

Une cellulite orbitaire révélatrice d'une aspergillose invasive du sinus maxillaire chez un sujet immunocompétent.

Orbital cellulitis revealing an invasive aspergillosis of the maxillary sinus of an immunocompetent patient.

S. Traoré¹, D. Samaké^{2*}, H. Traoré¹, AST. Kané³, F. Slimani⁴, A. Oukeroum⁴, A. Chekkoury-Idrissi⁴.

1- Service de Stomatologie et de Chirurgie maxillo-faciale, CHU CNOS- Bamako-Mali

2- Service d'ORL, Centre de Santé de Référence de la Commune V- Bamako-Mali

3- Service d'Odontologie, Infirmerie Hôpital Militaire de Bamako-Mali

4- Service de Stomatologie, Chirurgie Orale et Maxillo-Faciale - Hôpital 20 Août CHU de Casablanca – Maroc.

Reçu: 06 Septembre 2019; accepté: 14 Janvier 2020; Publié en ligne: 20 juin 2020

RÉSUMÉ

Objectif: Discuter les difficultés diagnostiques et thérapeutiques de l'aspergillose pseudo-tumorale invasive du sinus maxillaire.

Observation: Une femme âgée de 38 ans, immunocompétente, a été admise pour une tuméfaction jugale droite non améliorée par des traitements médicaux antérieurs. Le scanner a objectivé un comblement de densité tissulaire du sinus maxillaire droit contenant des opacités de tonalité calcique ; une cellulite orbitaire avec lyse du plancher de l'orbite homolatérale. La patiente a bénéficié d'un drainage du sinus par voie d'abord de Caldwell-Luc. L'examen histologique sur pièce d'exérèse a confirmé le diagnostic d'aspergillose naso-sinusienne invasive. Les suites opératoires ont été simples et l'évolution a été favorable après traitement antifongique.

Conclusion: L'aspergillose invasive du sinus maxillaire est une infection grave et souvent méconnue. Elle mimait au début une infection banale et plus tard une tumeur. Le diagnostic est suspecté au scanner et posé par l'histologie. Une prise en charge précoce est essentielle pour limiter les complications et faciliter la guérison.

Mots clés: Sinusite, Aspergillose, Cellulite, Histologie, Mycologie.

ABSTRACT

Objective: Discuss the diagnostic and therapeutic difficulties of pseudo-tumoral invasive aspergillosis of the maxillary sinus.

Observation: 38-year-old Immunocompetent woman was admitted in our health center for right cheek swelling after an unsuccessful medical treatment. The CT scan showed a dense filling of the right maxillary sinus containing opacities of calcic tone; Orbital cellulitis with lysis of the floor of the ipsilateral orbit. The patient was operated through a Caldwell-Luc approach. Histological examination concluded to an invasive aspergillosis. The postoperative course was uneventful and the evolution was favorable under antifungal treatment.

Conclusion: Maxillary sinus invasive aspergillosis is a serious and often overlooked infection. It initially mimics a common infection and later tumor looking. The diagnosis is suspected on CT scan and confirmed histologically. The early disease management is the key to limit complication and to facilitate healing.

Keywords: Sinusitis, Aspergillosis, Cellulitis, Histology, Mycology.

INTRODUCTION

Les sinusites affectent environ 20% de la population mondiale [1]. Les atteintes fongiques représentent environ 15 à 20 % des sinusites maxillaires chroniques [2]. Une étude épidémiologique descriptive réalisée dans le nord de l'Inde a montré que la sinusite fongique chronique invasive représentait 1,3% des sinusites fongiques chroniques [1]. Cette épidémiologie est encore mal connue au Mali en l'absence de prélèvement systématique aussi bien microbiologique qu'histologique.

Deux grandes formes ont été décrites:

La forme invasive dans laquelle la muqueuse sinusienne, les vaisseaux, l'os, les tissus sont atteints; cette forme comprend la forme fulminante aigue chez le sujet immunodéprimé et la forme chronique ou indolente pseudo-tumorale;

La forme non invasive comporte la balle fongique ou Aspergillome et la rhinosinusite fongique allergique [3].

La forme pseudo-tumorale invasive révélée le plus souvent par les complications telle que la cellulite orbitaire est rare et parfois méconnue chez les patients immunocompétents [4,5]. Elle pourrait mettre en jeu

Auteur correspondant: Djibril Samaké.

Adresse: Centre de Santé de Référence de la Commune V- Bamako-Mali.

Email: samakedjibi@yahoo.fr



aussi bien le pronostic vital que fonctionnel de l'œil. Ce qui justifie une prise en charge diagnostique et thérapeutique précoce [6]. Son traitement est essentiellement chirurgical associé à un traitement médical [1,4,6].

A travers un cas, nous nous proposons de discuter les problèmes diagnostiques et thérapeutiques particuliers de cette forme torpide.

OBSERVATION

Il s'agissait d'une femme âgée de 38 ans originaire de la Mauritanie, sans antécédent pathologique particulier en l'occurrence pas d'immunodépression ni de notion de soins dentaires, qui présentait une douleur au niveau de la joue droite évoluant depuis 2 ans, accompagnée de douleurs frontales et périorbitaires droites. Elle a été prise en charge au service de Stomatologie et de Chirurgie Maxillo-Faciale de l'Hôpital 20 Août du CHU IBN Rochd de Casablanca (Maroc) en Décembre 2013. Plusieurs traitements médicaux (Antibiothérapie et Corticothérapie itératives) avaient été instaurés sans succès. L'examen physique a objectivé une tuméfaction sous orbitaire droite inflammatoire fermant l'œil (Figure 1), une rhinorrhée purulente homolatérale sans déviation septale et une hypo-esthésie du territoire V2 (Figure 4). Le scanner du massif facial a objectivé un comblement du sinus maxillaire droit de densité tissulaire hétérogène avec des opacités de tonalité calcique ; une cellulite orbitaire et une lyse du plancher de l'orbite homolatérale (Figure 2).

Le traitement a comporté un curetage du sinus par voie de Caldwell-Luc (Figure 3) et une antibiothérapie à base de Métronidazole, Amoxicilline + acide clavulanique pendant deux semaines et Gentamycine en Intra Musculaire pendant cinq jours. Le relais a été assuré par voie orale pendant quatre semaines. L'examen histologique de la pièce d'exérèse a confirmé le diagnostic d'une aspergillose naso-sinusienne invasive. Le Voriconazole per-os a été instauré 72h plus tard pendant 6 semaines. Les suites opératoires ont été simples et l'évolution a été favorable après six semaines de traitement antifongique (Figure 4). La patiente fut perdue de vue deux semaines plus tard.



Figure 1 : Patiente à l'admission avec œdème de la pommette droite fermant l'œil homolatérale

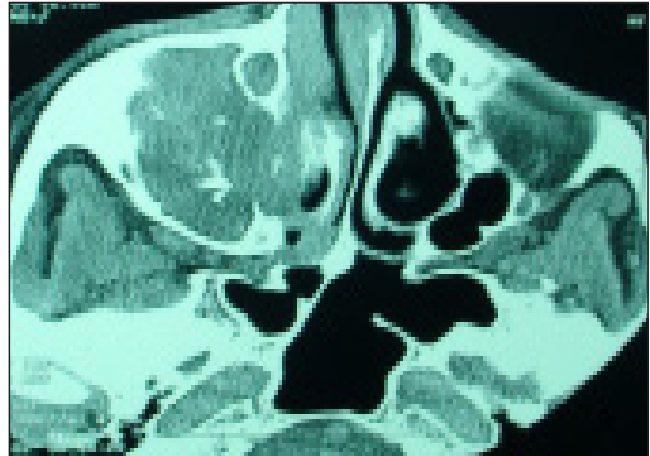


Figure 2: Image scanographique en coupe axiale montrant un comblement hétérogène de densité tissulaire du sinus maxillaire droit avec lyse de la paroi interne

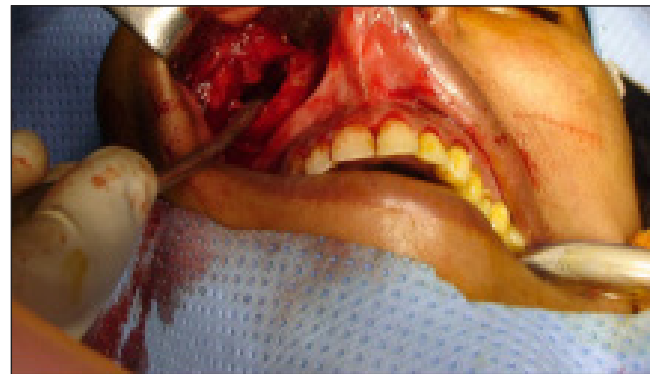


Figure 3: Image per-opératoire (Voie de Caldwell Luc)



Figure 4: Patiente à J 60 post-opératoire, Disparition de l'œdème

DISCUSSION

L'infection aspergillaire est ubiquitaire et la contamination est très souvent aérienne [7]. Les soins locaux dentaires, la corticothérapie locale et l'antibiothérapie au long cours, ont été incriminés comme facteurs de risque [3]. De nombreux autres facteurs tel que l'alcoolisme, l'immunodépression, le diabète, le sida, l'utilisation des antituberculeux, et la vie dans une zone à climat chaud et sec ont été cités [6, 8]. Des facteurs anatomiques locaux à l'origine d'une hypoventilation de la cavité sinusienne ont été également décrits [4]. Dans notre cas le sujet était immunocompétent. La vie en zone aride (Mauritanie)



et la prise de plusieurs traitements antibiotiques et corticoïdes ont été retenus. La rhinosinusite chronique invasive aspergillaire est caractérisée par une durée d'évolution d'au moins trois mois [6]. Chez notre patiente, le début de la symptomatologie remontait à deux ans. Abir et al. au Maroc ont rapporté un cas avec une durée d'évolution d'un an [9]. Les signes fonctionnels sont peu spécifiques et sont dominés par l'obstruction nasale, la céphalée, la rhinorrhée généralement fétide et les douleurs maxillaires évoquant une sinusite chronique banale au début puis une tumeur plus tard comme chez notre patiente [5, 6, 10]. L'absence de signes cliniques spécifiques est à l'origine du retard diagnostique [5,6]. Elle rend compte de la gravité de cette maladie [6]. L'endoscopie nasale montre parfois un agglomérat de sécrétions crayeuses friables blanc grisâtres, marrons ou verdâtres facilement décollables de la muqueuse naso-sinusienne. La culture permet quelquefois d'isoler aussi bien des champignons que des bactéries [4, 10]. Dans notre cas la culture n'a pas été réalisée. Une polyposse nasale est associée dans 10% des cas [4]. Sur le plan radiologique, les clichés standards des sinus de la face quoique révolus peuvent montrer parfois une image calcique en projection du sinus maxillaire avec comblement ou épaissement muqueux [6,10]. Le scanner est utile dans le bilan d'extension et l'orientation diagnostique comme dans le présent cas [5]. Il montre des images de densité calcique au sein d'un comblement tissulaire hétérogène de la cavité sinusienne concernée. Il peut éroder les parois osseuses et envahir les organes de voisinage en particulier l'orbite comme dans la présente observation et l'endocrâne [5,10]. Il peut exister un épaissement des parois, témoignant de l'ancienneté des lésions [9]. L'IRM est plus spécifique, mais notre patiente n'en a pas bénéficié. Elle montre une lésion hétérogène sur les séquences pondérées T1 et T2 non rehaussée après injection de gadolinium. Elle comporte une zone très hypo-intense sur les séquences pondérées T1 et T2. En plus l'IRM permet d'évaluer le degré d'envahissement des tissus mous péri-sinusiens, intra-orbitaires et endocrâniens [8]. Le couple Scanner-IRM permet de distinguer entre les phénomènes inflammatoires et l'extension tumorale [6].

L'étude mycologique et histologique sur la biopsie mais surtout la pièce opératoire permet le diagnostic de certitude [10]. L'examen histologique est indispensable afin d'éliminer une tumeur maligne parfois associée à l'aspergillose [10]. Malgré l'étude morphologique et cytochimique, seule la culture sur milieu de Sabouraud permet d'identifier avec certitude l'agent fongique en question [4]. Cela n'a pas été fait dans la présente observation. L'infiltration de la muqueuse par des filaments mycéliens en forme de Y est caractéristique de l'aspergillose invasive. L'immuno-histochimie spécifique en immunofluorescence plutôt qu'en peroxydase peut compléter le diagnostic. La sérologie aspergillaire est un argument supplémentaire, mais elle est souvent négative [9].

Des complications peuvent survenir à tout moment, à type d'accidents infectieux graves ou des signes d'extension intra-crânienne ou oculo-orbitaire comme dans la présente observation. Ce qui peut mettre en jeu le pronostic fonctionnel et vital [6]. Le traitement consensuel de la sinusite aspergillaire invasive est en effet la chirurgie par une exérèse large associée à un traitement antifongique systémique comme le Voriconazole ou l'Amphotéricine B liposomale [5, 11, 12]. En deuxième intention le Posaconazole ou la Caspofungine ont été prescrits [10]. A ce protocole est associée une irrigation des cavités nasales avec des solutions antifongiques [7]. Les solutions salines ou iodées peuvent être utilisées [4]. La voie de Caldwell-Luc fut la méthode classique pour traiter ces lésions, mais actuellement supplantée par la méatotomie moyenne sous guidage endoscopique pour les cas limités aux cavités nasosinusiennes [4, 10, 13]. La chirurgie endonasale est moins invasive que la voie vestibulaire de Caldwell-Luc. Mais seule elle ne permet pas un bon contrôle du plancher sinusien [14]. Les deux techniques associées permettent un traitement sûr et efficace [15]. La voie de Caldwell-Luc a été choisie au regard de l'extension des lésions aux tissus mous de voisinage. La triple antibiothérapie a trouvé son indication devant la cellulite orbitaire. L'exérèse des tissus nécrotiques doit être complète [13]. Pour s'assurer du nettoyage complet des cavités naso-sinusiennes, l'usage des optiques 30, 45, 70 ou même 120° pourrait être s'avérer nécessaire [4]. Dans notre cas une chirurgie type Caldwell-Luc associée à une triple antibiothérapie et le Voriconazole a permis une guérison complète au bout de six semaines sans séquelles. Selon Lafont E et al, le traitement peut reposer exclusivement sur le Voriconazole en intraveineuse. En cas d'échec une chirurgie d'exérèse des tissus nécrosés et/ou inflammatoires est associée [1]. Selon Benzarti S et al., l'évolution a été favorable dans une forme avec complication cranio-cérébrale après traitement chirurgical et antifongique [4]. En traitement adjuvant l'oxygénothérapie hyperbare semble être un outil utile dans la prise en charge de l'aspergillose invasive selon certains auteurs [7].

Un diagnostic et un traitement précoces favorisent la guérison [1, 8, 9]. Sinon l'évolution est fatale dans plus de 50% des cas due à l'échec du traitement [6, 15]. La surveillance clinique et endoscopique doit être régulière. En cas de doute, il faut faire des biopsies avec examen mycologique et histologique [4,10]. Des auteurs préconisent le dosage des B-D-glucan dans le suivi [15].

CONCLUSION

L'aspergillose naso-sinusienne invasive est redoutable. Cependant elle est souvent méconnue chez le sujet immuno-compétent. L'endoscopie nasale peut orienter le diagnostic. Dans ce cas la symptomatologie n'était pas spécifique. Elle faisait penser au début à une rhinosinusite banale puis plus tard, à une



tumeur. Le scanner a été utile au diagnostic mais la confirmation diagnostique reste histologique. Le succès thérapeutique dépendait de la précocité de traitement associant une chirurgie large et les antifongiques.

Considérations éthiques:

Déclaration d'intérêts: Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relation avec cet article.

Déclaration de financement: Les auteurs déclarent ne pas avoir reçu de financement particulier pour ce travail.

REFERENCES:

1. Lafont E., Aguilar C., Vironneau P., Kania R., Alanio A., Poirée S., Lortholary O., Lanternier F. Sinusites fongiques. *Rev Mal Respir.* 2017 ; 34: 672-92.
2. Gilain L., Bonfils P., Lietin B. Sinusites antérieures de la face. *EMC - Oto-rhino-laryngologie* 2014 ; 9(3):1-9 [Article 20-392-A-10].
3. Adjibabi W., Biao O., Lawson Afouda S., Avakoudjo F., Alamou S., Hounkpatin SHR., Hounkpe YYC. Prise en charge de 20 cas d'aspergillose naso-sinusienne à Cotonou. *Médecine d'Afrique noire.* 2011 ; 58(12): 545-50.
4. Benzarti S., Mardassi A., Ben hamida N., Ben mhamed R., Brahem H., Akkari K., Miled I., Chebbi M K. L'aspergillose naso-sinusienne dans sa forme pseudo-tumorale: À propos d'un cas. *J. TUN ORL.* 2008 ; 20: 67-70.
5. Neelam P., Rachna M., Seema K., Mandeep S B., Seema S. Invasive Aspergillosis of Orbit in Immunocompetent Patients: Treatment and Outcome. *Ophthalmology.* 2011; 118:1886-91.
6. Oukabli M., Ennouali H., Chahdi H., Qamouss O., Damiri A., Rharrassi I., Zoubir Y., Rzin A., Albouzidi A. Rhinosinusite chronique invasive aspergillaire chez une patiente immunocompétente. *J Mycol Med.* 2010 ; 20: 120-23.
7. Colon-Acevedo B., Jaya K., Richard M J., Woodward J A. The Role of Adjunctive Therapies in the Management of Invasive Sino-Orbital Infection. *Ophthal Plast Reconstr Surg.* 2015; 31:401-05.
8. Kamaoui I., Jerguigue H., Znati K., Latib R., El Quessar A., Chakir N., El Hassani MR., Boukhrissi N., Saidi A., Jiddane M. Aspergillose sphénoïdale révélée par des signes neuro-ophtalmologiques: à propos d'un cas. *J Radiol.* 2007 ; 88: 901-03.
9. Abir B., Abouchadi A., Hamama J., Oukabli M., Nassih M., Rzin A. Aspergillose invasive du sinus maxillaire chez un patient immunocompétent. *Rev Stomatol Chir Maxillofac.* 2012 ; 113: 127-30.
10. Naha L., Nadour K., Hemmaoui B., Errami N., En-Nafaa I., Bouaity B., Lmimouni B. Sinusite aspergillaire d'origine dentaire dans sa forme pseudo-tumorale. *J Mycol Med.* 2014 ; 24: 171-74.
11. Lefranc H., Brugière C., Plisson L., Comozd F., Verneuil L., Dompmartin A. Inflammation cutanée de contiguïté secondaire à une sinusite aspergillaire. *Ann Dermatol Venereol.* 2018 ; 145: 593-97.
12. Ray S., Balaini N., Chakravarty K., Pattanayak S., Abeer G., Takkar A., Lal V. Special scenarios in the management of central nervous system aspergillosis: a case series and review of literature. *Postgrad Med J* 2019; 0:1-8.
13. Emre Süslü A., Öfretmenoflu O., Süslü N., TaokAn Yücel Ö., Metin Önerci T. Acute invasive fungal rhinosinusitis: our experience with 19 patients. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2009; 266:77-82.
14. Aït-Mansour A., Pezzettigotta S., Genty E., Falcon P., Lecanu JB. Evaluation of the prevalence and specificities of asymptomatic paranasal sinus aspergillosis: Retrospective study of 59 cases. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2015; 132(1): 19-23.
15. Ota R., Katada A., Bandoh N., Takahara M., Kishibe K., Hayashi T., Harabuchi Y. A case of invasive paranasal aspergillosis that developed from a non-invasive form during 5-year follow-up. *Auris Nasus Larynx.* 2010; 37: 250-54.