagglutination test using hydatid antigen was positive (1/280). The patient refused radical surgery and underwent resection of axillary cysts. Albendazole was given in the recommended dose but was stopped immediately due to hepatic toxicity. Scapulohumeral hydatidosis is extremely rare, often invasive and behaves like a locally malignant bone tumour. Its treatment is also difficult. *To cite this journal: Bull. Soc. Pathol. Exot. 104 (2011).*

Keywords Hydatid disease · Scapula · Humerus · CT · MRI · Manouba · Tunisia · Maghreb · Northern Africa

Introduction

L'hydatidose (échinococcose hydatique) est une zoonose due à la larve d'*Echinococcus granulosus*. Cette maladie est encore endémique dans certaines régions de la Tunisie. Les localisations osseuses représentent 0,5 à 2,5 % de l'ensemble des localisations et intéressent essentiellement le rachis (46 %) et le pelvis [10]. L'atteinte des articulations périphériques est rare et celle de la scapulohumérale est exceptionnelle.

Observation

Mme C.Z., âgée de 39 ans, vivant en milieu rural, opérée en 1994 pour kyste hydatique du foie, consulte pour douleur et tuméfaction de l'épaule droite apparues une semaine après un traumatisme minime. À l'examen, l'épaule droite est tuméfiée et douloureuse avec un blindage de sa face antérieure et limitation de la mobilité articulaire. Il n'y a pas de signes inflammatoires locaux. La température est normale,

W. Hamdi (✉) · Y. Jeridi · M. Bouaziz · D. Kaffel · M.M. Ghannouchi · M.M. Kchir
Service de rhumatologie, institut Kassab, Ksar-Said, Manouba, 2010 Tunis, Tunisie
e-mail : wafahamdi@yahoo.fr



Fig. 1 Radiographie de l'épaule gauche de face : lésions lytiques multiloculaires intéressant la scapula et les deux tiers supérieurs de l'humérus avec pincement glénohuméral, fracture diaphysaire et opacité avec fines calcifications des tissus mous / *Radiograph of left shoulder: expansive multicystic lesion involving the scapula and the upper two third of the humerus with loss of joint space, humeral fracture and soft tissue calcifications*

l'état général conservé et l'examen somatique sans particularités. Le bilan biologique est normal. Les radiographies de l'épaule montrent des images lacunaires, multiples, de taille variable, intéressant la scapula, la partie supérieure de l'humérus avec présence d'une fracture du col chirurgical de l'humérus et de calcifications des tissus mous périarticulaires (Fig. 1). À la TDM, ces lésions kystiques intéressent le processus coracoïde, le col, la glène, l'écaïlle de la scapula et les deux tiers supérieurs de l'humérus avec destruction de la corticale et présence d'autres lésions kystiques, partiellement calcifiées au niveau des muscles subscapulaire, petit rond, triceps, coracobiceps et deltoïde. À l'IRM, ces lésions kystiques osseuses et musculaires sont en hyposignal T1 et en hypersignal T2, sans rehaussement après injection de gadolinium (Fig. 2). La sérologie hydatique par hémagglutination indirecte est positive (1/280). La recherche d'autres



Fig. 2 IRM de l'épaule gauche (coupe frontale) : lésions multivésiculaires en hypersignal T2 intéressant l'extrémité proximale de l'humérus, la scapula et les tissus mous adjacents / *MRI of left shoulder: multicystic extensive lesion of the humerus, scapula and soft tissues hyperintense on T2-weighted image*

localisations hydatiques est négative. Devant cette hydatidose scapulohumérale extensive, un traitement radical par désarticulation a été proposé, mais refusé par la patiente. Un traitement antiparasitaire à base d'albendazole (10 mg/kg par jour en cures de quatre semaines espacées de deux semaines) lui a été prescrit, mais arrêté pour toxicité hépatique après la troisième cure (élévation des ALAT et des ASAT à trois fois la normale). Cette cytolyse a régressé après arrêt du traitement. Finalement, la patiente a bénéficié d'une ablation d'un kyste de la cavité glénoïdienne à développement axillaire et d'une stabilisation du bras par du ciment intramédullaire afin d'améliorer la mobilité articulaire. L'évolution a été marquée par la stabilité des lésions avec un recul de 12 mois.

Discussion

Les localisations osseuses de l'hydatidose sont rares et prédominant au rachis (46 %) particulièrement dorsal, suivi respectivement par le bassin (28 %), les os longs (15 à 30 %) puis les côtes, le calcanéum, les phalanges, le crâne et le

sternum [10]. Les localisations humérales et scapulo-humérales sont très rares [1,2,5,7,9]. Le parasite se fixe d'abord au niveau de la métaphyse, s'étend vers la diaphyse et les épiphyses et par la suite vers les pièces osseuses avoisinantes et les parties molles.

Cliniquement, le caractère insidieux de la maladie et la longue latence clinique, du fait de l'évolution lente du parasite, font que les délais de consultation sont souvent très tardifs [10]. Cependant, l'hydatidose est parfois révélée au stade de complications, à type de tuméfaction ou de fracture, comme c'est le cas de notre observation. L'imagerie constitue l'élément clé du diagnostic. Ainsi, l'aspect radiologique multiloculé en « nid-d'abeille » est très évocateur par l'absence de délimitation nette de la destruction osseuse, d'ostéocondensation et de réaction périostée. Cependant, il n'est pas rare d'observer une limite nette, voire un liseré fin d'ostéocondensation réactionnelle [3]. La forme globale de l'os est longtemps respectée. Les modifications de la forme générale des os et de l'interligne articulaire sont tardives et témoignent de l'évolution lente de l'hydatidose [3,10]. La TDM montre des lésions de densité hydrique souvent associées à des vésicules filles dans les tissus mous adjacents [5,7] comme c'est le cas de notre patiente. L'IRM est l'examen de choix pour confirmer le diagnostic et faire le bilan lésionnel. Les vésicules hydatiques apparaissent en hyposignal T1 et en hypersignal T2, sans rehaussement après injection de gadolinium [2]. Par ailleurs, la localisation hydatique scapulo-humérale extensive, voire pseudotumorale peut poser des problèmes de diagnostic avec les tumeurs kystiques, en particulier le kyste anévrisimal [1,2,6].

Dans notre observation, le diagnostic d'hydatidose scapulo-humérale a reposé sur les antécédents d'échinococcose viscérale, les données très évocatrices de l'imagerie et la positivité de l'hémagglutination indirecte. Parfois, seuls l'abord chirurgical ou la biopsie des lésions permettent d'affirmer la nature hydatique de la lésion [1,5,7].

Le pronostic péjoratif de l'hydatidose rejoint celui d'une tumeur à malignité locale. La fistulisation et la suppuration sont également redoutables [7]. Ainsi, le traitement est médicochirurgical [1,7]. La chirurgie doit être de type « carcinologique » afin d'éviter les rechutes [9]. La résection en bloc peut être efficace dans les formes segmentaires. Cependant, dans les formes diffuses, l'amputation ou la désarticulation restent la seule issue. L'abstention n'est pas exceptionnelle lorsque les lésions sont au-delà de toute ressource chirurgicale [10].

L'efficacité des dérivés benzoimidazolés est diversement appréciée [1,7]. Initialement, ces molécules ont été proposées pour les formes inopérables d'hydatidose. Ultérieurement, elles ont été prescrites pour la réduction de la taille des kystes, la stérilisation de leurs contenus avant la

chirurgie et en postopératoire pour traiter les petits kystes passés inaperçus [6]. Le mécanisme d'action de l'albendazole est d'entraver l'absorption du glucose par le parasite. Les résultats du traitement médical des kystes hydatiques restent variables selon les séries, avec un taux de succès allant de 43,5 à 80 % [4]. La tolérance clinique et biologique est bonne, même pour des posologies élevées pendant des périodes prolongées. Des effets minimes d'ordre digestif (nausée, vomissement, diarrhée) ont été rapportés ainsi qu'une toxicité hépatique à type de cytolyse (3 à 16 %) incitant à un contrôle régulier de la fonction hépatique [8]. Enfin, la prévention reste la meilleure stratégie en zone d'endémie.

Conclusion

Notre observation est particulière par la localisation scapulo-humérale de l'hydatidose qui est très rare, extensive, agressive et assimilée à une tumeur à malignité locale de traitement difficile.

Conflit d'intérêt : les auteurs déclarent ne pas avoir de conflit d'intérêt.

Références

1. Aslan B, Aslan G, Ozardali I (2001) Multilocular echinococcosis in humerus: a case report. *J Egypt Soc Parasitol* 31(3):961–2
2. Khadraoui MB, Arifa-Achour N, Mhiri-Souei M, et al (2005) Apport de l'IRM dans le diagnostic d'une hydatidose humérale pseudotumorale. *Rev Chir Orthop Reparatrice Appart Mot* 91(4):341–5
3. Ladeb MF, Kchouk M, Jelidi R (1998) Hydatidose osseuse. In: Laredo JD, Morvan G, Vibio M (eds) *Imagerie ostéoarticulaire*. Flammarion Médecine-Sciences, Paris
4. Loudiyé H, Aktaou S, Hassikou H, et al (2003) Hydatid disease of bone. Review of 11 cases. *Joint Bone Spine* 70(5):352–5
5. Markonis A, Tavernaraki A, Papaevangelou M (2001) Humeral hydatid cyst complicated with extraosseous involvement: a case of unusual location of echinococcosis. *Eur J Radiol* 37(2):130–3
6. Morris BS, Madiwale CV, Garg A, Chavhan GB (2002) Hydatid disease of bone: a mimic of other skeletal pathologies. *Austral Radiol* 46(4):431–4
7. Sapunar J, Velasco M (2000) Scapular hydatidosis with extraosseous involvement. *Bol Chil Parasitol* 55(3–4):65–9 [Article in Spanish]
8. Steiger U, Cotting J, Reichen J (1990) Albendazole treatment of echinococcosis in humans: effects on microsomal metabolism and drug tolerance. *Clin Pharmacol Ther* 47(3):347–53
9. Unc OD, Steriu L, Iordache I (2010) Rare forms of hydatid cyst. Case reports. *Chirurgia (Bucur)* 105(1):103–7 [Article in Romanian]
10. Zlitni M, Ezzaouia K, Lebib H, et al (2001) Hydatid cyst of bone: diagnosis and treatment. *World J Surg* 25(1):75–82