

Dirofilariose humaine en Corse : un nouveau cas autochtone. Révision des cas déjà publiés.

S. Pampiglione (1), R. Peraldi (2) & J. P. Burelli (3)

1. Dipartimento di sanità pubblica veterinaria, Università di Bologna, Italie. Correspondance : Pr S. Pampiglione, Università degli Studi di Bologna, Laboratorio di parassitologia, Via Tolara di Sopra 50, 40064 Ozzano Emilia (BO) Italia. Tél.: 051-792002. Fax.: (0)51-792039.

2. Service d'anatomie et de cytologie pathologiques, Centre hospitalier d'Ajaccio, Corse, France.

3. Laboratoire d'anatomo-cytopathologie, Centre hospitalier d'Ajaccio, Corse, France.

Manuscrit n° 2049. "Parasitologie". Reçu le 10 mars 1999. Accepté le 9 juin 1999.

Summary: Human *Dirofilariasis* In Corsica: A New Local Case. A Review of the Reported Cases.

A case of human *dirofilariasis* with *Dirofilaria* (*Nochtiella*) *repens*, located in a subcutaneous nodule of the arch of the foot is reported in a 64 - year - old man living in the surroundings of Porto Vecchio in Corsica. The histological examination of this nodule has revealed a gravid female nematode, dead some weeks or months before its surgical excision. It is the second case of human *dirofilariasis* observed in a patient living on the island. The authors are surprised by the number of patients reported in medical literature (10 altogether) as having contracted the infection probably during a short stay in Corsica. This paper seeks to collect the fragmented available data on the existence in Corsica of nematodes in dogs and its possible vectors.

Résumé :

Un cas de *dirofilariose* à *Dirofilaria* (*Nochtiella*) *repens*, localisée dans un nodule sous-cutané de la voûte du pied, est rapportée chez un homme de 64 ans résidant dans les environs de Porto Vecchio en Corse. L'examen histologique de ce nodule a mis en évidence un nématode femelle gravide, morte depuis plusieurs semaines, voire quelques mois avant son exérèse chirurgicale. C'est le 2ème cas de *dirofilariose* humaine observé chez un sujet habitant l'île. Les auteurs sont surpris du nombre de sujets (10 au total) signalés dans la littérature comme ayant probablement contracté la parasitose lors d'un bref séjour en Corse. Ils s'efforcent de rassembler les données fragmentaires de la littérature sur la présence en Corse du nématode chez le chien et sur les éventuels vecteurs.

Dirofilaria repens
man
subcutaneous tissue
dog
Corsica
Southern Europe

Dirofilaria repens
homme
tissu sous-cutané
chien
Corse
Europe méridionale

Introduction

La dirofilariose humaine est une zoonose helminthique consécutive à des nématodes du genre *Dirofilaria* (*Filarioidea*, *Onchocercidae*). Si elle est désormais bien connue des parasitologues et des pathologistes, elle mériterait de l'être davantage des médecins non spécialisés. Parmi les 27 espèces identifiées de ce genre (5) parasitant plus de 100 espèces de mammifères réparties sur de très vastes territoires géographiques et liées à la présence des hôtes et des vecteurs spécifiques, seule, *Dirofilaria* (*Nochtiella*) *repens* affecte l'homme dans l'Ancien Monde. Il n'est pas exclu cependant que *D. (Dirofilaria) immitis* soit également en cause, mais les rares cas publiés ne sont pas suffisamment documentés pour en tirer des conclusions définitives.

D. (N.) repens est un parasite habituel du tissu sous-cutané du chien, moins fréquemment du chat et de quelques carnivores sauvages. Il est transmis par des moustiques des genres *Aedes*, *Culex*, *Anopheles*, hôtes intermédiaires obligés. L'homme est atteint accidentellement par des moustiques infectés. La localisation préférentielle est, comme chez le chien, sous-cutanée; l'incubation, de la pénétration du parasite jusqu'à sa maturation en adulte, est à peu près de 6 mois, mais souvent des manifestations de maladie apparaissent déjà après une période plus limitée. Le parasite provoque généralement la formation d'un nodule inflammatoire accompagné de prurit, d'érythème et

d'œdème localisés; mais on peut avoir des cas où le nématode, émigrant du lieu de sa pénétration, s'insinue sous la conjonctive et devient apparent par transparence dans l'œil (d'où le nom de *D. conjunctivae* aujourd'hui tombé en désuétude, que lui avait attribué ADDARIO en 1885) (1). Plus rarement, il peut s'égarer dans un viscère, en particulier dans les poumons. La maladie n'est presque jamais diagnostiquée cliniquement. Ses manifestations cutanées sont interprétées soit comme une tumeur bénigne (kyste épidermoïde ou sébacé, histiocytofibrome...), soit comme une réaction inflammatoire nodulaire due à un corps étranger. Dans ses localisations mammaires, génitales masculines et pulmonaires, elle passe souvent pour une tumeur maligne, donnant lieu à des interventions inutiles sinon même mutilantes.

Dans le Nouveau Monde, au Japon et en Australie, où *D. (N.) repens* n'est pas signalée, les cas de dirofilariose humaine sont provoqués par d'autres dirofilaires: *D. (D.) immitis*, parasite également du chien, mais à localisation cardiaque, *D. (N.) tenuis*, parasite sous-cutané du raton laveur et *D. (N.) ursi*, parasite sous-cutané de l'ours.

En France, on a décrit une soixantaine de cas de dirofilariose humaine, dont à peu près 50 ces vingt dernières années. La parasitose affecte particulièrement la côte méditerranéenne et la Corse, territoires où l'on en a observé 81% des cas (17). Le cas qu'on va décrire concerne un sujet résidant en Corse en permanence, observé en 1992 et non encore publié.

Observation

M. V. R. est un homme de 64 ans, résidant depuis 1982 dans la région de Pinarello, au nord de Porto Vecchio, à 500 mètres du bord de mer, dans une zone humide (marais, étangs). Passionné de pêche et de chasse, il a toujours eu un chien apparemment en bonne santé.

Fin 1989, il ressent une douleur à la marche au niveau d'un nodule hypodermique non prurigineux de la voûte plantaire. En 1990, une biopsie ne ramène qu'un matériel non significatif. Le nodule, ayant grossi et gênant de plus en plus la marche, est excisé en totalité en 1992, soit plus de 2 ans après son apparition.

M. V. R. vécut durant 17 ans à Douala (Cameroun) où il contracta une filariose qui fut traitée et guérie comme en témoignait la disparition de sa microfilarémie et des signes cliniques (prurit). Lors de son rapatriement en 1982, il partagea son temps entre Paris et la Corse où il s'installa à demeure en 1984. Le nodule apparut donc 8 ans après son retour d'Afrique tropicale.

La filariose contractée en Afrique, non précisée, semble correspondre soit à une loase, soit à une wuchereriose en raison de la microfilarémie, soit plutôt à une forme due à *Mansonella perstans* du fait de la symptomatologie très modeste et non à une onchocercose.

Tableau histopathologique et parasitologie

Le nodule de 1 cm de diamètre est constitué par une épaisse couche fibreuse infiltrée de nombreux éléments inflammatoires lympho-histio-plasmocytaires et granulocytaires, notamment des éosinophiles.

À l'intérieur, l'observation microscopique met en évidence 4 sections para-transversales et une transversale d'une formation tubulaire en très mauvais état de conservation, correspondant à un nématode d'un diamètre variant de 260 à 290 µm. On peut distinguer la cuticule, de 8 à 10 µm d'épaisseur, en partie fissurée par des clivages, présentant du côté externe des dentelures reconnaissables seulement sur quelques segments et souvent recouvertes de matériel amorphe ou granuleux provenant de la nécrose tissulaire environnante. Ces dentelures sont espacées de 6 à 12 µm et d'une hauteur de 2 à 4 µm. À l'intérieur de la cuticule, l'hypoderme, les lignes latérales et le tissu myoïde, altérés par des phénomènes de régression, forment des amas plus ou moins conglutinés, amorphes. Dans ce matériel amorphe, se reconnaissent bien deux tubules appartenant à l'appareil génital femelle du nématode, dont un contient de nombreuses microfilaires pelotonnées, d'environ 5 µm d'épaisseur et de longueur indéterminable à cause de leur tassement. Un 3ème tubule associé, de diamètre réduit, peut correspondre à l'intestin.

Ces éléments morphologiques nous permettent de préciser que ce nématode, mort probablement depuis plusieurs semaines, voire quelques mois avant son ablation, est un exemplaire gravide de *Dirofilaria (Nochtiella) repens*.

Discussion

La présence de *D. (N.) repens* chez l'homme en Corse est connue depuis plusieurs décennies : DESPORTES (10) a été le premier à signaler un cas autochtone, il y a 60 ans, à localisation sous-mammaire, chez une femme de 40 ans, résidant dans les environs d'Ajaccio et n'ayant jamais quitté l'île. Depuis lors, durant près de 40 ans, cette zoonose méconnue et peu documentée dans la littérature médicale internationale ne fut plus signalée en Corse, sans doute en raison de son apparente rareté et de sa symptomatologie peu évocatrice. En 1977 et 1984, PETITHORY et ROUSSET (comm. pers.) ont signalé une dirofilariose chez 4 sujets résidant en Bretagne dont 3 avaient séjourné en Corse. Comme la Bretagne ne semble pas être une zone d'endémie à *D. (N.) repens*, tant chez le chien (6) que chez l'homme (17), on peut supposer que ces 3 sujets avaient

Figure 1.

Vue d'ensemble d'une coupe du nodule montrant 4 sections du nématode (Hématoxiline/éosine, x 42).
Overall view of a part of the nodule showing 4 sections of the nematode (H/E, x 42).

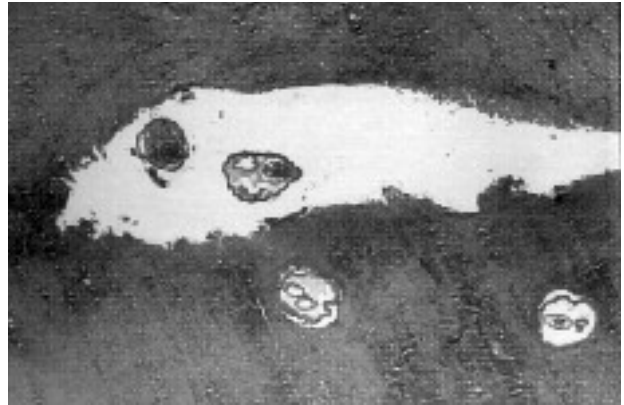
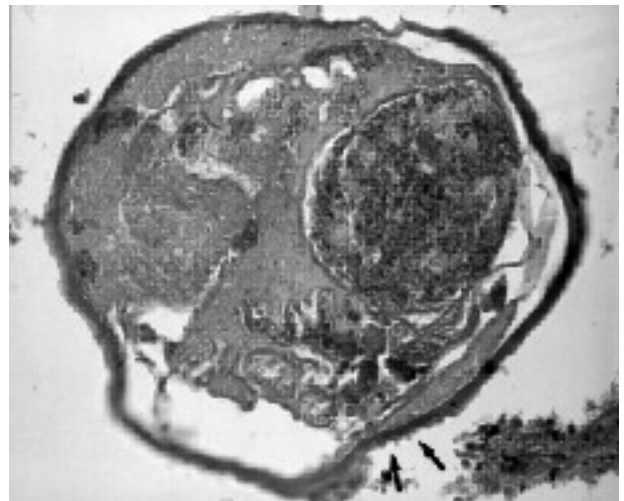


Figure 2.

Coupe transversale du nématode remanié par des phénomènes régressifs. La cuticule, très altérée, conserve encore quelques dentelures externes (flèches) (Hématoxiline/éosine, x 250).

A transverse section of the nematode with regressive phenomena. The strongly altered cuticle shows some external ridges (arrows) (H/E, x 250).



contracté la zoonose en Corse. Trois autres cas ont ensuite été signalés successivement par LAPIERRE et coll. (16), De GENTILE et coll. (9), NOZAI et coll. (18) concernant des sujets ayant passé leurs vacances d'été dans l'île. En 1996, GROS et coll. (12) en ont observé également un chez un jeune homme d'origine corse qui, bien qu'habitant sur le continent, allait tous les étés en vacances en Corse. À ces 7 cas, dont 4 sous-cutanés, 1 gingival, 1 musculaire et 1 péri-rectal, on peut en ajouter 3 autres à localisation pulmonaire, opérés en Allemagne chez des sujets ayant séjourné pendant l'été en Corse et attribués selon les auteurs (14, 23, 24) à *D. (D.) immitis*. Cependant, chez ces 3 sujets, le nématode était profondément altéré par des phénomènes de nécrose sur les coupes histologiques, si bien que ses caractères morphologiques ne sauraient être distingués formellement de ceux de *D. (N.) repens*.

Dans notre cas, l'âge du sujet, ses antécédents, la localisation sous-cutanée du parasite, la symptomatologie et le diagnostic clinique, de prime abord erroné puis rectifié lors de l'examen histologique du nodule, ne diffèrent guère des observations publiées dans les zones d'endémie en Europe, et notamment en France. Il s'en distingue malgré tout par une particularité intéressante et rare concernant le parasite dont l'utérus contenant des microfilaires (femelle gravide) témoigne de l'exis-

Figure 3.

Détails d'une autre section du nématode où l'on peut distinguer des dentelures (flèches) sur la surface cuticulaire externe (Hématoxiline/éosine, x 500)
Detail of other section of the nematode where the ridges on the external surface of the cuticula (arrows) are visible (H/E, x 500).

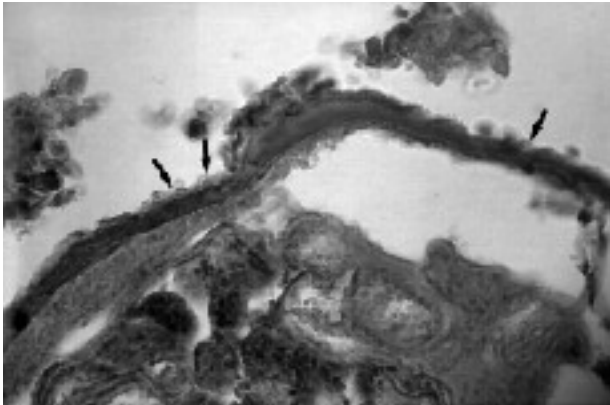
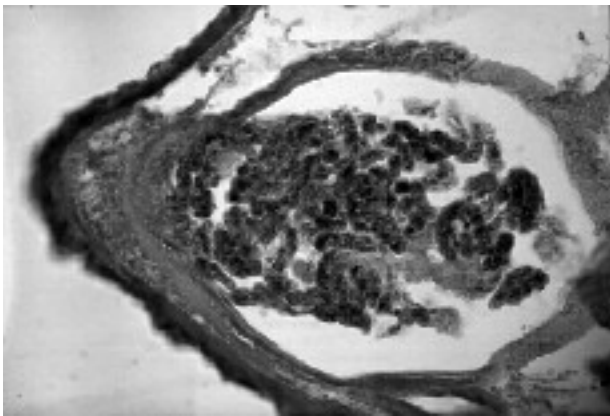


Figure 4.

Détail d'une autre section montrant, à l'intérieur d'un tubule génital femelle, la présence de nombreuses microfilaries (Hématoxiline/éosine, x 500).
Detail of other section, showing the presence of microfilariae in a female genital tube (H/E, x 500).



tence contemporaine d'un mâle passé inaperçu, probablement tué et détruit par les réactions de défense de l'hôte. Il est plutôt surprenant que, parmi les cas de dirofilariose signalés en France, les 2 seuls qui présentent des filaires gravides, en plus du nôtre, ont été contractés en Corse (16, 18). Dans la liste des cas observés par l'un des auteurs (S.P.) en Italie, la présence d'une femelle gravide est une éventualité plutôt rare, signalée 3 fois sur 90 cas de dirofilariose humaine étudiés.

Dans notre cas, le diagnostic de filariose africaine a pu être exclu en raison de l'apparition du nodule huit ans après le retour en France, de l'absence de microfilarémie durant toutes ces années et enfin de la morphologie du parasite.

En Corse, chez le chien, la dirofilariose à *D. (N.) repens* a été signalée par DAVOUST et DUCOSDE LAHITTE (8) qui ont examiné 32 chiens du chenil militaire de Solenzara (côte orientale de l'île), découvrant des microfilaries sanguicoles chez 24 d'entre eux (75 %), dont une majorité de *D. (N.) repens*.

En ce qui concerne les moustiques, vecteurs probables du parasite, AITKEN (3) a relevé l'existence dans l'île des genres *Aedes*, *Anopheles* et *Culex* représentés respectivement par 12 - 11 et 8 espèces (5 - 4 et 6 selon LANZALAVI) (15), dont plusieurs ont une capacité vectorielle reconnue pour *D. N. repens* comme par exemple *Ae. caspius* et *Ae. detritus* (4), *Ae. vexans*, *C. pipiens*, *An. claviger* et *An. maculipennis* (7). Parmi ces espèces, LANZALAVI (15), dans sa thèse dirigée notamment par le Pr NICOLI R.M., a observé dans 76 stations couvrant toute la Corse : *Ae. caspius*, *C. pipiens*, *An. claviger* et *An. maculipennis*.

Sur les 12 patients recensés, 2 seulement résident en Corse, dont le nôtre ; les 10 autres sont des vacanciers, y compris peut-on dire celui de GROS et coll. qui, bien que corse d'origine, habite sur le continent. Certes, on peut considérer que compte tenu de la faible population de l'île (250000 habitants), il est normal que les touristes, 6 fois plus nombreux (1400000 selon l'INSEE de mai à septembre en 1997) (13), soient 6 fois plus atteints que les résidents. Cependant, étant donné que les insulaires habitent pour la plupart en permanence sur le littoral (21) *a priori* en zone endémique, il est surprenant que la dirofilariose les épargne davantage alors qu'ils ne sont certainement pas plus immunisés que les Sardes par exemple. En effet, en Sardaigne pourtant très visitée en été, sur 7 patients, 1 seul est un touriste (19). Il est vrai qu'aujourd'hui les gens voyagent beaucoup, si bien que la région d'origine de la parasitose n'est pas toujours certaine, comme pour le cas de De GENTILE et coll. (9) contracté en Corse ou en Provence. Il est encore prématuré, compte tenu des 2 seuls cas actuellement observés dans l'île même, d'établir une carte concernant la répartition géographique de la parasitose humaine en Corse. Par contre, il serait plus facile de faire une enquête épidémiologique des filarioses animales, canines notamment, diligentée par les autorités sanitaires, l'Université de Corse et les laboratoires vétérinaires départementaux, afin de la comparer à celle très complète, menée par LANZALAVI (15) sur les gîtes des culicidés dans l'île. À ce jour, les recherches systématiques effectuées chez le chien sont en effet très fragmentaires : 48 prélèvements en Corse du Sud et 14 en Haute Corse (8), alors qu'elles ont été plusieurs fois réalisées en Sardaigne par des équipes de vétérinaires (2, 11, 22) représentant un total de 2 129 chiens, avec des prévalences pour *D. (N.) repens* variant de 7,1 à 8,6 %. Elles permettraient non seulement de mieux connaître les mécanismes épidémiologiques conditionnant la diffusion de la parasitose, mais aussi et surtout d'appliquer les mesures prophylactiques qui s'imposent dans les zones endémiques afin de protéger les vacanciers tout autant que les insulaires. En Sardaigne, les enquêtes sur les chiens ont eu l'avantage de sensibiliser les propriétaires des animaux sur le problème "dirofilariose" et d'augmenter le nombre des chiens traités à l'ivermectine, diminuant ainsi la circulation du parasite dans la population canine de l'île et, par conséquent, le risque d'infection pour l'homme.

Remerciements

Les auteurs remercient, pour les informations reçues, le Pr. Jacques EUZÉBY, le Pr Claude CHAUVE, le Dr Robert DAVOUST, le Dr Michelle TORRE-RIERA et le Dr Alix DELAGE, ainsi que M. R.V. pour son aimable coopération.

Ce travail a été réalisé grâce au concours financier du Ministère de l'université et de la recherche scientifique italienne (60 %).

Références bibliographiques

1. ADDARIO C - Su di un nematode dell'occhio umano. *Ann Ottal-mol*, 1885, **14**, 135-147.
2. ARRU E, NUVOLE A & MANN PH- La filariosi del cane in Sardegna. *Parassitologia*, 1969, **30**, 49-58.
3. AITKEN THG - The Culicidae of Sardinia and Corsica (Diptera). *Bull Entomol Res*, 1954, **45**, 437-494.
4. BAIN O - Développement en Camargue de la Filaire du chien, *Dirofilaria repens* Railliet et Henry 1911, chez les *Aedes* alophiles. *Bull Mus Natn Sci Nat Paris*, 1978, 3ème Série, Zool, **351**, 19-27.
5. CANESTRI TROTTI G, PAMPIGLIONE S & RIVASI F - The species of the genus *Dirofilaria* Railliet & Henry, 1911. *Parassitologia*, 1998, **39**, 369-374.
6. CHAUVE CM - Importance in France of the infestation by *Dirofilaria (Nochtiella) repens* in dogs. *Parassitologia*, 1997, **39**, 393-395.

7. COLUZZI M - Osservazioni sperimentali sul comportamento di *Dirofilaria repens* in diversi gruppi di artropodi ematofagi. *Parassitologia*, 1964, **6**, 57-62.
8. DAVOUST R & DUCOS DE LAHITTE J - Evolution de l'enzootie de dirofilariose dans les chenils militaires du sud-est. *Rev Méd Vétér*, 1989, **140**, 15-19.
9. DE GENTILE L, CEREZ H, FRANÇOIS H, RONCERY J & CHABASSE D - Dirofilariose péritonéale de découverte fortuite. *Bull Soc Pathol Exot*, 1992, **85**, 171-173.
10. DESPORTES C - *Filaria conjunctivae* Addario 1885, parasite accidentel de l'homme est une *Dirofilaria*. *Ann Parasitol Hum Comp*, 1939/40, **17**, 380-404 et 515-531.
11. GARIPPA G, SENNA ML, DELOGU E & ARRU E - Ulteriori indagini sulla filariosi del cane in Sardegna. *Atti Soc It Sci Vet*, 1993, **47**, 1417-1420.
12. GROS PH, PIERRE CI, CAVALLO JD, CARLOZ E, CAMPARO PH & ARBORIO M - Dirofilariose sous-cutanée à *Dirofilaria repens*. *Arch Anat Cytol Path*, 1996, **44**, 272-277.
13. INSEE - Le tourisme en Corse, *Economie corse*, n°83, déc. 1997.
14. JELINEK T, SCHULTE-HILLEN J & LÖSCHER TH - Human dirofilariosis. *Intern J Dermatol*, 1996, **35**, 872-875.
15. LANZALAVI P - *Recherches sur les Culicidae (Nematocera) de la Corse*. Thèse de Doctorat. 1965, Marseille, 8-88.
16. LAPIERRE J, COMMISSIONAT Y, TOURTE-SCHAEFER C, ANCELLE T, HEYER F *et al.* - Dirofilariose humaine. A propos d'un cas à localisation génienne contracté en Corse. *Sem Hôp Paris*, 1982, **58**, 1575-1577.
17. MARTY P - Human dirofilariosis due to *Dirofilaria repens* in France. A review of reported cases. *Parassitologia*, 1997, **39**, 383-386.
18. NOZAI S, BAIN O & GENTILINI M - Un cas de dirofilariose sous-cutanée à *Dirofilaria (Nochtiella) repens* avec microfilarémie en provenance de Corse. *Bull Soc Pathol Exot*, 1994, **87**, 183-185.
19. PAMPIGLIONE S, BORTOLETTI G, FOSSARELLO M & MACIONI A - Dirofilariosi umana in Sardegna: 4 nuovi casi. Revisione dei casi pubblicati. *Pathologica*, 1996, **88**, 472-477.
20. PAMPIGLIONE S, CANESTRI TROTTI G & RIVASI F - Human Dirofilariosis due to *Dirofilaria (Nochtiella) repens*. A review of world literature. *Parassitologia*, 1995, **37**, 149-193.
21. SIMI P - Précis de géographie physique, humaine, économique, régionale de la Corse. *Soc Sci Hist Nat Corse*, 1981, **2**, 106-112.
22. TARANTINI SM, GARIPPA G & LEONI A - Attuale incidenza delle filariosi del cane in Sardegna. *Parassitologia*, 1983, **25**, 361-364.
23. TORNIÉPORTH N, BRANDIS A, VOGEL B & DISKO R - Autochtone pulmonale Dirofilariose in Europa. *Dtsch Med Wschr*, 1990, **115**, 15-19.
24. WÖCKEL W, ECKERT J, LÖSCHER TH, HÄUSINGER K & MORRESI A - Autochtone europäische Lungen-Dirofilariose. *Pneumologie*, 1993, **47**, 227-231.

Addendum

Dirofilaria repens en Corse. Un nouveau cas humain localisé à la verge.

A lors que notre article était sous presse, nous avons eu l'occasion d'examiner les coupes histologiques d'un autre cas de cette zoonose en Corse, particulier par sa localisation.

Observation

Il s'agit d'un homme d'origine marocaine, footballeur, âgé de 23 ans, résidant depuis deux ans en Corse à Porto Vecchio. Les manifestations cliniques ont débuté il y a 4 mois, lorsque le patient en bonne santé, a découvert une tuméfaction nodulaire évoquant un kyste sébacé située sous la peau de la verge, associée selon son médecin traitant à une uréthrite. Après ablation chirurgicale (janvier 1999), le nodule s'avère inflammatoire, riche en polynucléaires, sans contingent lymphoplasmocytaire, ni fibrose d'enkystement. Il contient 2 à 8 sections d'une filaire en mauvais état de conservation dont les caractères morphologiques sont ceux de *Dirofilaria (Nochtiella) repens*, femelle immature. Le diamètre maximum de ce nématode est d'environ 380 µm et sa cuticule présentant des dentelures externes distantes de 9 à 12 µm les unes des autres, une épaisseur de 12 à 14 µm. Ses fibres musculaires sont altérées et conglomérées en amas amorphes tandis

que 5 sections des tubules sexuels et une du tube digestif sont encore identifiables.

Ce cas peut être considéré comme autochtone. En effet, le patient n'a jamais quitté la Corse durant les 2 années précédant l'apparition du nodule. De plus, la filaire est immature et la réaction inflammatoire qui l'accompagne est de type aigu et non encore chronique.

Cette dirofilariose est particulière par sa localisation. En effet, c'est la 4ème parmi celles qui sont mentionnées au niveau de la verge dans la littérature internationale, et la 2ème pour l'Europe : la première, observée en 1972 par BONU et ZINA dans la province d'Alexandrie au nord de l'Italie, se trouvait sous la muqueuse du sillon balano-préputial; les 2 autres ont été signalées au Sri Lanka par DISSANAÏKE et coll. en 1997.

Références bibliographiques

1. BONU G & ZINA G - Une rare affection chez l'homme : le granulome sous-cutané par *Dirofilaria*. *Bull Soc Franç Dermatol Syphil*, 1972, **79**, 248-250.
2. DISSANAÏKE AS, ABEYEWICKREME W, DE S WIJESUNDERA M, WEERASOORIYA MV & ISMAIL MM - Human dirofilariosis caused by *Dirofilaria (Nochtiella) repens* in Sri Lanka. *Parassitologia*, **39**, 375-382.