

Kyste hydatique primitif de la glande surrénale chez une patiente porteuse de *situs inversus*. À propos d'une observation

Primary hydatid cyst of the adrenal gland in a patient with *situs inversus*. A one-case report

O. Baraket · R. Zribi · A. Berriche · A. Chokki

Reçu le 8 avril 2010 ; accepté le 6 juillet 2010
© Société de pathologie exotique et Springer-Verlag France 2010

Résumé Le kyste hydatique primitif de la surrénale (KHPS) reste une localisation inhabituelle du kyste hydatique (KH). Il s'agit d'un siège exceptionnel, même dans les pays où l'hydatidose sévit à l'état endémique. Nous rapportons l'observation d'une patiente âgée de 38 ans qui a consulté pour des douleurs lombaires gauches. L'examen physique et le bilan biologique étaient normaux. Les explorations morphologiques ont conclu à une masse kystique à paroi partiellement calcifiée interhépatorénale gauche avec *situs inversus*. En peropératoire, il s'agissait d'un KH univésiculaire de la glande surrénale gauche, pour lequel a été réalisée une kystectomie totale avec conservation de la glande surrénale gauche. Les suites opératoires ont été simples. Avec un recul de 36 mois, la patiente n'a pas présenté de récurrence. **Pour citer cette revue : Bull. Soc. Pathol. Exot. 103 (2010).**

Mots clés Kyste hydatique · Tomodensitométrie · Glande surrénale · *situs inversus* · chirurgie · Siliana · Tunisie · Maghreb · Afrique du Nord

Abstract Primary hydatid cyst of the adrenal gland remains an exceptional localization. The adrenal gland is an uncommon site even in our country in which echinococcal disease is endemic. We report the case of a 38-year-old woman who consulted for left back pain. The CT scan showed a cystic mass in the left retroperitoneal area with a calcified wall. The patient underwent surgery which confirmed a diagnosis of hydatid cyst of the left adrenal gland. The surgical treatment consisted on a total resection of the cyst, without rupture of the cystic wall and preserving the gland. The diagnosis was confirmed on macroscopic and histological examination of the resected piece. The postoperative course was uneventful.

O. Baraket (✉) · R. Zribi · A. Berriche · A. Chokki
Service de chirurgie générale et digestive,
hôpital régional de Siliana, Siliana,
F-6100 Tunisie
e-mail : oubaraket@voila.fr

No recurrence had occurred after 36 months of follow-up.
To cite this journal: Bull. Soc. Pathol. Exot. 103 (2010).

Keywords Hydatid cyst · CT scan · Adrenal gland · *situs inversus* · Surgery · Siliana · Tunisia · Maghreb · Northern Africa

Introduction

L'hydatidose est une anthroponose due à un ténia du chien, *Echinococcus granulosus*. Il s'agit d'une affection fréquente qui sévit sur un mode endémique dans notre pays et dans plusieurs pays du bassin méditerranéen et de l'Amérique du Sud [6]. Les localisations hépatiques et pulmonaires sont les plus fréquentes. La localisation surrénalienne reste exceptionnelle représentant moins de 0,1 % de toutes les localisations hydatiques. La symptomatologie clinique est non spécifique [1]. Le diagnostic préopératoire est souvent difficile, malgré l'apport indéniable des moyens d'imagerie moderne. À travers cette observation de kyste hydatique primitif de la surrénale (KHPS) chez une patiente tunisienne porteuse de *situs inversus*, nous allons souligner les difficultés diagnostiques de cette localisation rare de la pathologie hydatique ainsi que les différentes modalités thérapeutiques.

Observation

Mme F., âgée de 38 ans, sans antécédents pathologiques particuliers, consultait pour des douleurs de la fosse lombaire gauche évoluant depuis quelques mois, sans fièvre, ni troubles du transit, ni signes urinaires.

L'examen clinique objectivait une dextrocardie. L'abdomen était souple, dépressible, indolore. La tension artérielle était normale. Le bilan biologique était sans anomalies.

La radiographie du thorax montrait une dextrocardie (Fig. 1). L'échographie confirmait le *situs inversus* et montrait une masse kystique bilobée interhépato-surrénalienne

gauche mesurant 7 × 5 cm de grand axe. La tomodensitométrie abdominale retrouvait cette masse liquidienne, interhépatosurrénalienne, bilobée, dont la paroi renfermait quelques fines calcifications (Figs. 2a,b). La sérologie hydatique n'a pas été faite.

Devant ce tableau, divers diagnostics étaient évoqués : une tumeur kystique interhépatosurrénalienne gauche qui pouvait correspondre à un KH du foie, une tumeur kystique surrénalienne, une masse kystique intrapéritonéale. Une laparotomie exploratrice à visée diagnostique et thérapeutique était décidée.

L'incision était réalisée par voie sous-costale gauche.

En peropératoire, il s'agissait effectivement d'une masse kystique, bilobée aux dépens de la glande surrénale gauche (Fig. 3) correspondant à un KH. Une kystectomie à kyste fermé était réalisée conservant ainsi la glande surrénalienne.

À l'ouverture de la pièce, il s'agissait d'un kyste univésiculaire à contenu « eau de roche ». L'examen anatomo-pathologique confirmait la nature hydatique du kyste.

Les suites opératoires étaient simples. La patiente sortait au cinquième jour postopératoire. Avec un recul de 36 mois, elle ne présentait pas de récurrence hydatique sur les contrôles échographiques pratiqués régulièrement.

Discussion

Le KHPS est une entité très rare qui représente 7 % de l'ensemble des kystes surrénaliens [2] et moins de 0,1 %



Fig. 1 Radiographie du thorax : dextrocardie avec parenchyme pulmonaire indemne de toute autre localisation hydatique / *Chest radiograph: dextrocardia with pulmonary parenchyma free from any other hydatid location*

des localisations hydatiques [9]. Dans une étude portant sur 86 cas de kystes hydatiques de localisation inhabituelle, Ben Ayed et al. [5] n'a colligé qu'un seul cas de KHPS. Le mécanisme de l'atteinte surrénalienne est encore mal élucidé. Plusieurs théories ont été avancées dans la littérature. La dissémination par voie artérielle [4,9] semble être la théorie la plus probable. En effet, l'embryon d'*E. granulosus* est arrêté dans près de 80 % des cas par les filtres hépatique et pulmonaire. Dans certains cas, ces filtres peuvent être dépassés et le parasite atteint par voie artérielle la glande surrénale.

Les circonstances de découverte varient selon le stade évolutif de la maladie. La symptomatologie la plus fréquente se résume à des douleurs non spécifiques de compression de l'hypochondre, des lombalgies [1,4] ou à une masse palpable. Les douleurs lombaires résumaient le tableau clinique

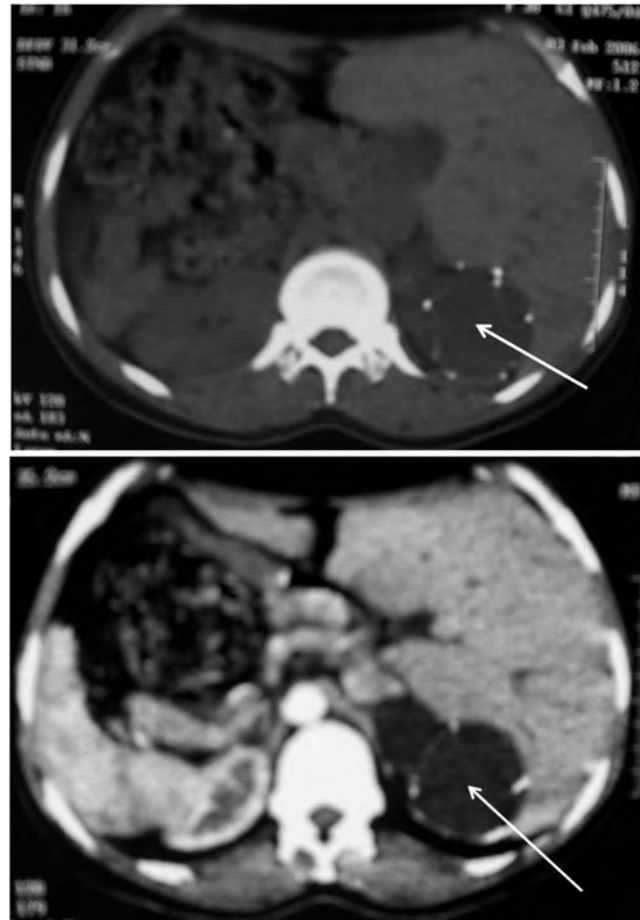


Fig. 2 a et b : TDM abdominale : masse liquidienne, interhépatosurrénalienne, bilobée, dont la paroi renferme quelques fines calcifications et qui ne se rehausse pas après injection de produit de contraste / *Abdominal computed tomography: liquid mass, between the liver and the adrenal glands, bilobal, and whose wall encloses some fine calcifications and is not highlighted after injection of a contrast agent*



Fig. 3 Vue peropératoire : une masse kystique, bilobée aux dépens de la glande surrénale gauche partiellement calcifiée / *Peroperative view: a bilobal cystic mass, to the detriment of the left adrenal gland, which is partially calcified*

dans l'observation rapportée. Il aurait pu s'agir d'un tableau de suppuration profonde en rapport avec la surinfection du kyste [2]. Parfois, il est révélé par une hypertension artérielle (HTA) ou des signes cliniques évoquant un phéochromocytome en rapport avec la compression de la médullosurrénale par le kyste [12].

Le diagnostic positif repose sur l'imagerie et la sérologie hydatique [9]. Le cliché d'abdomen sans préparation peut montrer des calcifications linéaires et arciformes au niveau de l'aire de projection des loges surrénaliennes, mais ce signe manque de spécificité et de sensibilité. L'échographie permet dans certains cas de confirmer le diagnostic de KHPS devant la présence de signes pathognomoniques comme le décollement de membrane et la présence de vésicules filles [13]. L'aspect du KH dépend de son stade évolutif. La classification la plus souvent utilisée est celle de Gharbi et al. [10] qui se fonde sur l'aspect échographique du KH. La profondeur des glandes surrénales et parfois la présence des calcifications périphériques rendent l'exploration échographique difficile. La tomодensitométrie abdominale est plus performante, permettant alors de mieux préciser le siège et les rapports avec les organes avoisinants [7]. L'aspect le plus fréquemment retrouvé est celui d'une masse kystique présentant une paroi fine avec parfois un aspect de décollement de membrane ou la présence de vésicules filles. Les calcifications arciformes périphériques, bien que fortement suggestives du diagnostic ne sont pas pathognomoniques [13]. La sérologie hydatique (hémagglutination, Elisa, Western Blot) peut apporter la certitude diagnostique lorsqu'elle est positive et couplée à une imagerie évocatrice [9]. Sa sensibilité est de 90 % [13] et sa négativité n'élimine pas l'origine hydatique. Parfois, malgré la réalisation de toutes ces explorations, le diagnostic de certitude n'est fait qu'en

peropératoire, ce qui était le cas chez notre patiente. Les difficultés diagnostiques sont de deux ordres : le diagnostic d'appartenance à la glande surrénalienne et celui de l'étiologie hydatique. Le diagnostic différentiel d'un KHPS se pose avec les autres masses kystiques de la surrénale (lymphangiome kystique ou pseudokyste hémorragique) et les masses kystiques extrasurréaliennes ; il peut prêter à confusion avec un KH hépatique ou biliaire du côté droit. Dans l'observation rapportée, l'existence d'un *situs inversus* a rendu plus difficile l'établissement du diagnostic et, malgré le siège gauche de la lésion, un KH du foie ainsi qu'une masse kystique surrénalienne ont été évoqués.

Le traitement du KHPS est chirurgical [1,3,9,11]. La voie d'abord peut être soit antérieure, consistant en une incision sous-costale transpéritonéale qui permet d'explorer également le foie, soit latérale par une lombotomie avec résection de la 11^e côte qui permet, après libération de la loge rénale, d'aborder la surrénale [9,14]. La résection simple du kyste à kyste fermé, respectant la glande surrénale, doit être préférée. La surrénalectomie incluant le kyste ne se conçoit que lorsque la glande est détruite ou très atrophique [3]. La stérilisation du KH, par l'injection d'un scolicide, n'est indiquée que si une vidange première du KH est prévue notamment en cas de KH volumineux ou contractant des adhérences inflammatoires avec les gros vaisseaux rendant dangereuse sa résection complète. Depuis quelques années, l'abord laparoscopique des lésions surrénaliennes est de plus en plus préconisé. [8]. Mais, même si la chirurgie coelioscopique se développe pour la surrénale, elle n'est actuellement pas recommandée en première ligne en cas de KH [1].

Conclusion

Le KHPS reste une localisation exceptionnelle de la pathologie hydatique. Cependant, ce diagnostic doit être évoqué devant toute masse kystique surrénalienne, surtout dans les pays d'endémie, afin d'éviter des ponctions inutiles, voire dangereuses. Le diagnostic préopératoire demeure difficile malgré les progrès de l'imagerie moderne, ce qui est dû essentiellement à la localisation profonde de la glande surrénalienne, la difficulté résidant dans le diagnostic d'appartenance à la surrénale. Nous pensons que le couple scanner-sérologie hydatique apporte la meilleure approche diagnostique. Le seul traitement curatif est chirurgical. Il doit être conservateur chaque fois que possible, consistant idéalement en une kystectomie à kyste fermé préservant la glande surrénale.

Conflit d'intérêt : aucun.

Références

1. Akçay MN, Akçay G, Balik AA, Büyük A (2004) Hydatid cyst of the adrenal gland: review of nine patients. *World J Surg* 28(1):97–99. Epub 2003 Nov 26
2. Abeshouse GA, Goldstein RB, Abeshouse BS (1959) Adrenal cysts; review of the literature and report of three cases. *J Urol* 81(6):711–9
3. Bastounis E, Pikoulis E, Leppániemi A, Cyrochristos D (1996) Hydatid disease: a rare cause of adrenal cyst. *Am Surg* 62(5):383–5
4. Bedioui H, Jouini M, Noura K et al (2005) Kyste hydatique primitif de la surrénale. À propos de deux cas. *Ann Chir* 130(2):104–7. Epub 2004 Dec 7
5. Ben Ayed M, Kamoun N, Makni, Ben Romdhane K (1986) Kyste hydatique : 281 cas, dont 86 cas à localisation inhabituelle, observés au cours d'une période de dix ans (1972–1981). *Tunisie Med* 64(4):389–95
6. Cöl C, Col M, Lafçi H (2003) Unusual localizations of hydatid disease. *Acta Med Austriaca* 30(2):61–4
7. De Bree E, Schoretsanitis G, Melissas J, et al (1998) Cyst of the adrenal gland: diagnosis and management. *Int Urol Nephrol* 30(4):369–76
8. Defechereux T, Sauvart J, Gramatica L et al (2000) Laparoscopic resection of an adrenal hydatid cyst. *Eur J Surg* 166(11):900–2
9. el Idrissi Dafali A, Dahami Z, Zerouali NO (2002) Kyste hydatique de la surrénale : à propos d'un cas. *Ann Urol (Paris)* 36(2):99–103
10. Gharbi HA, Hassine W, Brauner MW, Dupuch K (1981) Ultrasound examination of the hydatid liver. *Radiology* 139(2):459–63
11. Martínez Marsal E, Mora Nadal J, Closas Capdevila M et al (1992) Solitary adrenal gland hydatid cyst. *Acta Urol Esp* 16(4):333–6
12. Noura Y, Benyounes A, Kbaier I et al (2000) Adrenal hydatid cyst presenting as a pheochromocytoma. *BJU Int* 86(6):754
13. Otal P, Escourrou G, Mazerolles C, Janne d'Othee B et al (1999) Imaging features of uncommon adrenal masses with histopathologic correlation. *Radiographics* 19(3):569–581
14. Ozarmagan S, Erbil Y, Barbaros U et al (2006) Primary hydatid disease in the adrenal gland: a case report. *Braz J Infect Dis* 10(5):362–63