

Prise en charge de la papillomatose laryngée de l'enfant

Management of laryngeal papillomatosis in children

EEM. Nao, C. Bambara, EM. Bakyono, N. Zaghré, A. Goueta, I. Rabo, A. Tapsoba, NI. Lengané, M. Touré, YMC. Gyébré
Service ORL/CCF du CHU Yalgado Ouédraogo. Ouagadougou, Burkina Faso

Reçu: 22 Mars 2022; Accepté: 01 Aout 2022.

RESUMÉ

But: décrire les aspects socio-démographiques, cliniques et thérapeutiques des patients présentant une papillomatose laryngée au CHU Yalgado Ouédraogo.

Méthodes: Il s'agit d'une étude rétrospective réalisée dans le service d'ORL/CCF du CHU Yalgado Ouédraogo sur une de 10 ans. Ont été inclus dans cette étude tous les patients de 0 à 15 ans, pris en charge dans le service pour une papillomatose laryngée

Résultats: la fréquence annuelle moyenne était de 2,8 cas. L'âge moyen des patients était de 7,19 ans. La série était composée de 18 garçons (58,06%) et 13 filles (41,94%). La dyspnée laryngée associée à une dysphonie a été noté chez 54,84 % des patients. Les papillomes limités au plan glottique ont été noté chez 48,38% des patients. La trachéotomie a été effectuée dans 9,68% des cas. Nous avons réalisé une exérèse des papillomes à la pince chez 100% de nos patients. L'évolution a été marquée par des récurrences dans 64,51% des cas.

Conclusion: La papillomatose laryngée est une maladie bénigne. Son diagnostic est tardif avec un risque d'obstruction des voies aériennes imposant la réalisation d'une trachéotomie en urgence. La prise en charge de la papillomatose laryngée est basée sur l'ablation des papillomes qui se fait à la pince dans notre pratique avec un potentiel de récurrence élevé.

Mots clés: Papillomatose, larynx, dysphonie, trachéotomie

SUMMARY

Aim: to describe the prevalence, the clinical and therapeutic features of patients presenting laryngeal papillomatosis in Yalgado Ouedraogo teaching hospital

Methodology: We conducted a retrospective chart review of all patients under 15 years with laryngeal papillomatosis and managed at the academic teaching Yalgado Ouedraogo hospital

Results: the annual frequency laryngeal papillomatosis was 2.8. The median age of patients was 7.19 years. They were 18 boys (58.06%) and 13 women (41.94%). Laryngeal dyspnea associated to dysphonia were noted in 54.84% of patients. The only glottic area was involved in 48.38% of patients. Tracheostomy was performed in 9.68% of cases. The excision of the papillomas was done with forceps in 100% of our patients. Evolution of laryngeal papillomatosis was marked by recurrences in 64.51% of cases.

Conclusion: laryngeal papillomatosis is a benign pathology of upper aerodigestive tracts. His diagnosis is late with a risk of obstruction of the airways requiring the realization of an emergency tracheostomy. The management of laryngeal papillomatosis is based on the removal of papillomas which is done with forceps in our practice with a high potential for recurrence.

Keywords: Papillomatosis, larynx, dysphonia, tracheotomy

INTRODUCTION:

La papillomatose laryngée est une prolifération tumorale bénigne de type papillaire, de nature malpighienne développée aux dépens de la muqueuse laryngée. C'est la plus fréquente des tumeurs bénignes du larynx chez l'enfant [1]. Cependant, elle est rare, mais grave du fait de l'obstruction des voies aériennes qu'elle peut entraîner [2]. Par ailleurs, elle est récidivante, surtout dans notre contexte marqué par l'insuffisance du plateau technique pour sa prise en charge. L'objectif de cette étude était de décrire les aspects socio-démographiques, cliniques et thérapeutiques de la

papillomatose laryngée au service ORL/CCF du CHU Yalgado Ouédraogo.

Méthodes

Il s'agit d'une étude descriptive avec collecte de données rétrospective réalisée dans le service d'ORL/CCF du CHU Yalgado Ouédraogo sur une période allant du 1er janvier 2010 au 31 décembre 2020. Ont été inclus dans cette étude tous les patients de 0 à 15 ans pris en charge pour une papillomatose laryngée, objectivée grâce à la laryngoscopie directe et confirmée par l'examen histologique. Pour la classification de la dyspnée laryngée, nous avons utilisé celle de Chevalier-



Jackson [3]. Certains patients qui présentaient plus de 5 récurrences ont bénéficié d'une injection d'une dose unique de 0,5 ml de gardasil en intramusculaire. Les paramètres étudiés étaient l'âge, le sexe, le délai de consultation, les données cliniques, les modalités thérapeutiques et les modalités évolutives.

Résultats

Durant la période de notre étude, nous avons colligés 31 cas de papillomatose laryngée juvénile, soit une fréquence annuelle de 2,8 cas. L'âge moyen de nos patients était de 7,19 ans avec des extrêmes de 2 ans et 13 ans. Notre série était composée de 18 garçons (58,06%) et 13 filles (41,94%), soit un sex-ratio de 1,38. Le délai moyen de consultation était de 10,61 mois avec des extrêmes de 1 et 72 mois. L'anamnèse n'a retrouvé aucune notion de condylome de la filière génitale chez les mères de nos patients, ni de papillomatose laryngée familiale.

Le principal motif de consultation était la dysphonie retrouvée chez 100 % des patients. Elle était isolée dans 11 cas et associée à une dyspnée laryngée dans 17 cas (tableau I). Selon la classification de Chevalier-Jackson, 3 patients (17,64%) présentaient une dyspnée laryngée stade I, 7 patients (41,17%) une dyspnée stade II, 5 patients (30%) une dyspnée stade III et 2 patients (11,76%) une dyspnée stade IV.

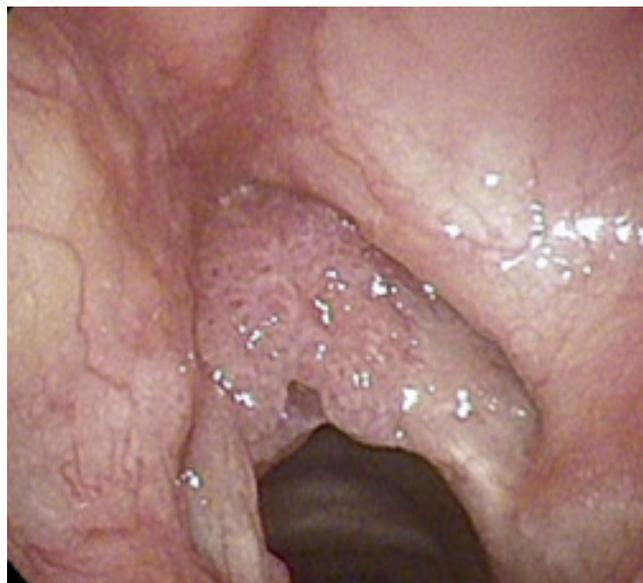


Figure 2: papillomes localisées au niveau du plan glottique

Dans notre série, le traitement endoscopique a été réalisé chez 100% des patients. Le nombre moyen de séances d'épluchage était de 3,74 (tableau II). Une injection intramusculaire de gardasil a été effectuée chez 3 patients soit 9,68%.

Tableau I: Répartition des patients selon le motif de consultation (N=31)

Motif de consultation	Effectif (n)	Pourcentage (%)
Dysphonie isolée	11	35,48
Dyspnée laryngée + dysphonie	17	54,84
Dysphonie + toux	2	6,45
Dysphonie + ronchopathie	1	3,23
Total	31	100,00

La laryngoscopie directe en suspension a été réalisée chez 100% des patients. Elle a permis de mettre en évidence des lésions bourgeonnantes exophytiques, friables d'aspect blanc-rosâtre et la localisation glottique isolée a été retrouvée dans 15 cas (48,38%) (figure 1 et figure 2).

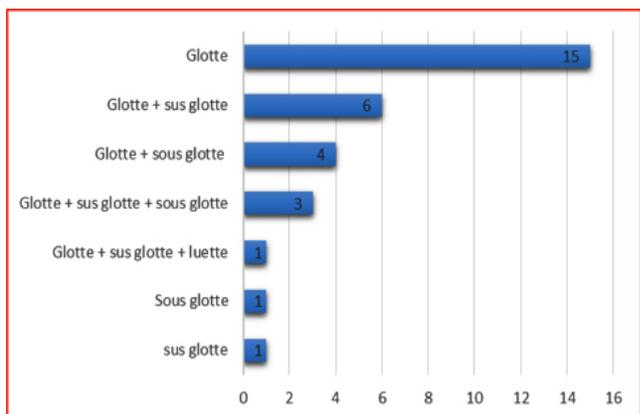


Tableau I: Répartition des patients selon le motif de consultation (N=31)

Tableau II: Répartition des patients en fonction du nombre de séances d'épluchage

Nombre de séances d'épluchage	Effectif	Pourcentage (%)
1	11	35,48
2	9	29,03
3	2	6,45
4	3	9,68
5	1	3,23
8	2	6,45
9	2	6,45
30	1	3,23
Total	31	100,00

Une trachéotomie d'urgence a été réalisée chez 3 patients (9,68%). Le délai de décanulation a été de 4 jours pour 2 patients et de 3 ans pour 1 patient.

Dans notre série, 20 patients (64,51 %) ont présenté des récurrences (sans injection de gardasil). Le nombre moyen de récurrences était de 4. La durée moyenne entre 2 récurrences était de 5 mois. Le recul moyen était de 5,7 ans. L'âge moyen des patients ayant présenté une récurrence était de 7,3 ans. Le siège des récurrences était le plan glottique chez 16 patients. Le tableau III illustre le nombre de récurrence présenté par les patients.

**Tableau III: Répartition des patients selon le nombre de récurrences**

Nombre de récurrences	Effectifs	Pourcentages (%)
1 – 3	14	70
4 – 6	1	5
7 – 9	4	20
≥ 10	1	5
Total	20	100,0

Nous avons noté 1 cas de décès (3,25%). Il s'agissait d'une patiente de 2 ans décédée par arrêt cardio-respiratoire en post-opératoire immédiat lors de sa 9ème séance d'épluchage. Trois patients ont présenté des complications loco-régionales. Il s'agissait d'une extension des grappes de papillomes au niveau de la luvette chez un patient âgé de 12 ans et de 2 cas de sténose sous glottique chez des patients âgés de 9 et 7 ans. Le patient âgé de 7 ans, après avoir porté une canule de trachéotomie pendant 3 ans a bénéficié d'une cure de sténose à l'étranger.

Une dysphonie séquellaire a été constatée chez 100% des patients de notre série.

DISCUSSION

La fréquence annuelle de la papillomatose laryngée dans notre série était de 2,8 cas par an. La papillomatose laryngée est une affection rare [2]. En effet, Derkay [4] estimait l'incidence annuelle de la papillomatose laryngée à 4,3/100000 enfants. Ailleurs, dans une étude menée par Ondzotto [5], la fréquence annuelle de la papillomatose laryngée était évaluée à 0,7 cas. Quant à Goueta [6], la fréquence annuelle de cette affection était de 1 cas.

L'âge moyen de nos patients était de 7,19 ans. Ce résultat est superposable à celui de l'étude de Maliki [7] et de Ndiaye [8] où l'âge moyen des patients était respectivement de 6 ans et 7,5 ans. Cependant, dans une étude menée par Maiga [1], l'âge moyen des patients était de 11 ans.

Notre étude a relevé une légère prédominance masculine à 58,06%. Nos résultats sont proches de celui de Scatolini [9] 84 cas de trachéotomie ont été recensés. Nous avons exploité les dossiers médicaux comportant l'observation médicale et le compte rendu opératoire, les registres de consultation et les registres d'anatomie pathologique. Quarante-quatre (84) qui trouvaient une légère prédominance masculine à 53,3%. Pour Maliki [7], le sex-ratio était de 1. Il ne semble donc pas avoir l'influence du sexe sur la survenue de la papillomatose laryngée.

Tous les auteurs s'accordent à rapporter le long délai de consultation dans la papillomatose laryngée [1,8,9]. Ainsi, dans notre série, ce délai était de 10,60 mois et dans l'étude de Ndiaye [8], il était de 11 mois. Le caractère insidieux et non spécifique des signes de la papillomatose laryngée amène les patients à consulter tardivement.

Dans la littérature comme dans notre étude, la dysphonie était le premier motif de consultation et le signe précurseur de la maladie [10,11]. Elle s'installe progressivement de façon durable. Lorsqu'elle est négligée, le patient consulte au stade de dyspnée laryngée. En effet, dans notre série 54,8% des patients ont consulté au stade de dyspnée laryngée. Cette dernière a également été rapportée par Ndiaye [8] chez 54,1% des patients. Pour Pegbessou [12], ce chiffre était de 31%. Elle est secondaire à une réduction de la filière laryngée par les touffes de papillomes.

La laryngoscopie directe est incontournable dans la prise en charge de la papillomatose laryngée. En effet, elle permet la cartographie précise des lésions, la réalisation des biopsies et constitue la première étape de prise en charge thérapeutique. Dans notre série, les papillomes étaient strictement localisés au niveau de la glotte dans 48,38 % des cas. Nos résultats sont proches de ceux de Badou [13] où l'atteinte de l'étage glottique isolée représentait 56,5%. Dans la série de Sérémé [11] l'atteinte glottique isolée était de 45,9%. Cette localisation préférentiellement glottique est liée au fait que les papillomes se développent au niveau des zones de jonction entre épithélium stratifié et cilié. Ces zones de jonctions prédominent au niveau de l'endolarynx, tout particulièrement à l'étage glottique. Ces papillomes dans leur évolution, peuvent s'étendre aux autres étages du larynx et à l'arbre trachéo-bronchique. Dans notre série, l'extension à l'étage sous glottique a été constatée dans 22,58% et l'extension à la sus glotte dans 32,26%. Pour Ndour [14] et Maiga [1], l'extension sous glottique représentait respectivement 29% et 37,5%.

La trachéotomie a été réalisée chez 9,68% de nos patients qui ont été admis au stade de dyspnée laryngée sévère. Nos résultats sont différents de ceux rapportés dans l'étude de Maliki [7] et de Ndiaye [8] où la trachéotomie a été effectuée chez respectivement 52,38% et 44,26 % des patients. La pratique de la trachéotomie d'urgence reflète le retard à la consultation de nos patients. Cependant, cette trachéotomie même si elle est salvatrice, peut favoriser la survenue de certaines complications, notamment les infections broncho-pulmonaires, la dissémination des grappes de papillomes vers la trachée puis les bronches et la sténose laryngée [15].

La prise en charge de la papillomatose laryngée est jusqu'à ce jour symptomatique. Le type de traitement symptomatique proposé dépend du plateau technique. Dans les pays sous-médicalisés, l'épluchage à la pince constitue la méthode la plus utilisée [11,14,16]. L'épluchage à la pince favorise les saignements qui réduisent la visibilité. Il est parfois à l'origine de traumatisme entraînant une altération de la muqueuse où viennent se greffer de nouveaux papillomes. Il favorise également le risque de sténose laryngée et l'extension trachéo-bronchique des lésions [15]. Dans les pays à technologie avancée, la vaporisation au laser est la méthode la plus utilisée [17]. Comparativement à



l'épluchage à la pince, le laser permet une destruction très sélective des papillomes. Nous ne l'avons pas utilisé dans notre étude. Toutefois, Goueta [6] l'avait utilisé chez 60 % de leurs patients. Il affirme que le laser permet la ré-perméabilisation de la filière laryngée évitant la trachéotomie avec son risque de dissémination trachéo-bronchique [6]. De plus, il a noté l'absence d'hémorragie et d'œdème postopératoire. Cependant, selon Belcadhi [18], l'efficacité du laser est seulement indiscutable pour les formes de papillomatose localisées au larynx. De plus, la transmission du papilloma virus humain par la fumée de laser a été évoquée par certains auteurs [17]. Pour pallier aux insuffisances des deux techniques, le microdébrideur a été récemment proposé pour le traitement de la papillomatose laryngée. Le résultat vocal et les suites opératoires sont meilleures comparativement au laser CO2 [17]. A côté de l'épluchage, certains traitements médicamenteux ont été proposés. En effet, certains auteurs rapportent l'utilité du cidofovir en injection intra-lésionnelle à raison de 0,2 à 0,5 ml à 2 ou 4 semaines d'intervalle pendant 12 mois [18]. Son efficacité repose sur une induction de l'apoptose des cellules infectées par le papilloma virus humain qui serait impliqué dans la survenue de la papillomatose laryngée. L'utilisation du vaccin gardasil a permis de réduire le nombre de récurrence et de prévenir la survenue de la maladie [17]. Malgré la bénignité de la papillomatose laryngée, celle-ci peut être responsable d'une morbidité plus ou moins importante. L'évolution de la papillomatose laryngée est marquée à la fois par les symptômes liés à la présence des papillomes et ceux dus aux séquelles des interventions successives. Ainsi, l'extension des lésions, leurs récurrences donnent à la papillomatose laryngée une évolution prolongée désespérante, mais aussi imprévisible. Dans notre contexte, la récurrence a été la principale complication évolutive notée. Elle a été retrouvée chez 64,52% de nos patients. Celle-ci était de 58, 8% pour James [16] et de 15,38% pour Vesa [20]. Cette variabilité du taux de récurrence constaté d'un auteur à un autre témoigne de l'évolution capricieuse et imprévisible de la papillomatose laryngée. La récurrence peut être liée à la réactivation du papilloma virus humain latent dans les tissus traités ou à un épluchage incomplet [21]. Ces récurrences sont à l'origine de procédures micro-laryngoscopiques répétées qui ne sont pas dénuées de complications. En effet, 2 cas de sténoses sous glottique ont marqué le cours de l'évolution de la papillomatose laryngée dans notre série. Ailleurs, Badou [13] notait 1 cas de sténose par fibrose glottique. Pour réduire ces risques de récurrences et leurs complications, certains auteurs recommandent un traitement adjuvant basé sur l'acyclovir et le gardasil [6,22]. Pour Derkay [19], l'acyclovir était administré lorsque le nombre de récurrences atteignait 6 et lorsqu'il y'avait une extension extra-laryngée des papillomes. L'introduction du vaccin gardasil a permis de réduire le risque d'infection à papilloma virus humain et de ce fait, est utilisé comme un traitement préventif de la

papillomatose laryngée récidivante [23]. L'utilisation de ces moyens médicaux a réduit le nombre de séances d'épluchage et allongé la durée entre les récurrences [17,19,23].

CONCLUSION

La papillomatose laryngée est la tumeur bénigne du larynx la plus fréquente chez l'enfant. C'est une affection relativement rare. Son diagnostic est tardif dans notre contexte avec un risque d'obstruction des voies aériennes imposant la réalisation d'une trachéotomie en urgence. La prise en charge de la papillomatose laryngée est symptomatique basée sur l'ablation des papillomes. Il s'agit dans notre pratique de l'épluchage à la pince. Toutefois, ces procédures visant à rétablir la liberté des voies respiratoires, peuvent conduire à la sténose sous glottique, à l'extension des lésions et à la récurrence qui est une caractéristique majeure de cette maladie.

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. Maiga S, Ndiaye C, Diouf M, Diallo BK, Ndiaye M, Diouf R et al. Laryngeal papillomatosis in Senegal: A ten-year experience. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2018; 135 (3):221-4.
2. Benedict JJ, Derkay CS. Recurrent respiratory papillomatosis: A 2020 perspective. *Laryngoscope Investig Otolaryngol.* 2021;6(2):340-345. doi: 10.1002/lio2.545
3. Chevalier J. diseases and injuries of the larynx. The macmillan co New York. 1942: 221-261
4. Derkay CS, Darrow DH. Recurrent respiratory papillomatosis. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2006; 115 (1):1-11.
5. Ondzotto G, Galiba J, Kouassi B, Ehouo F. Laryngeal papillomatosis: value of early diagnosis, about 7 cases diagnosed at the University Hospital Center in Brazzaville, Congo. *Med Trop.* 2001; 62 (2):163-5.
6. Goueta A, Rhomdane N, Chiboub D, Mahfoudhi S, Abib W, Hariga I et al. Papillomatose laryngée de l'enfant à Tunis. *Annale de l'université Joseph Ki-Zerbo série D.* 2020; 24: 107-17.
7. Maliki O, Nouri H, Ziad T, Rochdi Y, Aderdour L, Raji A. La papillomatose laryngée de l'enfant: aspects épidémiologiques, thérapeutiques et évolutifs. *Journal de pédiatrie et de puériculture.* 2012; 25: 237- 41.
8. Ndiaye M, Ndiaye IC, Itiere OFA, Tall A, Diallo BK, Diouf R et al. Papillomatose laryngée de l'enfant. *Fr ORL.* 2008; 94: 379-382.
9. Scatolini ML, Labeledz G, Cocciaglia A, Pérez CG, Nieto ME, Rodríguez DÁ et al. Laryngeal sequelae secondary to surgical treatment for recurrent respiratory papillomatosis in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2020;130:109815. doi: 10.1016/j.ijporl.2019.109815
10. Seedat RY. Juvenile-onset recurrent respiratory papillomatosis diagnosis and management- a developing country review. *Pediatric health Med Ther.* 2020; 11:39-46.
11. Sérémé M, Nao EEM, Seyni KGN, Gyébré MYC, Bambara C, Ouedraogo B et al. Papillomatose laryngée: aspects épidémiologiques, cliniques et thérapeutiques. *Revue de Médecine d'Afrique Noire.* 2016; 63 (8):450-6.
12. Pegbessou E, Amana B, Tagba E, Darre T, Amegbor K, Boko E et al. Papillomatose laryngée : profils épidémiologiques, diagnostiques et thérapeutique. *Dakar Medical.* 2014; 59(2):54-59.
13. Badou KE, Tanon-Anoh MJ, Kouassi YM, M'Pessa EM, Vroh-Bi TS, Yoda M et al. La prise en charge de la papillomatose laryngée au CHU de Yopougon-Service d'ORL et de Chirurgie cervicofaciale, CHU de yopougon-Abidjan. *Rev.col. Odonto-Stomatol. Afr Chir Maxillo-fac.* 2012; 19 (2): 47-51.
14. Ndour N, Maiga S, Houra A, Deguenonvo REA, Ndiaye C, Pilor N, A et al. Laryngeal Papillomatosis in Adults: Assessment for Ten Years at the ENT Department of the National University Hospital of Fann (Dakar, Senegal). *Int J Otolaryngol.* 2020; 2020: 2782396. doi: 10.1155/2020/27823.
15. Scatolini ML, Cocciaglia A, Pérez CG, Rodríguez HA. Laryngeal reconstruction in children with recurrent respiratory papillomatosis. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2018; 115:120-124. doi: 10.1016/j.ijporl.2018.09.028
16. James M, Katundu D, Chussi D, Shija P. Prevalence, clinical presentations, associated risk factors and recurrence of laryngeal papillomatosis among inpatients attended at a Tertiary Hospital in Northern zone Tanzania. *Pan Afr Med J.* 2018;30:209. doi: 10.11604/pamj.2018.30.209.11211.
17. Welschmeyer A, Berke GS. An updated review of the epidemiological factors associated with recurrent respiratory papillomatosis. *Laryngoscope Investig Otolaryngol.* 2021; 28; 6(2):226-233. doi: 10.1002/lio2.521.
18. Belcadi M, Mani R, Boulouita K, Kchok Y, Abdelkefi M, Ben-Ali M et al. La papillomatose laryngée. A propos de 12 cas. *TUN.ORL.* 2000; 3 (5):9-11.
19. Derkay CS, Volsky PG, Rosen CA, Pransky SM, McMurray JS, Chadha NK et al. Current use of intralesional cidofovir for recurrent respiratory papillomatosis. *Laryngoscope.* 2013; 123:705-712. doi.org/10.1002/lary.23673
20. Vesa D, Ardeleanu V, Tutunaru D, Georgescu C. Laryngeal papillomatosis - evolution and treatment particularities. *Analele universitații "dunarea de jos" galați medicina.* 2013; 17(1): 121-6.
21. Nicolas R, Giovanni A, Triagla JM. Dysphonie de l'enfant. *Arch Pediatr.* 2008;15,1133-58.
22. Fancello V, Melis A, Piana AF, Castiglia P, Cossu A, Sotgiu G, et al. HPV Type 6 and 18 Coinfection in a Case of Adult-Onset Laryngeal Papillomatosis: Immunization with Gardasil. *Case Rep Otolaryngol.* 2015; 2015:916023. doi: 10.1155/2015/91602
23. Ivancic R, Iqbal H, De Silva B, Pan Q, Matrka L. Immunological tolerance of low-risk HPV in recurrent respiratory papillomatosis. *Clin Exp Immunol.* 2020; 199:131-142. doi.org/10.1111/cei.13387.