



Revue Maghrébine de

# Pédiatrie

المجلة المغربية لطب الأطفال

Numéro 33 | Revue Trimestrielle | Janvier / Mars 2024

- Articles originaux
- Faits cliniques





Revue Maghrébine de  
**Pédiatrie**  
المجلة المغاربية لطب الأطفال

**Directeur de la rédaction**

Dr. Khaled Mnif

**Rédacteurs en chef**

Dr Sonia Mazigh Mrad, Dr Jihene Bouguila

**Comité de rédaction**

Dr Nadia Siala, Dr Emira Ben Hamida,  
Dr Ben Ameer Salma, Dr Thabet Farah  
Dr Chokri Chouchane, Dr Imen Belhadj

**Secrétariat de la rédaction**

Mme Nejia Chamekh, Hôpital  
d'enfants, 1007 Tunis Jabbari, Tunisie  
e-mail : cnejia.pers@gmail.com  
Tél. : +216 71 563 180, Fax : + 216 71 563 626

**Site de la STP**

[www.stpediatrie.com](http://www.stpediatrie.com)

**Périodicité de la revue**

Trimestrielle

**Conception et réalisation**

OREA



## Articles originaux

- Extra pulmonary tuberculosis in Tunisian children referred to tertiary pediatric care hospital: Clinical features, Diagnosis, Management and Outcomes .....7  
*Ben Rabeh. R, Guesmi. Z, Missaoui. N, Yahyaoui. S, Bouyahia. O, Mazigh. O, Boukthir. S*
- Corps Étrangers Trachéo-Bronchiques et Stratégies de Prévention : ..... 15  
une étude de 172 cas  
*Safi. F, Dammak. A, Zayeni. M, Moalla. I, Kharrat. I, Sallemi. M, Ben Othmen. H, aBDELMAJID. M*

## Faits cliniques

- Syndrome de Stevens-Johnson : une manifestation inhabituelle du ..... 22  
Mycoplasme Pneumoniae  
*Hamouda. S, Saidi. M, Trabelsi. I, Kbaier. S, Garai. S, Litaiem. N, Bel Hadj. I, Boussetta. K*
- Pentalogie de Cantrell : rapport d'un cas grave, mortelle au centre hospitalier ..... 25  
universitaire de Bouaké (Côte d'Ivoire)  
*Azagoh-Kouadio . R, Akaffou-Gbery Adja . E, Avi. C, Adou. L, Sahi. G, Amani. A, Asse Kouadio . V*

## Lu pour vous

- The Management of Acute Pancreatitis in the Pediatric Population: ..... 30  
A Clinical Report from the NASPGHAN Pancreas Committee  
*Missaoui. N, Ben Rabeh. R, Mazigh Mrad. S, Boukthir. S*



# Extra pulmonary tuberculosis in Tunisian children referred to tertiary pediatric care hospital: Clinical features, Diagnosis, Management and Outcomes

Ben Rabeh. R <sup>(1,2)</sup>, Guesmi. Z <sup>(1,2)</sup>, Missaoui. N <sup>(1,2)</sup>, Yahyaoui. S <sup>(1,2)</sup>, Bouyahia. O <sup>(1,2)</sup>, Mazigh. O <sup>(1,2)</sup>, Boukthir. S <sup>(1,2)</sup>

<sup>(1)</sup> University Tunis El Manar, Faculty of medicine of Tunis, Tunisia

<sup>(2)</sup> Pediatric Department C, Bechir Hamza Children's hospital Tunis, Tunisia

## Abstract

**Background and aims :** Tuberculosis (TB) is a public health problem in our country. Extra pulmonary TB (EPTB) is the most common form of TB in children. No Tunisian clinical studies on EPTB in children were published since 2009. This study was conducted to describe clinical features of EPTB in children and to assess management and outcomes.

**Patients and methods :** All children with EPTB diagnosed from January 2010 to December 2021 in a department of a Tunisian pediatric tertiary referral center, were reviewed.

**Results :** EPTB represented 79% of all cases of tuberculosis diagnosed during the study period. The mean age at diagnosis was 7.8±4.2 years. The involved sites were peripheral lymph nodes (40%) followed by abdominal TB (30%), osteoarticular TB (17%), central nervous system TB (11%) and disseminated TB (2%). BCG vaccine was given to 96% of patients. Immunodeficiency was reported in 23% of cases. Mean diagnosis delay was 3.3 months. The longer diagnostic delay was reported in abdominal TB cases (p=0.028). Granulomatous inflammation with caseous necrosis was found in 41% of cases. Mycobacterial culture was positive in 15% of cases. Mean duration of antituberculosis treatment was 10.8±4.5 months. Response to first-line antituberculosis drugs was good in all patients. Three patients had sequelae: vertebral deformation (n=1) and neurological sequelae (n=2).

**Conclusion :** We reported the highest proportion of EPTB in children. The most common site of EPTB was lymph nodes. Vaccination with BCG and screening of children for latent forms of TB are the main measures to control this disease.

**Key words:** Tuberculosis, children, extrapulmonary, tuberculous meningitis, clinical outcome, antituberculosis therapy

## Introduction

Tuberculosis (TB) is a chronic infection caused by *Mycobacterium tuberculosis* (MTB) also known as Koch's bacillus. Transmission is mainly caused by inhaling respiratory droplets contaminated with MTB [1]. It mainly affects the lungs and can reach all other organs. It remains a public health problem in several countries. In 2021, an estimated 10.6 million people worldwide were affected by TB [2]. Eleven percent of them were children and adolescents aged less than 15 years. Tunisia is an intermediate endemic country with an average incidence of 36/100 000 inhabitants in 2020 [2]. Extra pulmonary TB (EPTB) is the most common form of TB in children, especially under the age of five years [3]. TB in children is characterized by clinical polymorphism, leading to delay in diagnosis and management. No Tunisian clinical study

on EPTB in children has been published during the last decade. The aim of this study was to describe epidemiology and clinical features of EPTB in children and to assess management and outcomes.

## Methods

This was a retrospective descriptive study of all EPTB cases diagnosed from January 2010 to December 2021 in Pediatric Department C of Bechir Hamza Children's Hospital of Tunis which is a pediatric tertiary referral center.

## Study subjects

We included, all children aged between one and 18 years in whom we diagnosed EPTB during the study period. Data were collected from medical records. Demographic characteristics (gender, age, geographic distribution, etc.), medical history, vaccina-

Corresponding author :

**Dr Rania Ben Rabeh :**

Tel: +216 52 85 70 24

E-mail: rania.benrabeh@fmt.utm.tn

tion with Bacillus-Calmette-Guerin (BCG) vaccine, contact with a person who has active TB, clinical presentation, time from patient-reported symptom onset, physical examination findings, tuberculin skin test result, results of laboratory tests, radiologic findings, microbiologic data, histological data, treatment regimens and outcomes were recorded from the patient files.

### **Definition of cases**

EPTB was defined as the presence of the infection in organs or tissues outside pulmonary parenchyma. EPTB was classified as lymph node TB, abdominal TB, osteoarticular TB, Central Nervous System (CNS) TB (CNS-TB) and miliary TB. In patients in whom pulmonary TB and EPTB existed simultaneously, the extra pulmonary organs involved were recorded.

### **Diagnosis**

Tuberculin skin test (TST) was performed by injecting 0.1 ml of tuberculin purified protein derivative into the anterior cutaneous surface of forearm. Skin reaction was read 72 hours after injection by a pediatrician trained to read TST results. The diameter of induration was measured in millimeters. TST was considered positive if the induration measured 10 mm or more.

Interferon- $\gamma$  release assay (QuantiferON test) was used in some patients.

### **Diagnosis of lymph node tuberculosis**

The diagnosis of lymph node TB was confirmed in children with positive mycobacterial culture of samples obtained by needle puncture-aspiration (fine-needle aspiration (FNA)) or lymph node biopsy. The diagnosis was also confirmed in children with compatible histological findings in lymph node samples and clinical improvement after specific treatment. Compatible histological findings were defined as the presence of epithelioid and giant-cellular granuloma with caseous necrosis.

### **Diagnosis of abdominal tuberculosis**

Abdominal TB includes infection of gastrointestinal tract, peritoneum, abdominal solid organs and abdominal lymph nodes. The diagnosis of abdominal TB was made from a combination of biochemistry data, radiological findings on abdominal ultrasound and contrast-enhanced computed tomography scan (CT-scan) of the abdomen, microbiological results, histological findings and laparoscopic features.

### **Diagnosis of osteoarticular tuberculosis**

The diagnosis of osteoarticular tuberculosis was based on epidemiological and clinical features, imaging data (CT-scan and Magnetic Resonance Imaging (MRI) findings), microbiological and histological examination of samples obtained by biopsy under image guidance or by arthroscopy or during open surgical procedures.

## **Diagnosis of central nervous system tuberculosis**

CNS-TB was defined as intracranial TB which included tuberculous meningitis (TBM), tuberculous encephalopathy, tuberculous vasculopathy, cerebral tuberculoma and tuberculous brain abscess [4]. Spinal TB which included Pott's spine and Pott's paraplegia, was classified as osteoarticular TB. We assessed the clinic stage of TBM according to Medical Research Council criteria: Stage I: patients with no focal neurological signs and Glasgow Coma Scale (GCS) score of 15; Stage II: children with GCS score of 15 and who presented with focal neurological deficit or patients with GCS score between 10 and 14; Stage III, children with GCS score < 10 [5]. The diagnosis of TBM was confirmed by the detection of MTB in the cerebrospinal fluid (CSF) either by smear examination or by culture or by PCR.

### **Diagnosis of miliary tuberculosis**

Miliary TB was defined as a disseminated TB characterized by a simultaneous involvement of at least two non contiguous organs, or infection of the bone marrow or the liver [6].

### **Microbiological Techniques**

Smear examination: Specimens were used for microscopic examination, to detect acid-fast bacilli (AFB) in stained smears. Ziehl-Neelsen method was used for acid-fast staining.

Mycobacterial culture: Lowenstein-Jensen solid medium was used for culture and isolation of MTB from specimens.

Molecular testing: The Gene Xpert MTB/RIF assay was used. It is based on nucleic acid amplification for detection of MTB DNA and screening for Rifampicin resistance to Rifampicin by real-time polymerase chain reaction (RT-PCR)

### **Statistical analysis**

Statistical analysis was performed by using Statistical Package for the Social Science (SPSS) version 21 software. We used ANOVA test to compare means among groups and chi-square test of Pearson for comparing categorical data in independent groups. A p value < 0.05 was considered statistically significant. The study was approved by the ethical committee of Bechir Hamza Children's Hospital of Tunis. All the data collected was anonymized.

## **Results**

We recorded 53 cases of EPTB which represented 79% of 67 cases of tuberculosis diagnosed during the study period, in our department. EPTB incidence was 1.47/year/1000 children hospitalized in our pediatric department. The mean age at diagnosis was  $7.8 \pm 4.2$  years [1.5-15 years]. The gender ratio was 1.20. Contact with a person who had active TB was reported in 15 children (28%), it was intra familial in nine cases. Two children did not receive

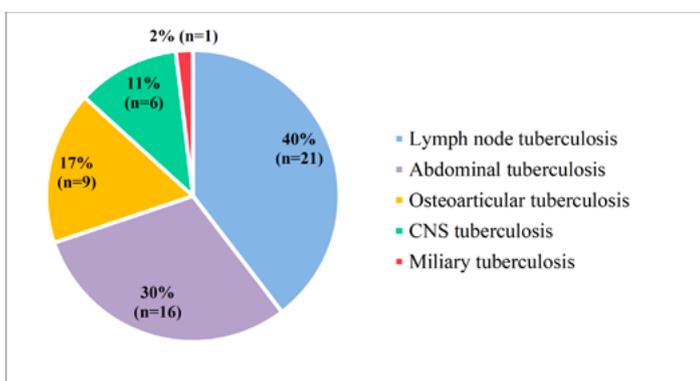
Bacillus-Calmette-Guerin vaccine. They were aged less than 5 years. One of them was born in Germany. Table 1 summarizes epidemiological and clinical characteristics of children with EPTB. Serological tests for the diagnosis of Human immunodeficiency virus (HIV) were performed in 18 children (34%). They were negative in all cases. Immunodeficiency was reported in 12/53 (23%). Causes of immunodeficiency are detailed in Table 1.

**Table 1 :** Epidemiological and clinical characteristics of children with extra pulmonary tuberculosis included in the study

Parameters		N	%
Gender	Male	29	55
	Female	24	45
Age groups	1 – 5 years	18	34
	6 – 10 years	16	30
	11 – 15 years	19	36
Geographic distribution	North-West of Tunisia	17	32
	North-East of Tunisia	9	17
	Center-West of Tunisia	11	21
	Southwest of Tunisia	16	30
Residency area	Urban	41	77
	Rural	12	23
Positive close contact history (intra familial)		9	17
Chronic diseases	Diabetes mellitus type 1	4	7
	Alpha-1 antitrypsin deficiency	1	2
	Hypogammaglobulinémie	1	2
Corticosteroid therapy		2	4
Autoimmune disease (immunosuppressive drug)		1*	2
Moderate/ Severe malnutrition		4	9
Growth failure		2	4

\*Autoimmune Hepatitis

General symptoms of TB disease were found in 29 children (55%): fever (n=23), weight loss (n=13), weakness (n=11) and night sweats (n=16). Mean time between symptoms onset and diagnosis was  $3.3 \pm 2.3$  months with extremes ranging from 15 days to 12 months. Tuberculin skin test (TST) was performed for 48/53 (90%) children. It was positive in 33/48 (69%) cases. The most predominant site of infection was lymph nodes (40%) followed by abdominal TB (30%). Figure 1 summarizes distribution pattern of EPTB sites.



**Figure 1 :** Distribution pattern of extra pulmonary tuberculosis sites among 53 Tunisian children

Table 2 summarizes clinical features, laboratory tests findings and microbiological characteristics of children with EPTB according to infection sites. The mean duration of antituberculosis treatment (ATT) was  $10.8 \pm 4.5$  months with extremes ranging from 6 to 22 months. Side effects of ATT were observed in seven cases: hepatic cytolysis (n=6) and cutaneous adverse drug reaction (n=1). Acetylation test was performed in 29 children (58%), 16 (55%) of whom were classified as slow and 13 (46%) as rapid inactivators of Isoniazid. Hepatic cytolysis was observed in three slow Isoniazid inactivators patients.

## Lymph node tuberculosis

Lymph node TB was diagnosed in 21 children. Cervical lymph nodes were involved in 20 cases: lateral jugular (n=11), middle jugular (n=7) and submandibular (n=2). Axillary territory was affected in one patient. Neck swelling was found at presentation in 20 cases. Cervical ultrasound was performed in all cases of cervical lymph node TB. Ultrasound showed necrosis and surrounding soft tissue edema respectively in 12/20 and 9/20 cases. Cervical Doppler ultrasound showed vascularity patterns in 13 cases: capsular or peripheral (n=8) and hilar (n=5). Samples were obtained by lymph node biopsy and needle puncture-aspiration respectively in 16/21 and 5/21 children. Lymph node aspirate culture was positive in one patient. Histological examination showed epithelioid and gigantocellular granulomas in all cases. Caseous necrosis was found in 11/21 cases. A chest X-ray was performed for all children with lymph node TB looking for pulmonary location. All patients were given standard regimen of ATT. The fixed-dose combination antituberculosis therapy (2 HRZE/ 4 HR) (H: Isoniazid 75mg/ R: Rifampicin 150mg/ Z: Pyrazinamid 400mg/ E: Ethambutol 257mg) was administered in 17 cases. Only four patients received separate drugs. All patients received following doses: Isoniazid 5mg/Kg per day; Rifampicin 10mg/Kg per day; Pyrazinamid 25mg/Kg per day and Ethambutol 15mg/Kg per day. Three patients were lost to follow-up. Side effects of antituberculosis drugs were noted in two patients who presented moderate liver cytolysis. The evolution was uneventful in 17 cases. A six-year-girl presented a relapse and required nine months of treatment.

## Abdominal tuberculosis

Abdominal TB was diagnosed in 16 children. Symptoms at presentation were: acute abdominal pain (n=2), recurrent and insidious abdominal pain (n=9), abdominal distension (n=10) (Table 2). Ingestion of unpasteurized milk and milk products was reported in nine patients.

**Table II :** Epidemiology, clinical features, laboratory tests findings and microbiological characteristics of children with extra pulmonary tuberculosis according to infection sites

	Lymph node TB (n=21)	Abdominal TB (n=16)	Osteoarticular TB (n=9)	CNS-TB (n=6)	p
Mean age at diagnosis (years)	7.1 ± 4 [1.5 – 13]	6.9 ± 4.8 [2 – 15]	9.1 ± 3.8 [2.5 – 14]	10.4 ± 3.5 [4.5 – 14]	0.234
≤ 5 years	6/21	10/16	1/9	1/6	0.030
Male to female ratio	1.33 (12/9)	0.78 (7/9)	2 (6/3)	2 (4/2)	0.642
Immunosuppressive conditions	2/21	8/16	1/9	1/6	0.022
BCG vaccine	21/21	15/16	9/9	5/6	-
History of TB contact	2/21	4/16	5/9	3/6	0.034
Mean time from symptom onset to diagnosis (months)	2.8 ± 2.04 [1 – 9]	4.4 ± 2.9 [1 – 12]	3.7 ± 1.5 [2 – 6]	1.4 ± 0.6 [0.5 – 2]	0.028
Fever (prolonged/intermittent)	8/21	3/16	7/9	4/6	0.019
Weight loss	2/21	6/16	3/9	2/6	0.206
Weakness	1/21	3/16	4/9	2/6	0.063
Night sweats	5/21	5/16	4/9	1/6	0.613
TST	19/21	16/16	8/9	5/6	-
Positive TST	13/19	11/16	6/8	2/5	0.591
Mean diameter of induration of positive TST (mm)	14.8 ± 2.2 [12.5 – 19]	15.1 ± 2.9 [11 – 21]	16 ± 2.5 [12 – 19]	16.7 ± 2.4 [15 – 18.5]	0.655
Positive QuantiFERON test	1	2	-	1	-
Leukocytosis (>10000/mm <sup>3</sup> )	14/21	9/16	5/9	4/6	0.890
ESR mm/1 <sup>st</sup> hour	30.7 ± 19.2 [8 – 66.7]	38.1 ± 22.8 [9 – 81.3]	55.5 ± 32.2 [8 – 103]	31.9 ± 25.7 [10.8 – 65.8]	0.129
Accelerated ESR (>15 mm/hr)	9/14	8/11	7/9	2/4	0.753
CRP (mg/L)	53.5 ± 23.2 [15 – 96.7]	42.8 ± 29.7 [10.8 – 111.3]	79.7 ± 36.5 [24 – 128.9]	68.2 ± 53.8 [17.9 – 163]	0.046
Increased CRP (>30 mg/L)	17/21	8/16	7/9	4/6	0.216
Anaemia of inflammation	5/21	7/16	4/9	1/6	0.406
Positive mycobacterial culture	0/21	4/16 (biopsy specimens)	3/9 (biopsy specimens)	1/5	-
Epithelioid and giant cell granulomas	21/21	14/16	8/9	-	-
Caseous necrosis	11/21	9/16	2/9	-	0.233
Detection of MTB by PCR	-	-	-	3 (CSF)	-
Mean duration of ATT (months)	6.5 ± 1 [6 – 9]	11.2 ± 2.6 [9 – 18]	16.3 ± 3.08 [12 – 21]	15.2 ± 4.6 [12 – 22]	<0.001

Abdominal TB was classified as peritoneal TB (n=11), abdominal. Abdominal ultrasound was performed in all cases of abdominal TB. Ultrasound showed diffuse peritoneal thickening in ten cases associated with regular and hypoechoic enlargement of the parietal peritoneum, nodular pattern and striated greater omentum respectively in seven four and two cases. Ascites was found on ultrasound in nine cases with thin fibrinous septations in three cases. Mesenteric lymphadenopathy was found in 12/16 cases. Cecal wall thickening was noted in two cases. Abdominal CT-scan was performed in four children. CT imaging features seen were: nodular thickening of the peritoneum with abnormal peritoneal enhancement (n=2), "cake-like" omentum (n=2), ascites (n=2), hypodense mesenteric lymphadenopathy (n=4) and circumferential wall thickening of terminal ileum and cecum (n=2). Laparoscopy was performed for 14 patients with peritoneal or lymph node biopsy. Laparoscopic findings were thickened peritoneum with diffuse erythema (n=12), whitish nodules or tubercles (n=7), mesenteric lymphadenitis (n=10), fibrous adhesions (n=5) and ascitic fluid (n=12). In two cases, the specimen was taken during open surgery. These two children were operated for suspected appendicitis, lymph node TB (n=3) and ileocecal TB (n=2). All patients had received anti-tuberculosis treatment (ATT). The fixed-dose combination antituberculosis therapy (2 HRZE/ 4 HR) was administered in 13 cases. Only three patients received separate drugs. Side effects of anti-tuberculosis drugs were observed in three patients who presented moderate hepatic cytolysis. The evolution was uneventful in all cases.

### Osteoarticular tuberculosis

Out of the 53 children included, nine had osteoarticular TB. Pain was found in all patients, with functional impairment in 7/9 of cases. Joint swelling was noted in 2/9 of cases and joint stiffness in 4/9 of cases. A 13-year-old girl presented with a painful sternal mass. A 2.5-year-old boy presented with inflammatory swelling of the upper extremity of the left lower limb. Painful left lumbar swelling was noted in a 6-year-old boy. Sites involved were: TB of the hip (n=2), TB

of the knee (n=2), tuberculous spondylodiscitis (n=2), tuberculous osteomyelitis of proximal tibia (n=1), sternoclavicular joint TB (n=1) and tuberculous sacroiliitis (n=1). Eight children were evaluated by MRI. MRI findings were strongly suggestive of TB disease in all cases. MRI of the spine was performed in two cases. It showed collapse of the vertebral body with marrow edema, paravertebral collection with epidural extension, and psoas abscess in two cases. Tissue samples were obtained by biopsy under image guidance (n=3), by arthroscopic procedure (n=4) and during open surgical procedure (n=2). CT-guided needle biopsy of sacroiliac joint was performed in 8-year-old girl presented with lower back pain and reduced mobility associated with right sacroiliac joint erosions at the CT-scan of the pelvis. Spinal surgery was performed in two cases because of neurological deficit at presentation. Histopathology was suggestive of tuberculosis in seven cases. Mycobacterial culture was positive in two cases. All patients received a standard regimen of ATT. One patient presented skin maculopapular rash few days after treatment onset. Treatment was stopped for a certain period then antibiotics were introduced one by one. Thereafter, the treatment was well tolerated. Vertebral deformation was observed in one case. Three patients with osteoarticular TB were assessed in search of chronic granulomatous disease and interleukin 12-interferon gamma axis defect, without finding of these diseases.

### Central nervous system tuberculosis

Out of the 53 children included, six had CNS-TB: TBM (n=5) and cerebral tuberculoma (n=1). All children presented with stage II of TBM. The main characteristics of children with TBM are summarized in table 3.

**Table III :** Characteristics of children with tuberculous meningitis

Patients	1	2	3	4	5
Age at diagnosis (years)	10.5	14	12.5	8	4.5
Gender	Male	Male	Female	Female	Male
TB contact history	Yes	No	Yes	No	No
BCG vaccine	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes
Duration of symptoms at admission	1 month	15 days	1 month	2 months	2 months
TST	Positive	Positive	Negative	Negative	Negative
Symptoms	Slight fever * Vomiting Headache Seizure	Moderate fever ** Vomiting Headache Dizziness Blurred vision in both eyes	Night sweats Vomiting Headache Seizure	Vomiting Headache Dizziness Sub-acute onset of left-sided facial weakness with diplopia	Slight fever Vomiting Headache Weakness Seizure Altered mental status
Clinical findings	Neck stiffness Kernig's sign GCS=13/15	Neck stiffness GCS=13/15 Fundoscopy: papilledema	Hemiparesis GCS=15/15	Neck stiffness GCS=15/15 Sixth cranial nerve palsy	Neck stiffness Kernig's sign GCS=12/15
Interferon-γ release assay (QuantiFERON)	-	-	Positive	-	-
Lumbar puncture (cerebrospinal fluid)					
WBCs count /mm <sup>3</sup>	68	380	-	690	230
Lymphocyte (%)	70	95	-	75	60
Protein (g/L)	0.96	1.35	-	1.8	3.2
Glucose level	0.5 blood sugar	0.16 blood sugar	-	0.42 blood sugar	0.38 blood sugar
Cerebral CT-scan	Contrast enhancement of basal cisterns	Leptomeningeal enhancement	Cerebral infarction and diffuse brain edema	Basal meningeal enhancement Pre contrast basal hyperdensity	Contrast enhancement of basal cisterns
Smear examination (AFB stain)	Negative	Negative	-	Negative	Negative
CSF culture	Negative	Negative	-	Positive	Negative
Detection of MTB in CSF using PCR	Positive	Positive	-	-	Positive
Chest X-ray	Normal	Normal	Normal	Normal	Normal
Sputum culture	Negative	Negative	Negative	Negative	Negative
HIV serological test	Negative	Negative	Negative	Negative	Negative
Antitubercular therapy	HRZE***/HR	HRZE***/HR	HRZE***/HR	HRZE***/HR	HRZE***/HR
Duration of ATT	12 months	12 months	18 months	20 months	12 months
Steroid / Duration	Dexamethasone (6 weeks)	Dexamethasone (8 weeks)	Dexamethasone (8 weeks)	Dexamethasone (8 weeks)	Dexamethasone (6 weeks)
Outcome	No neurological sequelae	No neurological sequelae	Epilepsy	Hydrocephalus Ventriculoperitoneal shunting	No neurological sequelae

Cerebral tuberculoma was diagnosed in 13-year old boy who had a 2-month history of weakness, intermittent moderate fever and weight loss. He received BCG vaccine. He had an intra familial TB contact (the father suffered from pulmonary TB). He presented with a 2-week history of vomiting and headaches. Physical examination found hemiparesis and GCS at 13/15. Laboratory tests showed CRP of 163 mg/L. Cerebral CT-scan found hypodense mass lesion in left parietal lobe (3 cm), with ring enhancement and perilesional edema and associated with mass effect and midline shift. The child was immediately transferred to the neurosurgery department. He was not followed up in our department.

### **Disseminated tuberculosis**

Miliary TB was diagnosed in a 9-year-old girl with alpha-1 antitrypsin deficiency and positive history of TB contact, which had a disseminated TB with lymph node TB, cerebral tuberculoma and tuberculous spondylitis. She presented with a left cervical swelling of 4 cm long axis with a 2-month history of moderate fever, weakness and night sweats and recurrent headaches associated with inflammatory lumbar pain. During hospitalization she presented hemicorporal seizure and status epilepticus. She had a BCG scar. TST was positive. Cerebral CT-scan showed ring enhancing mass lesion (4 cm) consistent with cerebral tuberculoma with hydrocephalus. Ventriculoperitoneal shunt was placed. MTB was detected in CSF by RT-PCR. Histological examination of lymph node samples showed epithelioid and gigantocellular granulomas. She received ATT during 26 months with steroids during three months. She presented hepatic cytolysis and cholestasis which were managed with improvement in laboratory tests. She was the patient was assessed in search of chronic granulomatous disease and interleukin 12-interferon gamma axis defect, without positive findings.

### **Outcomes**

No patient died. Three patients had sequelae. A girl with TB spondylodiscitis had a slight dorsal kyphosis. A girl with TBM had epilepsy and seizures were controlled with a single antiepileptic drug. One patient with TBM had hydrocephalus that was managed by insertion of ventriculoperitoneal shunt with good recovery.

### **Discussion**

EPTB is an important cause of morbidity in pediatric population in low-income countries. Pediatric EPTB is still under-diagnosed in our country because symptoms are often non-specific and challenging. Nevertheless, early diagnosis and management of EPTB improve significantly clinical outcomes. Few Tunisian studies focused on the clinical and diagnostic characteristics and outcomes of EPTB in children. The last one carried on in our pediatric

hospital was published in 2009 and recorded 41 cases over a period of 13 years (1995–2007) [7]. Our study described the epidemiology, clinical features, diagnostic challenges and outcomes of EPTB in a Tunisian tertiary pediatric department. EPTB represented 79% of TB cases recorded in our department. To the best of our knowledge this proportion was the highest in the literature. The proportion of EPTB cases was 57.9% in our pediatric hospital between 1995 and 2007 [7]. Our findings can be explained by a patient selection bias. Indeed, children with suspected pulmonary TB are often referred to a tertiary center of phthisiology and pulmonology. Several studies showed that EPTB is more common in children than adults [8–9]. This may be due to high risk of lymphohematogenous spread of the disease in children [8]. About two-thirds of children hospitalized for EPTB in our department were from the northwest or southwest of the country. It was shown in a recent Tunisian epidemiological study that southern Tunisia hosted the highest proportion of TB patients among Tunisian population [10]. Our study showed that older children [6 – 15 years] represented 64% of children with EPTB. An age group distribution almost similar to our study was found in a recent Turkish study [8]. A slight male predominance was found in our study. This result was reported in most studies [11–12]. We found that 96% of patients were vaccinated with BCG. BCG vaccination is mandatory in Tunisia at birth according to the national vaccination schedule. In our series, no patient died and three patients had sequelae that were not seriously disabling. Thus BCG vaccine seems to prevent death and severe and disabling neurological complications. Indeed a recent meta-analysis showed that infant BCG vaccine prevents all tuberculosis and death caused by TB in young children. This study also showed that the protective effect of BCG vaccination decreased in patients aged 5 years or older [13]. These findings may explain the age group distribution of EPTB observed in our study. The results of this meta-analysis suggest that protective immunity against MTB should be boosted after childhood [13]. We found a positive history of contact with TB patient in 28% of cases. A similar result was found in a Turkish study [8]. In our study, medical conditions that weaken the immune system were found in 23% of cases. This finding suggests that the progression from infection to active TB disease may result from the presence of individual factors such as immunosuppressive conditions. Established risk factors are HIV, malnutrition, young age, diabetes, use of immunosuppressive drugs, etc [14]. Lymph node TB was the most common site of EPTB, in our study. This result was found in most of pediatric studies [7–9, 15–17]. However, the proportion of other sites of EPTB varied extremely between studies. This difference may be explained by the study design, the case definition, the diagnostic criteria, the incidence of TB disease in the country, the prevalence of HIV

infection in the population, the BCG vaccination coverage, etc [9]. In this study we found that abdominal TB was the second site of EPTB (17%) and the most common site of EPTB in children under the age of 5 years. However lymphadenitis, CNS-TB and osteoarticular TB were more common in older children. This difference was significant. This result was not found in a previous Tunisian study [7]. Abdominal TB is uncommon in children. It is seen in only 0.3% of pediatric TB [18]. The symptoms of abdominal TB are often non specific, resulting in a diagnosis delay [19]. This is consistent with our results, since we found that time between symptoms onset and diagnosis was significantly longer in children with abdominal TB. We found a mean delay of 4.4 months to establish the diagnosis. A similar result was found in an Indian study [20]. We found that immunosuppressive conditions were significantly more common in children with abdominal TB ( $p=0.022$ ). Moderate or severe malnutrition was observed in four patients who all had abdominal TB. Admittedly, malnutrition leads to diverse changes in the immune system by repressing immune responses and increases in TB disease risk, but abdominal TB can lead to malnutrition by decrease in food intake due to abdominal pain and gastrointestinal disorders. Thus malnutrition may be a cause or consequence of abdominal TB [21]. Abdominal TB is mainly caused by *Mycobacterium bovis* and the most common mode of transmission is ingestion of unpasteurized milk and milk products which was reported in more than half of the cases in our series. In developing or low-income countries abdominal TB is still present. Despite the efforts of the health authorities for the slaughter of infected cattle and the pasteurization of milk and dairy products, abdominal TB still exists in our country. Abdominal TB may involve the peritoneum, the gastrointestinal tract, solid viscera or abdominal lymph nodes [22-23]. In our series, diagnosis of abdominal TB was based on radiological, laparoscopic and histological findings. Positive mycobacterial culture of biopsy specimens was positive in four cases. Positivity of laparoscopic biopsy specimens' culture was ranging between 38% and 92% [24]. Among 14 laparoscopies performed, 12 showed suggestive findings of abdominal TB. Typical laparoscopic findings are accurate enough to diagnose abdominal TB with a specificity and sensitivity ranging respectively between 96%-100% and 84%-100% [22, 24]. Characteristic granulomas with central caseous necrosis were found for over half of cases with abdominal TB. Granulomas with caseous necrosis found on laparoscopic biopsy specimens had sensitivity and specificity of 70%-100% and 100%, respectively [24]. All children with abdominal TB in this series showed a response to ATT. Osteoarticular TB represented 17% of EPTB in this series. Osteoarticular involvement represents 4% to 5% of TB infection cases with reports in children of up 7% [25]. The diagnosis of osteoarticular TB is a challenge in

children because its clinical presentation is often insidious. Indeed, this study showed a medium duration of symptoms before diagnosis of 3 months with extremes ranging between 2 and 6 months. A medium time of pre-diagnostic symptoms of 8, 7 and 2 months, was reported in Mexican, UK and Taiwan pediatric cohort, respectively [26-28]. Pain was the most common symptom in all patients. This result is consistent with other studies [26]. In this series fever was significantly more common in osteoarticular TB. Mean CRP level was significantly highest in osteoarticular TB. Sites involved were the hip ( $n=2$ ), the knee ( $n=2$ ), the vertebral column ( $n=2$ ), proximal tibia ( $n=1$ ), sternoclavicular joint ( $n=1$ ) and sacroiliac joint ( $n=1$ ). Conventional sites of osteoarticular TB in children are vertebral, hip, femur and knee [26]. Conventional sites were observed in two thirds of cases in our series. Microbiological confirmation was poor in this study. One third of children with osteoarticular TB had positive culture of biopsy specimens. The main diagnostic method was histological examination. It was shown that tissue specimens yield the best results. Samples can be obtained by biopsy under image guidance or by arthroscopic procedures or during open surgical procedures [29]. Mycobacterial culture remains the gold standard in the diagnosis of osteoarticular TB [29]. In Tunisia where TB is endemic and since it is not always possible to identify MTB, early management should be considered in children with clinical, radiological and histological findings suggesting TB. The most severe form of EPTB is CNS-TB and miliary TB [8]. It has been reported that these two forms of EPTB occurs mostly in children aged between six months and four years [8]. We diagnosed TBM in five patients. TBM was confirmed by detection of MTB in CSF using PCR in three cases. A recent diagnostic test introduced in our microbiology laboratory is Xpert MTB/ Rifampicin which is a rapid nucleic acid amplification test to detect MTB and Rifampicin resistance simultaneously. This molecular method was useful for the diagnosis of TBM in our patients. However, the role of Xpert MTB/ RIF in the diagnosis of TBM, remains controversial. Even though a positive result confirms the diagnosis of TBM but negative result cannot rule out TBM [30]. Xpert MTB/ RIF assay is a definitive diagnostic test of TBM with a sensitivity and specificity of 67%-85% and 94%-98% respectively [31]. CSF findings were suggestive of TBM in all cases. However, CSF findings are not specific for TBM and can be seen in other conditions such as bacterial, viral or fungal meningitis [30]. In the present study, two-fifths of children with TBM had poor outcomes. Neurological sequelae in children with TBM were reported from 14.3% to 28.1% of cases in African studies [32, 33]. Disseminated TB is a severe form of TB that results from massive lymphohematogenous dissemination of MTB. This form occurs most commonly in children infected with HIV [34]. Miliary TB in the current study represented 2% of extrapulmonary

sites. Our patient was immuno-competent and was an older child. Response to first-line antituberculosis drugs was good in all patients and drug-induced hepatotoxicity was the most common side effect of ATT, in our study. The limitations of the study were the low number of patients included, the retrospective design and the low rate of cases with positive mycobacterial culture. However, we think that our study is interesting and relevant since it will contribute to the Tunisian national data on tuberculosis in children and especially that the last clinical study on pediatric EPTB dates back to 2009. Our study found that histological findings, granulomatous inflammation with caseous necrosis, were the main diagnostic criteria. Clinical and radiologic findings, history of close contact with TB cases, positive skin tuberculin test, and good response to treatment were used in several cases to establish diagnosis of EPTB. However this study showed an improvement in diagnostic laboratory tests such as the PCR technique which allowed the detection of MTB.

## Conclusion

This study showed an improvement in the diagnosis and management of EPTB in children. However, the emergence of the HIV infection in our country and the widespread use of immunosuppressive drugs in pediatric population, suggest that the diagnosis of TB should be considered at the slightest sign in children. BCG vaccine is still recommended in areas with intermediate incidence of tuberculosis like Tunisia.

## References

- [1] Churchyard G, Kim P, Shah NS, Rustomjee R, Gandhi N, Mathema B et al. What We Know About Tuberculosis Transmission: an Overview. *J Infect Dis* 2017;03(216(suppl\_6)):S629-7.
- [2] WHO . Global tuberculosis report 2022 [Internet]. 2016. Available from : <https://www.who.int/teams/global-tuberculosis-programme/tb-reports/global-tuberculosis-report-2022>
- [3] Sousa GJB, Lourenço V de O, Mendes CC dos S, Vasconcelos MN de, Maranhão TA, Pereira MLD. Spatiotemporal pattern and factors related to childhood tuberculosis. *Rev Gaúcha Enferm* 2022;43:e20210270.
- [4] Rock RB, Olin M, Baker CA, Molitor TW, Peterson PK. Central Nervous System Tuberculosis: Pathogenesis and Clinical Aspects. *Clin Microbiol Rev* 2008;21(2):243-61.
- [5] Thwaites GE, van Toorn R, Schoeman J. Tuberculous meningitis: more questions, still too few answers. *Lancet Neurol* 2013;12(10):999-1010.
- [6] Harma SK, Mohan A, Sharma A, Mitra DK. Miliary tuberculosis: new insights into an old disease. *Lancet Infect Dis* 2005;5(7):415-30.
- [7] Tinsa F, Essaddam L, Fitouri Z, Nouira F, Douira W, Ben Becher S et al. Extra-pulmonary tuberculosis in children: a study of 41 cases. *Tunis Med* 2009;87(10):693-8.
- [8] Kaba Ö, Kara M, Odaçlar CA, Kamer I, Sutçu M, Demir SO et al. Evaluation of cases of pediatric extrapulmonary tuberculosis: a single center experience. *Turk Pediatri Ars* 2019; 54(2):86-92.
- [9] Santiago-García B, Blázquez-Gamero D, Baquero-Artigao F, Ruíz-Contreras J, Bellón JM, Muñoz-Fernández MA, et al. Pediatric Extrapulmonary Tuberculosis: Clinical Spectrum, Risk Factors and Diagnostic Challenges in a Low Prevalence Region. *Pediatr Infect Dis J* 2016;35(11):1175-81.
- [10] Ben Ayed H, Koubaa M, Gargouri L, Ben Jemaa M, Trigui M, Hammemi F, et al. Epidemiology and disease burden of tuberculosis in south of Tunisia over a 22-year period: Current trends and future projections. *PLoS One* 2019;14(7):e0212853.
- [11] Al-Hajj S, Shoukri M, Memish Z, AlHakeem R, AlRabiah F, Varghese B, et al. Exploring the Socio-demographic and Clinical Features of Extrapulmonary Tuberculosis in Saudi Arabia. *PLoS One* 2015;10(2):e0101667.
- [12] Ohene S-A, Bakker MI, Ojo J, Toonstra A, Awudi D, Klatser P. Extra-pulmonary tuberculosis: A retrospective study of patients in Accra, Ghana. *PLoS One* 2015;14(1): e0209650.
- [13] Martinez L, Cords O, Liu Q, Acuna-Villaorduna C, Bonnet M, Fox GJ, et al. Infant BCG vaccination and risk of pulmonary and extrapulmonary tuberculosis throughout the life course: a systematic review and individual participant data meta-analysis. *Lancet Glob Health* 2022;10(9):e1307-e1316.
- [14] Narasimhan P, Wood J, MacIntyre CR, Maithai D. Risk Factors for Tuberculosis. *Pulm Med* 2013;2013:828939.
- [15] Blount RJ, Tran B, Jarlsberg LG, Phan H, Hoang VT, Nguyen NV et al. Childhood tuberculosis in northern Viet Nam: a review of 103 cases. *PLoS One* 2014;9(5):e97267.
- [16] Hatwal D, Chaudhari S, Joshi A, Rathaur VK. Patterns of extrapulmonary tuberculosis in children: a hospital based study. *Ind J Com Heal* 2013;25(1):22-27.
- [17] Doležalová K, Kika V, Göpfertová D, Wallenfels J. Trends in incidence of extrapulmonary tuberculosis in children in the Czech Republic in the past 35 years. *Cent Eur J Public Health* 2022;30(4):207-12.
- [18] Delisle M, Seguin J, Zeilinski D, Moore DL. Pediatric abdominal tuberculosis in developed countries: case series and literature review. *Arch Dis Child* 2016;101(3):253-8.
- [19] Malik R, Srivastava A, Yachha SK, Poddar U, Lal R. Childhood abdominal tuberculosis: disease patterns, diagnosis, and drug resistance. *Indian J Gastroenterol* 2015;34(6):418-25.

- [ 20 ] Lal SB, Bolia R, Menon JV, Venkatesh V, Bhatia A, Vaiphei K, et al. Abdominal tuberculosis in children: A real world experience of 218 cases from an endemic region. *JGH Open* 2020;4(2):215–20.
- [ 21 ] Rytter MJH, Kolte L, Briend A, Friis H, Christensen VB. The Immune System in Children with Malnutrition A Systematic Review. *PLoS ONE* 2014;9(8):e105017.
- [ 22 ] Al-Zanbagi A, Shariff M. Gastrointestinal tuberculosis: A systematic review of epidemiology, presentation, diagnosis and treatment. *Saudi J Gastroenterol* 2021;27(5):261–74.
- [ 23 ] Abu-Zidan FM, Sheek-Hussein M. Diagnosis of abdominal tuberculosis: lessons learned over 30 years: pectoral assay. *World J Emerg Surg* 2019;14(1):33.
- [ 24 ] Chow KM, Chow VC, Szeto CC. Indication for peritoneal biopsy in tuberculous peritonitis. *Am J Surg* 2003;185(6):567–3.
- [ 25 ] Devrim I, Aktürk H, Bayram N, Apa H, Tulumoğlu S, Devrim F, et al. Differences between pediatric extrapulmonary and pulmonary tuberculosis: a warning sign for the future. *Mediterr J Hematol Infect Dis* 2014;6:e2014058.
- [ 26 ] González Saldaña N, Macías Parra M, Xochihua Díaz L, Palavicini Rueda M, Carmona Vargas AJ, Castillo Bejarano JI, et al. A 20-year retrospective study of osteoarticular tuberculosis in a pediatric third level referral center. *BMC Pulmonary Medicine* 2021;21(1).
- [ 27 ] Kenyon P, Chapman AL. Tuberculous vertebral osteomyelitis. Findings of a 10-year review of experience in a UK centre. *J Infect* 2009;59(5):372–3.
- [ 28 ] Weng CH, Chi CH, Shih P, Ho CM, Lin PC, Chou CH, et al. Spinal tuberculosis in non-HIV infected patients: a 10-year experience of a medical center in central Taiwan. *J Microbiol Immunol Infect* 2010;43(6):464–9.
- [ 29 ] Agashe VM, Johari AN, Shah M, Anjum R, Romano C, Drago L, et al. Diagnosis of Osteoarticular Tuberculosis: Perceptions, Protocols, Practices, and Priorities in the Endemic and Non-Endemic Areas of the World—A WAIOT View. *Microorganisms* 2020;8(9):1312.
- [ 30 ] Aulakh R, Chopra S. Pediatric tubercular meningitis: A review. *J Pediatr Neurosci* 2018;13(4):373–82.
- [ 31 ] Chang K, Lu W, Wang J, Zhang K, Jia S, Li F, et al. Rapid and effective diagnosis of tuberculosis and rifampicin resistance with Xpert MTB/RIF assay: a meta-analysis. *J Infect* 2012;64(6):580–8.
- [ 32 ] Tola D. Clinical profile of children treated for Tuberculous meningitis at St. Paul's and Yekatit 12 memorial hospitals in Addis Ababa: a three-year retrospective cross-sectional analysis. *Ethiop J Pediatr Child Health* 2018;13(1):22–33.
- [ 33 ] Abdella A, Deginet E, Weldegebreal F, Ketema I, Eshetu B, Desalew A. Tuberculous Meningitis in Children: Treatment Outcomes at Discharge and Its Associated Factors in Eastern Ethiopia: A Five Years Retrospective Study. *Infect Drug Resist* 2022;15:2743–51.

# Corps Étrangers Trachéo-Bronchiques et Stratégies de Prévention : une étude de 172 cas

Safi. F <sup>(1,4,5)</sup>, Dammak. A <sup>(2,4,5)</sup>, Zayeni. M <sup>(1,4,5)</sup>, Moalla. I <sup>(1,4,5)</sup>, Kharrat. I <sup>(3,4,5)</sup>, Sallemi. M <sup>(3,4,5)</sup>, Ben Othmen. H <sup>(6)</sup>, aBDELMAJID. M <sup>(1,4,5)</sup>

<sup>(1)</sup> Service de pédiatrie urgences et réanimation pédiatriques, CHU Hédi Chaker Sfax

<sup>(2)</sup> Service de chirurgie cardio-vasculaire et thoracique, CHU Habib Bourguiba, Sfax

<sup>(3)</sup> Service de chirurgie ORL, CHU Habib Bourguiba, Sfax

<sup>(4)</sup> Faculté de médecine de Sfax

<sup>(5)</sup> Université de Sfax

<sup>(6)</sup> Direction régionale de la santé

## ABSTRACT

L'inhalation de corps étrangers (CE) trachéo-bronchiques chez l'enfant est un accident à la fois fréquent et grave, pouvant engager le pronostic vital. Dans ce but, nous avons mené ce travail pour décrire le profil épidémiologique et clinique de l'inhalation des CE trachéo-bronchiques compliqués, déterminer les aspects thérapeutiques et évolutifs et établir des recommandations de prévention. Nous avons colligé 172 cas d'inhalation de CE. Les enfants âgés de 3 ans étaient les plus touchés. Le sexe ratio était de 2.12. 50% des patients ont consulté avant les 24 premières heures et presque 70% dans un délai de 72 heures. Le syndrome de pénétration était présent dans 97,7% des cas. La radiographie thoracique était normale dans 26% des cas. Un CE radio-opaque a été visualisé dans 3.5% des cas. La bronchoscopie rigide a été effectuée chez dans 86.6% des cas. Elle était blanche dans 49 cas (32.9%). L'extraction a été faite dans tous les cas sauf dans un cas ayant nécessité une extraction chirurgicale. Les CE étrangers organiques étaient les plus fréquents (91,5%) dominés par les cacahuètes. La localisation au niveau de l'arbre bronchique droit était la plus fréquente (57%). L'évolution était favorable chez 93% des patients. L'issue était fatale dans un cas suite à une hypoxie sévère.

**Mots clés :** inhalation, corps étranger, enfant

## Introduction

L'inhalation accidentelle de corps étranger (CE) au niveau trachéo bronchique constitue un accident domestique fréquent chez l'enfant, surtout dans la tranche d'âge de 1 à 3 ans. En France, on estime entre 500 et 600 admissions aux urgences pédiatriques par an, pour suspicion d'inhalation de CE (1). Cet incident peut engager le pronostic vital dans l'immédiat ou entraîner des complications et des séquelles à long terme en cas d'un retard de diagnostic d'où l'intérêt d'un diagnostic et d'une extraction précoces. Le syndrome de pénétration (SP) est l'élément clinique clé d'un diagnostic précoce, mais il peut passer inaperçu. Sa constatation doit conduire, dès que possible à la bronchoscopie qui est à la fois diagnostique et thérapeutique. Dans ce but, nous avons mené ce travail pour étudier l'inhalation de corps étrangers trachéo bronchiques. Nos objectifs étaient de :

- Décrire le profil épidémiologique, clinique et para-clinique de l'inhalation de corps étrangers trachéo bronchiques.
- Discuter les modalités de la prise en charge thérapeutique
- Etudier le profil évolutif de cet incident.

- Générer des recommandations pratiques pour la prévention

## Patients et méthodes

Nous avons colligé dans le service de pédiatrie urgences et réanimation pédiatriques du CHU Hédi Chaker de Sfax tous les cas de corps étrangers trachéo-bronchiques chez l'enfant sur une période de 7 ans allant du 1-1-2014 au 31-12-2020.

### 1.1. Critères d'inclusion

Nous avons inclus dans ce travail tous les enfants ayant un âge de moins de 14 ans admis dans le service de pédiatrie, urgences et réanimation pédiatriques pour inhalation de CE.

### 1.2. Critères d'exclusion

Ont été exclus de cette étude tous les patients ayant un dossier incomplet ou inexploitable. Nous avons recueilli les données cliniques et para cliniques à partir des dossiers médicaux.

## Résultats

Nous avons colligé 172 cas d'inhalation de CE tra-

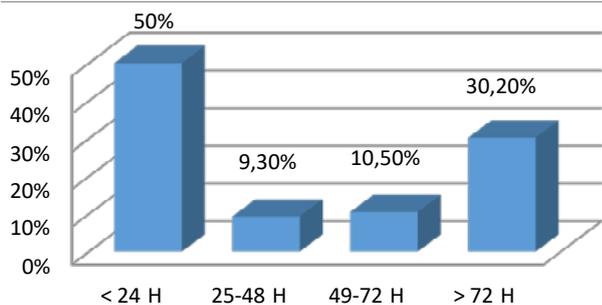
Corresponding author :

**Dr Rania Ben Rabeh :**

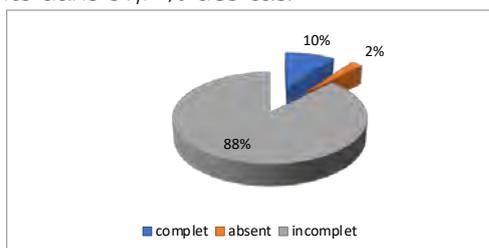
Tel: +216 52 85 70 24

E-mail: rania.benrabeh@fmt.utm.tn

chéo-bronchique. L'incidence était de 1 cas par 1000 admissions par an. Le nombre moyen de nouveaux cas par an est de 24,5 malades. Le sex ratio était de 2.12 avec une prédominance masculine. Les enfants âgés de moins de 3 ans étaient les plus exposés à l'accident d'inhalation de CE (88,4%). Une augmentation de la fréquence de l'accident d'inhalation de corps étranger était observée lors du week-end et surtout le samedi avec 22.8 % des cas. L'heure de l'incident n'était pas précisé dans 51 cas (29,7%). L'accident d'inhalation chez nos enfants survenait dans la plupart des cas lors de la soirée (41,3%). 50% ont consulté avant les 24 premières heures et presque 70% des cas dans un délai de 72 heures (1 heure, 2 mois).



**Figure 1 :** Répartition des cas d'inhalation de corps étranger selon le délai entre l'incident et la consultation. Le syndrome de pénétration était rapporté par les parents dans 97,7 % des cas.



**Figure 2 :** Répartition des malades selon le syndrome de pénétration

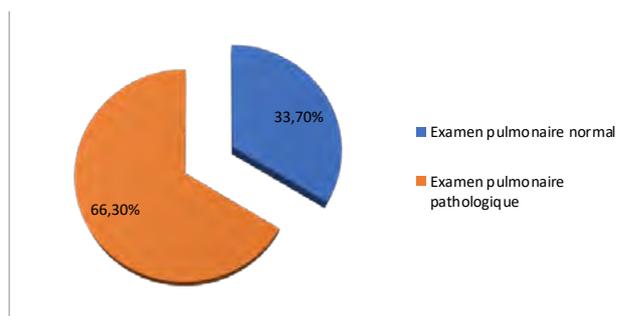
La dyspnée aiguë a été retrouvée dans 32% des cas, une toux chronique spasmodique dans 41,9% des cas. Un tableau de dyspnée trainante sifflante dans 10,5% des cas, une pneumopathie trainante dans 9% des cas et une apnée dans 0,6% des cas.

**Table 1 :** Répartition des malades selon les symptômes

Symptômes		Nombre	Pourcentage
Syndrome de pénétration	Accès de toux	147	85.5%
	Cyanose	92	53.4%
	Suffocation	39	22.6%
Syndrome de séjour	Toux spasmodique	72	41.9%
	Pneumonie récidivante	5	2.9%
	Asthme mal contrôlé	4	2.3%
	Bronchorrhée	2	1.2%
	Toux productive	9	5.2%
Dyspnée		55	32%
Fièvre		27	15.7%
Vomissement		20	11.6%
Sifflement		18	10.5%
Dyspnée laryngée		5	2.9%
Hypersialorrhée		4	2.3%

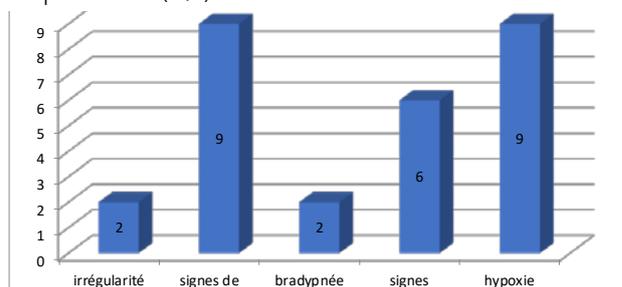
Hémoptysie	3	1.7%
Dysphonie	3	1.7%
Agitation	2	1.2%
Apnée	1	0.6%
Trouble de conscience	1	0.6%
Emphysème sous cutané	1	0.6%

Soixante-quatorze patients étaient polyéniques à l'admission (43%). La saturation à l'air ambiant était précisée chez 136 malades : 16.9 % cas présentaient une désaturation ( $SpO_2 < 94\%$ ). La dyspnée était expiratoire dans 22.1% des cas, inspiratoire dans 2.9% des cas, mixte dans 14.5% des cas et absente dans 59.9% de cas. Les signes de lutte respiratoires étaient dominés par le tirage sous costal (24.6%).



**Figure 3 :** Répartition des cas d'inhalation de corps étranger selon l'examen pulmonaires

Douze enfants ont présenté des signes de gravité respiratoire (7%).



**Figure 4 :** Répartition des signes de gravité respiratoire

Un seul patient a présenté une altération de l'état hémodynamique. Sept cas ont présenté des signes de gravité neurologique (sommolence, coma...).

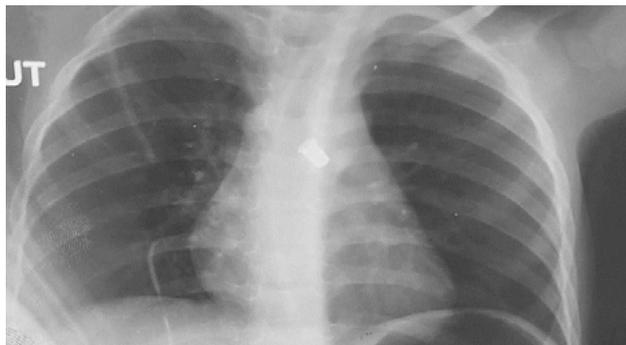
La radio thorax réalisée dans tous les cas était normale dans 26% des cas.



**Figure 5 :** Répartition des cas selon la radiographie de thorax

Un CE radio-opaque a été retrouvé chez 6 enfants soit 3.5% des cas avec une localisation droite dans 4 cas, gauche (1cas) et trachéale dans 1 cas. Une opacité alvéolaire a été retrouvée chez 28 enfants (16.5%) avec une localisation préférentielle dans l'hémi champs pulmonaire droit (58.6%). Le signe le plus fréquent était

l'emphysème dans 67 cas (39.4%). La radiographie était asymétrique dans 18,8 %. Nous avons diagnostiqué un pneumothorax chez un enfant et une pleurésie chez un autre.

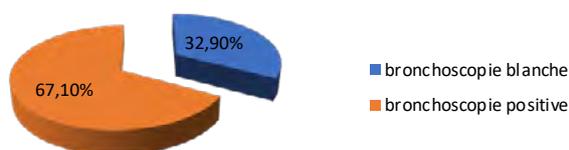


**Figure 6 :** Radiographie thoracique de face montrant une sifflette au niveau de la bronche souche gauche



**Figure 7 :** Radiographie thoracique de face montrant une épingle au niveau de la bronche souche droite

La tomodensitométrie thoracique a été réalisée chez 64 malades (37.2%) présentant un tableau clinique atypique ou des circonstances d'inhalation douteuses. Elle était normale dans 22 cas (34.4%). La bronchoscopie virtuelle était pratiquée chez 9 malades (5.2%), elle était normale dans tous les cas. Concernant la conduite à tenir avant la consultation, les parents ont essayé d'extraire le corps étranger en tapant sur le dos dans 7 cas mais ils ont échoué. L'élimination spontanée ou probable était retrouvée chez 9 cas (5.2%), quoique tous les enfants qui consulté pour suspicion d'inhalation de corps étranger ont été admis. A l'admission, un enfant a nécessité une intubation endo trachéale et une ventilation mécanique dès l'admission. Neufs malades (5.2%) ont été hospitalisés immédiatement en réanimation et ont nécessité un support ventilatoire. Neufs enfants (5.2%) étaient asymptomatiques et n'ont reçu aucun traitement. La bronchoscopie rigide a été faite dans 86.6% des cas. Elle était blanche dans 49 cas (32.9%).



**Figure 8 :** Résultat de la bronchoscopie. L'extraction a été faite dans tous les cas sauf dans un

cas ayant nécessité une extraction chirurgicale. Les corps étrangers organiques étaient les plus fréquents (91.5%). Ils étaient de type végétal dans 76.8% des cas ; les cacahuètes dans 19.8% des cas, les amandes 17.4 %, les glibettes 16.3 %, les pois chiches 5.8 % et les pistaches 0.6 %. La localisation au niveau de l'arbre bronchique droit était la plus fréquente (57%).

**Table 2 :** Localisation du corps étranger dans l'arbre respiratoire

Localisation	Nombre de cas	Pourcentage
Bronche souche droite	42	42%
Bronche souche gauche	34	34%
Bronche distale droite	13	13%
Trachée	5	5%
Bronche distale gauche	5	5%
Carène	1	1%

L'évolution était favorable chez 93% des patients. 6.3% de ces patients avaient présenté des complications à type de : suppuration chronique (2.3%), CE résiduel (2,3%), DDB (1,2%) et 1 cas d'encéphalopathie anoxo-ischémique. Chez ce dernier, l'issue était fatale suite à une hypoxie sévère.

## Discussion

L'inhalation des CE trachéo-bronchiques est un problème répandu, représentant une source majeure de maladies et de décès chez les enfants (1). Bien que de nombreuses études épidémiologiques aient été menées sur l'inhalation des CE chez l'enfant, il est souvent difficile de déterminer l'incidence réelle de cette maladie. L'inhalation de CE chez l'enfant est estimée à 29.9/100000 aux États-Unis (2). En Chine, au cours des 30 dernières années, 3028 cas ont été identifiés (3). Selon le rapport de la santé du gouvernement fédéral de l'Allemagne, il y avait environ 1400 cas d'inhalation par an (4). D'après Boufersaoui, le nombre de cas de CE des voies respiratoires est en constante augmentation depuis plus de 20 ans : 100 à 150 cas par an sont enregistrés en Algérie (5). Dans notre étude, le taux d'admission était de 1/1000 par an. Selon plusieurs recherches, il a été démontré que les garçons sont les plus affectés (6-9) avec une sex-ratio allant de 1,8 à 2,6. Dans notre étude, cela a été confirmé avec un sex-ratio de 2,12. La plupart des inhalations concernent les garçons pourraient être attribuées à leur impulsivité et à leurs jeux aventureux. L'hypothèse d'une maturité différente de la sensibilité du carrefour pharyngolaryngé entre les deux sexes au même âge est avancée par certains auteurs (10). Il convient de saisir que la préhension est développée vers l'âge de 6 mois, ce qui explique la tendance à porter divers objets et aliments à la bouche afin de découvrir le monde qui l'entoure. La capacité cognitive de l'enfant à distinguer les aliments comestibles des objets non comestibles n'est pas encore développée. Les éléments qui contribuent aux accidents d'inhalation chez les enfants de bas âge sont donc (11) :

- L'insuffisance de la capacité de protection des voies aériennes supérieures,
- La baisse des aptitudes à mâcher (absence de molaires).
- Les activités comme jouer, courir, verser des larmes

ou rire, tout en tenant différents objets ou de la nourriture dans les mains. La plupart des séries mentionnées dans les études indiquent que les enfants de moins de 3 ans sont les plus vulnérables aux accidents d'inhalation de CE, avec une incidence supérieure à 60% (12,13). Notre étude confirme ces résultats avec 88,4 % des enfants âgés de moins de 3 ans. D'un point de vue clinique, la durée de la consultation peut fluctuer entre moins d'une heure et plusieurs mois, principalement lorsque l'histoire d'un syndrome de pénétration est absente. Selon Eren, 77,2 % des situations avaient consulté dans les 24 premières heures qui ont suivi l'accident d'inhalation (14). D'après Amer et ses collègues (13), 59,2% des patients ont fait une consultation pendant les 24 premières heures, avec des variations allant de 2 heures à 5 mois. Dans la recherche d'Abdala. Seulement 26 patients (29,9 %) ont fait une consultation dans les 24 heures qui ont suivi l'accident. Le délai oscillait entre 30 minutes et 2 ans. Dans notre série, près de la moitié ont été observés avant 24 heures. Environ 70% des situations ont été traitées dans un délai de 72 heures. Les pics étaient compris entre 1 heure et 2 mois. La quasi-totalité des patients qui ont consulté après 72 heures ont déjà consulté au moins une fois auparavant et ont reçu un traitement en ambulatoire pour une infection broncho-pulmonaire. Le type, la localisation et la taille du corps étranger, ainsi que la durée et le degré d'obstruction, influencent les signes cliniques. Lorsqu'un CE pénètre accidentellement dans la filière laryngo-trachéale, il y a une sensation de bruit respiratoire accompagnée d'un accès de suffocation plus ou moins accompagné d'une cyanose, suivi d'une toux quinteuse qui traduit le syndrome de pénétration (15). Il joue un rôle essentiel dans le diagnostic d'inhalation du CE, mais il peut être négligé, négligé ou perdu. Il est important de le chercher lors de l'interrogatoire. L'absence à l'interrogatoire ne remet jamais en question le diagnostic de CE et nécessite un examen clinique approfondi ainsi que des examens supplémentaires. Dans notre étude, les parents ont signalé le syndrome de pénétration dans 97,7 % des cas. Ce signe est observé à une fréquence de 59 à 99 % dans la recherche (10). En l'absence de syndrome de pénétration, plusieurs tableaux cliniques peuvent conduire au diagnostic : dyspnée aiguë (75% à 85%), asphyxie aiguë, toux chronique spasmodique (59 à 98%), pneumopathie trainante (3,6 à 48%) (10). Dans notre étude, on a observé une dyspnée aiguë dans 32 % des cas, une toux chronique spasmodique dans 41,9% des cas, un tableau de dyspnée trainante sifflante dans 10,5 % des cas, une pneumopathie trainante dans 2,9 % des cas et une apnée dans 0,6 % des cas. En règle générale, l'examen physique de ces enfants est médiocre et même en présence de signes généraux ou pleuropulmonaires, ils sont peu sensibles et peu spécifiques, surtout en l'absence d'une histoire clinique favorable à l'inhalation de CE. Dans notre étude, 58 cas (33,7%) présentaient une évaluation physique normale. Selon les séries, cette valeur varie de 21 % à 63 % (9,16,17). Dans notre série, la polypnée était le symptôme le plus courant chez 43 % des patients. Selon Kazza(16) et Sahin et al (16), une polypnée a été rapportée dans 28 % et 29 % des cas respectivement. Dans notre étude, nous avons observé que 29,7% des patients présentaient des râles ronflants, 26,7% des

patients présentaient des sibilants et 2,9 % des patients présentaient des crépitaux. On a observé une réduction du murmure vésiculaire dans 9,4% des situations. Selon Rizk et Rassi, les murmures vésiculaires ont diminué de 37,7 %, tandis que les râles sibilants (36,7 %) et ronflants ont diminué de 17 % (26). Selon Mnejja et ses collègues, 61,4 % des patients présentaient des râles, tandis que 8,1 % ressentait une diminution des murmures vésiculaires (32). L'imagerie est essentielle pour évaluer et suivre une éventuelle inhalation de CE. Toutefois, l'utilité de la radiographie thoracique pour établir un diagnostic demeure débattue. Dans 12% (18) à 32% (15) des cas, elle ne présente aucune anomalie. Cependant, elle peut révéler des symptômes indirects d'obstruction bronchique. L'emphysème est le signe indirect le plus courant à la phase aiguë, observé dans 17 à 69% des cas. Plus rarement, un pneumothorax ou un pneumomédiastin est observé (19). Dans notre étude, elle était démonstrative dans 26% des situations. L'emphysème était le signe le plus courant dans 67 cas (39,4 %). Un pneumothorax chez un enfant, un pneumomédiastin chez un autre et une pleurésie chez un autre ont été observés dans 16,5% des cas. Il est toujours important de se rappeler que ces symptômes ne sont pas pathognomoniques et que la radiographie pulmonaire seule n'est ni une méthode sensible ni suffisamment précise. Une radiographie pulmonaire normale ne doit jamais retarder une bronchoscopie si l'interrogatoire et l'examen clinique indiquent une inhalation de CE (8). On peut parfois utiliser la tomodensitométrie en dehors de l'urgence et lorsque le syndrome de pénétration est suspect. D'après diverses recherches, l'examen serait sensible à 100 % pour détecter les CE trachéo-bronchiques et sa spécificité se situerait entre 66,7 et 100 % (20). En outre, le scanner pourrait diminuer la durée de l'opération de la bronchoscopie rigide en fournissant au chirurgien des informations précises sur la localisation et la taille du CE. Dans le cas de, CE anciens et négligés cet examen est également très intéressant pour étudier les lésions pulmonaires associées (emphysème, atélectasie, pneumothorax, bronchectasies) (19). Grâce à l'introduction du scanner multibarrettes avec reconstructions 3D, la vitesse d'acquisition et la qualité des images ont été améliorées, ce qui a permis de réaliser une trachéobronchoscopie virtuelle qui offre de nouvelles perspectives pour la prise en charge des troubles bronchiques chez l'enfant, en remplaçant la fibroscopie bronchique dans les cas douteux. Cet examen peut être effectué sans sédation chez l'enfant, sa durée étant de quelques secondes, à condition que le patient soit bien coopérant (21). À l'heure actuelle, il n'existe pas de consensus quant aux indications de réalisation de TDM thoracique pour l'inhalation de CE, mais certains auteurs ont mentionné les indications suivantes (22) :

- Face à une histoire d'inhalation clairement identifiée, accompagnée d'un examen clinique et d'une radiographie thoracique normale.
- Face à un foyer pulmonaire persistant localisé d'origine inconnue.
- Pour évaluer les lésions du parenchyme pulmonaire lors d'un ancien CE.
- Afin de mieux repérer un CE (pointu, tranchant...) susceptible de se déplacer vers les organes de voisinage.

Pour l'extraction d'un CE chez l'enfant, la méthode de référence est la bronchoscopie rigide sous anesthésie générale. Cependant, cette méthode est fréquemment abusée dans des fins à la fois diagnostiques et thérapeutiques, ce qui entraîne un taux de bronchoscopies blanches allant de 10 à 61 % selon les équipes (19). Dans notre étude, 86,6% des cas ont été soumis à une bronchoscopie, qui a été réalisée avec un tube rigide dans tous les cas. Dans 49 cas (32,9%), la bronchoscopie était blanche, ce qui est en accord avec les études précédentes. La bronchoscopie ne présente pas de dangers. La plupart des complications sont des désaturations temporaires, des saignements légers, une bradycardie, un laryngospasme et un bronchospasme mineurs. Il est possible de rencontrer des accidents graves tels que la lacération trachéale, la rupture bronchique, le pneumothorax, la paralysie des cordes vocales et l'arrêt cardio-respiratoire, mais ils sont rares. Dans leur étude prospective sur 505 enfants qui ont subi une bronchoscopie rigide sous anesthésie générale, Zhang et ses collègues ont signalé un taux de complications respiratoires d'environ 9,5 %. La majorité (81,3 %) étaient des complications mineures telles que des laryngospasmes mineurs (60,4 %), des désaturations mineures (18,8 %) et des saignements (2,1%). Les complications majeures étaient présentes dans 18,7 % des cas : laryngospasmes complets (10,4 %), pneumothorax (8,3 %) (23). Dans notre étude, des incidents par endoscopique ont été observés chez 5,4 % des patients. Ils se présentaient de la manière suivante : 4 cas de désaturation, 1 cas de bradycardie temporaire, 2 patients qui ont été intubés et ventilés à la fin de l'intervention chirurgicale, et un patient a présenté une lacération trachéale. La bronchoscopie souple a acquis une valeur inestimable en tant qu'outil diagnostique et thérapeutique, offrant de nombreux avantages par rapport au bronchoscope rigide. Elle offre une approche moins invasive, peut être employée sous anesthésie locale, permet une meilleure représentation des voies aériennes distales et permet une évaluation dynamique tout au long du cycle respiratoire. Les utilisations thérapeutiques sont en constante augmentation (15). Toutefois, elle n'est pas accessible à notre CHU. Si chez les adultes, les CE se trouvent généralement à droite en raison de l'anatomie des angles trachéo bronchiques droit et gauche, chez les enfants, la préférence de localisation des CE est controversée. Certaines études indiquent une fréquence plus élevée de CE soit dans la bronche droite (25-27) ou à gauche (28,29), tandis que d'autres ont constaté une distribution à peu près équitable (30). La localisation au niveau de l'arbre bronchique droit était la plus courante dans notre série (57 %). Selon leur nature, les CE sont classés en deux groupes : les CE organiques et les CE non organiques. L'incidence de ces phénomènes varie en fonction des éléments géographiques, économiques et socioculturels de la population étudiée. En Tunisie, Mnejja et ses collègues ont découvert 77,1 % des cas de CE de nature végétale, avec les cacahuètes, les grains de tournesol et les amandes représentant respectivement 21,1 %, 19,6 % et 10,9 % des cas (7). Les corps étrangers organiques étaient les plus courants dans notre étude (91,5%). Dans 76,8 % des cas, ils étaient de nature végétale ; dans 19,8 % des cas, ils étaient de type cacahuète, 17,4 % d'amande, 16,3 % de grains de tournesol, 5,8 % de pois chiche et 0,6 % de pistache.

En Algérie, sur une série de 2624 cas, 66,7% des cas étaient composés de CE organiques, avec une prédominance des cacahuètes (63,9%) (5). À Dubai, les produits alimentaires représentaient 75,5 % des produits, avec la plupart des pépins de melon cultivés tout au long de l'année (31). Selon une étude indienne parue en 2019, 54 % des CE étaient de nature végétale, avec une prédominance de la graine de tamarin (36 %), de l'arachide (21 %) et de la noix de bétel (7 %) (32). Les épingles de foulards étaient les plus courantes parmi tous les produits non organiques dans les pays arabo-musulmans, représentant 25% en Algérie (14). En outre, elles constituaient 60,4% de l'ensemble des cas en Turquie (15). En revanche, le Liban a enregistré un taux d'inhalation d'épingles trop faible (trois cas sur 106). Dans notre série, nous n'avons trouvé l'épingle que chez 3 enfants. En général, l'évolution à long terme est favorable ; l'élimination du corps étranger favorise une remise en état de la muqueuse bronchique et du parenchyme pulmonaire (33). Toutefois, il est possible de rencontrer des conséquences à long terme. Le profil évolutif des enfants après l'extraction du CE est influencé par plusieurs facteurs prédictifs, tels que la nature organique du CE, la localisation gauche et le site de rétention endo bronchique. Le délai d'extraction long semble être le facteur de risque le plus important (34). Les séquelles sont recherchées par clinique, radiographie et scintigraphie. La complication la plus grave mentionnée est la dilatation des bronches, et selon certains auteurs, 20% des dilatations des bronches dont l'origine n'est pas identifiée sont due à des causes secondaires à un corps étrangers dans la trachée et la bronche (10). Les sténoses bronchiques, qui entraînent des problèmes de ventilation plus ou moins importants et des hypoplasies d'un territoire pulmonaire, sont décrites dans la littérature. L'examen privilégié pour détecter ces séquelles est la scintigraphie pulmonaire de ventilation et de perfusion, qui permet de repérer les perturbations fonctionnelles mêmes minimales, qui ne se manifestent ni cliniquement ni radiologiquement. L'étude d'Abdala a montré une évolution positive dans 85% des cas, avec des séquelles telles que le granulome bronchique (7 %), les bronchectasies localisées (5 %) et l'atélectasie (2 cas). Dans notre étude, 93% des patients présentaient une évolution positive. Dans 6,3% de ces patients, des complications telles que la suppuration chronique (2,3%), le CE résiduel (1,2%), le DDB (1,2%) et un cas d'encéphalopathie anoxo-ischimique avaient été observés. Le CE est la cause principale de décès accidentels chez les enfants de moins de 1 an et 7 % des décès chez les enfants de moins de 4 ans. Le taux de décès oscillait entre 0% et 11% en fonction des séries (35). L'inhalation de CE chez l'enfant était la cinquième cause de décès accidentel chez l'enfant aux États-Unis (36). Environ 1000 enfants meurent chaque année en Australie à la suite de l'inhalation de corps étranger et 80 % des décès accidentels chez les enfants de moins d'un an sont causés par l'inhalation de CE (15). Dans la population pédiatrique présentant des antécédents de maladies neurologiques, cardiaques et pulmonaires, le taux de mortalité est nettement plus élevé. Dans notre série, un seul cas a été fatal en raison d'une hypoxie sévère (0,6%). L'importance de la prévention est cruciale pour réduire les accidents d'inhalation de CE chez les en-

fants. Ainsi, il est nécessaire de mettre en place des mesures de prévention primaire et secondaire.

-Prévention initiale

La population générale, les parents, les gardes d'enfants et toute personne en contact avec les enfants doivent être informés de l'importance du problème et de la manière de le prévenir.

Quant aux aliments, il est nécessaire de :

- Ne pas consommer d'aliments susceptibles d'étouffer les enfants de moins de 3 ans. Les cacahuètes, les noix et d'autres : pop-corn, amandes, graines de tournesol, maïs, etc.

- Il est préférable d'éviter les aliments durs, comme les bonbons et autres sucreries, dans cette tranche d'âge, car ils pourraient présenter un danger particulier.

- Il est déconseillé de provoquer des rires, des larmes ou des surprises chez les jeunes enfants pendant leur repas.

- Instruire les enfants à mâcher de manière lente et adéquate.

- Observer les enfants pendant leur repas.

Quant aux jouets et autres objets, il est nécessaire de :

- Souligner l'importance de prendre en considération les étiquettes d'avertissement présentes sur les jouets et autres produits que les enfants peuvent avoir à leur disposition.

- Observer attentivement les indications d'âge affichées sur l'emballage des jouets.

- Prévenir l'utilisation d'objets de petite taille (boutons, vis, jetons de jeu, etc.) ou dont les pièces sont facilement détachables par les enfants.

- Il est recommandé aux enfants plus âgés d'éviter de donner aux frères et sœurs plus jeunes les jouets contenant de petites pièces.

- Noter que tout jouet endommagé doit être abandonné.

- Suggester d'examiner les sols et les zones basses afin de repérer la présence d'éventuels petits objets, tels que des boutons, des billes, des pièces de monnaie, des épingles, des cailloux ou des vis, des objets démontables facilement.

- Observer les enfants tout au long du jeu.

-La mesure de prévention :

Les parents, les gardes d'enfants et le personnel en contact avec les enfants doivent être éduqués sur les mesures et les différentes manœuvres à adopter en cas d'inhalation de corps étranger. Il est important de mentionner le diagnostic d'inhalation de corps étranger par les médecins lorsqu'un enfant est brusquement asphyxié sans avoir de pathologie respiratoire connue, un syndrome d'inhalation courant rapporté par les parents ou l'entourage, même après une radiographie thoracique normale, ou une toux chronique ou une pneumopathie prolongée malgré une antibiothérapie appropriée. Il est essentiel de fournir une formation adéquate aux médecins sur les mesures d'urgence à prendre en cas d'obstruction des voies aériennes par un CE. D'un point de vue législatif, il est nécessaire de mettre en place des réglementations sur la circulation et la vente des jouets.

## Conclusion

La gestion de l'inhalation des CE nécessite une collaboration multidisciplinaire (médecin généraliste, pédiatre, pneumologue, radiologue, chirurgien ORL et anesthésiste) pour établir un diagnostic précoce

et fournir un traitement précoce afin de prévenir les éventuelles complications, qui peuvent être fatales. L'intérêt de la prévention primaire est toujours de réduire les accidents d'inhalation de corps étranger. Elle dépend de la vigilance et de l'éducation des parents, de la mise en place de réglementations sur la circulation et la vente des jouets pour les enfants et de la surveillance de leur mise en place.

## Bibliographie

- [1] Fidkowski CW, Zheng H, Firth PG. The anesthetic considerations of tracheobronchial foreign bodies in children: A literature review of 12,979 cases. *Anesth Analg*. 2010;111(4):1016–25.
- [2] Kaushal P, Brown DJ, Lander L, Brietzke S, Shah RK. Aspirated foreign bodies in pediatric patients, 1968–2010: A comparison between the United States and other countries. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* [Internet]. 2011;75(10):1322–6. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2011.07.027>
- [3] Zang CS, Sun J, Huang HT, Sun Y, Qiu J, Jiang Y, et al. Inhaled foreign bodies in pediatric patients: A review and analysis of 3028 cases. *Int J Clin Exp Pathol*. 2017;10(1):97–104.
- [4] Schramm D, Ling K, Schuster A, Nicolai T. Foreign body removal in children: Recommendations versus real life—A survey of current clinical management in Germany. *Pediatr Pulmonol*. 2017;52(5):656–61.
- [5] Boufersaoui A, Smati L, Benhalla KN, Boukari R, Smail S, Anik K, et al. Foreign body aspiration in children: Experience from 2624 patients. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* [Internet]. 2013;77(10):1683–8. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2013.07.026>
- [6] Schmidt H, Manegold BC. Foreign body aspiration in children. *Surg Endosc*. 2000;14(7):644–8.
- [7] Mnejja M, Chakroun A, Bougacha L, Smaoui L, Ben Salah M, Chakroun A, et al. Bronchoscopie pour inhalation de corps étrangers chez l'enfant : À propos de 223 cas. *Arch Pediatr*. 2012;19(6):670–4.
- [8] Doğan M, Esen F, Doğan Y, Öztürk S, Demir ÖF, Öztürk MA. Tracheobronchial foreign body aspiration in childhood. *Med J Bakirkoy*. 2019;15(2):126–30.
- [9] Rizk H, Rassi S. Inhalation de corps étranger dans la population pédiatrique: Expérience à propos de 106 cas. *Ann Fr d'Oto-Rhino-Laryngologie Pathol Cervico-Faciale*. 2011;128(4):207–12.
- [10] Saadoun PB. Le corps étranger laryngo-trachéo-bronchique chez l'enfant : facteurs prédictifs des séquelles respiratoires. 2010;330–4.
- [11] Rodríguez H, Passali GC, Gregori D, Chinski A, Tiscornia C, Botto H, et al. Management of foreign bodies in the airway and oesophagus. *Int*

- J Pediatr Otorhinolaryngol. 2012;76(SUPPL. 1):84–91.
- [12] Sink JR, Kitsko DJ, Georg MW, Winger DG, Simons JP. Predictors of foreign body aspiration in children. *Otolaryngol - Head Neck Surg (United States)*. 2016;155(3):501–7.
- [13] Amer HS, El MWA, Raafat A, Al MS, Sobhy E, Ahmed SA, et al. Laryngo-tracheo-bronchial foreign bodies in children: Clinical presentations and complications. *Iran J Otorhinolaryngol*. 2017;29(3):155–9.
- [14] Eren Ş, Balci AE, Dikici B, Doblán M, Eren MN. Foreign body aspiration in children: Experience of 1160 cases. *Ann Trop Paediatr*. 2003;23(1):31–7.
- [15] Raji A, Bourrous M, Hachimi A. Corps étrangers des voies aériennes Expérience du Service des Urgences Pédiatriques . 2017;
- [16] Nouri H, Bourrous M, Rada N. inhalations de corps étranger de l' enfant aux urgences pédiatriques : à propos de 171 cas. 2020;
- [17] Ech-Charii N, Benbrahim G, Amenzoui N, Adnane F, Najib J. P-170 – L'inhalation accidentelle d'un corps étranger trachéobronchique chez l'enfant: À propos de 266 cas. *Arch Pédiatrie*. 2015;22(5):275–6.
- [18] Righini CA, Morel N, Karkas A, Reyt E, Ferretti K, Pin I, et al. What is the diagnostic value of flexible bronchoscopy in the initial investigation of children with suspected foreign body aspiration? *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2007;71(9):1383–90.
- [19] Hitter A, Hullo E, Durand C, Righini CA. Role of paraclinical examinations in the initial management of bronchial foreign bodies in children. *Ann Fr d'Oto-Rhino-Laryngologie Pathol Cervico-Faciale [Internet]*. 2011;128(5):292–7. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.aforl.2011.05.002>
- [20] Cevizci N, Dokucu AI, Baskin D, Karadağ ÇA, Sever N, Yalçın M, et al. Virtual bronchoscopy as a dynamic modality in the diagnosis and treatment of suspected foreign body aspiration (Retraction in: *European Journal of Pediatric Surgery (2009) 19:6 (398)*). *Eur J Pediatr Surg*. 2008;18(6):398–401.
- [21] Lee EY, Greenberg SB, Boiselle PM. Multidetector Computed Tomography of Pediatric Large Airway Diseases: State-of-the-Art. *Radiol Clin North Am [Internet]*. 2011;49(5):869–93. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.rcl.2011.06.006>
- [22] Abd-ElGawad EA, Ibrahim MA, Mubarak YS. Tracheobronchial foreign body aspiration in infants & children: Diagnostic utility of multidetector CT with emphasis on virtual bronchoscopy. *Egypt J Radiol Nucl Med [Internet]*. 2014;45(4):1141–6. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ejrn.2014.07.003>
- [23] Zhang X, Li W, Chen Y. Postoperative adverse respiratory events in preschool patients with inhaled foreign bodies: An analysis of 505 cases. *Paediatr Anaesth*. 2011;21(10):1003–8.
- [24] Martinet A. Indications for flexible versus rigid bronchoscopy in children with suspected foreign-body aspiration. *Respir Care*. 1997;42(12):1152–4.
- [25] Shivakumar AM, Naik AS, Prashanth KB, Yogesh BS, Shetty DK. Unusual Tracheobronchial Foreign Bodies. *Indian J Pediatr*. 2004;71(4):373–4.
- [26] Latifi X, Mustafa A, Hysenaj Q. Rigid tracheobronchoscopy in the management of airway foreign bodies: 10 years experience in Kosovo. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2006;70(12):2055–9.
- [27] Haddadi S, Marzban S, Nemati S, Ranjbar Kiakelayeh S, Parvizi A, Heidarzadeh A. Tracheobronchial Foreign-Bodies in Children; A 7 Year Retrospective Study. *Iran J Otorhinolaryngol [Internet]*. 2015;27(82):377–85. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/26568942> <http://www.pu-medcentral.nih.gov/article-render.fcgi?artid=PMC4639691>
- [28] Korlacki W, Korecka K, Dzielicki J. Foreign body aspiration in children: Diagnostic and therapeutic role of bronchoscopy. *Pediatr Surg Int*. 2011;27(8):833–7.
- [29] Saquib Mallick M, Rauf Khan A, Al-Bassam A. Late presentation of tracheobronchial foreign body aspiration in children. *J Trop Pediatr*. 2005;51(3):145–8.
- [30] kif.pdf.
- [31] Al-Hllou R. Inhalation of foreign bodies by children: Review of experience with 74 cases from Dubai. *J Laryngol Otol*. 1991;105(6):466–70.
- [32] Mahajan R, V. P. A retrospective review of complicated foreign bodies of upper aerodigestive tract. *Int J Otorhinolaryngol Head Neck Surg*. 2019;5(3):734.
- [33] Wroblewski I, Pin I. Que deviennent les enfants ayant présenté un corps étranger bronchique? *Ann Fr Anesth Reanim*. 2003;22(7):668–70.
- [34] Adeyemo AO, Bankole MA. Foreign bodies in the tracheobronchial tree: Management and complications. *J Natl Med Assoc*. 1986;78(6):511–6.
- [35] Brkic F, Umihanic S, Altumbabic H, Ramas A, Salkic A, Umihanic S, et al. Death as a Consequence of Foreign Body Aspiration in Children. *Med Arch (Sarajevo, Bosnia Herzegovina)*. 2018;72(3):220–3.
- [36] Safari M, Manesh MRH. Demographic and clinical findings in children undergoing bronchoscopy for foreign body aspiration. *Ochsner J*. 2016;16(2):120–4.

# Syndrome de Stevens–Johnson : une manifestation inhabituelle du Mycoplasme Pneumoniae

## Stevens–Johnson syndrome: an unusual expression of Mycoplasma Pneumoniae

Hamouda. S <sup>(1)</sup>, Saidi. M <sup>(1)</sup>, Trabelsi. I <sup>(1)</sup>, Kbaier. S <sup>(1)</sup>, Garai. S <sup>(1)</sup>, Litaïem. N <sup>(1)</sup>,  
Bel Hadj. I <sup>(1)</sup>, Boussetta. K <sup>(1)</sup>

<sup>(1)</sup> Service de Médecine Infantile B, Hôpital d'enfants Béchir Hamza, Tunis, Tunisie

### RÉSUMÉ

Le syndrome de Stevens–Johnson (SJS), une toxidermie cutanée rare et grave, est caractérisé par la destruction de l'épiderme inférieur et des muqueuses. Il est souvent d'origine médicamenteuse et plus rarement d'origine infectieuse. Nous rapportons l'observation d'un garçon, âgé de 4 ans, sans antécédents pathologiques particuliers, admis pour des lésions cutanéomuqueuses étendues à tout le corps. Ces lésions étaient précédées par une toux et rhinorrhée trois jours auparavant. Aucune prise médicamenteuse n'a été rapportée. L'examen physique a trouvé un aspect évocateur d'un SSJ sévère avec une atteinte ophtalmique à type d'ulcères cornéens et conjonctivaux. Le reste de l'examen, notamment pulmonaire, était normal. À la biologie, une anémie normochrome normocytaire régénérative et un syndrome inflammatoire biologique ont été trouvés. La sérologie mycoplasmaïque a confirmé une primo-infection à Mycoplasme Pneumoniae (MP). La radiographie du thorax était normale. Ainsi, le diagnostic de SJS d'origine infectieuse à MP a été retenu. Le traitement comprenait des soins locaux et un macrolide avec une évolution favorable au bout de 15 jours.

**Mots clés:** syndrome de Stevens–Johnson, Mycoplasme Pneumoniae, enfant.

### ABSTRACT

Stevens–Johnson syndrome (SJS), a rare and serious skin condition, is characterized by destruction of the lower epidermis and mucous membranes. It is often of medicinal origin and rarely of infectious origin. We report the case of a boy, aged 4, with no history, presented with cutaneous–mucosal lesions extended to the entire body. These lesions were preceded by cough and rhinorrhea three days ago. No medication was administered. Physical examination revealed cutaneous–mucosal lesions suggestive of severe SJS associated with ophthalmic abnormalities consisting in corneal and conjunctival ulcers. No other abnormality, especially respiratory, was reported. On biology, a normochromic normocytic regenerative anemia and a biological inflammatory syndrome were found. Mycoplasma serology confirmed a primary infection with Mycoplasma Pneumoniae (MP). Chest x-ray was normal. Thus, the diagnosis of SJS of infectious origin due to MP was established. Treatment included local care and a macrolide with a favourable outcome after 15 days.

**Keywords:** Stevens–Johnson syndrome, Mycoplasma Pneumoniae, child.

### Introduction

Le syndrome de Stevens–Johnson (SSJ) est une toxidermie cutanée rare qui fait partie des nécrolyses épidermiques toxiques et est caractérisée par la destruction de l'épiderme inférieur et des muqueuses [1]. C'est une urgence diagnostique et thérapeutique avec un taux de mortalité estimé à 7,5% chez l'enfant et à 20% chez l'adulte [2]. Ce syndrome est souvent d'origine médicamenteuse. Les médicaments les plus incriminés sont les sulfamides, les anti-inflammatoires non stéroïdiens

et les anti-comitiaux [3]. Plus rarement, il est dû à une infection bactérienne ou virale [4]. Nous rapportons un cas de SSJ secondaire à une infection à Mycoplasme Pneumoniae (MP).

### Observation

Un garçon, âgé de quatre ans, sans antécédents pathologiques particuliers, était adressé pour des lésions cutanéomuqueuses étendues à tout le corps. Trois jours auparavant, il présentait une toux avec rhinorrhée claire. Les premières lésions cuta-

Corresponding author :

**Dr Hamouda Samia :** Service de Médecine Infantile B, Hôpital d'enfants Béchir Hamza, Tunis, Tunisie

nées étaient à type d'éruption maculo-papuleuse prurigineuse au dos. Devant leur extension rapide au bout de 24 heures et leur aggravation, le patient a été hospitalisé. Aucune prise médicamenteuse n'a été rapportée. L'examen physique a trouvé un patient eutrophique, fébrile à 39°C, et asymptomatique sur le plan respiratoire. L'examen cutané a objectivé un érythème bulleux diffus avec un décollement par endroit. Les lésions siégeaient au niveau du tronc, du visage, des paumes des mains, des plantes des pieds, et des organes génitaux externes (Figure 1). Le cuir chevelu était épargné. Absence de lésions en cocarde par ailleurs. L'atteinte muqueuse était profuse associant érosions et impétiginisation douloureuses des lèvres, stomatite érosive et ulcérations du gland (Figure 1).



**Figure 1:** Lésions cutanées faites d'érythème bulleux associées à un décollement et une atteinte des muqueuses

Un œdème palpébral important était trouvé. L'examen ophtalmologique a révélé la présence d'ulcères cornéens et conjonctivaux bilatéraux et un syndrome sec sévère. Le reste de l'examen physique était normal.

La biologie a mis en évidence une anémie normochrome normocytaire régénérative à 10g/dl et un syndrome inflammatoire biologique avec une C-réactive protéine à 278mg/l et une procalcitonine à 25ng/ml. La sérologie mycoplasme par la technique ELISA était positive avec une augmentation des concentrations des anticorps spécifiques de type IgM à 1,94 et une négativité des anticorps de type IgG (taux à 0,63), témoignant de la primo-infection à MP. La radiographie du thorax était normale. Le diagnostic d'un SJS secondaire à une primo-infection à MP a été retenu. Le traitement reposait sur des soins locaux de la peau et des muqueuses par des dermocorticoïdes, clarithromycine, nutrition parentérale jusqu'à l'amélioration des lésions buccales, et des antalgiques. L'évolution était favorable avec une restitution ad integrum des lésions cutanées au bout de 15 jours, et des lésions muqueuses en 28 jours (Figure 2).



**Figure 2:** Amélioration des lésions cutanées sous traitement

## Discussion

Notre observation souligne l'importance de chercher une cause infectieuse devant un SSJ et ne pas se limiter aux causes médicamenteuses étant donnée leur fréquence. D'autres germes en dehors du MP peuvent également induire un SSJ tels que le virus Herpès simplex (HSV), [5] et la Covid-19 [6]. La vaccination contre la Covid-19 est également pourvoyeuse de SSJ. La distinction entre une atteinte par HSV ou MP peut s'avérer difficile [7]. Dans notre cas, la sérologie a confirmé l'incrimination du MP. Une primo-infection à MP est rarement révélée par un SSJ. En effet, les principales manifestations du MP sont d'ordre respiratoire à type de bronchopneumopathie, pneumonie lobaire, crise d'asthme et Pertussis-like syndrome. Une association entre atteinte respiratoire et cutanée été retrouvée dans 36% des cas dans une large série récente chinoise groupant 5324 patients [8]. La physiopathologie actuelle décrit une réaction d'hypersensibilité retardée impliquant notamment des lymphocytes cytotoxiques. Sur le plan histologique, on observe une nécrose de toute l'épaisseur de l'épiderme. Cette nécrose étendue correspond au syndrome aigu de pan-apoptose épidermique ou « ASAP » en anglais (« acute syndrome of apoptotic pan-epidermolysis ») typique de la nécrolyse épidermique mais également trouvé dans d'autres processus lésionnels [9]. Dans une revue récente de la littérature, les patients atteints d'infection à MP avec atteinte cutanée [10], avaient un âge moyen égal à 11,9 +/- 8,8 ans. Ils étaient dans les deux tiers des cas de sexe masculin. Des prodromes à type de toux, malaise et fièvre précédaient l'éruption cutanée de 8 +/- 5 jours en moyenne. Ces données sont compatibles avec notre observation. Une symptomatologie respiratoire avait précédé l'atteinte cutanée. De nombreux patients présentaient des lésions polymorphes. La morphologie vésiculo-bulleuse était la morphologie la plus courante (77 %), suivie des lésions ciblées (48 %), des papules (14 %) et des macules (12 %) ; des

éruptions morbilliformes ont été rarement décrites (9 %). De légères éruptions morbilliformes ou maculaires transitoires ont également été rapportées [10]. Le tableau clinique de notre patient était évocateur d'un SSJ avec une atteinte cutanée profuse prédominant sur le dos et le tronc, associée à une atteinte érosive des muqueuses buccale et génitale, résultant d'une apoptose des cellules épithéliales. L'infection à MP est confirmée par des méthodes sérologiques, bien qu'au cours de la phase aiguë de la maladie, les paramètres indicatifs sont souvent négatifs. Ce résultat est vrai non seulement pour le sérodiagnostic basé sur des tests de présence d'hémagglutinine froide (ceux-ci ne sont positifs que dans environ 50 % des cas) mais aussi pour le sérodiagnostic basé sur des tests d'agglutination de particules ou même des immuno-essais enzymatiques qui recherchent des anticorps IgM « précoces », tel est le cas de notre patient. Etant donné que la sensibilité des différents tests est faible, des progrès en termes de spécificité ont été obtenus grâce à l'utilisation de préparations d'antigènes protéiques plus définies de cellules de MP [11]. La prise en charge thérapeutique du SSJ est basée sur un traitement symptomatique. Par ailleurs, l'utilisation des corticostéroïdes systémiques, des immunoglobulines intraveineuses, de la cyclosporine et des antagonistes du TNF- $\alpha$  sont encore controversées [12]. Seuls les soins intensifs de nursing sont actuellement consensuels, aucun traitement spécifique n'a fait preuve d'efficacité jusqu'à présent en dehors de l'antibiothérapie visant le MP en cas d'infection prouvée. Bien que son incidence soit faible, le SSJ a un impact significatif sur la santé publique du fait du taux de mortalité élevé et des séquelles importantes (>90% des cas) qui peuvent en résulter (synéchies muqueuses, oculaires, etc.) [2]. L'évolution de notre patient était favorable avec une restitution ad-integrum au bout d'un mois.

## Conclusion

Le SSJ secondaire à une infection par MP est une toxidermie bulleuse grave qui peut engager le pronostic vital. Aucun traitement spécifique n'a prouvé son efficacité en dehors des macrolides visant le MP. La lutte contre les infections virales et bactériennes reste le meilleur moyen de prévention du SSJ.

## Conflit d'intérêt

Les auteurs déclarent n'avoir aucun conflit d'intérêt.

## Références

- [1] Gerull R, Nelle M, Schaible T. Toxic Epidermal Necrolysis and Stevens-Johnson Syndrome: A Review. *Crit Care Med*. 2011;39(6):1521-32.
- [2] Hamich S, Houssaini AS, Meziane M, Ismaili N, Benzekri L, Senouci K. Syndrome De Lyell Et Syndrome De Stevens-Johnson: Étude Rétrospective De 30 Cas. *Ann Burns Fire Disasters*.

- 2022;35(2):116-124.
- [3] Ferrandiz-Pulido C, Garcia-Patos V. A review of causes of Stevens-Johnson syndrome and toxic epidermal necrolysis in children. *Arch Dis Child*. 2013;98(12):998-1003.
- [4] Wang L, Varghese S, Bassir F, Lo YC, Ortega CA, Shah S, et al. Stevens-Johnson syndrome and toxic epidermal necrolysis: A systematic review of PubMed/MEDLINE case reports from 1980 to 2020. *Front Med (Lausanne)*. 2022 Aug 24;9:949520.
- [5] Harr T, French LE. Stevens - Johnson syndrome and Toxic Epidermal Necrolysis. *Chem Immunol Allergy*. 2012;97:149-66.
- [6] Zou H, Daveluy S. Toxic epidermal necrolysis and Stevens-Johnson syndrome after COVID-19 infection and vaccination. *Australas J Dermatol*. 2023;64(1):e1-e10
- [7] Li HO, Colantonio S, Ramien ML. Treatment of Mycoplasma Pneumoniae -Induced Rash and Mucositis With Cyclosporine. *J Cutan Med Surg*. 2019;23(6):608-612.
- [8] Wang F, Cheng Q, Duo H, Wang J, Yang J, Jing S, et al. Childhood Mycoplasma Pneumoniae: Epidemiology and Manifestation in Northeast and Inner Mongolia, China. *Microbiol Spectr*. 2024;2;12(5):e0009724.
- [9] Lalevée S, Contassot E, Ortonne N, Gaudin O, Ben Said B, Vocanson M, et al. Avancées Dans La Compréhension de La Physiopathologie de La Nécrolyse Épidermique (Syndrome de Stevens-Johnson et Nécrolyse Épidermique Toxique). *Ann Dermatol Venereol*. 2020;147(6):475-81.
- [10] Canavan TN, Mathes EF, Frieden I, Shinkai K. Mycoplasma Pneumoniae-Induced Rash and Mucositis as a Syndrome Distinct from Stevens-Johnson Syndrome and Erythema Multiforme: A Systematic Review. *J Am Acad Dermatol*. 2015;72(2):239-45.
- [11] Jacobs E. Serological diagnosis of Mycoplasma pneumoniae infections: a critical review of current procedures. *Clin Infect Dis*. 1993;17 Suppl 1:S79-82.
- [12] Hasegawa A, Abe R. Recent advances in managing and understanding Stevens-Johnson syndrome and toxic epidermal necrolysis. *F1000Res*. 2020;9:F1000 Faculty Rev-612.

# Pentalogie de Cantrell : rapport d'un cas grave, mortelle au centre hospitalier universitaire de Bouaké (Côte d'Ivoire)

## Cantrell pentalogy: report of a severe, fatal case in Bouaké (Côte d'Ivoire)

**Azagoh-Kouadio . R <sup>(1)</sup>, Akaffou-Gbery Adja . E <sup>(2)</sup>, Avi. C <sup>(3)</sup>, Adou. L <sup>(3)</sup>, Sahi. G <sup>(3)</sup>, Amani. A <sup>(3)</sup>, Asse Kouadio . V <sup>(3)</sup>**

<sup>(1)</sup> Service de Pédiatrie médicale et spécialités, Centre Hospitalier Universitaire de Angré, 28 BP 1530 Abidjan 28 (Côte d'Ivoire).

<sup>(2)</sup> Service de de Pédiatrie et néonatalogie, Hôpital Mère-Enfant de Bingerville (HME) Bingerville (HME), Côte d'Ivoire

<sup>(3)</sup> Service de pédiatrie médicale du Centre Hospitalier et Universitaire de Bouaké (Côte d'Ivoire). Adresse : 01 BP 1174 Bouaké 01, Côte d'Ivoire

### RÉSUMÉ

**Introduction :** La pentalogie de Cantrell correspond à un défaut de fermeture de l'anneau ombilical concernant la portion sus ombilicale de la paroi abdominale secondaire à une anomalie du développement du mésoderme lors du premier stade du développement embryonnaire.

**Observation :** Il s'agit d'un nouveau-né vivant à terme, de sexe féminin, référé au service de Néonatalogie du CHU de Bouaké à neuf (9) heures de vie pour malformation congénitale. La grossesse a été peu suivie avec aucun bilan prénatal. Les paramètres à la naissance étaient, Poids 2750g, Taille 48cm APGAR : 7-8 à la 1ere et la 5e minute, PC : 33cm. A l'admission, la patiente avait une coloration rose, eupnéique avec un examen neurologique normal. Elle présentait un défaut de la paroi thoracique laissant apparaître une masse battante faisant penser au cœur, dont l'apex est orienté vers le haut en direction du menton. Il n'y avait pas de membrane séreuse sur la face externe du cœur. Cette malformation thoracique s'accompagnait d'un défaut de la paroi abdominale laissant apparaître une masse sus-ombilicale faisant évoquée une omphalocèle. La sérologie toxoplasmique revenue positive, les sérologies syphilitique et rubéolique sont revenues négative. Le caryotype n'a pu être réalisé. L'échographie cardiaque a retrouvé un cœur malformé présentant un ventricule unique type droit avec cavités cardiaque gauche rudimentaires. La tomодensitométrie thoracique à la recherche d'une malformation sternale et du diaphragme n'a pu être réalisé. Les parents sont sortis contre avis médical à J4 de vie. Le nouveau-né est décédé à J9 de vie à domicile.

**Conclusion :** Pentalogie de Cantrell est une malformation congénitale extrêmement rare dont le pronostic reste tributaire de la sévérité de l'anomalie cardiaque associée d'où l'intérêt d'une prise en charge multidisciplinaire

---

Corresponding author :

**Dr Azagoh-Kouadio Richard :** Maître de Conférences Agrégé en Pédiatrie

Téléphone : +225 07 83 12 69

E-mail : azagoh.richard@gmail.com

28 BP 1530 Abidjan 28

### Auteurs

Azagoh-Kouadio Richard, MD, PhD, MCA en Pédiatrie, Email : azagoh.richard@gmail.com

Akaffou-GBERY Adja Evelyne, MD, PhD, MCA en Pédiatrie, Email : eakaf@yahoo.fr

Siallou-Avi Christelle, MD, Assistant Chef de clinique, Email : avichristelle611@gmail.com

Adou Leïoh Roméo, Interne des hôpitaux, Email : leioh91@hotmail.fr

Sahi Landryse, Interne des hôpitaux, Email : firstsahi@yahoo.com

Amani Alexise, Interne des hôpitaux, Email : amanialexise91@gmail.com

Asse Kouadio Vincent, MD, PhD, Professeur de pédiatrie, Email : assevinc2014@gmail.com

**Mots clés:** pentalogie de Cantrell, ectopie cardiaque, malformation congénitale, Côte d'Ivoire

## ABSTRACT

**Introduction :** Cantrell's pentalogy corresponds to a defect in umbilical ring closure involving the supra-umbilical portion of the abdominal wall, secondary to an anomaly in mesodermal development during the first stage of embryonic development.

**Observation :** This was a full-term female neonate referred to the Neonatology Department of Bouaké University Hospital at nine (9) hours of age for congenital malformation. The pregnancy was poorly monitored, with no prenatal check-up. Birth parameters were: weight 2750g, height 48cm APGAR: 7-8 at 1 and 5 minutes, CP: 33cm. On admission, the patient was pink, eupneic and had a normal neurological examination. She presented with a chest wall defect revealing a beating mass reminiscent of the heart, with the apex pointing upwards towards the chin. There was no serous membrane on the outer surface of the heart. This thoracic malformation was accompanied by a defect in the abdominal wall, revealing a supraumbilical mass suggestive of an omphalocele. Toxoplasma serology came back positive, and syphilitic and rubella serologies were negative. Karyotype could not be performed. Cardiac ultrasound revealed a malformed heart with a single right ventricle and rudimentary left heart chambers. A thoracic CT scan for sternal and diaphragmatic malformations could not be performed. The parents were discharged against medical advice at 4 days of age. The newborn died on the 9th day at home.

**Conclusion :** Pentalogy of Cantrell is an extremely rare congenital malformation whose prognosis depends on the severity of the associated cardiac anomaly, hence the importance of multidisciplinary management.

**Keywords:** Pentalogy of Cantrell, cardiac ectopy, congenital malformation, Côte d'Ivoire

## Introduction

La pentalogie de Cantrell correspond à un défaut de fermeture de l'anneau ombilical concernant la portion sus ombilicale de la paroi abdominale secondaire à une anomalie du développement du mésoderme lors du premier stade du développement embryonnaire. Elle a été décrite pour la première fois par Cantrell en 1958. C'est une anomalie congénitale extrêmement rare associant cinq malformations cardinales : une hernie supra ombilicale de la paroi abdominale, un défaut de la partie antérieure du diaphragme et du péricarde diaphragmatique, une anomalie de la partie basse du sternum et des malformations cardiaques [1]. Nous rapportons un cas de pentalogie de Cantrell, diagnostiqué dans l'unité de Néonatalogie du Centre hospitalier et universitaire de Bouaké. L'objectif étant de décrire les principaux aspects épidémiologiques, diagnostiques, thérapeutiques et évolutifs de cette anomalie congénitale rare pour l'amélioration du pronostic.

## Observation

Il s'agit d'un nouveau-né vivant à terme, de sexe féminin. Il est né par voie basse dans un centre de santé et référé au service de Néonatalogie du CHU de Bouaké à neuf (9) heures de vie pour malformation congénitale. Elle est cadette d'une fratrie de 4 enfants dont une paire de jumeau décédé à la naissance. Ses frères et sœurs ne présentent aucune malformation congénitale visible. Le père est âgé de 26ans et la mère 24 ans. Il n'y avait pas de notion de consanguinité. La mère a réalisé quatre (04) consultations prénatales, le bilan prénatal était incomplet. La sérologie toxoplasmique, rubéolique et syphilitique sont revenues négative. Elle n'a pas réalisé d'échographie prénatale. Les prophylaxies n'ont pas été respectées ; la mère n'a pas bénéficié d'acide folique. Elle a fait un paludisme au premier trimestre et une infection urogénitale au troisième trimestre. Les paramètres à la naissance étaient, Poids 2750g, Taille 48cm APGAR : 7-8 à la 1ere et la 5e minute, PC : 33cm. A l'admission, le nouveau-né avait une bonne impression générale avec une coloration rose des téguments. La respiration était calme et régulière avec fréquence à 50 cycles/minutes. L'examen neurologique était normal. On notait un défaut de la paroi thoracique antérieure laissant apparaître une masse battante faisant penser au cœur, dont l'apex est orienté vers le haut en direction du menton (figure 1 -A). Il n'y avait pas de membrane séreuse sur la face externe du cœur. Cette malformation thoracique s'accompagnait d'un défaut de la paroi abdominale laissant apparaître une masse sus-ombilicale d'environ 8 cm de diamètre contenant des anses et recouvertes d'une membrane translucide (figure 1 -B).



**Figure 1 (A)-(B) :** (A) Défaut de la paroi thoracique antérieure laissant apparaître une masse battante faisant penser au cœur, dont l'apex est orienté vers le haut en direction du menton. (B) Défaut de la paroi abdominale antérieure laissant apparaître une masse sus-ombilicale d'environ 8cm de diamètre contenant des anses et recouvertes d'une membrane translucide.

Le cordon ombilical d'aspect normal situé à la partie inférieure de la masse. La fréquence respiratoire était de 6cycles/min, fréquence cardiaque 140 pulsations par minutes, saturation pulsée à l'air ambiant 98%, le murmure vésiculaire était bien perçu dans les deux hémithorax sans râles. La fontanelle antérieure était normo tendue. La succion efficace et la réactivité était bonne. La sérologie toxoplasmique a mis en évidence la présence IgM anti-toxoplasmique, les sérologies syphilitique et rubéolique sont revenues négative. L'échographie cardiaque a retrouvé un cœur malformé présentant un ventricule unique type droit avec des cavités cardiaques gauches rudimentaires. La tomодensitométrie thoracique à la recherche d'une malformation sternale et du diaphragme n'a pu être réalisé les parents sont sortis contre avis médical à J4 de vie. Le nouveau-né est décédé à domicile à J9 de vie..

## Discussion

La pentalogie de Cantrell est une anomalie congénitale extrêmement rare. Elle a été décrite pour la première fois par Cantrell en 1958. Elle associerait une cordia ectopis à un défaut de la paroi abdominale antérieure. [1]. La cordia ectopis est une malformation congénitale rare décrite comme une malposition partielle ou complète du cœur à l'extérieur de la cage thoracique. Quatre types ont été décrits : cervical (5%), thoracique (65%), abdominal (10%) et thoracoabdominale (20%) [2]. La forme thoraco-abdominale est généralement associée à la pentalogie de Cantrell ou une de ses variantes qui inclut un sternum bifide, un défaut du diaphragme, de la paroi abdominale antérieure ainsi qu'une malformation intracardiaque [3]. La majorité des patients décrits dans la littérature avaient des malformations cardiaques associées [4]. Il s'agit généralement de défaut du septum inter auriculaire ou inter ventriculaire, voire une tétralogie de falot. Les anomalies de la paroi abdominale comprennent l'omphalocèle, le diastasis, le recti et la hernie ombilicale ou une combinaison de ces anomalies. Cependant, la forme la plus commune est celle avec omphalocèle [5]. L'incidence estimée de ce syndrome rare est d'environ 5,5 pour un million de naissances vivantes [6]. Sa prévalence estimée est trois fois plus élevée chez les hommes que chez les femmes. [7]. Dans sa forme complète, elle associe les cinq anomalies majeures [5]. Des formes incomplètes du syndrome avec une combinaison d'au moins deux défauts ont été rapportées dans la littérature [1]. Toyama a classé la pentalogie en 3 classes. Dans notre cas, le nouveau-né présentait une anomalie de la paroi abdominale associée à un défaut thoracique et des malformations cardiaques (classe 3) [8]. Le diagnostic peut se faire en anténatal avec l'échographie prénatale au cours du premier trimestre de la grossesse [9 ; 10]. Dans notre observation, la mère n'a réalisé aucune échographie prénatale du fait des moyens financiers insuffisants. Cette échographie aurait pu permettre la visualisation des anomalies fœtales et aider à la pla-

nification de la prise en charge chirurgicale [11]. L'apparition de la pentalogie est considéré comme sporadique. Le taux de survie de la forme complète de pentalogie de Cantrell est inférieur à 20% [12] et selon Vasquez [13] le taux de survie atteint 37,3% après chirurgie. Des études récentes ont rapporté une croissance normale jusqu'à l'âge de six ans chez les enfants ayant bénéficié d'une correction chirurgicale précoce [12].

## Conclusion

Pentalogie de Cantrell est une malformation congénitale extrêmement rare dont le pronostic reste tributaire de la sévérité de l'anomalie cardiaque associée d'où l'intérêt d'une prise en charge multidisciplinaire.

**Consentement éclairé :** Le consentement verbal du père de l'enfant a été obtenu avant la rédaction et la publication du manuscrit.

**Contribution des auteurs :** Tous les auteurs ont participé intellectuellement à la préparation et à la révision du manuscrit avant sa soumission.

**Conflits d'intérêts :** Les auteurs déclarent n'avoir aucun conflit d'intérêt en rapport avec le manuscrit.

## Références

- [1] Cantrell JR, Haller JA, Ravith MM (1958) A syndrome of congenital defects involving the abdominal wall, sternum, diaphragm, pericardium and heart. *Surg Gynecol Obstet* 1958 ; 107: 602-614
- [2] Tantchou Tchoumi Jacques Cabral, Alessandro Giamberti, Gianfranco Butera, Alessandro Frigiola, Ambassa Jean Claude. Extrathoracic heart in northern Cameroon: a case report. *Pan African Medical Journal*. 2009; 2(8): 1-5
- [3] Apte AV. Thoraco-Abdominal Ectopia Cordis: A Rare Entity - Case Report and Review of literature. *People's Journal of Scientific Research*. 2008 ; 1 : 31-33
- [4] Ghritlaharey Rajendra K, Budhwani KS et Jyoti Srivastava. Thoracoabdominal Ectopia Cordis:A Report of Two Cases. *Journal of Clinical and Diagnostic Research*. 2011 ; 5(3) : 631-634
- [5] Jeroen HL van Hoorn, Rob MJ Moonen, Clément JR Huysentruyt, LW Ernest van Heurn, Jos PM Offermans, ALM Twan Mulder. (2008) Pentalogy of Cantrell: two patients and a review to determine prognostic factors for optimal approach. *Eur J Pediatr* 167: 29-33
- [6] Carmi R, Boughman JA (1992) Pentalogy of Cantrell and associated midline anomalies : a possible ventral midline developmental field. *Am J Med Genet* 42 :90-95
- [7] Oguk F, Sitienei L, Ongeti C, Ngeno S, Kipchirchir C, Ndiangui F, et al. Antenatal diagnostics of pentalogy if Cantrell in East Africa: A case report. *International Journal of Advanced Research*. 2015; 3: 653-658.

- [ 8 ] Toyama WM. Combined congenital defects of the anterior abdominal wall, sternum, diaphragm, pericardium, and heart: A case report and review of the syndrome. *Pediatrics*. 1975 ; *Gynecol Reprod Health*, 2018, 2 (2) : 5-5
- [ 9 ] Mukhtar-Yola M Mohammad AM Faroul ZL Alhassan SU Adeleke SI Aji AA Asani MO : Pentalogy of Cantrell -A Case Report from Nigeria. *Nigerian Journal of Paediatrics* 2012 ;39 (1) : 31-34
- [ 10 ] Leno DWA, Sy T, Camara MK, Toino J, Hyjazi Y and Keita N: Pentalogy of Cantrell: A Case Report Diagnosed Using Antenatal Ultrasound in Conakry (Guinea). *J Womens Health, Issues Care* 2015 ; 4 :4
- [ 11 ] Leul Adane, Alemayehu Bedane, Ashenafi Abera, et al. MRI Findings in Pentalogy of Cantrell with Ultrasound Correlation: Addis Ababa, Ethiopia. *Gynecol Reprod Health*. 2018 ; 2(2) : 1-5
- [ 12 ] Naburi, H., Assenga, E., Patel, S. et ali: Class II pentalogy of Cantrell. *BMC Res Notes* 8, 318 (2015). [https : //doi.org/10.1186/s13104-015-1293-7](https://doi.org/10.1186/s13104-015-1293-7)
- [ 13 ] Vazquez-Jimenez JF, Muehler EG, Daebritz S et al : Cantrell's syndrome : a challenge to the surgeon. *Ann Thorac Surg* 1998 ; 65 : 1178-1185



# The Management of Acute Pancreatitis in the Pediatric Population: A Clinical Report from the NASPGHAN Pancreas Committee

Missaoui. N <sup>(1,2)</sup>, Ben Rabeh. R <sup>(1,2)</sup>, Mazigh Mrad. S <sup>(1,2)</sup>, Boukthir. S <sup>(1,2)</sup>

<sup>(1)</sup> Service de médecine infantile C, Hôpital d'enfants Béchir Hamza, Tunis

<sup>(2)</sup> Faculté de médecine de Tunis, Université Tunis El Manar

The Management of Acute Pancreatitis in the Pediatric Population : A Clinical Report from the NASPGHAN Pancreas Committee est une revue de la littérature réalisée par le comité de la North American Society for Pediatric Gastroenterology, Hepatology and Nutrition Pancreas sur la base de données MEDLINE en utilisant des mots clés en relation avec la prise en charge de la pancréatite aiguë (PA) chez l'enfant et l'adulte. Après résumés des données de la littérature et vérification de la qualité, les auteurs ont rédigé des recommandations et ont voté de façon anonyme. Un taux minimal de 75% était exigé pour retenir la recommandation. Les mots clés utilisés : pediatrics, acute pancreatitis, diagnosis, management, intravenous fluids, enteral nutrition, parenteral nutrition, pain management, antibiotics, probiotics, anti-oxydants, anti-proteases, endoscopy, endoscopyc ultrasonography (EUS), endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP), surgery, outcomes, and complications.

## Introduction

La pancréatite aiguë est de plus en plus fréquemment diagnostiquée chez les enfants. La majorité des articles disponibles et des recommandations de prise en charge sont des expériences d'adultes. Les auteurs ont réalisé une recherche bibliographique MEDLINE à partir des articles publiés jusqu'à Juillet 2016. Les auteurs ont résumé les publications pour chaque paragraphe et ont émis des recommandations relatives à chaque paragraphe. Les auteurs ont voté sur les recommandations de chaque paragraphe. Un taux de vote minimal de 75% était exigé pour retenir la recommandation dans le consensus.

## Les résultats

### 1/ évaluation initiale et diagnostic de pancréatite aiguë :

Les études récentes estiment l'incidence de la PA à 1/10000 enfants, ce taux est proche de celui de l'adulte. La définition de la PA selon le consensus d'expert INSPIRE est extrapolée à partir de la définition chez l'adulte. Il faut au moins deux critères parmi les trois suivants : une douleur abdominale compatible avec le diagnostic de PA, un taux d'amylase ou lipase supérieur à 3 fois la limite supérieure et une exploration radiologique en faveur. Les symptômes les plus fréquents chez l'enfant sont les douleurs abdominales et l'irritabilité, suivis par la sensibilité épigastrique, les nausées et les vomissements. Chez les nourrissons, les signes sont moins par-

lants et le diagnostic est moins facile. Les enfants présentent souvent une forme légère de PA, néanmoins d'autres peuvent présenter une forme sévère. Il n'y a pas de score prédictif de formes sévères. Les scores utilisés chez l'adulte (Glasgow, Ranson, BISAP, APACHE II) sont difficilement applicables chez la population pédiatrique. Les auteurs insistent sur la nécessité de réaliser des études prospectives dans le but de mettre en place une définition et une stadification de la PA chez l'enfant.

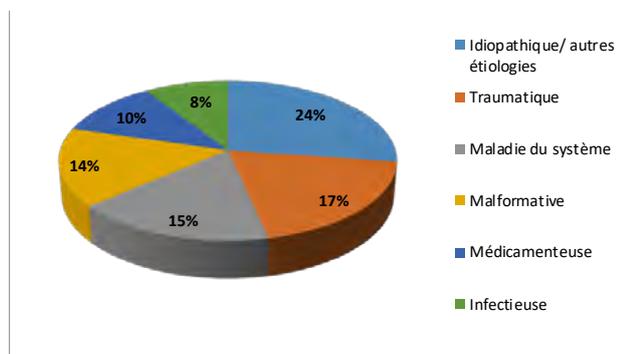
### a/ Biologie: le principal marqueur biologique de la PA

est l'élévation du taux d'amylase ou lipase (3 fois la limite supérieure). Leurs cinétiques sont différentes. Le taux de lipase s'élève dès la 6ème heure avec un pic entre H 24 et 30. Son taux peut rester élevé pendant plus qu'une semaine, d'où son intérêt chez les patients qui consultent tardivement. Le taux d'amylase augmente plus rapidement que celui de la lipase. Il peut se normaliser au bout de 24 heures. Certains auteurs stipulent que le taux de lipase seul est suffisant pour le diagnostic de PA vu que sa sensibilité et spécificité sont meilleures que celles de l'amylase. Il est à noter que des causes extra-pancréatiques peuvent faire augmenter les taux d'amylase et/ou lipase comme l'insuffisance hépatocellulaire, l'insuffisance rénale, les maladies inflammatoires du tube digestif (maladie coeliaque et maladies inflammatoires chroniques de l'intestin), le traumatisme abdominal, l'acidocétose diabétique et le traumatisme crânien. D'autres examens biologiques sont demandés en cas de pancréatite aiguë : l'urée sanguine, la créatinine, l'ionogramme sanguin, les enzymes hépatiques, la calcémie, les triglycérides et la numération formule sanguine.

### b/ les étiologies:

La pancréatite aiguë, aiguë récurrente ou chronique peut être secondaire à une cause anatomique (malformative), obstructive (dont l'origine biliaire), infectieuse, traumatique, toxique, métabolique, maladie systémique, erreur innée du métabolisme, génétique et idiopathique. Selon une revue réalisée par Lowe et Morinville, les six étiologies les plus fréquentes sont résumées dans le graphique suivant. En tenant compte de ces étiologies sus-citées, Morinville et al préconisent, devant un premier épisode de PA de réaliser un bilan de première intention comportant : le dosage des enzymes hépatiques, des triglycérides et de la calcémie ainsi qu'une échographie abdominale. Ils ont également préconisé

de réserver les tests génétiques (dont le gène CFTR de la mucoviscidose, SPINK 1 (serine protease inhibitor kazal type 1), PRSS 1 (cationic trypsinogen)), le dosage du chlore sudoral et les autres explorations radiologiques pour les enfants présentant une pancréatite récurrente ou chronique, ou, en cas de premier épisode de PA, lorsque les antécédents personnels, familiaux ou la présentation clinique sont évocateurs. La pancréatite auto-immune 1 et 2 sont exceptionnellement diagnostiquées avec des spécificités histologiques.



**Figure :** Les étiologies de la pancréatite aiguë chez l'enfant selon Lowe et Morinville

### c/ les explorations radiologiques:

Les explorations radiologiques à la phase précoce de la PA ne sont pas nécessaires lorsque l'histoire, la présentation clinique et la biologie suffisent pour poser le diagnostic. L'imagerie devient pertinente pour le diagnostic de la nécrose pancréatique, des collections liquidiennes et de l'étiologie comme une lithiase biliaire ou une cause malformative. La tomодensitométrie avec injection de produit de contraste (TDM avec PDC) reste le meilleur moyen. Dans la population pédiatrique, la TDM avec PDC n'est pas systématique. Elle a un intérêt en cas de doute diagnostique ou de diagnostic tardif lorsque les marqueurs biologiques baissent. La TDM avec PDC doit être réalisée après 96 heures du début des symptômes pour ne pas sous-estimer le degré d'atteinte pancréatique. Dans le cas de PA légère, la TDM avec PDC montre une prise de contraste homogène du pancréas, une inflammation des tissus graisseux et un épanchement péri-pancréatiques. Dans les formes sévères, elle montre un aspect hétérogène du pancréas, une nécrose pancréatique et/ ou péri-pancréatique et éventuellement des collections liquidiennes ou des faux kystes. Une étude réalisée par Lautz et al sur l'apport du score de Balthazar chez 64 enfants a trouvé une sensibilité, spécificité, valeur prédictive positive et valeur prédictive négative de 81%, 76%, 62% et 90% respectivement. L'échographie abdominale est demandée lorsqu'on suspecte l'origine biliaire et peut indiquer un traitement étiologique. L'échographie est un moyen non invasif, non irradiant. Ses principales limites sont l'obésité, l'interposition des structures digestives et les gaz et sa moindre sensibilité par rapport à la TDM. L'intérêt de l'imagerie par résonance magnétique (IRM) réside dans le diagnostic des complications tardives, elle est plus sensible que la TDM dans le diagnostic de la nécrose pancréatique. La bili-IRM est utilisée pour le diagnostic de la lithiase au niveau de

la partie terminale de la voie biliaire principale.

### Recommandation 1 :

\* le diagnostic de la PA : présence de 2 critères au moins parmi : une douleur abdominale compatible avec le diagnostic de PA, un taux d'amylase ou lipase supérieur à 3 fois la limite supérieure et une exploration radiologique en faveur. (Accord 100%)

\* l'imagerie de première intention repose sur l'échographie abdominale. Les autres explorations radiologiques sont réservées aux formes compliquées et adaptées à l'étiologie suspectée. Accord 100%

\* tenant compte des étiologies les plus fréquentes et celles accessibles à un traitement, le bilan de première intention en cas d'un premier épisode de pancréatite aiguë doit comporter : le dosage des enzymes hépatiques (ASAT, ALAT, gammaGT, bilirubine), le dosage de la calcémie et des triglycérides. Accord 23/24= 96%

### 2/ considérations dans la prise en charge de la pancréatite aiguë chez l'enfant :

2.a/ réanimation hydro-électrolytique : constitue un élément essentiel dans la prise en charge, elle maintient l'état hémodynamique et la diurèse et prévient les complications telle que la nécrose du pancréas. La physiopathologie de la pancréatite aiguë et de l'évolution à une forme grave repose sur l'altération de la microcirculation pancréatique par des phénomènes de d'hypo volémie, d'hyperperméabilité capillaire et de formation de micro thrombi. La réanimation hydro-électrolytique agit sur ces phénomènes.

\* le type de soluté : il n'a pas de consensus aussi bien chez l'adulte que chez l'enfant. Le soluté de choix chez l'adulte était longtemps le sérum salé isotonique. Des études plus récentes recommandent l'utilisation de Ringer Lactates. Chez l'enfant, l'utilisation du sérum salé isotonique avec 5% de dextrose a été décrite comme sécurisée au cours des 24 premières heures. L'utilisation des colloïdes (albumine, plasma frais congelé et concentré de globules rouges) n'est pas recommandée en première intention. Les guidelines de l'association américaine de gastro-entérologie précisent quelques indications : hémocrite < 25%, taux d'albumine < 20 g/l.

\* le débit de perfusion : plusieurs études se sont intéressées à la quantité de liquide à apporter au patient au cours de 24- 48 premières heures d'une pancréatite aiguë et sur l'impact sur la mortalité, la survenue du syndrome de réponse inflammatoire systémique SIRS et de la défaillance d'organe. Les auteurs s'accordent sur la nécessité d'une réanimation hydro-électrolytique "agressive". Une seule étude pédiatrique sur 201 enfants a préconisé une nutrition entérale précoce (avant 48 heures) avec un apport liquidien intraveineux de 1,5 à 2 fois les besoins de maintenance dans les 24 premières heures. Cette étude a montré la diminution de la durée d'hospitalisation et de la survenue des formes graves. Cette réanimation "agressive" n'a pas engendré de complications pulmonaires et n'a pas augmenté le taux de ré hospitalisation.

### Recommandation 2a:

\* pour la réanimation à la phase aiguë d'une pancréatite aiguë, utiliser des cristalloïdes : sérum salé isotonique ou Ringer Lactates. En cas de troubles hémodynamiques,

donner un bolus de 10 à 20 ml/kg. Accord : 24/24= 100%  
\* durant les 24-48 premières heures de prise en charge, les enfants doivent recevoir 1,5 à 2 fois les besoins de maintenance en IV, tout en surveillant la diurèse. Accord 22/24=92%

2.b/ la surveillance : il faut instaurer une surveillance chez les enfants souffrant de PA afin de prévenir les complications pulmonaires et rénales.

\* la surveillance cardio-vasculaire : l'hypovolémie à l'admission est un facteur prédictif de morbi-mortalité chez l'adulte et semble corrélé à l'importance du SIRS. La tachycardie est un élément des scores de gravité chez l'enfant et l'adulte. Sa régression, la diurèse et le pli cutané, attestent le succès de la réanimation hydro-électrolytique. De rares cas de fibrillation atriale et de tamponnade ont été décrits. Ces complications doivent être suspectées en cas d'hypotension, dyspnée ou douleurs thoraciques inexplicables.

\* la surveillance respiratoire : selon des études chez les animaux et les adultes, les complications respiratoires précoces au cours de la PA sont le syndrome de détresse respiratoire aiguë, les pneumonies, l'œdème aigu du poumon. Elles surviennent typiquement au cours des premières 48 heures d'évolution. La surveillance de la saturation en oxygène surtout au cours de la réanimation hydro-électrolytique est nécessaire. Des auteurs préconisent la position proclive 30° pour réduire le risque d'œdème pulmonaire.

\* la surveillance rénale : l'insuffisance rénale aiguë secondaire au syndrome du compartiment abdominal ou à l'atteinte inflammatoire du tube contourné proximal est connue comme complication précoce de la PA chez l'enfant. Elle se manifestant par une augmentation de l'urée et de la créatinine sanguines et par l'oligurie. Ces paramètres doivent être surveillés, mais il n'y a pas de consensus sur la fréquence de surveillance (quelques études suggèrent une surveillance toutes les 8 à 12 heures). Les guidelines de la société américaine de gastroentérologie insistent sur l'importance de faire baisser le taux de l'urée et le maintien d'un taux de créatinine normal pendant les premières 24 heures. Les auteurs concluent que la surveillance des patients ayant une pancréatite aiguë permet de détecter la survenue des complications comme le SIRS et le dysfonctionnement d'organes. La surveillance respiratoire, cardiaque et rénale doit être rapprochée au cours des premières 48 heures vu que les complications surviennent souvent dans ce délai. La diurèse est un indicateur de succès de la réanimation hydro-électrolytique, les études chez les adultes fixent un objectif de 0,5 à 1 ml/kg/heure.

#### **Recommandation 2 b :**

\* chez les patients hospitalisés, les paramètres vitaux (fréquence respiratoire, saturation en oxygène, tension artérielle) doivent être surveillés au moins toutes les 4 heures pendant les premières 48 heures. La fréquence de surveillance ultérieure sera adaptée à l'évolution. Une anomalie des paramètres vitaux doit inciter à une évaluation spécialisée. Accord 22/24=92%

\* la diurèse, le taux d'urée et de créatinine doivent être surveillés de façon régulière au cours des premières 48

heures afin de juger de l'efficacité de la réanimation hydro-électrolytique et de détecter une insuffisance rénale aiguë. Toute anomalie doit inciter à une évaluation néphrologique. Accord 22/24=92%.

#### **2.c: traitement de la douleur :**

Les douleurs abdominales sont le symptôme le plus fréquent (80 à 99% des cas). Elles sont épigastriques chez 62% des patients et diffuses chez 12 à 20% d'entre eux. La description classique de douleur épigastrique transfixiante est retrouvée seulement chez 1,6 à 5,6% des enfants. Le traitement de la douleur est un objectif thérapeutique majeur. Les études pédiatriques manquent tandis que les études chez l'adulte n'ont pas montré la supériorité d'une molécule particulière.

\* les opioïdes : le paracétamol est souvent insuffisant dans les formes sévères de PA. Les opioïdes sont souvent nécessaires. Parmi les praticiens participants, 94% ont eu recours à la morphine (ou ses apparentés) pour l'analgésie chez les enfants.

\* les anti-inflammatoires non stéroïdiens (AINS) : ont été incriminés par quelques hypothèses dans la genèse des pancréatites aiguës. Mais de façon paradoxale, ils sont utilisés dans le but de prévenir la PA après la cholangiopancréatographie rétrograde endoscopique CPRE. Dans une petite étude, l'indométacine avait un effet bénéfique sur la douleur en comparaison avec le placebo, sans augmenter le risque d'hémorragie digestive.

#### **Recommandation 2 c :**

\* la morphine IV et les autres opioïdes doivent être prescrits en cas de non réponse au paracétamol ou AINS. Accord 24/24=100%

\* un service spécialisé dans le traitement de la douleur doit être consulté en cas de douleur intense. Accord 23/24=96%

#### **2.d: la nutrition entérale/parentérale chez l'enfant au cours de la pancréatite aiguë :**

\* la nutrition entérale : Traditionnellement chez l'adulte, la prise en charge initiale de la pancréatite aiguë repose sur l'arrêt de tout apport par voie orale et la mise en place d'une perfusion intraveineuse dans le but de mettre au repos le tube digestif et du pancréas. Des études récentes ont montré l'intérêt de l'introduction de la nutrition entérale soit exclusive soit en association à la nutrition parentérale. Cela avait permis de réduire la survenue de complications et la durée d'hospitalisation. Le timing d'introduction de la nutrition entérale n'a pas été précisé mais les études recommandent l'introduction aussi précoce que possible. Ici aussi les guidelines pédiatriques manquent. Une étude récente publiée en 2016 par El Hajja et al a montré la faisabilité de la nutrition entérale sans engendrer de complication ni de douleur. Une autre étude rétrospective a montré que l'association d'une nutrition entérale précoce à un apport parentéral > 1,5 fois les besoins de maintenance était associée à une forme modérée et une plus courte durée d'hospitalisation en comparaison à un jeun de 48 heures et un apport parentéral < 1,5 fois les besoins de maintenance.

\* La nutrition parentérale : assure un apport calorique nécessaire pour contrebalancer l'état de catabolisme.

Les formules enrichies en glutamine réduisent les complications et la durée d'hospitalisation. La perfusion de soluté glucosé de stimule pas le pancréas. La glycémie doit être surveillée vu le risque d'hyperglycémie. Dans les cas où la nutrition entérale est impossible du fait d'un iléus, syndrome du compartiment abdominal, la nutrition parentérale est préconisée. Une étude récente a préconisé de retarder la nutrition parentérale au delà de 7 jours chez les enfants en état critique vu le risque accru d'infection et de complication.

#### **Recommandation 2 d :**

sauf contre indication à l'utilisation du tube digestif, les enfants ayant une forme légère de PA doivent recevoir une nutrition orale/entérale précoce (48-72 heures) afin de réduire la durée d'hospitalisation et la survenue de dysfonction d'organe. Accord 22/24=92%

\* en cas d'impossibilité de nutrition entérale, il est préconisé d'instaurer une nutrition parentérale au bout de 5 à 7 jours. La nutrition entérale doit être introduite le plus précocement possible. Une supériorité de l'association nutrition entérale et parentérale par rapport à la parentérale exclusive. Accord 22/24=92%

\* en cas de laceration, fracture ou de rupture du canal pancréatique, il n'est pas clair si l'alimentation entérale est préjudiciable. Des études sont nécessaires. Accord 22/24=92%

#### **2.e: prescription des antibiotiques en pédiatrie en cas de pancréatite aiguë :**

Les antibiotiques n'ont pas de place dans la prise en charge de la PA sauf en cas de nécrose surinfectée documentée, de pancréatite nécrosante et en absence d'amélioration clinique sans antibiothérapie. Les molécules actives au niveau des tissus nécrosés sont les carbapénèmes, les quinolones et le métronidazole.

#### **Recommandation 2 e :**

\* l'antibioprophylaxie n'est pas recommandée dans la pancréatite aiguë grave. Accord 23/24=96%

\* les antibiotiques sont uniquement indiqués en cas de nécrose pancréatique surinfectée.

#### **2.f: la prescription des inhibiteurs des protéases :**

La physiopathologie de la pancréatite aiguë est un processus inflammatoire et nécrosant secondaire à une activation inappropriée de la trypsine et du zymogène pancréatique. Les inhibiteurs des protéases ont été essayés dans quelques études. Deux molécules ont été décrites : gabexate mesilate et aprotinine. Quelques cas pédiatriques ont été rapportés.

#### **Recommandation 2 f :**

actuellement, les anti-protéases ne peuvent pas être recommandés dans la prise en charge de la pancréatite aiguë chez l'enfant. Accord 24/24=100%

#### **2.g: la prescription des anti-oxydants:**

Le stress oxydatif peut aggraver les lésions au cours de la pancréatite aiguë à travers la formation des radicaux libres d'oxygène. Les agents les plus étudiés étaient les vitamines anti-oxydantes (acide ascorbique,  $\alpha$  tocophérol et  $\beta$  carotène) et les anti-oxydants inorganiques (sélénium) et glutamine. Des études menées chez des

adultes ont montré l'intérêt des anti-oxydants dans la réduction de la durée d'hospitalisation et de la survenue de complications. Mais ces études avaient beaucoup de limites. Il n'a pas eu d'études pédiatriques.

#### **Recommandation 2 g :**

Les anti-oxydants ne doivent pas être considérés comme traitement standard de la pancréatite aiguë de l'enfant. Accord 22/24=92%

#### **2.h: la prescription des probiotiques :**

Les probiotiques a été discutés pour leur éventuel rôle dans la prévention de la surinfection de la nécrose grâce au maintien de l'équilibre de la flore intestinale. Les études chez les adultes sont contradictoires. Certaines avaient trouvé une augmentation de la mortalité dans un groupe de patients ayant reçu de multiples espèces de probiotiques.

#### **Recommandation 2 h :**

Les probiotiques ne peuvent pas être recommandés dans la prise en charge de la pancréatite aiguë chez l'enfant. Des publications de haute qualité (à propos de population adulte) suggère qu'ils sont non seulement sans bénéfice mais peuvent aussi augmenter la mortalité. Accord 23/24=96%

#### **2.i: place de l'endoscopie dans la pancréatite aiguë chez l'enfant :**

L'apport de l'endoscopie dans la prise en charge de la pancréatite aiguë n'est pas clair. Il y a quelques cas rapportés de pancréatite aiguë ou chronique associés à l'infection par *Helicobacter pylori*. De très rares cas de tumeur de l'ampoule de Vater révélées par une pancréatite aiguë ont été décrits.

#### **Recommandation 2 i :**

La fibroscopie œsogastroduodénale n'est pas un moyen diagnostique standard dans la pancréatite aiguë de l'enfant. Ses indications doivent être discutées au cas par cas. Accord 24/24=100%

#### **2.j: place de la cholangiopancréatographie rétrograde endoscopique (CPRE) dans la pancréatite aiguë de l'enfant :**

Avec les avancées actuelles de l'imagerie par tomodesitométrie, par résonnance magnétique et par écho endoscopie, le principal apport de la CPRE est thérapeutique : la pancréatite aiguë secondaire à une lithiase de la voie biliaire principale. Ses autres indications sont les lithiases des canaux pancréatiques, le drainage des faux kystes du pancréas et les lésions ductales.

#### **Recommandation 2 j:**

Le rôle de la CPRE dans la prise en charge de la pancréatite aiguë est limité. Elle est indiquée pour la lithiase du cholédoque et pour les pathologies des canaux pancréatiques comme les calculs et les fuites ductales. Accord 24/24=100%.

#### **2.k: place de l'écho endoscopie :**

En se basant sur les cas adultes, l'écho endoscopie peut avoir un apport dans le diagnostic étiologique de la pancréatite aiguë (comme la lithiase de la partie distale de la voie biliaire principale, les tumeurs pancréatiques) et la pancréatite aiguë récurrente. Elle a également un

intérêt thérapeutique dans le traitement des complications de la PA comme les collections pancréatiques et les nécroses kystiques organisées.

#### **Recommandation 2 k :**

L'écho endoscopie n'est pas, en ce moment, considérée comme un outil diagnostique de routine dans la pancréatite aigue. Ses indications doivent être discutées au cas par cas. Accord 24/24= 100%.

#### **2.I: place de la chirurgie dans la pancréatite aigue de l'enfant :**

la littérature est peu riche. Une étude rétrospective sur 19 enfants hospitalisés pour pancréatite aigue d'origine biliaire. Neuf ont eu une cholécystectomie précoce sans complications. Par les 10 autres enfants ayant une chirurgie différée, quatre ont présenté des complications, dont la récurrence de la pancréatite aigue.

#### **Recommandation 2 l :**

\*en cas de pancréatite aigue bénigne non compliquée d'origine biliaire, la cholécystectomie peut être réalisée, en toute sécurité, au cours de la même hospitalisation. Accord 22/24=92%.

\* dans la prise en charge des collections nécrosées et mêmes infectées, la chirurgie doit être évitée et retardée. Les résultats sont meilleurs pour la chirurgie réalisée au delà de 4 semaines. Accord 21/24=88%

\* quand le drainage et la nécrosectomie sont indiqués, les méthodes non chirurgicales (écho endoscopie, CPRE) ou percutanées sont préférables au drainage ou nécrosectomie à ciel ouvert. Accord 24/24=100%.

ciel ouvert. Accord 24/24=100%.

#### **3/ les résultats de la pancréatite aiguë chez l'enfant :**

De façon générales, les résultats sont meilleurs chez l'enfant par rapport à l'adulte. La durée moyenne d'hospitalisation varie entre 2,8 et 8 jours. Elle plus prolongée chez les nourrissons avec en moyenne 19,5 jours. Une nutrition entérale précoce avec une réanimation hydro électrolytique "agressive" sont corrélées à une courte durée d'hospitalisation, un faible taux d'admission en réanimation et un faible pourcentage de formes graves. Dans la majorité des cohortes, la mortalité dans la pancréatite aigue de l'enfant est inférieure à 5%, même chez ceux admis en unité de réanimation. Elle plus élevée quand la PA est associée à une pathologie générale. Les complications précoces sont le dysfonctionnement d'organes et le choc. Les collections liquidiennes aigues péri pancréatiques sont rencontrées à la phase aigue et ont tendance à la résorption spontanée. La fréquence de formation de faux kystes du pancréas varie ente 8 et 41%. Elle est plus fréquente chez les enfants ayant une pancréatite aigue secondaire à un traumatisme abdominal. Les faux kystes sont souvent asymptomatiques. Ils peuvent augmenter de taille et engendrer des douleurs abdominales, des vomissements ou de la fièvre. Dans 10 à 15% des cas, les faux kystes peuvent se surinfecter. Une autre complication tardive de la pancréatite aigue est en rapport avec la nécrose pancréatique. Au début, elle peut se manifester par une collection nécrotique aigue puis secondairement par une nécrose kystique organisée (WON: walled off necrosis). Parmi les options de drainage des

pseudo kystes et des WON, on trouve les moyens endoscopiques, le drainage percutané, la chirurgie laparoscopique ou à ciel ouvert. Le choix dépendra de la taille, la localisation, l'anatomie et le rapport bénéfice risque de chaque méthode. Néanmoins, le drainage percutané et le drainage transgastrique per écho endoscopique est devenu plus répandu et accepté. Environ 15 à 35% des enfants ayant eu une pancréatite aigue auront un autre épisode. La pancréatite aigue récurrente est associée aux anomalies pancréatico-biliaires, à la pancréatite auto-immune, aux troubles métaboliques et à la pancréatite héréditaire.

## **Conclusion**

Les enfants ayant une pancréatite aigue doivent être surveillés afin de guetter les complications locales et générales : le dysfonctionnement d'organe, les collections liquidiennes et la nécrose kystique organisée ou les faux kystes du pancréas. De façon générale, le pronostic est bon avec une très faible mortalité mais avec un taux de récurrence ente 15 et 35%.



# Revue Maghrébine de Pédiatrie

**Instructions aux auteurs :** Edition de janvier 2016

La revue maghrébine de pédiatrie, organe de la Société Tunisienne de Pédiatrie (STP), publie en langue française et anglaise des recommandations pour la pratique clinique, mises au point, articles originaux, faits cliniques, éditoriaux, lettre à la rédaction et des cas du jour.

Elle a pour but de publier des travaux originaux et de formation continue dans les domaines relatifs à la pédiatrie, à la néonatalogie et à la chirurgie pédiatrique.

## Règles de publication :

Tout manuscrit adressé à la revue est soumis à un comité de lecture anonyme propre à chaque rubrique.

Les articles ne doivent pas avoir été publiés antérieurement ni être publiés simultanément dans une autre revue.

Le fait de soumettre un article sous-entend que le travail décrit est approuvé par tous les auteurs.

Enfin, la revue suit les pratiques internationales relatives aux conflits d'intérêt en rapport avec les publications soumises.

## Soumission du manuscrit :

Par email : [cnejja.pers@gmail.com](mailto:cnejja.pers@gmail.com)

## Joindre en pièces attachées :

- un fichier pour la page de titre
- un fichier pour le manuscrit complet (sans page de titre et sans figure)
- un fichier par figure et/ou tableau

## Présentation générale des articles:

Les manuscrits doivent être écrits en double interligne avec une police « Times new roman » TNR n°12 et paginés.

Le manuscrit se compose des éléments décrits ci-dessous :

## Page de titre : elle doit comporter ;

- ☞ Titre de l'article (en évitant les titres long et les sous-titres)
- ☞ Titre en anglais
- ☞ L'initiale du prénom et le nom des auteurs
- ☞ Les coordonnées complètes des services ou laboratoires d'origine et l'université avec l'indication d'appartenance de chacun des auteurs

## Exemple : Azzabi O (1,2),.....

1- Université de Tunis El Manar, Faculté de Médecine de Tunis, 1007, Tunis, Tunisie.

2- Hopital Mongi Slim, Service de Pédiatrie,2046, La Marsa, Tunisie

L'adresse e-mail de l'auteur à qui la correspondance

## Résumé et mots clés :

Chaque article doit être accompagné d'un résumé en français et en anglais à l'exception des Editoriaux et des lettres à la rédaction.

Le résumé en français doit comporter moins de 300 mots, mais doit être suffisamment informatif. Il devra non seulement donner une idée d'ensemble de l'article mais aussi comporter les principaux résultats et les conclusions auxquels sont parvenus les auteurs.

Les mots clés en français et en anglais seront joints aux résumés. Ils permettent l'indexation de l'article et sont proposés par l'auteur, puis établis par le comité de rédaction.

## Recommandations pour la pratique clinique :

le travail d'un des groupes de spécialités membre de la société tunisienne de pédiatrie avec validation extérieure par un groupe de lecture (20 pages références y compris).

**Article original :** il rapporte un travail original de recherche clinique ou expérimentale. Il comporte obligatoirement les chapitres suivants : Matériel et méthodes, résultats, discussion et conclusions. (15 pages et 30 références). Les tableaux sont limités au nombre de 5 et les figures au nombre de 3.

**Fait clinique :** ayant comme objectif de signaler ou de rappeler, à partir d'une ou plusieurs observations originales, une hypothèse physiopathologique, une donnée clinique, un examen complémentaire ou encore un mode de raisonnement susceptibles de rendre service aux cliniciens mis en présence d'une situation similaire (8 pages et 10 références)

**Cas du jour :** deux articles séparés : chacun a une page de titre (4 pages et 5 références et moins de 3 images)

**Premier article :** question

**Deuxième article :** réponse

**Mise au point :** 18 pages et 50 références

**Lettre à la rédaction :** notes brèves originales (pas de résumé, 2 pages et 5 références)

## Références :

Les références doivent être numérotées par ordre d'apparition dans le texte. Leurs numéros d'appel doivent figurer dans le texte entre crochets, séparés par des tirets quand il s'agit de références consécutives, par exemple : [1-3], sauf si elles se suivent : [1,2], et par des virgules quand il s'agit de références non consécutives : [1, 5].

Les références doivent être présentées selon les normes adoptées par la convention de

« Vancouver » (International Committee of Medical Journal Editors. Uniform requirements for manuscripts submitted to biomedical journals. Fifth edition. N Engl J Med 1997; 336 : 309-16).

Jusqu'à six auteurs, ceux-ci doivent être nommément indiqués. Au delà, seuls les six premiers seront cités, suivis de la mention « et al ». La première lettre du nom de l'auteur est en majuscule, les autres en minuscules

## Exemples de références :

### Article de périodique classique :

Auteurs. Titre de l'article. Nom de la revue abrégé. Année de parution; volume (numéro);page début-page fin.

- [1] Prat C, Domínguez J, Rodrigo C, Giménez M, Azuara M, Jiménez O et al. Elevated serum procalcitonin values correlate with renal scarring in children with urinary tract infection. *Pediatr Infect Dis J* 442-438: 22 ;2003.

### Ouvrage :

Auteur(s). Titre du livre. Numéro de l'édition (à partir de la 2<sup>nd</sup>e). Ville: Maison d'édition; Année de publication.

- [2] Darlot C. La modélisation de la fonction motrice. In : Didier JP, dir. La plasticité de la fonction motrice. Paris : Springer-Verlag ; 2009. p. 81-141.

### Chapitre issu d'un ouvrage collectif :

Auteur(s) du chapitre. Titre du chapitre. In: Directeur(s) de la publication, dir. Titre de l'ouvrage. Ville: Maison d'édition; Année de publication. p. page début-page fin du chapitre.

- [3] Delacourt C. Explorations fonctionnelles respiratoires. In : De Blic J, dir. Progrès en Pédiatrie: Pneumologie pédiatrique. Rueil-Malmaison : Doin, 2002.p. 54-47.

### Conférence de consensus ou une recommandation

Organisme auteur/éditeur. Titre de la conférence de consensus ou de la recommandation. Ville : Organisme auteur/éditeur; Année de publication.

- [4] Haute Autorité de Santé. Prise en charge de l'ulcère de jambe à prédominance veineuse hors pansement. Recommandations pour la pratique clinique. Paris : HAS ; 2006.

### Référence consultable sous format électronique:

Auteur(s). Titre de l'article. Nom de la revue en abrégé [En ligne]. Année Mois [Date de citation] ; volume (numéro) : [Nombre de pages]. Disponible à l'URL : <http://>

- [6] Morse S. Factors in the emergence of infectious diseases. *Emerge Infect Dis* [En ligne]. 1995 Juillet [24] : (11);[2010/07/18 pages]. Disponible à l'URL : <http://www.cdc.gov/ncidod/EID/eid.htm>

### Tableaux :

Les tableaux doivent être numérotés en chiffres romains par ordre d'apparition dans le texte ; leur emplacement doit être précisé par un appel entre parenthèses. Ils doivent être inscrits sur une feuille séparée. Ils doivent être accompagnés d'un titre (au dessus) et de toutes les notes nécessaires (au dessous).

### Illustrations :

Les figures (graphiques ou photographies) doivent être numérotées en chiffre arabes entre parenthèses par ordre d'apparition dans le texte. Ils doivent être de qualité irréprochable car ils seront reproduits sans être retouchés. Elles ne doivent pas faire double emploi avec les tableaux et vice-versa. Chaque figure est fournie sur un fichier distinct.

Les figures doivent être fournies de préférences en format TIFF (.tif), ou PDF (.pdf).

### Abréviations :

Les articles doivent comporter le minimum d'abréviations. Seuls les termes acceptés internationalement peuvent être utilisés. Cette abréviation doit apparaître entre parenthèses après la première utilisation du mot ou de l'expression.

### Ethique :

La revue suit les pratiques internationales relatives aux conflits d'intérêts en rapport avec les publications soumises. Toute soumission de manuscrit doit être accompagnée d'une déclaration de conflit d'intérêt.

Un conflit d'intérêt existe quand un auteur et/ou un co-auteur a des relations financières ou personnelles avec d'autres personnes ou organisations qui sont susceptibles d'influencer ses jugements professionnels concernant une valeur essentielle (bien du patient, intégrité de la recherche...). Les principaux conflits d'intérêt étant les intérêts financiers, les essais cliniques, les interventions ponctuelles, les relations familiales...

Tous les auteurs de la publication doivent déclarer toutes les relations qui peuvent être considérées comme ayant un potentiel de conflits d'intérêt uniquement en lien avec le texte publié.

Au cas où il n'existe aucun conflit d'intérêt en lien avec l'article soumis, la mention suivante doit être ajoutée directement dans le manuscrit : Conflit d'intérêt : aucun



الجمعية التونسية لطب الأطفال  
Société Tunisienne de Pédiatrie



