

ACTINOMYCOSE PELVIENNE SIMULANT UNE TUMEUR MALIGNNE ANNEXIELLE

L. BENKIRAN, L. GAMRA, N. LAMALMI, M. ESSOUYEH, A. REGRAGUI, M. AMRANI, A. SOUADKA, M.A. MELABBAS

Med Trop 2002; **62** : 73-76

RESUME • Les auteurs rapportent le cas d'une patiente de 35 ans, hospitalisée à l'Institut National d'Oncologie de Rabat pour algies pelviennes et altération de l'état général évoluant depuis 8 mois. L'examen clinique et l'échographie pelvienne objectivent une masse latéro et sus utérine droite, de 7 cm de grand axe, d'échostructure hétérogène avec épanchement péritonéal évoquant un processus malin annexiel droit. L'étude anatomopathologique de la pièce d'annexectomie et d'omentectomie révèle la présence d'une actinomycose tubo-ovarienne droite avec réaction péritonéale associée. L'actinomycose du tractus génital reste une affection rare de la femme en période d'activité génitale, due à une bactérie pyogène (*Actinomyces*), généralement secondaire à une localisation digestive iléocœcale, parfois liée à la présence d'un stérilet ou d'un corps étranger intravaginal. Les auteurs font une mise au point concernant l'actinomycose abdominopelvienne et insistent sur sa forme pseudo-tumorale souvent trompeuse pour le clinicien et le radiologue.

MOTS-CLES • Actinomycose pelvienne - Actinomycose - Tumeur pelvienne.

PELVIC ACTINOMYCOSIS MIMICKING A MALIGNANT OVARIAN TUMOR

ABSTRACT • The purpose of this report is to describe the case of a 35-year-old patient admitted to the National Oncology Institute in Rabat, Morocco for pelvic pain and deteriorating general status ongoing for 8 months. Clinical and ultrasonographic examination showed a heterogenous mass measuring 7 cm in maximum width located inferior and lateral to the inferior aspect of the right side of the uterus. These findings were suggestive of a malignant tumor of the right ovary. Ovariectomy and omentectomy were performed. Histological examination of surgical specimens demonstrated right tubo-ovarian actinomycosis associated with peritonitis. Genital tract actinomycosis is an uncommon finding in women of childbearing age. It is due to colonization by a pyogenic bacteria (*Actinomyces*) usually secondary to a gastrointestinal infection, e.g. ileocecum, and sometimes in association with the presence of an intrauterine device or foreign body. Based on this case report, the authors discuss abdominopelvic actinomycosis with emphasis on tumor-like findings that can lead to misdiagnosis by clinicians and radiologists.

KEY WORDS • Pelvic actinomycosis - Actinomycosis - Pelvic tumor.

L'actinomycose est une maladie infectieuse rare due à un bacille anaérobie Gram positif, le plus souvent *Actinomyces israelii* (1, 2). On distingue, selon la topographie de l'atteinte, une forme cervicofaciale, une forme thoracique et une forme abdominopelvienne (3-5). Bien que l'incidence de l'actinomycose ait globalement diminuée, celle de l'actinomycose abdominopelvienne est en nette augmentation ces dix dernières années, en raison de l'utilisation et le port prolongé de dispositif intra-utérin (DIU). Dans la plupart des cas, le diagnostic de cette affection est post-opératoire en raison de sa présentation clinique peu spécifique et souvent trompeuse. En effet, les lésions d'actinomycose peuvent en imposer pour une tumeur maligne rendant le dia-

gnostic difficile (6). Les auteurs rapportent l'observation d'une patiente de 35 ans, présentant une actinomycose tubo-ovarienne dans sa forme pseudotumorale, simulant un processus tumoral annexiel droit. A travers une revue de la littérature, les auteurs se proposent de faire une mise au point concernant l'actinomycose abdominopelvienne.

OBSERVATION

Madame Q. N. âgée de 35 ans, sans suivi gynécologique est hospitalisée dans le service de chirurgie de l'Institut National d'Oncologie de Rabat pour altération de l'état général et algies pelviennes évoluant depuis 8 mois. L'examen clinique et l'échographie pelvienne ont mis en évidence la présence d'une masse latéro et sus-utérine droite mesurant 6 x 7 cm de grand axe. Cette masse d'échostructure hétérogène, comportait des zones liquidiennes et tissulaires, et des foyers d'ossification. Il existait un épanchement péritonéal associé limité à la gouttière pariéto-colique gauche et au cul de sac de Douglas. Une dilatation pyélocalicielle droite avec épaississement de la paroi vésicale au contact de la masse étaient également observés. Cet aspect échographique plaide pour un tératome malin annexiel droit avec ascite et envahissement du plancher

• Travail du Service d'Anatomie Pathologique (L.B., N.L., Médecins résidents; L.G., M.A.B., Professeurs; A.R., Professeur assistant; M.A., Maître assistant) et du Service de Chirurgie Oncologique (M.E., Médecin résident; A.S., Professeur), Institut National d'Oncologie, Hôpital Mohamed Ben Abdellah, Rabat, Maroc.

• Correspondance : L. BENKIRAN, 10 Avenue de l'Atlas, Appt n° 1, Agdal, Rabat, Maroc • Fax : +212 37 37 42 33 • e-mail : benkiranleila@hotmail.com •

• Article reçu le 29/08/2001, définitivement accepté le 8/02/2002.



Figure 1 - Photo macroscopique de la pièce opératoire d'annexectomie droite : la trompe est focalement dilatée (flèche) et l'ovaire n'est pas reconnaissable.

vésical. Le bilan biologique était sans particularités, en dehors d'une légère hyperleucocytose à 12 000 éléments par ml. Un dosage du marqueur tumoral CA125 montrait un taux normal de 31 UI/ml pour une normale inférieure à 35 UI/ml. La patiente a bénéficié d'une annexectomie droite avec omentectomie.

Les différents prélèvements réalisés sur la pièce opératoire ont été fixés dans du formol tamponné à 10 % et inclus en paraffine. Des coupes de 5 µm ont été colorées à l'hématéine-éosine et au Giemsa.

ANATOMO-PATHOLOGIE

Macroscopiquement, la pièce d'annexectomie droite pesait 170 grammes et mesurait 9 x 8 x 4,5 cm. La trompe, de 8 cm de long, comportait une zone dilatée de 3 cm de long sur 1 cm de diamètre. L'ovaire, non reconnaissable, était remplacé par une formation tissulaire, vaguement nodulaire,

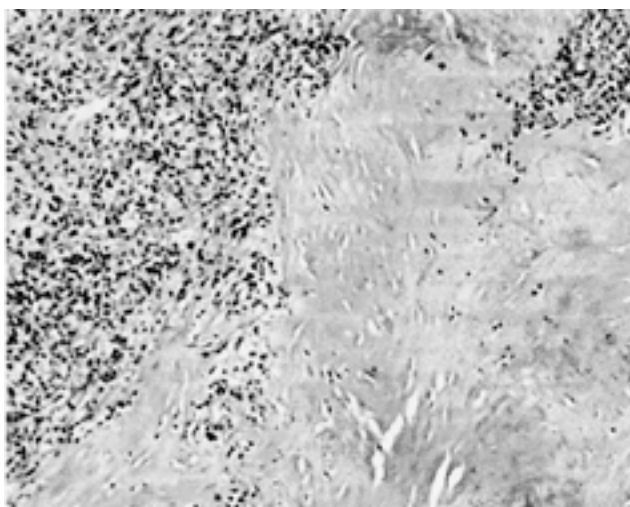


Figure 2 - Fibrose épaississant la paroi tubaire parsemée d'éléments inflammatoires polymorphes (hématéine-éosine, x 100).

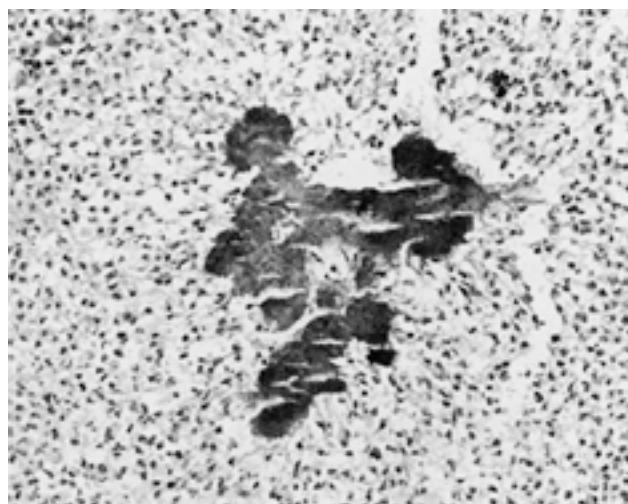


Figure 3 - Bactérie filamenteuse prenant la coloration du Giemsa (Giemsa, x 200).

blanc jaunâtre, indurée (Fig. 1). La pièce d'omentectomie était sans particularités macroscopiques. L'examen histologique montrait une muqueuse tubaire au revêtement frangé régulier, reposant sur une paroi anormalement épaissie par une fibrose étendue parsemée de micro abcès principalement constitués de polynucléaires neutrophiles et d'histiocytes parfois spumeux. Ces abcès étaient centrés par un matériel basophile d'où partaient de nombreuses structures filamenteuses à disposition radiaire, prenant la coloration du Giemsa, correspondant à des grains actinomycosiques (Fig. 2 et 3). Ailleurs la paroi tubaire était le siège d'un infiltrat inflammatoire polymorphe fait de plasmocytes, d'histiocytes et de rares polynucléaires éosinophiles. Le parenchyme ovarien, réduit à quelques corps blancs, était également truffé de ces microabcès actinomycosiques. Le tissu péritonéal était constitué par un tissu fibrograisseux infiltré d'éléments inflammatoires polymorphes, et recouvert par un enduit fibrineux réalisant un aspect de péritonite. L'examen cytologique du liquide d'ascite montrait un liquide réactionnel riche en cellules mésothéliales activées, dépourvu de cellules de morphologie tumorale maligne.

DISCUSSION

L'actinomycose est une maladie infectieuse rare causée par une bactérie anaérobie Gram positif filamenteuse, *Actinomyces israelii*, retrouvée à l'état saprophyte dans la flore normale de l'oropharynx, du tractus gastro-intestinal et du tractus génital féminin. Ce n'est donc pas une infection exogène et il n'existe pas de contamination inter-humaine (2). Plusieurs types d'*Actinomyces* ont été isolés. Cependant *Actinomyces israelii* est le type le plus fréquemment rencontré dans les infections pelviennes (7). En général, ces agents bactériens sont de faible pathogénicité et ne deviennent pathogènes qu'en cas d'interruption de la barrière muqueuse : chirurgie du colon, appendicite compliquée ou

non de perforation, diverticulite, corps étrangers ou traumatismes, responsables d'actinomycose abdominopelvienne (4, 5, 8). Par ailleurs, l'infection est favorisée par les états grabataires, les hygiènes défectueuses et les déficits immunitaires (9). Le premier cas d'actinomycose pelvienne associé à un dispositif intra-utérin fut rapporté en 1973 par Henderson (10) et, par la suite, d'autres publications suivirent. Dans une étude réalisée en 1995, Kim et Coll. (11) ont montré la présence d'*Actinomyces israelii* chez environ 10% de femmes asymptomatiques porteuses d'un DIU, et chez 25% de femmes symptomatiques porteuses de DIU. On pense que l'utilisation prolongée au delà d'une période de 2 ans des DIU, surtout s'ils contiennent du cuivre (12, 13), augmente la concentration de *Actinomyces israelii* dans la cavité endométriale et favorise sa migration au niveau des trompes de Fallope et des ovaires (14, 15). En effet, *Actinomyces* se multiplie préférentiellement sur une surface riche en calcium, ainsi la présence d'un stérilet ancien avec une surface calcifiée faciliterait la multiplication de ce germe (16). De plus, l'inflammation stérile causée par le dispositif intra-utérin en place provoquerait une acidose et une hypoxie tissulaire endométriale, qui favoriseraient l'agression. En l'absence de DIU, l'actinomycose génitale est généralement secondaire à une localisation intestinale primitive (4, 5, 8). Dans notre observation, l'interrogatoire *a posteriori* de la patiente a retrouvé la notion de port de DIU pendant une période de 3 ans, retiré 5 mois avant son hospitalisation.

Il s'agit d'une affection ubiquitaire, atteignant des individus d'âge moyen (16), touchant avec une fréquence égale les populations rurales et urbaines (3-5), avec une prédilection pour les femmes, plus atteintes que les hommes en raison du port prolongé de DIU et de la colonisation de l'endomètre par *Actinomyces israelii*. L'actinomycose abdominopelvienne est souvent difficile à diagnostiquer. Moins de 10% des cas sont diagnostiqués en pré-opératoire (8). Une symptomatologie non spécifique à type de fièvre, de frissons, de perte de poids, d'anorexie, de constipation, de douleurs abdominopelviennes, de ménométrorragies ou de leucorrhées peut être rapportée. La présence de trajets fistuleux avec grains de soufre visibles au niveau des orifices fistuleux, ou encore une hyperleucocytose sont d'autres circonstances diagnostiques possibles (5, 7, 8). La présence d'une masse abdominopelvienne associée à un DIU en place depuis longtemps doit y faire penser, et une cytoponction à l'aiguille fine voire une biopsie dirigée sur la masse viendront étayer le diagnostic (17, 18). De manière rétrospective, il s'est avéré que l'actinomycose abdominopelvienne était souvent prise à tort pour une diverticulite (7, 19), une maladie inflammatoire du colon (1) ou une tumeur maligne du tractus digestif ou génital, comme dans notre cas (6, 9, 13, 19, 20). En fait, la plupart des cas sont détectés durant l'exploration chirurgicale, après drainage d'un abcès, en post-opératoire ou à l'examen post-mortem (3, 5, 8). À la laparotomie, la présence d'une masse indurée, et de multiples petites zones suppurées, ainsi que la présence de trajets fistuleux sont hautement suspects d'actinomycose abdominopelvienne (5). La présence de grains actinomycosiques, d'aspect blanc-jaunâtre, allant de 0,25 à 1 mm de diamètre, est hautement évocatrice, bien que

non pathognomonique de l'*Actinomyces israelii* (4, 8, 21). De plus, ils ne sont retrouvés que dans la moitié des cas (8). C'est pourquoi il est important de réaliser de multiples prélèvements pour examen extemporané, non seulement pour éliminer un processus cancéreux, mais également pour l'identification des grains actinomycosiques.

L'identification de ces micro-organismes à la culture permet de faire le diagnostic d'une manière formelle, mais des résultats faussement négatifs ont été fréquemment rapportés (4, 22). Ainsi, le diagnostic repose habituellement sur la présence de ces grains jaunes actinomycosiques reconnaissables macroscopiquement ou à l'examen histologique, qui montrent un feutrage filamenteux de ramifications bactériennes à extrémités renflées en massue (23). Ces structures filamenteuses Gram positives, prennent également les colorations d'hémateïne-éosine, du Giemsa et parfois du Ziehl et du Gomori-Grocott (2). Ces agents bactériens provoquent une réaction inflammatoire granulomateuse caractéristique, avec formation de pus et d'abcès, suivie par de la nécrose et par une réaction fibreuse extensive (4, 5). Les parois des cavités ainsi formées sont épaisses, et relativement avasculaires. La fistulisation est habituelle à un stade tardif (8). La bactérie peut être plus agressive, et envahir les organes de voisinage proche en proche (3, 4, 21). Une dissémination par voie hématogène a été décrite pouvant entraîner l'atteinte plus rare d'autres viscères intra-abdominaux tels que le foie (24), les reins et le rétro-péritoine mais il n'existe pas ou exceptionnellement de dissémination lymphatique en raison de la taille de la bactérie expliquant la rareté des adénopathies (8). Une atteinte pelvienne extensive peut dans certains cas provoquer une obstruction urétérale avec hydronéphrose secondaire (25), comme dans le cas de notre patiente. Enfin, une atteinte pluriviscérale a été également mais plus rarement décrite (22).

Le premier traitement envisagé pour l'actinomycose a été chirurgical. Mais, dans la plupart des cas, l'exérèse complète des tissus atteints était impossible du fait du caractère disséminé de la maladie. L'avènement de la pénicilline a radicalement transformé le devenir des patients atteints d'actinomycose abdominopelvienne et le taux de guérison est passé de 5 à 90% (8). En effet, cet antibiotique montre une bonne pénétration dans les grains actinomycosiques et à travers la paroi fibreuse des abcès. Actuellement, le traitement préconisé est à base de pénicilline G à fortes doses et au long cours à raison de 10 à 20 millions d'unités internationales par voie parentérale pendant 2 à 6 semaines, suivi de la voie orale à raison de 2 à 4 grammes par jour pendant 2 à 6 mois (4, 21, 22, 26). Du fait de l'efficacité du traitement antibiotique, les indications du traitement chirurgical se limitent à l'excision des tissus nécrosés, ou au drainage d'abcès. L'intervention du chirurgien sera, comme dans notre cas plus agressive en cas de forme pseudotumorale d'évolution insidieuse. Néanmoins, dans certains cas, des résections coliques et des stomies sont indiquées aussi bien à visée diagnostique que thérapeutique en cas d'obstruction colique (8, 19, 24, 26). En fait, le traitement chirurgical sera indiqué devant toute lésion simulant la malignité, une résection extensive ou radicale étant toujours évitée en l'absence d'une confirmation histologique.

CONCLUSION

L'actinomycose abdominopelvienne est une affection rare qui a vu son incidence considérablement augmenter ces dernières années, en raison de la généralisation de l'utilisation prolongée du port de DIU (19, 20, 22, 24-26). Son diagnostic reste difficile à établir en raison d'une symptomatologie révélatrice peu spécifique et parfois trompeuse pouvant simuler des pathologies très diverses telles qu'une tuberculose, une diverticulite, une maladie inflammatoire chronique du colon, ou un cancer. Néanmoins, il faut savoir l'évoquer chez toute femme porteuse de DIU présentant un syndrome douloureux abdominopelvien traînant, d'autant plus que son traitement est avant tout médical, avant d'envisager un quelconque geste chirurgical réservé aux formes compliquées ou pseudotumorales.

REFERENCES

- 1 - KOUTANI A, IBNATTYA A, BAROUDI C et Coll. - Une cause rare de fibrose rétro-péritonéale : l'actinomycose. *Ann Urol* 1996; **30** : 89-93.
- 2 - RUSSO T - Agents of Actinomycosis. In « MANDELL G, BENNETT J, DOLIN R - Principles and practice of infectious diseases ». 4th ed. Churchill Livingstone ed, New York, pp 2280-2288.
- 3 - BERARDI RS - Abdominal actinomycosis. *Surg Gynecol Oncol* 1979; **149** : 257-266.
- 4 - BROWN JR - Human actinomycosis : a study of 181 subjects. *Hum Pathol* 1973; **4** : 319-330.
- 5 - PUTMAN HC, DOCKERTY MB, WAUGH JM - Abdominal actinomycosis : an analysis of 122 cases. *Surgery* 1950; **28** : 781-801.
- 6 - COLLARD O, PERRAUD P, MELANI C et Coll. - Actinomycose pelvienne pseudotumorale. *Presse Med* 1996; **25** : 776.
- 7 - HUSS M, BONGAIN A, HOFMAN P et Coll. - Un diagnostic difficile : l'abcès actinomycosique pelvi-abdominal. *J Gynecol Obstet Biol Reprod* 1993; **22** : 843-847.
- 8 - DAVIES M, KEDDIE NC - Abdominal actinomycosis. *Br J Surg* 1973; **60** : 18-22.
- 9 - KO-KIVOK-YUN P, CHARASSON T, HALASZ A, FOURNIE A - Abcès actinomycosique pelvien et stérilet. *Contracept Féritil Sex* 1997; **25** : 239-241.
- 10 - HENDERSON SR - Pelvic actinomycosis associated with intrauterine device. *Obstet Gynecol* 1973; **41** : 726-732.
- 11 - KIM JC, CHO MK, YOON JW et Coll. - Extensive colonic stricture due to pelvic actinomycosis. *J Korean Med Sci* 1995 (abstract) ; **10** : 142-146.
- 12 - BOUTBOUL R, LAUNEY F, PROST J et Coll. - Quand penser à l'actinomycose génitale ? *Presse Med* 1996; **25** : 83.
- 13 - DUGUID H, PARRATT D, TRAYNOR R - Actinomyces-like organisms in cervical smears from women using intrauterine contraceptive devices. *Br Med J* 1980; **281** : 534-537.
- 14 - HAGER WD, DOUGLAS B, Majmudar B - Pelvic colonization with actinomyces in women using intrauterine contraceptive devices. *Am J Obstet Gynecol* 1979; **135** : 680-684.
- 15 - McLEOD R, SMITH S, POORE TE et Coll. - Tubo-ovarian actinomycosis and the use of intrauterine devices. *West J Med* 1980; **132** : 531-535.
- 16 - BURKMAN RT - Intrauterine devices and pelvic inflammatory disease : evolving perspectives on the data. *Obstet Gynecol Surg* 1996; **51** : S35-S41.
- 17 - LEE YC, MIN D, HOLCOMB K et Coll. - Computed tomography guided core needle biopsy diagnosis of pelvic actinomycosis. *Gynecol Oncol* 2000 ; **79** : 318-323.
- 18 - SCRIBNER DR, BALDWIN J, JOHNSON GA - Actinomycosis mimicking a pelvic malignancy. A case report. *J Reprod Med* 2000; **45** : 515-518.
- 19 - KAYA E, YILMAZLAR T, EMIROGLU Z et Coll. - Colonic actinomycosis : report of a case and review of the literature. *Surg Today* 1995; **25** : 923-926.
- 20 - LAZZARETTI MG, ROSI A, GAVIOLI M et Coll. - A rare case of primary abdominal actinomycosis. *Minerva Chir* 1996; **51** : 707-711.
- 21 - WOHLGEMUTH SD, GADDY MC - Surgical implications of actinomycosis. *South Med J* 1986; **79** : 1574-1578.
- 22 - DESHMUKH N, HEANEY SJ - Actinomycosis at multiple colonic sites. *Am J Gastroenterol* 1986; **81** : 1212-1214.
- 23 - CABANNE F, BONENFANT JL - Maladies infectieuses, virales, bactériennes et parasitaires. In « Anatomie Pathologique ». Maloine ed, Paris 1986, p 217.
- 24 - HINNIE J, JAQUES BC, BELL E et Coll. - Actinomycosis presenting as carcinoma. *Postgrad Med J* 1995; **71** : 749-750.
- 25 - TURNBULL AE, COHEN ME - Case report : pelvic actinomycosis with the development and resolution of a recto-sigmoid stricture. *Clin Radiol* 1991; **43** : 420-422.
- 26 - BERTRAM P, TREUTNER K, KLEINSCHMIDT L et Coll. - Rectal stricture caused by actinomycosis of the pelvis. *Eur J Surg* 1996; **162** : 837-839.