

Titre : Carcinome épidermoïde surinfecté du palais révélateur de maladie lépreuse.

Auteurs

Mamitiana Andrianirina¹, Tsiorintsoa Yvonne Rasolonjatovo², Fenosoa Vonimbola D'Assise Rakotoarimanana³, John Alberto Bam Razafindrabe⁴.

¹ M.D. Anesthésiste-Réanimateur, Hôpital Universitaire de Gynécologie et Obstétrique de Befelatanana, Antananarivo

² M.D. Anesthésiste-Réanimateur, Centre de Stomatologie de Befelatanana, Centre Hospitalier Universitaire Antananarivo

³ M.D. Chirurgien, Centre de Stomatologie de Befelatanana, Centre Hospitalier Universitaire Antananarivo

⁴ PhD. Chirurgien Maxillo-facial, Centre de Stomatologie de Befelatanana, Centre Hospitalier Universitaire Antananarivo

Correspondance et tirés à part :

Tsiorintsoa Yvonne RASOLONJATOVO

Service d'Anesthésiologie, Centre de Stomatologie de Befelatanana, CHU Antananarivo, BP 3110

Lot II P 87 Bis Avaradoha, Antananarivo 101 (Madagascar)

Téléphone : 034 06 951 74

E mail : rtsioryfara3@yahoo.fr

RESUME

Les actinomycètes sont des procaryotes saprophytes. Ils deviennent pathogènes en présence de facteurs favorisants et peuvent être à l'origine de la lèpre et des actinomycoses. Nous rapportons un cas de coexistence de ces deux pathologies avec un carcinome épidermoïde de la cavité buccale, posant un problème étiopathogénique.

Il s'agit d'un homme de 43 ans, d'indice de masse corporelle à 18, admis pour tuméfaction faciale gênant l'alimentation. A l'admission, le patient est cachectique. La consultation pré-anesthésique révèle des mains bottes congénitales compliquées de griffes cubitales, un éthylo-tabagisme, un état bucco-dentaire défectueux, une tumeur palatine ulcéro-végétante siège de multiples suppurations. Les examens paracliniques montrent une dénutrition sévère, une insuffisance rénale et une lyse osseuse du maxillaire. Le patient est classé ASA III. Un prélèvement biopsique sous anesthésie locale est réalisé. L'examen anatomo-pathologique découvre des micelles et un carcinome épidermoïde. Le diagnostic de tumeur maligne surinfectée d'actinomycose est établi. Un électromyogramme est réalisé au bout de 2 mois. Cet examen évoque une neuropathie périphérique d'origine lépreuse. La bactériologie a confirmé ce diagnostic. La polychimiothérapie est instaurée et l'évolution est défavorable au bout de 90 jours.

Plusieurs germes entraînent des mycétomes chez l'homme. Le plus souvent, il s'agit de zoonose. Chez notre patient, l'étiopathogénie de l'association actinomycose-lèpre-carcinome épidermoïde est complexe. Par ailleurs, le tabagisme, les caries dentaires et la chronicité des lésions inflammatoires favorisent la transformation maligne des cellules épidermiques.

Les actinomycètes sont des germes ubiquitaires, saprophytes. Ils deviennent virulents en présence de facteurs favorisants.

Mots clés : Actinomycètes - Lèpre chronique - Actinomycose - Carcinome épidermoïde du palais.

SUMMARY

Actinomycetes are saprophytic prokaryotes. The existences of some predisposing factors make them pathogenic. Can they cause leprosy and actinomycosis? We report here a case of coexistence of these two diseases with oral cavity epidermoïde carcinoma, posing an etiopathogenic problem.

He is a man of 43 years old, Body mass index 18, hospitalized because of facial swelling, making the feeding impossible. On admission, the patient is cachectic. The pre-anesthetic consultation reveals a congenital club hands deformity complicated by an ulnar claw, taking alcohol and tobacco, a poor dental status, an ulcerative vegetating tumor palatal seat of multiple abscesses. The biological test shows severe malnutrition, renal failure and maxillary bone lysis. The patient is classified ASA III. A biopsy was performed under local anesthesia. The anatomy-pathological test discovered micelles and epidermoïde carcinoma. The diagnosis of malignancy tumor secondarily infected and actinomycosis was established. Electromyography was performed after 2 months. A leprous peripheral neuropathy was discussed. It was confirmed by bacteriological test. Poly chemotherapy was started. The evolution was unfavorable after 90 days.

Many germs cause mycetoma in humans. This is often a zoonosis. In our patient, the etiology of the association Actinomycosis-leprosy-epidermoïde carcinoma is complex. Moreover, smoking, dental caries and chronic inflammatory lesions promote malignant transformation of epidermal cells.

Actinomycetes are ubiquitous and saprophytes bacteria. They become virulent with the presence of predisposing factors.

Keywords : *Actinomycetes – Chronic Leprosy - Actinomycosis – Epidermoïde palate carcinoma.*

INTRODUCTION

Le carcinome épidermoïde est cervico-faciale dans 4,8% des cas [1]. Cette localisation est sujette à des surinfections. L'actinomyose, connue comme zoonose commensale, s'y localise dans 50 à 60% des cas [2]. La lèpre est une maladie à tropisme cutanée et nerveuse. Les lésions nerveuses périphériques occasionnées sont graves. Elle est quasiment

disparue dans les pays nantis. Dans les pays tropicaux comme Madagascar, l'incidence reste élevée [3]. Cet article consiste à décrire une étiopathogénie complexe de carcinome épidermoïde surinfecté du palais, avec actinomyose, révélateur de maladie lépreuse d'allure congénitale.

OBSERVATION

Il s'agit d'un homme de 43 ans, fermier, domicilié à Analamazoatra. Il a été hospitalisé en mars 2005 au Centre Hospitalier de District de niveau 2 ou CHD₂ de Moramanga - région littorale Est de Madagascar pour tuméfaction faciale surinfectée. Une biopsie a été prévue. Lors de la consultation pré-anesthésique (CPA), l'interrogatoire a révélé une malformation congénitale type mains bottes, compliquée de griffes cubitales quelques années auparavant (figure n°1), avec une cécité bilatérale. Au fur et à mesure que sa maladie évolue, le patient s'est plaint de difficultés d'alimentation. L'examen clinique a révélé un indice de masse corporelle (IMC) à 18 (1m62, 48kg), une mauvaise hygiène bucco-dentaire, des critères d'intubation difficiles (figure n°2) ouverture buccale difficilement évaluable, score de Mallampati non classifiable, distance menton-cricothyroïdien à 6cm. La tumeur est palatine,

ulcéro-végétante, siège de multiples fistulisations, avec issue de pus blanchâtre malodorant. En outre, il existe des taches cutanées brunes et une dysesthésie des membres malformés.



Figure n°01 : Mains bottes avec griffes cubitales

(Photo prise par Andrianirina M)



Figure n°02 : Tumeur palatine
(Photo prise par Andrianirina M)

Le bilan hématologique révèle une anémie hypochrome microcytaire à 7g/dl d'hémoglobine. La biochimie montre une hyperazotémie à 10mmol/L, une hypercréatinémie à 159 μ mol/L (clearance de la créatinine selon la formule de Cockroft de 36,31ml/min), une dénutrition sévère sans œdèmes avec hypoprotidémie totale à 51g/L et hypoalbuminémie à 32g/L. La vitesse de sédimentation (VS) est augmentée, atteignant 100mm à la première heure. La radiographie du crâne à incidence de profil montre une ostéolyse du maxillaire (figure n°3). Au terme de la CPA, le patient est classé ASA III (dénutrition sévère, insuffisance rénale). Une anesthésie locale est indiquée. L'infiltration locale est effectuée avec de la xylocaïne 2% non adrénalinée. L'antibiothérapie instaurée est à base de pénicilline G en intraveineuse à raison de 10 millions par 24 heures. En post opératoire, des soins associant lavages oculo-nasaux pluriquotidiens, antalgique à base de paracétamol et alimentation entérale hyperprotidique mixée, sont entrepris.

L'examen direct du prélèvement de pus montre la présence d'actinomyose.



Figure n°03 : Radiographie du crâne à incidence de profil montrant la lyse maxillaire
(Photo prise par Andrianirina M)

L'examen anatomo-pathologique de la pièce biopsique révèle un carcinome épidermoïde du palais classe T₄N_xM_x (classification TNM [2]). Le patient n'a pu bénéficier d'aucune prise en charge oncologique pour des raisons pécuniaires. En mai 2005, une électromyographie (EMG) est réalisée dans le cadre d'une mission d'enseignement « Raoul Follereau ». Cet examen évoque une neuropathie périphérique en faveur de maladie lèpreuse. Par la suite, la recherche de bacilles acido-alcool-résistants ou BAAR sur des prélèvements auriculaire et scapulaire confirme le diagnostic de lèpre. La polychimiothérapie est débutée. L'évolution est défavorable. Le décès est survenu au 92^e

jour de polychimiothérapie dans un tableau

d'insuffisance hépatique aiguë.

COMMENTAIRES

Notre cas a révélé une association rare de carcinome épidermoïde/actinomycose et lèpre. La littérature n'a décrit aucun cas similaire. De pathogénie complexe, leurs chronologies d'apparition restent mal déterminées. La précarité la rend potentiellement grave. L'hypothèse suppose soit une transformation maligne de la lésion lépreuse surinfectée, soit un carcinome épidermoïde greffé de lèpre et d'actinomycose. L'actinomycose et la lèpre sont des maladies pouvant être dues aux *Actinomycétales* [4]. Du point de vue bactériologique, les *Actinomyces* sont de la famille des *Actinomycetaceae*, sous-ordre des *Actinomycineae*, ordre des *Actinomycetales*, sous-classe des *Actinobacteridae*, classe des *Actinobacteria*. Ils ont une forme filamenteuse et immobile. Dans la nature, ils décomposent les substances organiques en humus. Ce sont des germes anaérobies, Gram positif, non acido-résistant, sensibles aux bêta lactamines de la famille des Pénicillines G en intraveineuse à forte dose (10 à 20 millions UI par jour) [2,5]. Par ordre de fréquence décroissante d'apparition chez l'homme, on retrouve les *Actinomyces israelii*, les *Actinomadura pelletieri* et les *Streptomyces somaliensis*.

Ces derniers se rencontrent dans certaines tumeurs appelées mycétomes. Les manifestations cliniques sont diverses [5,6]. Le diagnostic d'actinomycose est bactériologique. Sa mise en culture requiert un milieu anaérobique enrichi en CO₂. Dans 50% des cas, la culture peut être négative. Une biopsie cutanée pour examen anatomopathologique conclue alors le diagnostic. Les germes se présentent sous forme de grains blancs [6]. Chez notre patient, le diagnostic d'actinomycose a été établi par l'anatomopathologie. La spécification du genre n'a pas pu être effectuée. Le bacille de Hansen ou *Mycobacterium leprae* appartient au genre des mycobactéries, ordre des *Actinomycétales*, classe des *Actinobacteria*. Il s'agit d'un parasite endo-cellulaire, de multiplication lente intra-histiocytaire. L'évolution spontanée conduit à des lésions trophiques et nerveuses. Le diagnostic se fait sur bacilloscopie [7]. Chez notre patient, le diagnostic bactériologique n'a été effectué que secondairement.

Par rapport au mode de contamination, deux hypothèses peuvent être avancées. D'une part, la virulence d'un germe habituellement saprophyte suite à l'immunodépression (dénutrition sévère), à la mauvaise hygiène

bucco-dentaire et au tabagisme. Ces facteurs ont été supposés responsables de la virulence des actinomycètes chez l'homme dans 55%. D'autre part, l'inoculation de la peau lésée via les *Actinomyces* des bovins dans un contexte de promiscuité, notre patient étant un fermier. Dans tous les cas, l'effraction de la barrière muqueuse aboutit à la formation de sclérose. Ce dernier favorise la survie des bactéries en diminuant l'oxygénation tissulaire locale. Des abcès cloisonnés sont alors formés. Dans chaque poche de pus, les *Actinomyces* s'associent à d'autres bactéries de la flore locale qui jouent un rôle important dans l'expression du pouvoir pathogène. L'infection se dissémine vers les organes adjacents tels que l'os donnant une ostéite chronique raréfiante. Le tissu osseux est remplacé par un tissu poreux contenant du pus. En l'absence de traitement, il se développe une tuméfaction sous-cutanée indolore, fluctuante formant des masses cervico-faciales pseudo-tumorales [6]. Ces signes ont été retrouvés (figures n°2 et 3). En cas de lèpre, la forme lépromateuse ou tuberculoïde avancée se caractérise par des atteintes des muqueuses nasales, bucco-pharyngées, laryngées et oculaires. Cette

forme est peu contagieuse. En effet, il apparaît une résistance immunitaire cellulaire relative acquise chez des personnes en contact avec le bacille de Hansen, le bacille de Koch ou après vaccination au BCG. Sa transmission héréditaire n'existe pas. Par contre une transmission congénitale est possible [8]. Notre cas fait évoquer la forme lépromateuse congénitale devant l'existence de mains bottes congénitales secondairement compliquées de griffes cubitales et de cécité bilatérale par atteinte nerveuse. Le diagnostic a été tardif. La lèpre n'a été évoquée que par l'EMG. Dans les neuropathies périphériques, l'EMG constitue un élément fondamental d'orientation diagnostique [9].

L'apparition de carcinome épidermoïde sur des maux perforants plantaires des lèpres tuberculoïdes et lépromateuses n'est pas rare. Elle a été décrite en 1942 pour la première fois [10-15]. Il reste longtemps infraclinique, jusqu'à l'âge de 70ans [15]. L'éthylotabagisme constitue un facteur favorisant [1]. Devant ces divers arguments, il semble probable que notre patient ait développé un carcinome épidermoïde sur une muqueuse méconnue lépreuse et surinfectée d'actinomycose.

CONCLUSION

Les *Actinomyces* sont des germes ubiquitaires et commensaux rarement pathogènes. L'association avec d'autres germes et l'existence de facteurs favorisant les rendent

virulents. La chronicité de ces lésions inflammatoires associée à l'éthylotabagisme prédispose à une transformation maligne de la lésion.

REFERENCES

1. Samson J, Gabioud F, Kuffer R. Carcinomes épidermoïdes de la cavité buccale. *Réalités Cliniques*, 1997 (8); 2 : 125-39.
2. Hamed KA. Successful treatment of primary *Actinomyces viscosus* endocarditis with third generation cephalosporins. *Clin Infect Dis*, 1998; 28 : 211-2.
3. Jopling WH, Mc Dougall AC. Definition, epidemiology and world distribution. In: *Handbook of Leprosy*. 5th ed. Oxford: Heinemann Medical Books, 1996; 1-9.
4. Holt JG. *Bergey's Manual of Systematic Bacteriology*, vol. II et IV, Williams & Wilkins, Baltimore, 1986, 1989.
5. Brook I. Actinomycosis: diagnosis and management. *South Med J*. 2008; 101:1019-23.
6. Smego RA, Foglia G. Actinomycoses. *Clin Infect Dis*, 1998 (26): 1255-63.
7. Venkatswami S, Anandan S, Krishna N, Narayanan CD. Squamous cell carcinoma masquerading as a trophic Ulcer in a patient with Hansen's disease. *International J of Lower Extremity Wounds*, 2010; 9: 163
8. Floch HA. *Archives de l'Institut Pasteur de la Guyane et du territoire de l'Inini: Sur la transmission congénitale de la lèpre*. Cayenne : A. Coueslant, 1953 (309).
9. Sotillo Y, Castilla Garrido JM, Jimenez-Castellanos Ballesteros R, Sotillo Gago I, Camacho Martinez F. Electromyogramme : une méthode valable pour le diagnostic précoce de la neuropathie périphérique. *Actas dermo-sifiliográficas*, 1987 (78); 11-12 : 737-41.
10. F. Hali A, Latifi M, Sbai. Dégénérescence carcinomateuse des maux perforants plantaires d'origine lépreuse: expérience du Centre national de léprologie de Casablanca. *Bull. Soc. Pathol. Exot*, 2011; 104:6-9
11. John S, Roul RK, Anderson GA. Cancer associated with leprosy. *Indian J Lepr*. 1994 Jul-Sep; 66(3):321-5.
12. Bobhate SK, Madankar ST, Parate SN, Choudhary RK, Kumbhalkar DT. Malignant transformation of plantar ulcers in leprosy. *Indian J Lepr*. 1993 Jul-Sep; 65(3):297-303.
13. Kumaravel S. Neoplastic transformation of chronic ulcers in leprosy patients-a retrospective study of 23 consecutive cases. *Indian J Lepr*. 1998 Apr-Jun; 70(2):179-87.

14. Karthikeyan K, Thappa DM. Squamous cell carcinoma in plantar ulcers in leprosy: a study of 11 cases. *Indian J Lepr*, 2003 Jul-Sep; 75(3):219-24.
15. Yarak S, Hirata S, Michalany NS, Augusto De Almeida F, Tomimori J. Squamous cell carcinoma in chronic ulcer in lepromatous leprosy. *Dermatol Surg*, 2009; 35:2025–30.