

ASSOCIATION LARGE ULCERE DE BURULI THORACO-ABDOMINAL ET PLEURESIE MASSIVE HOMOLATERALE : Aspects diagnostiques et difficultés de prise en charge, à propos d'un cas

KIBADI K.¹, MUYEMBE T. ², PHANZU D.³, MBALA L.⁴, MEYERS W.M.⁵, PORTAELS F.⁶

RESUME

Un large ulcère de Buruli thoraco-abdominal associé à une pleurésie massive homolatérale a été observé chez une fille âgée de 9 ans du foyer de Songololo en R.D. Congo. La preuve d'une infection à *Mycobacterium ulcerans* a été bactériologique et histopathologique pour l'ulcère thoraco-abdominal. Aucune preuve d'une pleurésie à *Mycobacterium* n'a pu être décelée. Le traitement a été chirurgical (excision, pansement, greffe cutanée) et médical (polychimiothérapie). Le but de ce travail est de présenter les difficultés rencontrées dans un foyer endémique dans la démarche diagnostique et le traitement d'un large ulcère de Buruli thoraco-abdominal associé à une pleurésie massive homolatérale.

Mots-clés : Ulcère de Buruli, association homolatérale, ulcère thoraco-abdominal, pleurésie massive.

SUMMARY

A case of pleurisy associated with a homolateral large thorax Buruli ulcer

A case of pleuritis associated with a homolateral large thorax ulcer is observed in a nine-year-old patient (girl) from Angola living in the endemic focus of Songololo on the common border between Angola and Democratic Republic of Congo. It is about *Mycobacterium ulcerans* infection: smears on Ziehl-Neelsen have proved BAAR. Culture on the area of enriched Löwenstein has isolated a mycobacteria. The pathological histology carried has confirmed the Buruli ulcer in its active form. But, what would be the origin of this pleural effusion ?

The treatment has been surgical (excision - dressing - grafting) associated and antibiotic therapy.

Key-words : Buruli ulcer, homolateral coexistence of a large ulcer and pleuritis.

INTRODUCTION

L'ulcère causé par *Mycobacterium ulcerans*, encore appelé ulcère de Buruli (U.B), se caractérise par des vastes ulcérations cutanées [1-5]. Sans traitement, elle évolue souvent vers des séquelles invalidantes ou des formes disséminées, soit par propagation contiguë de l'affection ou par la présence de *Mycobacterium ulcerans* dans le sang [3, 6-8].

En Afrique Centrale, de nombreuses publications sur

l'U.B ont été faites entre les années 1950 et 1970 [9-14]. Devant l'émergence actuelle, de nouveaux foyers en Afrique de l'Ouest [1-4, 11, 15-16], de nouveaux cas d'U.B viennent d'être rapportés de la R.D Congo [17-19]. Mais aucun cas traité d'un large ulcère thoraco-abdominal associé à une pleurésie massive homolatérale n'a été rapporté en R.D Congo.

Cette première observation qui fait suite à bien d'autres rapportées en Afrique de l'Ouest (Côte d'Ivoire) par ECRA et coll. [20] a pour but : de confirmer la coexistence fréquente dans nos milieux de cette association, de présenter les difficultés rencontrées dans le diagnostic étiologique et le traitement, de susciter la réaction d'autres cliniciens en vue d'améliorer la prise en charge d'une telle association marquée par la gravité liée à son siège et nos conditions de travail encore précaires.

OBSERVATION

La patiente T, âgée de 9 ans, des parents originaires d'Angola vivant à Nkamuna à la frontière angolo-congolaise dans le territoire de Songololo (Province du Bas-

1 - Chirurgien, Département de Chirurgie, Cliniques Universitaires, Université de Kinshasa B.P. 834 Kinshasa XI, R.D. Congo

2 - Laboratoire de Bactériologie, Cliniques Universitaires, Université de Kinshasa, R.D. Congo

3 - Hôpital Institut Médical Evangélique (IME) Kimpese, Bas-Congo, R.D. Congo

4 - Dispensaire du Site NKONDO de l'International Rescue Committee (IRC) Kimpese, Bas-Congo, R.D. Congo

5 - Institut de Pathologie des Forces Armées Américaines, Washington, Etats-Unis d'Amérique

6 - Unité de Mycobactériologie, Institut de Médecine Tropicale d'Anvers, Belgique.

Congo) a été transférée du Dispensaire du Site Nkondo de l'IRC Kimpese à l'Hôpital IME Kimpese le 12 juin 2001 pour large ulcération aux bords décollés prenant l'hémi-thorax et le flanc gauches évoluant depuis plus de six mois. Dans ses antécédents, nous avons retenu l'absence d'une vaccination BCG à la naissance. L'état général était altéré par un amaigrissement. L'examen du thorax, quoique difficile à cause de l'ulcération cutanée, présentait un silence à l'auscultation pulmonaire gauche. Elle pesait 22 kg. L'hypothèse d'un ulcère à *Mycobacterium ulcerans* associé à une pleuropneumonie sur terrain de malnutrition protéino-énergétique avait été retenue.

La figure n° 1 illustre le large ulcère thoraco-abdominal au début de la prise en charge.

Figure 1



Une polymédication (ampicilline, gentamycine, cotrimazole, fer, antitussif...) a été administrée ainsi qu'un supplément nutritionnel protéique.

Le bilan paraclinique fait le 18 juin 2001 montrait :

Biologie :

- vitesse de sédimentation : 57 mm/h,
- Globules blancs : 6.650 mm³,
- numération leucocytaire : neutrophiles 54, lymphocytes : 39, éosinophiles : 2, monocytes : 5,
- La sérologie VIH était négative.

La radiographie du thorax faite le 18 juin 2001, montre sur la figure n° 2, une opacité homogène de tout l'hémi-thorax gauche avec discrète déviation du médiastin du côté sain à droite, épanchement pleural massif gauche.

Ponction pleurale:

- Liquide : aspect jaune-citrin ;
- Ziehl-Neelsen sur frottis: négatif ;
- culture sur milieu de Lowenstein : négative

Figure 2



Vue l'évolution extensive de l'ulcération, une radiographie du thorax contrôle a été demandée le 9 juillet 2001, malgré qu'aucun traitement chirurgical de la pleurésie n'a été réalisé. Le protocole radiographique de la figure n° 3, montre une re-aération du poumon gauche au sommet avec opacité à la base limitée par la ligne de Damoiseau (patiente sous antibiothérapie non spécifique).

Figure 3



Avec beaucoup de risques opératoires, nous pratiquons sous anesthésie générale, un large débridement jusqu'aux tissus sains. Les constatations per opératoires

montrent une extension tronculaire très poussée. Les pertes sanguines lors de cette intervention ont été importantes, et la patiente a bénéficié d'une transfusion de sang. La figure n° 4 montre l'extension de l'ulcère vers l'abdomen et le sternum avec amputation chirurgicale du sein gauche.

Figure 4



D'autres débridements ont été réalisés sous anesthésie générale le 09 août 2001, le 16 août 2001. La reprise de la nécrose aux bordures de l'ulcération après débridement et la crainte d'une forme disséminée (hémato-gène) nous a poussé à la mettre sous tuberculostatiques le 09 août 2001. Elle a été mise sous Rifater et Pyrazinamide pendant 2 mois à raison de 2 co/j à jeun (5 mg INH/j, 10 mg Rifampicine/j et 30 mg Ethambutol) et 2 co de Pyrazinamide 300 mg pendant 2 mois. Puis sous Mynah 4 co de 120 mg/j pendant 6 mois. Prednisolone 4 x 2 co/j diminué progressivement.

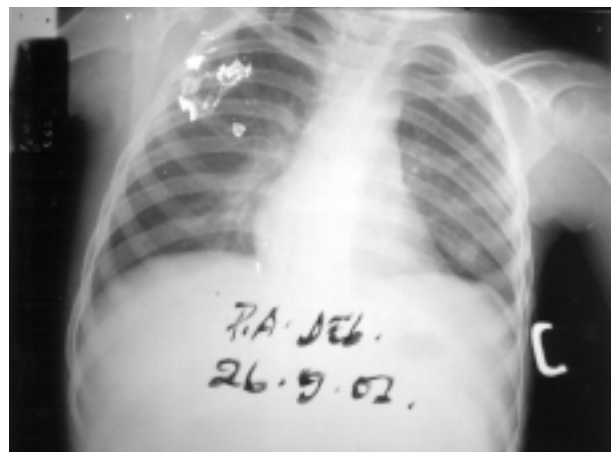
Après stérilisation et bourgeonnement de la plaie sous association aqueuse Chloramine - Métronidazole - Nitrofurandoïne [18], une autogreffe cutanée mince (dermo-épidermique) a été réalisée en deux temps le 28 août 2001 et le 13 septembre 2001. La figure n° 5 illustre cette autogreffe cutanée mince, prélevée à la cuisse gauche sous anesthésie générale.

Figure 5



Les prises de greffes ont été totales. La radiographie du thorax faite le 28 septembre 2001 à la sortie de l'hôpital montre sur la figure n°6 une reexpansion totale du poumon gauche avec pincement des espaces intercostaux et épaissement pleural suggestif d'une pachypleurite séquellaire d'un ulcère à Mycobacterium ulcerans.

Figure 6



La patiente a été revue six mois après, dans son village Nkamuna, à environ 80 km de l'Hôpital IME-Kimpese. Elle était guérie de son large ulcère thoraco-abdominal et de sa pleurésie, telle qu'illustrée à la figure n° 7.

Figure 7

COMMENTAIRE

L'ulcère de Buruli n'est pas uniquement dermatologique [21], et peut également provoquer ou être associé à une pleurésie. Cette association de l'ulcère cutané à la plèvre, quoique peu étudiée dans la littérature médicale a fait l'objet d'articles généraux à ce sujet [20]. La preuve d'une infection à Mycobacterium ulcerans pour les tissus a été basée sur au moins deux diagnostics positifs (Zieh-Neelsen, culture sur Lowenstein, histopa-

thologie) selon la recommandation de l'OMS [22, 23]. Tandis que l'exploration étiologique pour la pleurésie a été difficile.

Tableau récapitulatif des explorations étiologiques effectuées

	Ecouvillonnage sur coloration de Ziehl-Neelsen	Culture sur milieu de Lowenstein	Analyse histopathologique	Identification
	Hôpital IME-Kimpese Lecture au Laboratoire de Bactériologie, Université de Kinshasa (R.D Congo)	Laboratoire de Bactériologie, Université de Kinshasa (R.D Congo)	Institut de Pathologie des Forces Armées Américaines, Washington (Etats-Unis d'Amérique)	Laboratoire de Mycobactériologie Institut de Médecine Tropicale d'Anvers (Belgique)
Large ulcère thoraco-abdominal (frottis)	Lame n° 3463 Résultat : Positif	Culture n° 84 du 18.09.01 Résultat : Positif	Identification du patient Séquence n° 01 SSMWMM lem AFIP Accession n° 2812801 S-002 A,B,C,D-01 du 30.04.02 Résultat : Infection à <i>M. ulcerans</i> (active)	Pas de pousse
Pleurésie (liquide pleural)	Lame n° 3 Résultat : négatif	Culture n° 57 et n° 50 du 18.09.01 Résultat : négatif	Non faite	Non faite

La biopsie pleurale recommandée par beaucoup d'auteurs [24] n'a pu avoir lieu. Les risques de contamination de la plèvre, d'une fistule pleuro-cutanée, de pyopneumothorax étaient importants. Le drainage chirurgical indiqué pour cette pleurésie massive, compliquée au début d'une détresse respiratoire n'a pas été réalisé. ECRA et coll. [6] dans sa série n'ont non plus fait de biopsie pleurale, élément de diagnostic différentiel étiologique.

L'évolution radiologique satisfaisante sous antibiothérapie non spécifique déjà sur la figure n° 2 (cliché radiologique contrôle) n'excluait pas une étiologie mycobactérienne. Pour HAYMANN et ASIÉDU, quoique n'ayant pas fait d'investigations poussées sur l'association entre l'ulcère de Buruli avec la lèpre ou la tuberculose, il n'y a pas d'association entre ulcère de Buruli et la lèpre ou la tuberculose [22, 25].

Cependant, MEYERS et CONNOR ont découvert six cas d'infections doubles à *Mycobacterium ulcerans* et *Mycobacterium leprae* sur 1061 patients atteints de la lèpre et 180 d'U.B [22].

Mais ces derniers n'ont jamais signalé de co-infection à *Mycobacterium ulcerans* et *Mycobacterium tuberculosis*. L'écouvillonnage sur Ziehl-Neelsen du liquide pleural a été négatif. En effet, N'GUESSAN [26] avait déjà présenté les limites de la microscopie des exsudats au cours de l'infection cutanée à *Mycobacterium ulcerans*.

Malheureusement pour notre cas, l'échantillon de culture positive sur milieu de Lowenstein de la peau envoyé, une année après son prélèvement (décembre 2002) à l'IMT Anvers pour identification n'a pas poussé.

L'hypothèse d'une pleurésie de type exsudat due à la toxine (mycolactone) [7] qui aurait déterminé une réaction inflammatoire avec épanchement de type exsudat avait été retenue. L'assèchement de la pleurésie avait déjà débuté sous antibiothérapie non spécifique (fig. n° 3). La guérison de cette pleurésie laissant des cicatrices fibreuses rétractiles, avec des séquelles pleurales (pachypleurite) illustrée à la radiographie de sortie (fig. n° 6) serait prévisible [24], malgré une rééducation respiratoire précoce prescrite.

L'absence de vaccination a constitué un facteur d'aggravation de la pathologie. Le statut vaccinal pour le BCG s'est basé uniquement sur l'examen de l'avant-bras de la patiente, siège de la vaccination BCG en R.D. Congo. En effet, d'autres études [27] ont démontré que la cicatrice de BCG de l'avant-bras est un meilleur indicateur que les carnets de vaccination.

PORTAELS et coll., dans une étude de 1996 à 2002 au Bénin [21] ont pu démontrer que les patients ayant eu le BCG à la naissance faisaient moins souvent des ostéomyélites que lorsqu'ils n'avaient pas eu le BCG à la naissance.

Association large...

Médecine d'Afrique Noire 2004 - 51 (12)

Les différences observées sont significatives et confirment que la vaccination BCG peut protéger contre les formes graves d'ulcère Buruli telles que les ostéomyélites, l'association large ulcère thoraco-abdominal et pleurésie massive homolatérale...

CONCLUSION

L'association ulcère de Buruli thoraco-abdominal et pleurésie est de plus en plus rencontrée en milieu africain. La virulence de la souche *Mycobacterium ulcerans* africaine jouerait un rôle déterminant. Des difficultés sont rencontrées dans le diagnostic étiologique et dans la prise en charge chirurgicale. La preuve d'une co-existence *Mycobacterium ulcerans* (large ulcère thoraco-abdominal) et *Mycobacterium tuberculosis* (pleurésie

massive gauche homolatérale) n'a pas été prouvée. Les facteurs de risque de développement de cette pleurésie massive homolatérale pourraient être :

- la souche de *Mycobacterium ulcerans* en présence et les facteurs de défense de l'hôte,
- la présence d'un large ulcère thoraco-abdominal homolatéral,
- un délai à la consultation beaucoup trop long,
- l'absence de la vaccination au BCG.

Ainsi, nous recommandons dans nos pays endémiques d'U.B, une prise en charge précoce de la maladie et une augmentation de la couverture vaccinale BCG afin de protéger les enfants contre les formes graves d'ulcère de Buruli, telles que association large ulcère thoraco-abdominal et pleurésie massive homolatérale.

BIBLIOGRAPHIE

- 1 - ABOLOS F, AGUIAR J., GUEDENON A., MEYERS W.M., PORTAELS F. *Mycobacterium ulcerans* infection. *Am J Trop Med Hyg* 1997 ; 348 (57) : 219.
- 2 - AGUIAR J, DOMINGO M.C., GUEDENON A., MEYERS W.M., STEUNOU, PORTAELS F. Ulcère de Buruli : une maladie mycobactérienne importante et en recrudescence au Bénin. *Bull seanc Acad R Sci Outre-Mer*.1997 ; 43 : 325-38.
- 3 - AGUIAR J., STEUNOU. Les ulcères de Buruli en zone rurale au Bénin : prise en charge de 635 cas. *Méd. Trop.* 1997 ; 57 : 83-90.
- 4 - AMOFAH G.K, SAGO E-MOSES C., ADJEI-ACQUAH C., FRIMPONG EH. Epidemiology of Buruli ulcers in Amanse West district Ghana. *Trans R Soc Trop Med Hyg* 1993 ; 87 : 644-5.
- 5 - PORTAELS F, AGUIAR J., DEBACKER M., STEUNOU C., ZINSOU C., GUEDENON A., MEYERS W.M. Prophylactic effect of *Mycobacterium bovis* BCG vaccination against osteomyelitis in children with *Mycobacterium ulcerans* disease (Buruli ulcer). *Clin Diagn Lab Immunol* 2002 ; 9 : 1389-91.
- 6 - ECRA E.J. Ulcère de Buruli : complications et conséquences. Mémoire de CES de Dermatologie, 1997 ; Abidjan.
- 6 - GEORGE K.M, CHATTERJEE, D., GUNAWARDANA, G., WELTY, D., HAYMAN J., LEE, R., SMALL P.L.C. Mycolactone : a polyketide toxin from *Mycobacterium ulcerans* required for virulence. *Science* 1999 ; 283 : 854-7.
- 7 - Organisation Mondiale de la Santé 2001. Ulcère de Buruli. Prise en charge de l'infection à *Mycobacterium ulcerans* in : Buntine J., Crofts K (Eds) WHO/CDS/2001. 3, 72 p.
- 8 - ANDERSEN F.O. Mycobacterial skin ulcers. Clinical experience. *Central Afr J. Med.* 1965 ; 11 : 131-358.
- 9 - BARKER D.P.P, CLANCEY J.K., KA O.S.K. *Mycobacterium* on vegetation in Uganda. *East Afr Med J.* 1972 ; 49 : 667-71.
- 10 - CONNOR D.H, LUNN H.F. Buruli ulceration. A clinico-pathologic study of 38 Ugandans with *Mycobacterium ulcerans* ulceration. *Arch Pathol.* 1996 ; 81: 183-99.
- 11 - JANSSENS P.G., QUERTINMONT M.J, SIENIAWSKI J., GATTI F. Necrotic tropical ulcers and mycobacterial causative agents. *Trop Geog Med.* 1959 ; 11 : 293-312.
- 12 - JANSSENS P.G. Essays on Tropical Dermatology. Amsterdam Ed J Marshall, Excerpta Medica, 1972 ; 2 : 264-95.
- 13 - MEYERS W.M, D.H CONNOR, B.M.C CULLOUGH, J. BOURLAND. Distribution of *Mycobacterium ulcerans* in Zaire, including the report of new foci. *Ann Soc Belge Med Trop* 1974 ; 54 : 147-57.
- 14 - CARAYON A., PEVQUIS P, HONORAT M., BLIN F. Ulcères par mycobactéries en Afrique. *Bull Soc Med Afrique Noire Ligue Fr.* 1968 ; 13 : 670-9.
- 15 - KANGA J.M, KACOU E.D. Aspects épidémiologiques de l'ulcère de Buruli en Côte d'Ivoire : résultats d'une enquête nationale. *Bull Soc Pathol Exot.* 2001 ; 94 : 46-51.
- 16 - BAFENDE A.E., LUKANU, N.P, NUMBI, A.N. Buruli ulcer in AIDS patient. *S Afr Med J.* 2002 ; 9 : 437.
- 17 - KIBADI K., TSAKALA T.M., MPUTU-YAMBA J.B., MUYEMBE T., KASHONGWE M., IMPOSO B. Essai thérapeutique de l'association Chloramine-Métronidazole-Nitrofuradoïne dans le traitement local de l'ulcère de Buruli surinfecté. *Méd d'Afrique Noire* 2002 ; 49 (5) : 239-43.
- 18 - KIBADI K., TSAKALA T.M., MPUTU-YAMBA J.B., MUYEMBE T., IMPOSO B., NSIALA A. Ulcère de Buruli chez les réfugiés angolais des sites de Kimpese, R.D

Association large...

Médecine d'Afrique Noire 2004 - 51 (12)

Congo. Cahier Santé 2003 ; 13 : 39-41.

19 - ECRA E.J., GBERY I.P., AKA B.R., SANGARE A., KOUAME K., DION L., KALOGA M., YOBOUE P., KANGA J.M

Ulcère de Buruli : à propos de deux cas thoraco-abdominaux associés à une pleurésie.

Méd d'Afrique Noire 2001 ; 48 (5) : 231-16.

20 - PORTAEL F., ZINSOU C., AGUIAR J., DE BACKER M., BIURRUN E., GUEDENON A., JOSSE R., LAGARRIGUE V., SILVA M., STEUNOU C., MEYERS W.

Les atteintes osseuses dans l'ulcère de Buruli : à propos de 73 cas.

Bull Séans Acad R Sci Outre-Mer 2003 ; 49 : 161-90.

21 - Organisation Mondiale de la Santé 2000

Ulcère de Buruli. Infection à Mycobacterium ulcerans - In : Asiedu K., Scherpbrier R., Raviglione M (Eds) : WHO/CDS/GBUI/2000 1, 115 p.

22 - Organisation Mondiale de la Santé 2001

Ulcère de Buruli. Diagnostic de l'infection à Mycobacterium ulcerans.

in : Portaels F., Johnson P., Meyers W.M. (Ess), WHO/CDS/4, 42 p.

23 - GILBERT H., BERNARD L.

Pédiatrie d'urgence 4è édition 1993 (p. 1318).

Médecine-Sciences, Flammarion 4, rue Casimir-Delavigne, 75006 Paris.

24 - HAYMAN J., ASIEDU K.

Epidemiologie in ulcère de Buruli, Infection à Mycobacterium ulcerans, WHO/CDS/GBUI/2001.

25 - N'GUESSAN K.

Intérêt et limites de la microscopie des exsudats au cours de l'infection cutanée à Mycobacterium ulcerans en Côte d'Ivoire.

Bull Soc Pathol Exot 2001 ; 94 (1) : 9-10.

26 - PEREIRA SM, DOURADO I, BARRETO M.L, CUNHA SS, ICHIARA MVT, HIJJAR MA, GOES JLL, RODRIGUES LC

Sensitivity and specificity of BCG scar reading in Brazil.

Int J Tuberc Lung Dis 2001; 5 : 1067-70.

Médecine d'Afrique Noire

Le Pharmacien d'Afrique

Odonto-Stomatologie Tropicale

sont sur

www.santetropicale.com

Médecine du Maghreb

est sur

www.santemaghreb.com