

RÔLE DE L'IMAGERIE DANS LES FISTULES LABYRINTHIQUES CHOLESTÉATOMATEUSES

IMAGING IN CHOLESTEATOMA WITH LABYRINTHINE FISTULA

Kriaa. M, Bechraoui. R, Lahmer. R, Mejbri. M, Lajhouri. M, Beltaief. N
Service ORL et CCF – Hôpital La Rabta, Tunis.

RÉSUMÉ

Introduction: La fistule labyrinthique (FL) est une complication redoutable de l'otite moyenne chronique cholestéatomateuse (OMCC), pouvant entraîner une surdité neurosensorielle, surtout si elle est méconnue. Sa détection radiologique préopératoire est impérative pour éviter les séquelles auditives.

L'objectif de ce travail est d'étudier les caractéristiques radiologiques des patients présentant une FL cholestéatomateuse, et d'évaluer le rôle de l'imagerie dans la prédiction de FL et de son extension.

Méthodes: Il s'agit d'une étude rétrospective à propos de 46 cas de FL cholestéatomateuses chez 555 patients opérés pour OMCC au service d'oto-rhino-laryngologie de l'hôpital La Rabta entre 2010 et 2020.

Résultats: L'âge moyen des patients était de 43,67 ans. L'incidence des FL était de 8,3%.

Le diagnostic des FL a été réalisé en per-opératoire dans tous les cas. La majorité des fistules (42,9%) étaient de type II selon la classification de Dornhoffer, suivies du type I (35,7%) et III (21,4%). La fistule était unique dans 84,8% des cas (n=39) et multiple dans 15,2% des cas (n=7).

La TDM des rochers a permis de suspecter ces FL avec une sensibilité globale de 73,2%. Cette sensibilité était nettement plus significative en cas de FL du CSCL (84,8%, p: 0,013) et de FL de type III (100%, p: 0,001). L'IRM des rochers, avec les séquences volumiques fortement pondérées en T2 et T1 avec injection de gadolinium, a permis d'objectiver une extension labyrinthique dans 7 cas (15,2%), sous la forme d'une amputation de signal du labyrinthe.

Conclusion: Les fistules labyrinthiques cholestéatomateuses présentent un défi complexe dans la prise en charge des pathologies de l'oreille moyenne. La tomodensitométrie demeure actuellement l'imagerie de référence du cholestéatome et permet le diagnostic des complications liées à l'érosion osseuse. L'IRM trouve sa place dans l'évaluation de l'envahissement du labyrinthe membraneux, qui semble être un facteur pronostic majeur dans la prise en charge.

Mots clés: Fistule, Labyrinthe, Cholestéatome, Complications, Thérapeutique.

ABSTRACT

Introduction: Labyrinthine fistula (LF) is a complex complication of cholesteatomatous chronic otitis media (CCOM). Preoperative radiological identification is essential to prevent hearing deterioration.

This study aimed to analyze the radiological findings of patients with cholesteatomatous LF, and to evaluate the diagnostic value of imaging for preoperative prediction of LF and its extension.

Methods: This was a retrospective study of 46 cases of LF, among 555 patients who underwent surgical treatment for CCOM at the Otolaryngology department of La Rabta Hospital, from 2010 to 2020.

Results: The mean age was 43.67 years. The incidence of LF was 8.3%.

LF diagnosis was made intraoperatively in all cases. The majority of fistulas (42.9%) were classified as type II according to the Dornhoffer classification, followed by type I (35.7%) and type III (21.4%). In 84.8% of cases (n=39), a single fistula was identified, while multiple fistulas occurred in 15.2% of cases (n=7). Multiple fistulas consistently involved the lateral semicircular canal (LSCC), along with one or more additional locations.

The overall sensitivity of CT scan was 73.2%. It was significantly better in type III LF (100%, p: 0.001) and when located in the lateral semicircular canal (LSCC) (84.8%, p: 0.013). MRI using heavily T2-weighted and T1-weighted sequences demonstrated labyrinthine extension in 7 cases (15.2%), characterized by labyrinth signal dropout.

Conclusion: Cholesteatomatous labyrinthine fistulas present a complex challenge in managing middle ear pathologies. Computed tomography currently serves as the gold standard for cholesteatoma, enabling diagnosis of complications related to bone erosion. MRI is instrumental in assessing membranous labyrinth involvement, which emerges as a critical prognostic factor in management.

Keywords: Fistula, Labyrinth, Cholesteatoma, Complications, Therapeutics.



INTRODUCTION:

La fistule labyrinthique est une complication fréquente et grave de l'otite moyenne chronique cholestéatomateuse (OMCC) qui survient le plus souvent au niveau du canal semi-circulaire latéral (CSCL) [1–3]. Son traitement repose sur l'exérèse totale (dans la mesure du possible) du cholestéatome au niveau des fistules de type II et III (indépendamment de leur taille ou de leur localisation), suivi d'une greffe par du matériel autologue [4–8].

Néanmoins, cette chirurgie expose à des risques auditifs en cas d'exposition inadéquate du labyrinthe; risque majoré par l'envahissement du labyrinthe membraneux par le cholestéatome, qui semble être un facteur pronostique majeur dans la prise en charge [5,9,10].

En théorie, l'imagerie par résonance magnétique (IRM) serait le meilleur moyen pour diagnostiquer cette extension intra-labyrinthique d'une FL [11–14], mais des études récentes, couplées aux avancées techniques réalisées pendant les dernières décennies, ont permis d'optimiser le rôle de la tomodynamométrie (TDM) dans la détection des FL et de leurs extensions [14,15]. L'objectif de ce travail est d'étudier les caractéristiques radiologiques des patients présentant une FL cholestéatomateuse et d'évaluer la sensibilité de l'imagerie dans la prédiction de FL et de son extension.

MÉTHODES:

Il s'agit d'une étude rétrospective portant sur 555 cas d'OMCC, dont 46 étaient compliquées de FL, s'étendant sur une période de 11 ans (de 2010 à 2020). Une TDM des rochers en haute résolution avec une acquisition hélicoïdale en coupes fines jointives de 0,5 mm, avec ou sans injection de produit de contraste, a été pratiquée chez tous les patients avant la chirurgie. Des coupes cérébrales avec injection de produit de contraste ont été demandées en cas de signes d'appel neurologiques. L'IRM a été demandée chez 18 patients pour préciser l'extension au labyrinthe en cas de large FL. L'IRM est basée essentiellement sur une association des séquences:

T1 (axiale et coronale) différées après injection de Gadolinium (45 mn)

Diffusion B800 ou B1000

Nous avons retenu le diagnostic de fistule labyrinthique sur les constatations per-opératoires. La classification des FL adoptée est celle de Dornhoffer et Milewski [16]. Selon ce système, une fistule de type I est une érosion du labyrinthe osseux avec un endoste intact.

Une fistule de type II est une véritable fistule avec un espace périlymphatique ouvert. Une fistule de type III est un espace périlymphatique ouvert avec une atteinte concomitante du labyrinthe membraneux sous-jacent

Le traitement chirurgical des FL et du cholestéatome a consisté en une tympanoplastie avec masto-antro-atticotomie pour exérèse du cholestéatome et réparation de la FL. Une précaution particulière a été portée lors du décollement de la matrice cholestéatomateuse au niveau des zones à risque de FL. Ainsi, la FL a été identifiée et protégée par une mince couche d'épiderme laissée en place jusqu'à la fin de l'intervention. Après fraisage des cavités, exérèse du reste du cholestéatome, et obtention d'un champ opératoire exsangue, nous avons procédé au décollement minutieux de la matrice laissée en place, en s'aidant de micro-instruments et de fines aspirations jamais en contact direct avec la FL pour éviter toute stimulation pressionnelle. Dès lors que la fistule est largement exposée et que toute la matrice cholestéatomateuse est enlevée, un greffon libre de tissu autologue (en une ou plusieurs couches) préalablement affiné a été utilisé pour colmater la FL.

RÉSULTATS:

Etude clinique

Durant cette période de 11 ans, nous avons recensé 46 cas de fistules labyrinthiques sur les 555 cholestéatomes qui ont été opérés, ce qui fait une prévalence de 8,3%.

L'âge moyen de ces patients était de $43,67 \pm 12,84$ ans avec des extrêmes allant de 8 à 73 ans. Il y avait une prédominance masculine, le sex-ratio était de 1,42.

Le diagnostic de fistule était confirmé en per-opératoire chez tous les patients. La FL était unique dans 84,8% des cas ($n=39$), intéressant le CSCL dans tous les cas, et multiples dans 15,2% des cas ($n=7$). Les localisations associées étaient, par ordre de fréquence: le canal semi-circulaire supérieur (CSCS) (7 cas), la cochlée (2 cas), et le canal semi-circulaire postérieur (1 cas).

Un total de 56 cas de FL a donc été noté. Les FL du CSCL (figure 1) représentaient 82,1% de toutes les FL retrouvées. Selon la classification de Dornhoffer, la majorité des fistules étaient de type II (42,9%), suivi de type I (35,7%) et III (21,4%).

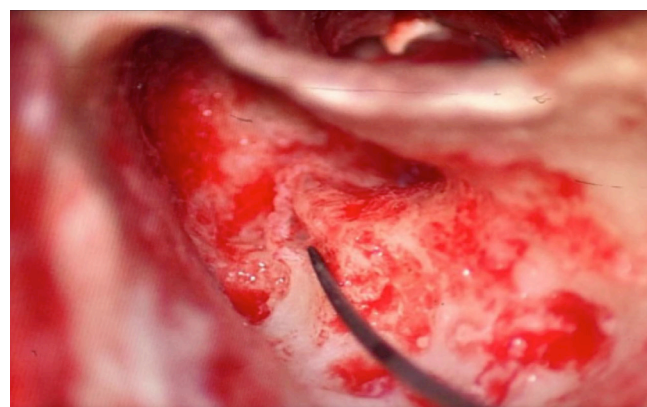


Figure 1: Vue opératoire d'une fistule labyrinthique type II au niveau du CSCL



Évaluation radiologique

Sur le scanner pré opératoire, une FL a été suspectée chez 89,1% des patients (n=41). Le siège au niveau du canal semi-circulaire latéral était le plus fréquent dans 39 cas (95,1%). Nous avons étudié la sensibilité du scanner en fonction du siège et du type de la FL.

1- Sensibilité du scanner en fonction du siège de la FL:

La sensibilité du scanner dans la détection des fistules localisées au niveau du CSCL était de 84,8%. Elle est en revanche faible pour toutes les autres localisations (20%) (figure 2). Les résultats sont détaillés dans le tableau I.

Tableau I: Sensibilité de la TDM dans la détection des FL en fonction du siège de la fistule

| | Effectif (N) | FL à la TDM (n) | Sensibilité (%) |
|---------------------------------|--------------|-----------------|-----------------|
| CSCL | 46 | 39 | 84,8 |
| Autre que CSCL | 10 | 2 | 20 |
| CSC postérieur | 1 | 0 | 0 |
| CSC supérieur | 7 | 2 | 28,6 |
| Cochlée | 2 | 0 | 0 |
| Toutes localisations confondues | 56 | 41 | 73,2 |

Nous avons constaté une corrélation statistiquement significative entre la sensibilité du scanner et le siège de la FL (p: 0,001).

2 - Sensibilité du scanner en fonction du type de la FL:

La sensibilité globale du scanner dans la détection des FL était de 73,2%. Cette sensibilité était meilleure en cas de fistules de type III, égale à 100%.

La sensibilité du scanner en fonction du type de FL est détaillée dans le tableau II.

Tableau II: Sensibilité de la TDM dans la détection des FL en fonction du type de fistule

| | Effectif (N) | FL à la TDM (n) | Sensibilité (%) |
|----------|--------------|-----------------|-----------------|
| Type I | 20 | 12 | 60 |
| Type II | 24 | 17 | 70,8 |
| Type III | 12 | 12 | 100 |
| Total | 56 | 41 | 73,2 |

Nous avons constaté une corrélation statistiquement significative entre la sensibilité du scanner et le type de la FL (p: 0,013).

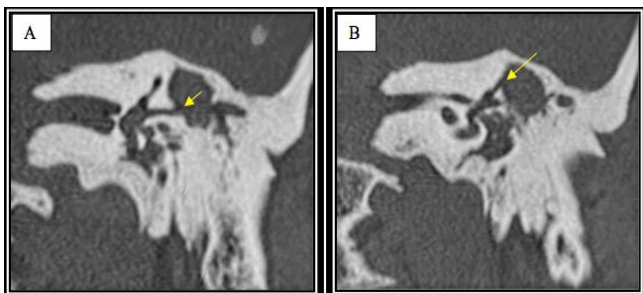


Figure 2: TDM du rocher gauche en fenêtre osseuse en coupe coronale: Fistule labyrinthique (flèche) A- du CSCL. B- du CSCS.

L'IRM a objectivé une extension labyrinthique dans 7 cas (38,9%) sous la forme de:

- Une amputation sectorielle en hyposignal sur les séquences fortement pondérées en T2 en regard de la lyse osseuse visualisée au scanner: 3 cas (figure 3).
- Une amputation étendue avec absence de signal liquidien du labyrinthe membraneux sur les séquences fortement pondérées en T2: 4 cas.

→ La séquence T1 injectée a permis d'évoquer une extension intra-labyrinthique massive du cholestéatome dans 2 de ces cas devant l'absence de prise de Gadolinium.

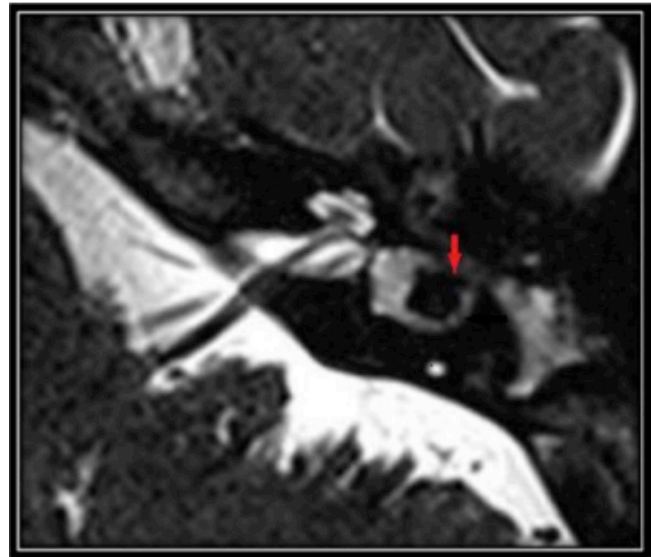


Figure 3: IRM des rochers en coupe axiale, séquence pondérée T2: Amputation localisée de l'hyper signal du liquide labyrinthique au niveau du CSCL gauche (flèche)

DISCUSSION

L'imagerie moderne occupe actuellement une place prépondérante dans la prise en charge pré et postopératoire du cholestéatome de l'oreille moyenne. Tomodensitométrie:

L'exploration radiologique du cholestéatome repose sur la TDM. Les progrès techniques (acquisition hélicoïdale en coupes fines) et l'émergence d'impératifs médico-légaux incitent aujourd'hui à sa réalisation systématique dans le bilan préopératoire. Elle permet de conforter le diagnostic, de dépister les principales complications, et de planifier l'attitude chirurgicale la plus adaptée aux extensions lésionnelles et à la conformation anatomique du patient [15].

Dans les études anciennes, la sensibilité de la TDM pour détecter une FL était d'environ 50%. [17-19]. Dans les séries plus récentes, la sensibilité a augmenté et varie entre 85% [20,21] et 100% [6], ce qui est similaire à ce que nous avons trouvé dans notre étude avec une sensibilité globale de 89,1%. Cela peut s'expliquer par [1].



- Les avancées techniques de la TDM en haute définition, en coupes fines de 0.5 mm hélicoïdales capables de détecter l'amincissement ou la lyse corticale.

- La formation et l'expérience des praticiens.

Dans notre série, la sensibilité du scanner était meilleure dans les cas de fistules de type III (100%), et moins importante dans les cas de fistules de type II (70,8%) et celles de type I (60%). Sa sensibilité était de 84,8% pour les fistules du canal semi-circulaire externe et de 73,2% toutes localisations confondues, avec une corrélation statistiquement significative entre cette sensibilité et le type de la fistule. Des résultats similaires sont retrouvés dans la littérature [1]

En revanche, la TDM n'est pas suffisamment précise pour distinguer une lyse osseuse avec un endoste intact d'une véritable fistule avec rupture de l'endoste. Cette distinction est pourtant cruciale, car elle devrait permettre d'anticiper la technique chirurgicale et d'informer le patient sur le risque fonctionnel [22]. Cette difficulté découle du fait que la densité intra-labyrinthique est similaire à celle du cholestéatome, rendant l'interprétation des images encore plus complexe [1]. Pour surmonter cette limitation, Stephenson [6] suggère de distinguer une fistule membraneuse d'une fistule osseuse sur la TDM, avec une sensibilité et une spécificité de 66 et 71% respectivement, lorsque la taille radiologique de la brèche osseuse dans un plan axial est de 3,55 mm ou plus.

Plus récemment, une approche d'analyse scannographique a été suggérée par Motegi [14], capable de prédire la pénétration du cholestéatome dans l'espace périlymphatique avec une sensibilité et une spécificité de 100% et 91,67%. Selon cette étude, une taille de défaut osseux >3,65 mm ou un angle >71,6° indique probablement une extension du cholestéatome vers l'espace périlymphatique.

Bien qu'une tomодensitométrie en coupes fines soit la méthode préopératoire la plus fiable pour la détection d'une fistule labyrinthique, et malgré les avancées techniques réalisées pendant les dernières décennies, le diagnostic définitif de FL ne peut être établi que pendant l'intervention chirurgicale.

Imagerie par résonance magnétique:

En théorie, l'IRM serait le meilleur moyen pour diagnostiquer l'extension intra labyrinthique d'une FL, par la mise en évidence [11–14].

1- d'une disparition de l'espace séparant le cholestéatome (iso intense en T2) et le labyrinthe membraneux (hyper intense en T2).

2- d'une inflammation labyrinthique (différence de signal entre les deux labyrinthes en T1 avec injection de gadolinium)

3- La séquence volumique fortement pondérée en T2 permet une évaluation préopératoire de l'intégrité du labyrinthe membraneux : un cloisonnement du liquide périlymphatique traduit par une atténuation du signal labyrinthique est en faveur d'une FL.

4- Le 3D FLAIR met en évidence la dysfonction de l'oreille interne par l'étude de perturbation du signal labyrinthique occasionné par la FL.

Les limites de l'IRM dans cette indication sont cependant sa faible résolution spatiale, sa faible disponibilité pour la plupart des praticiens, son coût élevé et les difficultés d'interprétation en cas de cholestéatome extensif et inflammatoire [14]. Dans les études récentes [22], l'invasion du labyrinthe membraneux par le cholestéatome semble être un critère pronostic auditif pertinent ; cependant, cette information doit être déterminée de manière préopératoire plutôt que pendant la chirurgie. Pour cela, Westerhout [10] suggère la réalisation d'une IRM en coupes fines en présence de facteurs de risque d'invasion labyrinthique. Ceci permet de prévoir la méthode chirurgicale et d'informer le patient des risques fonctionnels. Le schéma diagnostique proposé par Westerhout est présenté dans la figure 4.

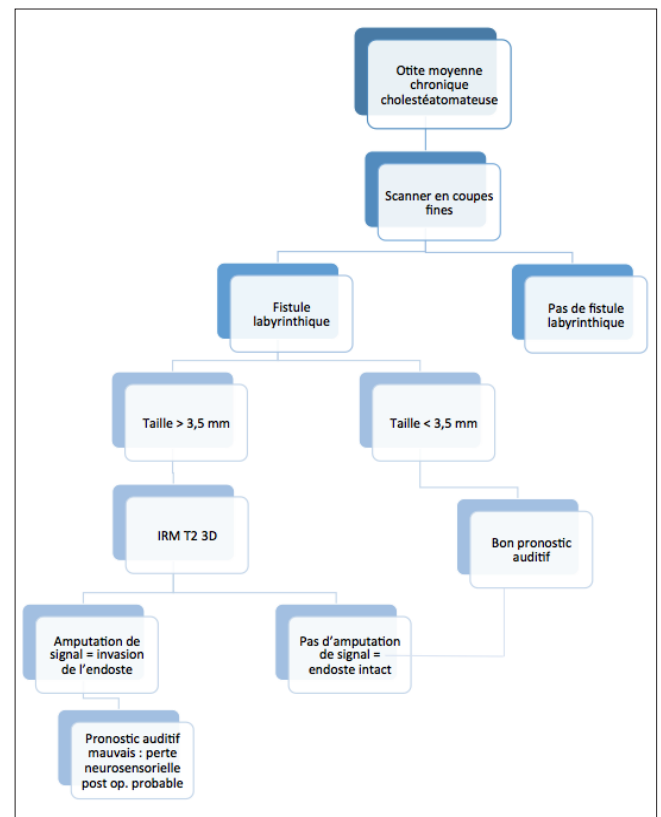


Figure 4: schéma diagnostique: évaluation radiologique des FL en pré opératoire (adaptée de [10])



CONCLUSION:

Les fistules labyrinthiques cholestéatomateuses constituent un défi complexe dans la prise en charge des pathologies de l'oreille moyenne. Leur diagnostic préopératoire est essentiel pour garantir une gestion adéquate. Actuellement, la tomographie par ordinateur est l'imagerie de référence du cholestéatome, car elle permet de diagnostiquer les complications liées à l'érosion osseuse, avec une excellente sensibilité pour

les fistules labyrinthiques. Parallèlement, l'IRM s'avère cruciale dans l'évaluation de l'envahissement du labyrinthe membraneux par ces fistules, ce qui semble être un facteur pronostique majeur dans la prise en charge. En intégrant ces deux techniques d'imagerie, il est possible d'optimiser le traitement et d'améliorer les résultats cliniques pour les patients.

Déclarations d'intérêts: les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relations avec cet article.

REFERENCES:

1. Meyer A, Bouchetemplé P, Costentin B, Dehesdin D, Lerosey Y, Marie JP. Lateral semicircular canal fistula in cholesteatoma: diagnosis and management. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* août 2016;273(8):2055-63.
2. Rosito LPS, Canali I, Teixeira A, Silva MN, Selaimen F, Costa SSD. Cholesteatoma labyrinthine fistula: prevalence and impact. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2019 Mar-Apr;85(2):222-227. doi: 10.1016/j.bjorl.2018.01.005. Epub 2018 Mar 9. PMID: 29599061; PMCID: PMC9452264.
3. Prasad KC, Vyshnavi V, Abhilasha K, Anjali PK, Indu Varsha G, Prathyusha K. Labyrinthine Fistula-Our Experience at a Tertiary Hospital. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2022 Aug;74(Suppl 1):88-92. doi: 10.1007/s12070-020-01857-2. Epub 2020 Apr 17. PMID: 36032823; PMCID: PMC9411445.
4. Gersdorff MCH, Debaty ME, Tomasi JP. [Pathophysiology of cholesteatoma]. *Rev Laryngol Otol Rhinol (Bord).* 2006;127(3):115-9.
5. Gocea A, Martinez-Vidal B, Panuschka C, Epprecht P, Caballero M, Bernal-Sprekelsen M. Preserving bone conduction in patients with labyrinthine fistula. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* avr 2012;269(4):1085-90.
6. Stephenson MF, Saliba I. Prognostic indicators of hearing after complete resection of cholesteatoma causing a labyrinthine fistula. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* déc 2011;268(12):1705-11.
7. Sagar P, Devaraja K, Kumar R, Bolu S, Sharma SC. Cholesteatoma Induced Labyrinthine Fistula: Is Aggressiveness in Removing Disease Justified? *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* juin 2017;69(2):204-9.
8. Quaranta N, Liuzzi C, Zizzi S, Dicorato A, Quaranta A. Surgical treatment of labyrinthine fistula in cholesteatoma surgery. *Otolaryngol Head Neck Surg.* mars 2009;140(3):406-11.
9. Geerse S, de Wolf MJF, Ebbens FA, van Spronsen E. Management of labyrinthine fistula: hearing preservation versus prevention of residual disease. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* oct 2017;274(10):3605-12.
10. Westerhout SF, Straatman LV, Dankbaar JW, Thomeer HGXM. Labyrinthine fistulas: Surgical outcomes and an additional diagnostic strategy. *American Journal of Otolaryngology.* 1 mai 2022;43(3):103441.
11. Yun Ah Park, Do Yang Park, Tae Sub Chung, Hyun Seok Choi, Eun Jin Son. MRI Findings of a Cholesteatomatous Labyrinthine Fistula Showing Abnormal Inner Ear Enhancement. *RVS.* 2010;9(4).
12. Sone M, Mizuno T, Sugiura M, Naganawa S, Nakashima T. Three-Dimensional Fluid-Attenuated Inversion Recovery Magnetic Resonance Imaging Investigation of Inner Ear Disturbances in Cases of Middle Ear Cholesteatoma With Labyrinthine Fistula. *Otology & Neurotology.* déc 2007;28(8):1029-33.
13. Sone M, Yoshida T, Naganawa S, Otake H, Kato K, Sano R, et al. Comparison of computed tomography and magnetic resonance imaging for evaluation of cholesteatoma with labyrinthine fistulae. *The Laryngoscope.* mai 2012;122(5):1121-5.
14. Motegi M, Yamamoto Y, Akutsu T, Yamauchi H, Kurihara S, Takahashi M, et al. Imaging Analysis for Cholesteatoma Extension to the Perilymphatic Space in Labyrinthine Fistulae. *The Laryngoscope [Internet].* avr 2021 [cité 28 mars 2023];131(4).
15. Bordure P, Bailleul S, Malard O, Wagner R. Otite chronique cholestéatomateuse. Aspects cliniques et thérapeutiques. *EMC - Oto-rhino-laryngologie.* janv 2009;4(4):1-16.
16. Dornhoffer JL, Milewski C. Management of the open labyrinth. *Otolaryngol Head Neck Surg.* mars 1995;112(3):410-4.
17. Herzog JA, Smith PG, Kletzker GR, Maxwell KS. Management of labyrinthine fistulae secondary to cholesteatoma. *Am J Otol.* mai 1996;17(3):410-5.
18. Chiossone E (1987) Labyrinthine fistulae in cholesteatoma. *Adv Otorhinolaryngol* 37:128-133.
19. Kvestad E, Kvaerner KJ, Mair IW. Labyrinthine fistula detection: the predictive value of vestibular symptoms and computerized tomography. *Acta Otolaryngol.* juill 2001;121(5):622-6.
20. Ikeda R, Kobayashi T, Kawase T, Oshima T, Sato T. Risk Factors for Deterioration of Bone Conduction Hearing in Cases of Labyrinthine Fistula Caused by Middle Ear Cholesteatoma. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* mars 2012;121(3):162-7.
21. Yamamoto N, Fujimura S, Ogino E, Hiraumi H, Sakamoto T, Ito J. Management of labyrinthine fistulae in Kyoto University Hospital. *Acta Otolaryngol Suppl.* nov 2010;(563):16-9.
22. Westerhout SF, Straatman LV, Dankbaar JW, Thomeer HGXM. Labyrinthine fistulas: Surgical outcomes and an additional diagnostic strategy. *Am J Otolaryngol.* 2022 May-Jun;43(3):103441. doi: 10.1016/j.amjoto.2022.103441. Epub 2022 Apr 5. PMID: 35397381.