

ATRÉSIE PULMONAIRE À SEPTUM OUVERT SUR SITUS INVERSUS INCOMPLET COMPLIQUÉE DE MULTIPLES ABCÈS CÉRÉBRAUX : À PROPOS D'UN CAS AU CENTRE HOSPITALIER UNIVERSITAIRE ET DÉPARTEMENTAL DU BORGOU/ALIBORI, PARAKOU EN 2023

PULMONARY ATRESIA WITH VENTRICULAR SEPTAL DEFECT COMPLICATED BY MULTIPLE CEREBRAL ABSCESSSES ON INCOMPLETE SITUS INVERSUS: A CASE REPORT AT UNIVERSITY AND DEPARTMENTAL HOSPITAL OF BORGOU/ALIBORI, PARAKOU IN 2023

DOHOU SHM¹, KIKI M², IBRAHIM A¹, LAWIN L³, CODJO HL⁴

1. Unité d'enseignement et de recherche en cardiologie (CHUD-B/A), Faculté de Médecine, Université de Parakou, Bénin.
2. Service d'imagerie médicale (CHUD-B/A)
3. Unité d'enseignement et de recherche en Neurochirurgie (CHUD-B/A), Faculté de Médecine, Université de Parakou, Bénin.
4. Clinique Universitaire de Cardiologie (CNHU-HKM), Faculté des sciences de la santé, Université d'Abomey-Calavi, Bénin.

Auteur correspondant : **DOHOU Serge Hugues M., Email : huguesdohou@gmail.com**

RÉSUMÉ

Introduction : L'atrésie pulmonaire à septum ouvert (APSO) est une malformation cardiaque, conotruncale, rare représentant 2% des cardiopathies. Non traitée elle peut comme toute cardiopathie congénitale cyanogène se compliquer d'abcès cérébral. Nous rapportons l'observation d'une adulte de 27 ans, présentant une APSO compliquée de multiples abcès cérébraux sur situs inversus incomplet. Le diagnostic de l'abcès cérébral a été évoqué devant une cardiopathie présentant une hémiparésie gauche dans un contexte fébrile et confirmé au scanner cérébral. Le drainage de l'abcès a été fait avec succès. L'évolution à court terme était favorable marquée par une apyrexie et une amélioration de la motricité.

Mots clés : Atrésie pulmonaire à septum ouvert, Abcès cérébral, adulte, Parakou, Bénin

ABSTRACT

Introduction: Pulmonary atresia with ventricular septal defect is a rare cardiac conotruncal malformation accounting for 2% of heart disease. Untreated, it can, like any cyanogenic congenital heart disease, be complicated by cerebral abscess. We report the case of 27-year-old adult with pulmonary atresia with ventricular septal defect complicated by multiple cerebral abscesses on incomplete situs inversus. The diagnosis of cerebral abscess was evoked by a cardiopathy presenting with left hemiparesis in a febrile context and confirmed by cerebral CT scan. The abscess was successfully drained. Short-term evolution was favorable, with apyrexia and improved motor skills.

Keywords: Pulmonary atresia with ventricular septal defect, cerebral abscesses, adult, Parakou, Benin.

Pour citer cet article : Dohou SHM, Kiki M, Ibrahim A, Lawin L, Codjo HL. Atrésie pulmonaire à septum ouvert sur situs inversus incomplet compliquée de multiples abcès cérébraux : à propos d'un cas au centre hospitalier universitaire et départemental du Borgou/Alibori, Parakou en 2023. Rev. Ben. Mal. Inf. 2023; 2(2):12-15.

INTRODUCTION

Le diagnostic précoce des Cardiopathies Congénitales (C.C) a un impact positif sur leur évolution. En effet diagnostiquées tard ou non traitées elles peuvent se compliquer. Selon le type de cardiopathie, il peut s'agir d'une insuffisance cardiaque, d'une endocardite infectieuse,

d'une polyglobulie sévère, d'un accident cérébro-vasculaire ou d'un abcès cérébral. L'abcès cérébral en particulier est une collection purulente d'origine bactérienne développée dans une cavité néoformée à l'intérieur du

Dohou SHM et al.

Atrésie pulmonaire à septum ouvert sur situs inversus ...

parenchyme cérébral [1]. C'est une complication classique des C.C cyanogènes, décrite depuis 1814 [2]. Il survient plus tardivement, au-delà de l'âge de 2 ans. L'abcès cérébral devrait donc devenir rare, puisque les C.C sont de plus en plus diagnostiquées plus tôt et généralement opérées avant cet âge notamment dans les pays développés [3]. Nous rapportons l'observation d'une patiente diagnostiquée pour une APSO type 3 compliquée de multiples abcès cérébraux sur situs inversus incomplet et prise en charge par une intervention neurochirurgicale.

OBSERVATION

Il s'agissait d'une femme, adulte jeune de race noire, âgée de 27 ans, reçue en consultation le 24 Avril 2023 pour une hémiparésie gauche associée à une dyspnée d'effort évoluant depuis deux semaines. Elle avait rapporté une dyspnée d'effort stade II-III de la New York Heart Association (NYHA) évoluant de façon intermittente depuis l'enfance. Primigeste, primipare, elle avait été hospitalisée un mois plus tôt dans le service de cardiologie pour une insuffisance cardiaque gauche aiguë dans un contexte de postpartum immédiat. Mise sous diurétique, l'évolution a été marquée par une régression des signes d'insuffisance cardiaque. Un échodoppler cardiaque réalisé dans la quête de la cardiopathie sous-jacente a objectivé une cardiopathie congénitale cyanogène type atrésie pulmonaire à septum ouvert. Aucune prise en charge chirurgicale de cette cardiopathie n'eût été possible et elle a été mise en exéat le 23 Mars 2023. Son traitement était fait de : Furosémide ; spironolactone ; Ramipril et potassium élément.

Elle a été réadmise en consultation le 24 Avril 2023 pour un déficit moteur de l'hémicorps gauche. L'interrogatoire retrouvait un déficit moteur de survenue brutale et d'aggravation progressive, associé à une dyspnée d'effort stade III. La patiente se plaignait par ailleurs de céphalées en casque rebelles aux antalgiques usuels, une asthénie physique intense, de palpitations intermittentes. L'état général était altéré. On notait une cyanose des extrémités avec hippocratisme digital, des œdèmes bilatéraux de membres inférieurs. Les constantes vitales : température à 38°C, la saturation en O₂ (SaO₂) à 76 % en

Dohou SHM et al.

air ambiant ; une fréquence respiratoire à 32 cycle/mn, une pression artérielle à 104/61 mmHg au bras gauche et à 102/59 mmHg au bras droit, une fréquence cardiaque à 90/mn, un poids de 41 kg, une taille de 1,53 m avec un indice de masse corporelle (IMC) de 13,39kg/m².

L'examen cardiovasculaire retrouvait un rythme irrégulier, un souffle systolique médiosternal d'intensité 4/6 et irradiant en rayon de roue, un bruit de galop droit, une turgescence des veines jugulaires.

L'examen neurologique notait un bon état de conscience, pupilles isocores isoréactives, une hémiparésie gauche avec la force musculaire segmentaire aux membres thoracique et pelvien gauches à 2/5. Les réflexes ostéotendineux étaient diminués à gauche et le réflexe cutanéopiantaire était indifférent.

L'électrocardiogramme (ECG) retrouvait un rythme sinusal irrégulier par des extrasystoles atriales. L'axe du cœur était dévié vers la droite et on notait une surcharge cavitaire droite.

L'échodoppler cardiaque (**Iconographie 1**) retrouvait un ventricule unique avec un aspect d'oreillette unique, une atrésie tricuspide et pulmonaire, une absence de végétation.

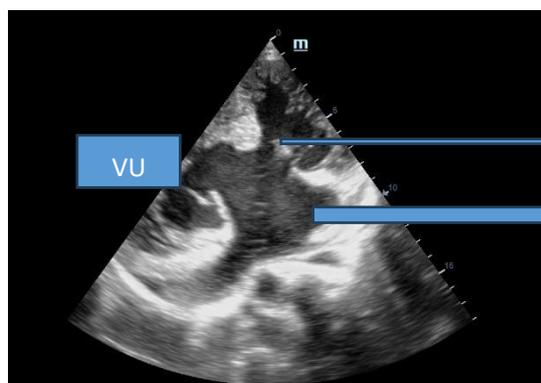
La biologie notait un taux d'hémoglobine à 15,1g/dL, un hémocrite à 46,3% et un nombre de globules blancs à 5,51 G/L. La CRP était revenue négative.

La Tomodensitométrie thoracoabdominale a révélé une hypoplasie de l'artère pulmonaire, une transposition des gros vaisseaux à droite, une large communication inter-ventriculaire, un situs viscéral avec le foie à gauche, la rate et l'estomac à droite de même qu'un situs inversus des bronches et poumons.

La Tomodensitométrie cérébrale notait la présence de plage d'œdème frontopariétal bilatéral avec un rehaussement annulaire après injection de produit de contraste iodé évocatrice de deux abcès cérébraux (**Iconographie 2**).

Le diagnostic d'atrésie pulmonaire à septum ouvert compliquée de multiples abcès cérébraux sur situs inversus incomplet a été donc posé. Le traitement institué était de la Ceftriaxone à la dose de 2 gramme/12h ; de la

Gentamycine à la dose de 160 mg/24h et du Phénobarbital à la dose de 100mg les soirs.



Communication interventriculaire

Massif atrial + atrésie du cœur droit

Iconographie 1 : Échographie transthoracique par la fenêtre sous costale montrant le ventricule unique (VU), la Communication interventriculaire (CIV) et l'atrésie tricuspido-pulmonaire (image de la patiente admise dans le service de cardiologie du Centre Hospitalier Universitaire et Départemental du Borgou/Alibori en avril 2023).

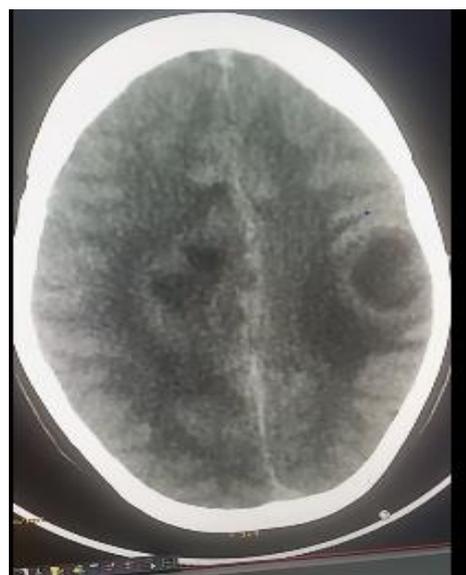
Elle a bénéficié également de l'association Paracétamol 1 gramme et Tramadol 100mg toutes les 12 heures ; du Furosémide 40mg comprimé à la dose de 80 mg les matins et 40 mg à 14h ; du Potassium élément 600 mg 1 comprimé toutes les 8 heures et de l'Enoxaparine 4000UI/24 h.

La cure chirurgicale a consisté en une trépano-ponction et aspiration de l'abcès frontopariétal gauche. L'Examen cytotabériologique du pus a noté une absence de germe. L'évolution sous ce traitement a été marquée sur le plan clinique par une amélioration de l'état général, une apyrexie et amélioration de la force musculaire segmentaire passée à 3/5 à l'hémicorps gauche. La Tomodensitométrie cérébrale de contrôle n'a pu être réalisée par manque de moyens financiers.

Elle a été mise en exéat le 27 Mai 2023 sous : Thiamphénicol 1 gramme/12 heures ; Furosémide 40mg comprimé à la dose de 80 mg les matins et 40 mg à 14h ; Potassium élément 600 mg 1 comprimé toutes les 8 heures ; Aldactone 25mg par jour ; Ramipril 2,5mg par jour ; et une rééducation fonctionnelle.

DISCUSSION

L'abcès cérébral est une complication rare des cardiopathies cyanogènes avec incidence qui varie entre 6 à 51% [4]. Le risque d'abcès cérébral compliquant une cardiopathie congénitale cyanogène est inconstant, mais est plus fréquent après 2 ans d'âge et augmente continuellement jusqu'à l'âge de 12 ans [5]. Chez cette patiente l'âge de présentation était de 27 ans, soit un mois après le diagnostic d'atrésie pulmonaire à septum ouvert.



Iconographie 2 : Coupe axiale d'un scanner cérébral sans injection de produit de contraste montrant deux images hypodenses frontopariétales droite et gauche prenant le contraste en périphérie entourées d'œdème péri lésionnel évocatrices de multiples abcès cérébraux (image scanographique de la patiente admise dans le service d'imagerie médicale du Centre Hospitalier Universitaire et Départemental du Borgou/Alibori en avril 2023).

Cette patiente présentait plusieurs signes dont les céphalées, l'hémi-parésie et la fièvre. Cela corrobore l'étude de Thiam et al. en Côte d'Ivoire qui ont retrouvé la fièvre et les céphalées respectivement à 100% et 80% chez 10 enfants avec un âge moyen de 9,6 ans [6]. La prédominance de la fièvre suivie des céphalées est retrouvée par des auteurs comme Kai-Liang et al. [7] Lakhani et al. [8] et Kiran et al. [9]. Ces derniers ont rapporté également des crises tonico-cloniques généralisées.

L'examen d'imagerie réalisé chez notre patiente était un

scanner. L'Imagerie par Résonance Magnétique (IRM) est l'examen de référence pour le diagnostic des abcès cérébraux. Mais Frazier et al. [4] estime la sensibilité du scanner entre 95 et 99% et une spécificité plus restreinte à cause des diagnostics différentiels.

Le traitement médical de notre patiente a consisté à une polyantibiothérapie avec l'utilisation des céphalosporines de 3ème génération et des aminosides puis des phénilcolés. Thiam et al ont rapporté l'utilisation des céphalosporines de 3ème génération et des imidazolés dans leur série de 10 cas [6]. Kudo-Kubo et al. [10] et Kiran et al. [9] ont rapporté quant à eux l'utilisation de la vancomycine associée respectivement au Méropénème et à la ceftriaxone. La cure s'est faite dans notre contexte par trépanoponction comme rapporté dans plusieurs études africaines [6]. L'examen cytotactériologique du pus n'a pas retrouvé de germe. Ce qui est en accord avec l'étude de Thiam et al. qui ont retrouvé une culture négative dans 70% des cas [6]. Kudo-Kubo et al. et Kiran et al. ont retrouvé des cultures positives isolant respectivement le *Streptococcus intermedius* et le *Pseudomonas aeruginosa* [9, 10].

L'évolution à court terme de notre patiente était favorable avec une amélioration de la motricité et une apyrexie. Thiam et al. ont noté durant un suivi moyen de 4 mois une bonne évolution chez 70% de patients et une récurrence dans 30 % [6]. Chez notre patient un contrôle tomodensitométrique n'a pu être réalisé contrairement à l'étude de cas de Lakhani et al. qui notait une régression de l'abcès cérébral et de l'œdème périlésionnel après deux semaines de traitement médical [8].

CONCLUSION

L'abcès cérébral est une complication tardive des cardiopathies congénitales cyanogènes qui ne devraient plus être objectivés du fait de l'amélioration des outils diagnostiques précoces. Néanmoins, en Afrique, le diagnostic des cardiopathies congénitales demeure un défi et certains cas ne sont vus qu'à des âges avancés et au stade de complication.

Déclaration de conflit d'intérêt : les auteurs déclarent n'avoir aucun conflit d'intérêt.

RÉFÉRENCES

1. Stahl JP. Abcès cérébraux. EMC-Neurologie, 2014, 11(2):1-6.
2. Paul JF, Lambert V. Exploration tomodensitométrique des cardiopathies congénitales. EMC-Cardiologie-Angéiologie, 2004, 1(2):114-22.
3. Fischbein CA, Rosenthal A, Fischer EG, Nadas AS, Welch K. Risk factors for brain abscess in patients with congenital heart disease. Am j Cardiol, 1974, 34(1): 97-10.
4. Frazier JL, Ahn ES, Jallo GI. Management of brain abscesses in children. Neurosurg Focus, 2008, 24(6): E8. doi: 10.3171/FOC/2008/24/6/E8.
5. Mehnaz A, Syed AU, Saleem AS, Khalid CN. Clinical features and outcome of cerebral abscess in congenital heart disease. J Ayub Med Coll Abbottabad, 2006,18(2):21-4.
6. Thiam AB, Salem-Memou S, Ba MC, NDOYE N, Moumouni AK, Sakho Y et al. Abces cérébraux sur cardiopathies congénitales. À propos de 10 cas. Rev Int Sc Méd, 2013,15(3):156-160.
7. Kai-liang K, Keh- Gong W, Chun-Jen C, Jionn-Jiong W, Ren-Bin T, Kai-Ping C et al. Brain abscesses in children: analysis of 20 cases presenting at a medical center. J Microbiol Immunol Infect, 2008, 41(5):403 - 407.
8. Lakhani M, Memon RH, Khan F. Brain abscess: A rare complication in a child with tetralogy of Fallot. Elsevier, 2020, IDCases 22.
9. Kiran A, Taksande A, Chaudhary R. Recurrent brain abscess in a child with cyanotic congenital heart disease. Cureus, 2022 ;14(12) : e32618.doi:10.7759/cureus.32618.
10. Kudo-kubo A, Shimakawa S, Odanaka Y, Naokado I, Hikaru K, Hiromitsu T et al. Multiple brain abscesses with good prognosis in an infant with cyanotic congenital heart disease: a case report. Journal of Medical Case Reports, 2020, 14(111) : 1-5.