

Neurocysticercose compliquant le traitement d'une cysticercose cutanée chez un voyageur.

L. Epelboin, E. Klement, N. Chemali, M. Danis, F. Bricaire & E. Caumes*

Département des maladies infectieuses et tropicales, parasitaires et mycologiques, CHU, Pitié-Salpêtrière, Paris, France.

*Correspondance : Pr Eric Caumes, Service des maladies infectieuses et tropicales, Groupe hospitalier Pitié-Salpêtrière, 47-83 Bd de l'Hôpital, 75 651 Paris cedex 13, France.

Tél. : 01 42 16 01 19. Fax : 01 42 16 01 65. E-mail : eric.caumes@psl.ap-hop-paris.fr

Manuscrit n° 2615. "Thérapeutique". Reçu le 19 août 2003. Accepté le 14 mai 2004.

Summary: Neurocysticercosis complicating the treatment of cutaneous cysticercosis in a traveller.

Cysticercosis is an helminthic disease which is usually observed in endemic areas or in immigrants coming from these areas. Cases described in travellers coming back from endemic areas are rare. We describe a case of neurocysticercosis that was revealed by a paradoxical reaction. This reaction occurred during the early phase of the treatment of cutaneous cysticercosis by albendazole in a tourist coming back from the sub Indian continent. This case report leads to discuss the modes of infestation in tourists, and the management of cutaneous cysticercosis and paradoxical reaction that may impair the outcome of cysticercosis during the treatment with antihelminthic drugs.

Résumé :

La cysticercose est une helminthose principalement observée en région tropicale ou chez les immigrants originaires de ces régions. Les cas décrits chez le voyageur sont exceptionnels. Nous rapportons un cas de neurocysticercose révélée par une réaction paradoxale, compliquant le traitement par albendazole d'une cysticercose cutanée chez une touriste française au retour du sous-continent indien. Cette observation fait discuter les modalités de contamination chez les voyageurs, la prise en charge des localisations cutanées et des réactions paradoxales au traitement antiparasitaire.

**cutaneous cysticercosis
neurocysticercosis
albendazole
praziquantel
paradoxical reaction
traveller
hospital
Paris
Europe**

**cysticercose cutanée
neurocysticercose
albendazole
praziquantel
réaction paradoxale
voyageur
hôpital
Paris
Europe**

Introduction

La cysticercose est une helminthose principalement observée chez les habitants des pays d'endémie en région tropicale. Les cas décrits chez le voyageur sont exceptionnels.

Nous rapportons un cas de neurocysticercose révélée par une réaction paradoxale compliquant le traitement d'une cysticercose cutanée chez une touriste française au retour du sous continent indien.

Cas clinique

Une étudiante française âgée de 23 ans, consulte en mars 2002 en chirurgie maxillo-faciale pour un « kyste disgracieux » du menton d'apparition récente. Le chirurgien réalise une exérèse totale de la lésion et l'examen anatomopathologique retrouve, contre toute attente, un « ver » mort au sein d'une cavité à paroi fibro-inflammatoire mince riche en éosinophiles. La patiente nous est alors adressée pour prise en charge d'une cysticercose cutanée.

Elle avait fait plusieurs voyages entre 1996 et 1999 en Asie du Sud-Est (Myanmar et Thaïlande) et au Moyen-Orient (Syrie). En septembre 1999, après un séjour en Inde du Nord (Uttar Pradesh) et au Népal, elle avait constaté la présence d'éléments indéterminés dans ses selles, mais évoquant pour son médecin traitant un parasite intestinal. Elle

avait alors reçu un traitement anti-parasitaire indéterminé, sans réalisation préalable d'un examen parasitologique des selles. Par la suite, elle était restée asymptomatique et n'avait plus quitté le territoire français trois années durant.

L'examen clinique initial retrouve quatre nodules sous-cutanés superficiels, de taille centimétrique, fermes, indolores, non inflammatoires et mobiles à la palpation. Ils se situent au niveau du bras et de l'avant-bras gauche et en région para-vertébrale dorsolombaire gauche. L'examen neurologique est normal. L'hémogramme ne révèle pas d'hyperéosinophilie. La sérologie de cysticercose est positive en ELISA (antigène de larve de *T. solium*) à 180 U, positivité confirmée par la présence de bandes spécifiques au Western Blot (Qualicode cysticercosis KIT ; Bionobis). L'examen parasitologique des selles est négatif. Les autres sérologies parasitaires (distomatoses, filarioses, hydatidose et trichinose) sont négatives. Les radiographies standard des parties molles ne retrouvent pas de calcifications au niveau du dos, des bras ou des jambes. Un scanner cérébral est prescrit de manière systématique à la recherche de localisations neurologiques non symptomatiques. Mais il n'est pas considéré comme urgent par les radiologues et un rendez-vous est donné trois semaines plus tard. Le traitement est donc débuté avant qu'il ait été pratiqué.

Le diagnostic de cysticercose cutanée ayant été porté, un traitement anti-parasitaire est débuté en externe par albendazole, à la dose de 400 mg deux fois par jour. Quatre jours après l'introduction

Figure 1.

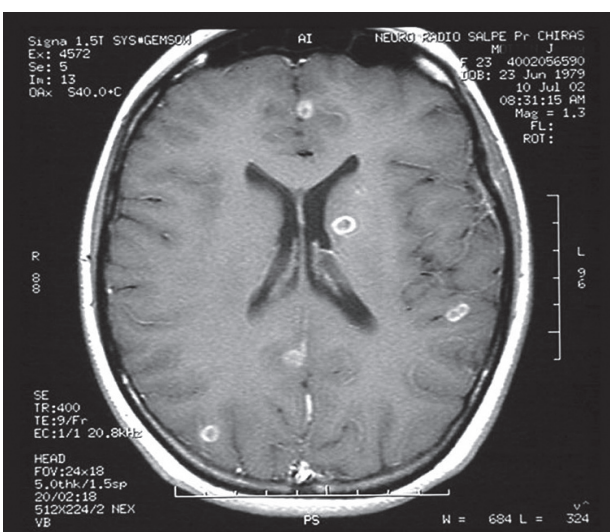
Cysticercose cutanée.
Cutaneous cysticercosis.



du traitement, la patiente présente brutalement des vertiges, des acouphènes et des céphalées postérieures modérées, associés à une légère confusion. Elle est hospitalisée en urgence. À l'examen clinique, on note l'apparition de nouveaux kystes sous-cutanés, en particulier au niveau des membres inférieurs. En dehors des signes fonctionnels sus-cités, l'examen neurologique n'objective aucun signe de localisation. Le scanner cérébral réalisé, sans et avec injection, montre une vingtaine de lésions annulaires infracentimétriques, prenant le contraste, réparties dans l'ensemble du parenchyme cérébral, sans calcifications, associées à un œdème cérébral diffus et un effet de masse modéré sur les ventricules avec une déviation de la ligne médiane. L'imagerie par résonance magnétique nucléaire confirme ces images qui apparaissent plus nettement, en particulier au niveau de la fosse postérieure où il existe une localisation dans le tronc cérébral.

Figure 2.

IRM de la cysticercose cérébrale.
MRI of the brain cysticercosis.



L'électroencéphalogramme a un tracé bien organisé, mais avec des irrégularités lentes postérieures associées à quelques potentiels pointus lents prédominant à droite. L'examen ophtalmologique et le fond d'œil sont normaux. La sérologie VIH est négative. L'étude cytologique du liquide céphalo-rachidien, montre un liquide eau de

roche contenant 14 éléments par mm³ de type lymphocytaire et deux hématies par mm³ sans autre particularité. L'immunodiagnostic de cysticercose dans le LCR est positif en ELISA (>240 U) et confirmé par le Western Blot.

Le traitement par albendazole (800 mg par jour) est alors prolongé pour un mois et associé à une corticothérapie (prednisone : 0,5mg/kg/jour), rapidement dégressive. Sous ce traitement, la symptomatologie neurologique s'amende rapidement. Le nombre et le volume des nodules sous-cutanés diminuent en quelques jours. La tomodesitométrie cérébrale, un mois après la sortie de la patiente, montre la persistance d'une dizaine de lésions d'allure active, une ébauche de calcification de plusieurs des lésions cérébrales et une régression complète de l'œdème parenchymateux. La patiente reçoit alors un traitement de 28 jours de praziquantel à la posologie de 50 mg par kg et par jour, puis d'albendazole (800 mg/j) pendant une durée de 4 mois.

À l'issue de cette période, en décembre 2002, l'examen clinique ne retrouve plus aucune lésion cutanée ni aucun signe neurologique. La sérologie en ELISA persiste positive avec 195 U, le Western Blot est toujours positif. Le scanner ne montre plus qu'une dizaine de kystes, les autres lésions ayant évolué vers une calcification ponctiforme ou ayant disparu. La patiente est ensuite perdue de vue.

Discussion

Cette observation est particulière par plusieurs aspects. Il s'agit du deuxième cas de neurocysticercose chez un touriste publié après celui de DEBAT et coll (5). Il a été révélé par une localisation cutanée et le traitement s'est compliqué d'une réaction paradoxale, complication classique mais peu courante (2).

La cysticercose est une helminthose présente dans des zones géographiques bien limitées de certains pays, pour la plupart en voie de développement (7, 16). Dans certains pays tropicaux, la cysticercose cérébrale est l'une des premières causes d'hospitalisation dans les services de neurologie (1, 6, 13). Elle représente, au Mexique, à Madagascar ou à l'Île de la Réunion, la première cause d'épilepsie (3, 12, 15, 19). Par contre, la ténia due à *T. solium*, et à plus forte raison la cysticercose, ont pratiquement disparu d'Europe (exception faite de certains pays comme le Portugal). La majorité des cas de neurocysticercose observée dans les pays industrialisés sont donc des cas importés, observés chez des immigrés en provenance de régions de forte endémie (18). Les cas rapportés chez les voyageurs occidentaux sont exceptionnels.

La rareté des cas de cysticercose chez les voyageurs fait discuter les différents modes de contamination. La cysticercose peut être secondaire à un portage intestinal du parasite adulte contracté par la consommation de viande de porc mal cuite (ce qui explique la rareté de l'infection chez les personnes de confession hindoue, musulmane et juive), la contamination peut alors avoir lieu par auto-infestation, un anneau mûr lysé dans l'intestin libérant les œufs. La cysticercose peut aussi être acquise par l'ingestion d'aliments crus ou d'eaux souillées par des œufs de *Taenia*, du fait d'une mauvaise hygiène alimentaire individuelle et collective. La souillure des aliments par des œufs ou embryophores a alors lieu par l'intermédiaire des déjections humaines contenant des anneaux, l'homme étant le seul hôte définitif du *T. solium* (10, 12). Ainsi, il a été rapporté, en 1991, dans la communauté juive orthodoxe de New York, une épidémie de cysticercose dont l'origine s'est avérée être une contamination alimentaire par des cuisinières sud-américaines porteuses du *Taenia* (17).

Dans le cas de notre patiente, la contamination a pu se faire de deux manières : soit par l'ingestion d'aliments directement

contaminés par des embryophores lors de l'un de ses voyages, soit par auto-infestation suite à une tœniase due à *T. solium*, probablement contractée en Inde ou au Népal. La multiplicité des lésions cutanées et cérébrales serait plutôt en faveur de la première hypothèse. Néanmoins, la présence d'éléments parasitaires dans les selles, tels que décrits par la patiente au retour d'Inde, pouvait correspondre à des anneaux ou des fragments de taenia adulte. Si les vermicides prescrits à l'époque étaient le flubendazole ou le mébendazole, ceux-ci étaient peu efficaces pour éradiquer le tœnia et prévenir le développement à distance de la cysticerose. Le traitement antiparasitaire aurait dû être adapté aux résultats d'un examen parasitologique des selles, mais celui-ci n'avait pas été réalisé. Efficace sur le tœnia, il aurait pu éviter les localisations cysticerquiennes tissulaires secondaires (9, 14).

La cysticerose cérébrale peut rester longtemps latente et se révèle généralement des années après l'apparition de kystes parasitaires dans le cerveau, suite à la mort et à la calcification du cysticerque, le plus souvent par une crise convulsive ou parfois un syndrome d'hypertension intracrânienne ou par une hydrocéphalie aiguë (1, 3, 4, 12, 13). Dans notre cas, les résultats de l'imagerie cérébrale montrent, comme c'est classique, une grande discordance clinico-radiologique, du fait du contraste entre le nombre élevé de lésions encéphaliques et la pauvreté de la symptomatologie neurologique (2, 8).

Cette double atteinte, cutanée et cérébrale, est également surprenante chez une patiente occidentale. En effet, la localisation cérébrale est l'une des principales formes systémiques de la maladie, présente dans 60 à 90 % des cas selon les séries (11). La localisation sous-cutanée est plus rare, présente dans 5 % des cas environ (15). Et l'atteinte concomitante, cutanée et cérébrale, est exceptionnellement rapportée.

Ce cas rappelle que le traitement médical de la cysticerose n'est pas sans risque. Les antiparasitaires efficaces contre la cysticerose et la tœniase sont l'albendazole (Zentel®, Eskazole®) et le praziquantel (Biltricide®) (19, 20). L'albendazole est potentiellement plus efficace sur les formes sub-arachnoïdiennes, ventriculaires et médullaires (3). Mais il peut aggraver les signes du fait d'une réaction paradoxale (8, 9, 21). Chez notre patiente, le traitement par albendazole a même démasqué la localisation cérébrale du parasite, par l'apparition, quatre jours après son introduction, des signes neurologiques révélant la cysticerose cérébrale. Cette « réaction paradoxale » est provoquée par la lyse des parasites, en réponse au traitement ; elle est responsable d'une réaction inflammatoire à l'origine de l'œdème péri-lésionnel. La multiplicité des lésions intra-parenchymateuses a été, chez notre patiente, à l'origine d'un œdème cérébral diffus. Parallèlement, on notait un accroissement en nombre et en taille des kystes sous-cutanés. L'association d'une corticothérapie, par son action anti-inflammatoire, lors de la reprise du traitement par albendazole, a permis l'amendement des symptômes neurologiques et la diminution des signes cutanés en quelques jours, comme précédemment décrit (8). En cas de lésions cérébrales multiples, persistant après un premier traitement antiparasitaire bien conduit, il est possible de répéter des cures alternées de praziquantel et albendazole, comme nous l'avons fait chez notre patiente. Les images cérébrales évoluent lentement vers la disparition, réduisant le risque de séquelles neurologiques, ou la calcification.

Conclusions

Plusieurs conclusions peuvent être tirées de cette observation. En présence de signes digestifs au retour de voyage en zone tropicale, un examen parasitologique des selles est indispensable. S'il n'est pas pratiqué, le traitement présomptif d'une parasitose intestinale doit comprendre un médicament efficace contre les taenias. La présence de signes neurologiques focaux chez un voyageur, au retour, même tardif, de zones d'endémie, doit faire évoquer la neurocysticerose. Enfin, le diagnostic de forme cutanée ou musculaire de cysticerose doit conduire, même en l'absence de signes neurologiques, à la réalisation d'une imagerie cérébrale avant tout traitement. La découverte d'une localisation intra-cérébrale impose des précautions particulières, notamment celles de débiter le traitement en hospitalisation, éventuellement sous couvert de corticoïdes.

Références bibliographiques

1. AVODE DG, CAPO-CHICHI OB, GANDHAHO P, BOUTEILLE B & DUMAS M - Epilepsie provoquée par la cysticerose. A Propos d'une enquête sociologique et culturelle réalisée à Savalou au Bénin. *Bull Soc Pathol Exot*, 1996, **89**, 45-47.
2. BANDRES JC, WHITE AC Jr, SAMO T, MURPHY EC & HARRIS RL - Extraparenchymal neurocysticerose: report of five cases and review of management. *Clin Inf Dis*, 1992, **15**, 799-811.
3. CHAMOUILLET H, BOUTEILLE B, ISAUTIER H, BEGUE A & LECADIEU M - Epidémiologie de la cysticerose à La Réunion. *Méd Trop*, 1997, **57**, 41-46.
4. CRUZ ME, PREUX PM, DEBROCK C, CRUZ I, SCHANTZ PM et al. - Epidémiologie de la cysticerose cérébrale dans une communauté des Andes en Equateur. *Bull Soc Pathol Exot*, 1999, **92**, 38-41.
5. DEBAT J, ZOGUERH D, DELMONT J, BROUQUI P, GRIGUER Y et al. - Cysticerose cérébrale acquise lors de séjours tropicaux. *Méd Thérap*, 1999, **5**, 481-487.
6. DEL BRUTTO OH - Neurocysticerose. *Current Opin Neurology*, 1997, **10**, 268-272.
7. DUMAS M, GRUNITZKY K, BELO M, DABIS F, DENIAU M et al. - Cysticerose et neurocysticerose : enquête épidémiologique dans le nord du Togo. *Bull Soc Pathol Exot*, 1990, **83**, 263-274.
8. GARCIA H H, EVANS C A, NASH TE, TAKAYANAGUI OM, WHITE AC Jr et al. - Current consensus guidelines for treatment of neurocysticerose. *Clin Microbiol Rev*, 2002, **15**, 747-756.
9. GARG RK - Medical management of Neurocysticerose. *Neuro India*, 2001, **49**, 329-337.
10. Groupe d'auteurs - Cestodoses. In: GENTILINI M, CAUMES E, DANIS M, MOUCHET J, DUFLU B et al. *Médecine Tropicale. Flammarion-Médecine Sciences*, Paris, 1993, 245-253.
11. MEDINA M T, ROSAS E, RUBIO-DONNADIEU F & SOTELO J - Neurocysticerose as the main cause of late-onset epilepsy in Mexico. *Arch Intern Med*, 1990, **150**, 325-327.
12. NOZAIS J-P - Cysticerose. In: NOZAIS J-P, DATRY A & DANIS M - *Traité de parasitologie médicale*. Pradel, Paris, 1996, 585-594.
13. PITTELLA J E - Neurocysticerose. *Brain Pathology*, 1997, **7**, 681-693.
14. PRASAD KN, CHAWLA S, JAIN D, PANDEY CM, PAL L et al. - Human and porcine *Taenia solium* infection in rural north India. *Trans R Soc Trop Med Hyg*, 2002, **96**, 515-516.
15. RAJAONARISON P, RALAMMBOSON S, ANDRIAMAMONJY C, RAMANAMPAMONJY R, RAMANANTOANINA CE et al. - Diagnostic de neurocysticerose : à propos d'un cas. *Arch Inst Pasteur de Madagascar*, 2001, **67**, 53-56.
16. ROMAN G, SOTELO J, DEL BRUTTO OH, FLISSER A, DUMAS M et al. - A proposal to declare neurocysticerose an international reportable diseases. *Bull WHO*, 2000, **78**, 399-406.
17. SCHANTZ PM, MOORE AC, MUNOZ JL, HARTMAN BJ, SCHAEFER JA et al. - Neurocysticerose in an Orthodox Jewish Community in New York City. *N Engl J Med*, 1992, **327**, 692-695.
18. SHANDERA WX, WHITE AC Jr, CHEN JC, DIAZ P & AMSTRONG R - Neurocysticerose in Houston, Texas, A report of 112 cases. *Medicine*, 1994, **73**, 37-51.
19. SOTELO J, ESCOBEDO F & PENAGOS P - Albendazole vs Praziquantel for Therapy for Neurocysticerose. A controlled trial. *Arch Neurol*, 1988, **45**, 532-534.
20. TAKAYANAGUI OM & JARDIM E - Therapy for Neurocysticerose, Comparison Between Albendazole and Praziquantel. *Arch Neurol*, 1992, **49**, 290-294.
21. VAQUEZ V & SOTELO J - The Course of Seizures after Treatment for Cerebral Cysticerose. *N Engl J Med*, 1992, **327**, 696-701.