

LE CAS CLINIQUE DU MOIS

Actinomyose pelvienne pseudo-tumorale : il fallait y penser

A. KAKKOS (1), E. GONNE (2), C. COIMBRA (3), P. NERVO (4), G. REMACLE (5), A. THILLE (6),
M.P. HAYETTE (7), C. VAN LINTHOUT (4), F. KRIDELKA (8), K. DELBECQUE (9)

RÉSUMÉ : L'actinomyose est une pathologie bactérienne rare pouvant prendre un aspect pseudo-tumoral. La localisation pelvienne est exceptionnelle, mais d'incidence croissante depuis l'utilisation des dispositifs intra-utérins. La présentation peut alors évoquer une néoplasie gynécologique ou colique basse. Devant tout tableau clinique atypique suggérant une malignité pelvienne mais dominé par un contexte infectieux et/ou inflammatoire, le diagnostic d'actinomyose doit être évoqué et discuté avec le collègue anatomo-pathologiste auquel les prélèvements histologiques seront soumis. En l'absence de diagnostic pré-opératoire, une chirurgie radicale peut être pratiquée de manière inadéquate et se révéler particulièrement délabrante en raison du caractère adhérent et diffusément inflammatoire de la lésion. Le traitement de choix est une antibiothérapie au long cours amenant à une résolution clinique et radiologique complète dans la majorité des cas. Nous rapportons le cas d'une patiente de 27 ans chez laquelle un diagnostic de néoplasie rectale primitive est suggéré cliniquement et radiologiquement, mais chez qui les biopsies pré-opératoires limitées ont permis un diagnostic d'actinomyose pelvienne et un traitement conservateur.

MOTS-CLÉS : Actinomyose pelvienne - Néoplasie - Dispositif intra-utérin

PSEUDOTUMORAL PELVIC ACTINOMYCOSIS : ONE SHOULD THINK OF IT
SUMMARY : Actinomycosis is a rare chronic disease caused by a group of anaerobic Gram positive bacteria. It may mimic a neoplasia at various anatomical levels. A pelvic localization is exceptional but has an increasing incidence since the use of intrauterine devices. In such cases, pelvic actinomycosis may present as a gynecological or a lower colonic malignancy. For all atypical clinical presentation, with a prominent infectious or inflammatory context, the diagnosis of actinomycosis must be suggested and discussed with the pathologist to whom the biopsy will be submitted. In the absence of a preoperative diagnosis, an inadequately aggressive pelvic surgery might be performed and rendered particularly complex due to the adherent and diffusely inflammatory pattern of the disease. The treatment of choice remains a long-term therapy with antibiotics that leads to a complete clinical and radiological response in the majority of cases. We report the case of a 27-year-old woman with a clinical and radiological diagnosis of rectal carcinoma but with limited preoperative biopsy that revealed a pelvic actinomycosis and allowed a conservative and successful antibacterial treatment

KEYWORDS : Pelvic actinomycosis - Neoplasia - Intra-uterine device

INTRODUCTION

L'actinomyose est une pathologie chronique rare causée par un groupe de germes anaérobies Gram positif, présents de manière saprophyte au sein de la cavité buccale, du côlon et des organes uro-génitaux (1). Comme ces micro-organismes ne sont pas virulents, une effraction muqueuse est nécessaire pour qu'une infection survienne. Le port d'un stérilet est un facteur de

risque reconnu (2, 3). En raison de ses capacités à envahir les tissus avoisinants et à s'organiser sous forme de masse pseudo-tumorale, l'actinomyose peut mimer des néoplasies pelviennes ou abdominales (4). Sur le plan pelvien, les masses peuvent être confondues avec une néoplasie ovarienne ou colique basse. Si le diagnostic différentiel n'est pas évoqué, la patiente peut subir de manière inadéquate une chirurgie agressive et potentiellement délabrante (5). Nous rapportons le cas d'une patiente de 27 ans, consultant pour des douleurs pelviennes invalidantes et chez laquelle un diagnostic de néoplasie ovarienne ou colique est suggéré.

CAS CLINIQUE

Une patiente de 27 ans consulte en gynécologie pour la mise au point de douleur pelvienne chronique, récemment en augmentation significative. Elle décrit principalement des symptômes digestifs (ténésme, variation du régime des selles avec fausses diarrhées et méléna) ainsi qu'un syndrome douloureux pelvien à projection sacrée basse particulièrement invalidante en position assise. Elle décrit, par ailleurs, une anorexie, une perte de poids récente

(1) Chef de clinique adjoint, Service de Gynécologie-Obstétrique, CHU de Liège, Site Sart Tilman, Belgique.

(2) Chef de clinique adjoint, Service d'Oncologie Médicale, CHU de Liège, Site Sart Tilman, Belgique.

(3) Chef de clinique, Service de Chirurgie Abdominale, Sénologique, Endocrinie et Transplantation, CHU de Liège, Site Sart Tilman, Belgique.

(4) Chef de clinique, Service de Gynécologie - Obstétrique, CHU de Liège, Belgique.

(5) Médecin spécialiste, Service de Chirurgie Abdominale, Sénologique, Endocrinie et Transplantation, CHU de Liège, Site Sart Tilman, Belgique.

(6) Médecin spécialiste, Service de Radiodiagnostic, CHU de Liège, Site Sart Tilman, Belgique.

(7) Chef de clinique, Service de Microbiologie Clinique, CHU de Liège, Belgique.

(8) Professeur, Université de Liège, Chef de service, de Gynécologie - Obstétrique, CHU de Liège, Belgique.

(9) Chef de clinique, Service d'Anatomie Pathologique, CHU de Liège, Site Sart Tilman, Belgique.



Figure 1. Masse pseudo-tumorale à la résonance magnétique pelvienne (coupe sagittale en pondération T2)

de 7 kg et des pics fébriles sans foyer clinique évident. Les antécédents médicaux généraux et l'examen clinique sont sans particularité (G1P1, accouchement par voie basse). Le toucher vaginal évoque un pelvis figé. Le toucher rectal suggère une sténose rectale haute sans sang sur le doigtier. Un diagnostic différentiel d'endométriose *versus* néoplasie rectale basse *versus* néoplasie ovarienne avec envahissement colique extrinsèque est posé.

La biologie est peu parlante. Seuls les tests inflammatoires sont perturbés avec une CRP fortement accrue à 300 mg/l, mais une procalcitonine négative. Les marqueurs tumoraux sont négatifs (CEA, CA19-9 et CA15-3), hormis le CA125 qui est discrètement élevé à 45 U/l. Les sérologies CMV, EBV, hépatites B et C, HIV, Brucella, Chlamydia, syphilis sont négatives. Les sérologies ciblant les toxoplasmes IgM et IgG sont positives.

Une échographie vaginale révèle un utérus de morphologie normale, qui contient un stérilet en place. Les annexes ne sont pas visualisées. Une impression de masse tissulaire irrégulière comblant la partie postérieure du bassin est notée. Une résonance magnétique nucléaire avec opacification rectale conclut, quant à elle, à une lésion tumorale hétérogène, irrégulière, de 84 mm de grand axe (Figure 1). Le point de départ semble être le haut rectum où une lésion en virole est décrite située à environ 10 cm de la marge anale. Postérieurement, cette lésion semble infiltrer la concavité sacrée et latéralement le plexus sacré droit. Il existe également une infiltration antéro-latérale droite de l'ovaire

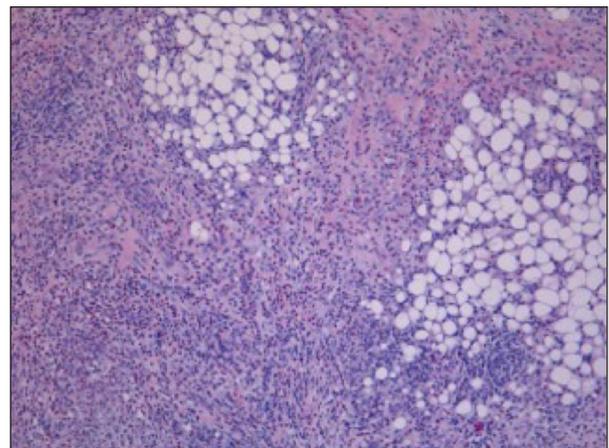


Figure 2. Tissu fibro-inflammatoire chronique dissociant la graisse épiploïque et renfermant de nombreux polynucléaires éosinophiles (HE, 100X)

droit dont le centre est totalement infiltré par la lésion. Des séquences en diffusion montrent une chute du coefficient apparent de diffusion ($ADC = 0,881$) évoquant clairement une lésion néoplasique. Le scanner thoraco-abdomino-pelvien retrouve la volumineuse lésion pelvienne connue de 9 cm, avec adénopathies lombo-aortiques, iliaques et hypogastriques, ainsi qu'une légère urétéro-hydronéphrose droite sur le syndrome de masse, sans autre anomalie thoraco-abdominale ou osseuse.

Une rectoscopie est tentée, mais ne peut être réalisée en raison du caractère trop douloureux de l'examen. Un examen sous sédation est réalisé avec biopsie de la masse para-rectale démontrant des remaniements inflammatoires non spécifiques, sans argument pour une malignité. Le colonoscope ne peut explorer le cadre colique dans son entièreté en raison d'une préparation suboptimale et d'une sténose extrinsèque significative à 12 cm de la marge anale.

Un PetScan du corps entier confirme une volumineuse masse pelvienne intensément hyper-métabolique d'allure néoplasique. Des adénopathies sous-diaphragmatiques et une infiltration péritonéale hyper-métabolique de même nature sont identifiées.

Dans ce contexte clinique atypique et le diagnostic non précisé, une laparoscopie est entreprise. Le pelvis est figé et inaccessible. Aucune lésion hépatique ou de carcinomatose péritonéale n'est visualisée. Un placard induré épiploïque suggestif d'une extension néoplasique est biopsié. Son analyse histologique démontre d'importants remaniements fibro-inflammatoires focalement suppurés du tissu graisseux épiploïque renfermant, par place, des agrégats nodulaires de bactéries filamenteuses corres-

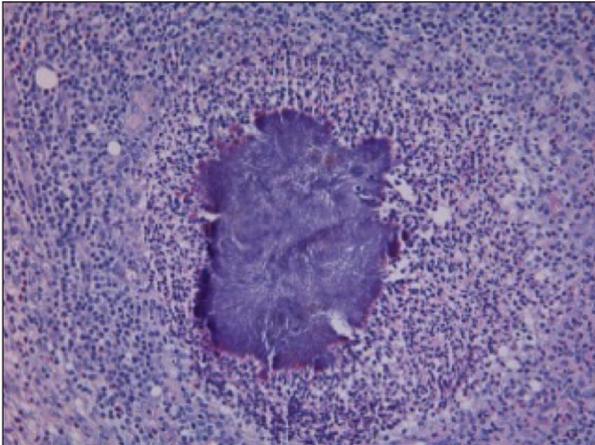


Figure 3. Micro-abscess montrant la présence d'un granule actinomycosique (HE, 400X)

pondant morphologiquement à des granules actinomycosiques (Figures 2 et 3).

La patiente est hospitalisée pour instauration d'une antibiothérapie et retrait de son dispositif intra-utérin. L'évolution sous amoxicilline-acide clavulanique à raison d'1 gramme 4 fois par jour par voie intraveineuse puis, *per os* (875/125 mg 3x/j), pour une durée totale de 3 mois est favorable avec résolution de l'image pseudo-tumorale à l'IRM (Figure 4). Seul un résidu fibreux de 49 mm reste visible. Sur le plan symptomatique, la résolution est complète.

DISCUSSION

L'actinomycose a été décrite en 1846 par Bradshaw (revue dans 6). Il s'agit d'une infection bactérienne rare causée par un bacille à Gram positif filamenteux, anaérobie strict. Cette bactérie saprophyte des muqueuses oropharyngées, intestinales et génitales peut devenir pathogène en cas d'effraction muqueuse. L'actinomycose cervico-faciale est la forme la plus fréquente, représentant 50 à 60 % des cas. Les formes abdominale et thoracique viennent ensuite, avec respectivement 25 % et 15-20 % des infections. Les présentations pelviennes ne représentent, quant à elles, que 5 % des cas (7). Cette incidence est cependant en augmentation depuis quelques décennies suite à la mise en place de dispositifs intra-utérins (DIU) contraceptifs. En effet, entre 3 et 25 % des femmes porteuses d'un stérilet présentent une colonisation à *Actinomyces israelii*. L'effraction muqueuse est favorisée, quant à elle, par le port prolongé du DIU ou par un traumatisme lors de sa mise en place ou de son retrait (3, 8). L'immunodépression est une autre cause favorisant le développement de ce type d'infection.

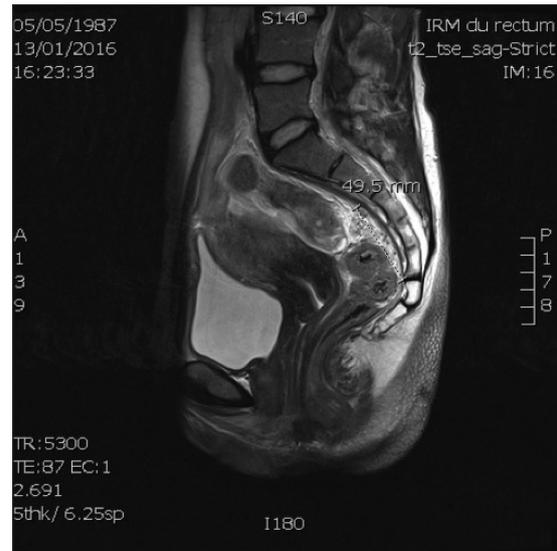


Figure 4. Résonance magnétique pelvienne à 1 an post-traitement (coupe sagittale en pondération T2)

L'extension aux organes adjacents s'effectue par contiguïté, plus rarement par voie hémato-gène ou lymphatique (9). Exceptionnellement, des extensions hépatiques osseuses, thoraciques ou cérébrales ont été décrites (10, 11). Suite à la production d'enzymes protéolytiques, la dissémination ne respecte pas les barrières anatomiques (diaphragme, capsule hépatique,...). Les localisations péritonéales peuvent mimer une carcinomatose. Par contre, la présence d'ascite et l'atteinte ganglionnaire sont rares (12).

Différents aspects cliniques de l'infection gynécologique peuvent être rencontrés, allant de l'endométrite à la salpingo-ovarite abcédée, en passant par un syndrome de masse pseudo-tumorale mimant une néoplasie pelvienne (13, 14). Le diagnostic différentiel de néoplasie digestive ou gynécologique, de pathologie inflammatoire du tube digestif, de tuberculose ou de nocardiose, doit être évoqué. Malgré la connaissance de cette affection, moins de 20 % des cas sont diagnostiqués en pré-opératoire. Dans les autres circonstances, l'absence de diagnostic peut conduire à une prise en charge chirurgicale inadaptée et délabrante (15).

Dans le cas présent, la perte de poids, le syndrome inflammatoire à la biologie, la présence d'une masse tumorale au niveau pelvien et une élévation très modérée du marqueur tumoral CA 125 au vu de l'extension tumorale évoquée devaient, d'emblée, faire penser à une actinomycose pseudo-tumorale. Malgré l'aspect très suggestif d'une néoplasie pelvienne avancée à l'IRM (16, 17), l'absence de cellules néoplasiques sur les biopsies trans-rectales et l'état

inflammatoire non pathognomonique de celles-ci ont amené à une approche prudente par laparoscopie sans décision de geste pelvien définitif. Plusieurs cas décrits dans la littérature font état de prise en charge chirurgicale nécessitant des résections pelviennes, urinaires ou digestives étendues, rendues complexes par le caractère fixé et particulièrement adhérent de la pathologie (18). Chez la patiente de ce cas, la présence d'agrégats nodulaires de bactéries filamenteuses en «grain de soufre» (19) au sein du tissu graisseux épiploïque a permis le diagnostic final et la prise en charge conservatrice. Le diagnostic histo-pathologique est primordial en raison du caractère souvent suboptimal des analyses bactériologiques. *L'Actinomyces israelii* présente, en effet, une croissance lente et un caractère anaérobie stricte, rendant sa mise en évidence difficile.

Le traitement de choix recommandé est une pénicilline G, mais peut aussi associer l'amoxicilline-acide clavulanique au métronidazole. Un aminoside peut être instauré (18). En cas d'allergie à la pénicilline, de nombreuses alternatives sont possibles : cyclines, macrolides, vancomycine, chloramphénicol et rifampicine, avec une préférence pour les macrolides. Un traitement de longue durée par voie intra-veineuse suivie d'un relais *per os*, permet, dans la majorité des cas, la disparition de toutes les lésions et des symptômes induits, tout en réduisant le risque de récurrence (5). Un drainage chirurgical est parfois nécessaire.

CONCLUSIONS

L'actinomycose pelvienne pseudo-tumorale est une affection rare dont le diagnostic doit être évoqué en alternative à une pathologie néoplasique, particulièrement chez les jeunes patientes porteuses d'un stérilet et dont la présentation clinique reste atypique. Le diagnostic est, avant tout, histopathologique. Il doit être exclu avant toute prise en charge chirurgicale, dont la morbidité peut être majorée en raison du caractère fixé et diffusément infiltrant de la pathologie.

BIBLIOGRAPHIE

1. Wong VK, Turmezei TD, Weston VC.— Actinomycosis. *BMJ*, 2011, **343**, d6099.
2. Henderson SR.— Pelvic actinomycosis associated with an intrauterine device. *Obstet Gynecol*, 1973, **41**, 726-732.
3. Merki-Feld GS, Lebeda E, Hogg B, et al.— The incidence of actinomyces-like organisms in Papanicolaou-stained smears of copper- and levonorgestrel-releasing intrauterine devices. *Contraception*, 2000, **61**, 365-368.

4. Bernet C, De Brabant F, Gonzalez M, et al.— [Pelvic actinomycosis: a misleading picture]. *Ann Fr Anesth Reanim*, 2010, **29**, 50-52.
5. P. M.— Intérêt de la cœlioscopie dans le diagnostic d'actinomycose pelvienne. *J Cœliochir*, 2002, **44**, 35-38.
6. Mousseau PA, Mousseau-Brodu MC.— [Abdominal actinomycosis]. *J Chir (Paris)*, 1973, **106**, 565-588.
7. Choi MM, Baek JH, Lee JN, et al.— Clinical features of abdominopelvic actinomycosis : report of twenty cases and literature review. *Yonsei Med J*, 2009, **50**, 555-559.
8. Valicenti JF, Jr., Pappas AA, Graber CD, et al.— Detection and prevalence of IUD-associated Actinomyces colonization and related morbidity. A prospective study of 69,925 cervical smears. *JAMA*, 1982, **247**, 1149-1152.
9. Reyat F, Grynberg H, Sibony O, et al.— [Pelvic actinomycosis]. *Presse Med*, 1999, **28**, 2113-2116.
10. Duvignaud A, Ribeiro E, Moynet D, et al.— Cervical spondylitis and spinal abscess due to Actinomyces meyeri. *Braz J Infect Dis*, 2014, **18**, 106-109.
11. Song JU, Park HY, Jeon K, et al.— Treatment of thoracic actinomycosis : a retrospective analysis of 40 patients. *Ann Thorac Med*, 2010, **5**, 80-85.
12. Lee IJ, Ha HK, Park CM, et al.— Abdominopelvic actinomycosis involving the gastrointestinal tract : CT features. *Radiology*, 2001, **220**, 76-80.
13. Acquaro P, Tagliabue F, Confalonieri G, et al.— Abdominal wall actinomycosis simulating a malignant neoplasm : case report and review of the literature. *World J Gastrointest Surg*, 2010, **2**, 247-250.
14. Sergent F, Marpeau L.— [Abdominopelvic actinomycosis : a tumoral syndrome due to bacterial infection]. *J Chir (Paris)*, 2004, **141**, 150-156.
15. Garbin O, Hummel M, Camus E, et al.— [Pelvic actinomycosis: the value of preoperative diagnosis. Apropos of a case]. *J Gynecol Obstet Biol Reprod (Paris)*, 1994, **23**, 395-401.
16. Bae JH, Song R, Lee A, et al.— Computed tomography for the preoperative diagnosis of pelvic actinomycosis. *J Obstet Gynaecol Res*, 2011, **37**, 300-304.
17. Thomassin-Naggara I, Dubernard G, Lafont C, et al.— [Imaging in pelvic inflammatory disease]. *J Radiol*, 2008, **89**, 134-141.
18. Hamid D, Baldauf JJ, Cuenin C, et al.— Treatment strategy for pelvic actinomycosis : case report and review of the literature. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol*, 2000, **89**, 197-200.
19. Kayikcioglu F, Akif Akgul M, Haberal A, et al.— Actinomyces infection in female genital tract. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol*, 2005, **118**, 77-80.

Les demandes de tirés à part doivent être adressées au Dr A. Kakkos, Département de Gynécologie - Obstétrique, CHU de Liège, site ND Bruyères, Rue Gail-larmont 600, 4032 Chênée (Liège), Belgique.
Email : athanasios.kakkos@gmail.com