

Observation

Une patiente de 23 ans, suivie depuis 2009 pour une colite ulcérée avec des lésions ano-périnéales récidivantes et rebelles à une antibiothérapie prolongée avec persistance d'un écoulement purulent et des proctalgies intenses. Le diagnostic d'une maladie de Crohn était fortement suspecté avec présence d'une colite granulomateuse à l'histologie. Cependant et devant la fréquence, inhabituellement élevée de granulomes épithélioïdes à l'examen anatomo-pathologique, le diagnostic d'une tuberculose digestive associée à des manifestations ano-périnéales était suspecté. Une enquête tuberculeuse exhaustive était réalisée. Elle était négative hormis la recherche de BK dans les urines qui était positive (2 prélèvements sur 3). Une urographie intraveineuse était normale. Ainsi devant le doute diagnostique, le risque important d'une réactivation d'une tuberculose latente sous immuno-suppresseurs, un traitement antituberculeux était instauré.

L'évolution était défavorable avec aggravation clinique et endoscopique permettant de retenir définitivement le diagnostic d'une maladie de Crohn avec des manifestations ano-périnéales. Ainsi le traitement anti-tuberculeux était arrêté et une corticothérapie pleine dose associée à un traitement par azathioprine était débuté. Le bilan virologique pré azathioprine était négatif (Ac anti HCV -, Ag HBs -, Ac anti HBc -, sérologie HIV -). Une vaccination contre l'hépatite B était indiquée mais non réalisée par la patiente. L'évolution était favorable avec une rémission clinique initiale mais apparition d'une cortico-résistance imposant l'instauration de l'infliximab.

L'évolution était favorable avec rémission clinique et une cicatrisation endoscopique avec adoption d'un traitement d'entretien par imurel et infliximab. Cinq semaines après la septième perfusion d'infliximab, la patiente se présentait avec des douleurs abdominales, des vomissements un syndrome pseudo grippal avec une fièvre à 38,5 °C, motivant son hospitalisation. A l'examen elle avait un bon état d'hydratation, une pâleur conjonctivale, discrète sensibilité abdominale diffuse, tachycarde. A la biologie, on notait une leucopénie à 3700 éléments /mm³, un syndrome inflammatoire biologique avec une CRP à 58 mg, une cytolysé importante prédominante sur les ALAT (ALAT : 70 fois la normale et ASAT 50 fois la normale), une insuffisance hépatocellulaire (TP à 30%) initialement sans cholestase, une tendance à l'hypoglycémie (Glycémie à 3.85 mmol/L. Dans le cadre du bilan étiologique de cette cytolysé hépatique on a complété par bilan immunologique (-) sérologies virales A, C, D, E, CMV et EBV négatives, marqueurs de l'hépatite B : AgHBs +, antiHbc IgG +, antiHbc IgM +. Ainsi le diagnostic d'une hépatite aiguë B sévère était retenue. Un traitement par lamivudine était instauré en urgence en attendant l'accord de l'entécavir associé à un traitement par plasma frais congelé, vitamine K en intraveineux, prévention de l'hypoglycémie et équilibration hydro-électrolytique. Mais l'évolution clinique était marquée par l'installation d'un ictère cholestatique, d'une encéphalopathie hépatique qui s'est aggravée rapidement, d'une chute du TP à 9% l'installation en quelques jours d'un coma profond, de convulsions, et le décès de la patiente 10 jours après. Une transplantation hépatique en urgence était discuté

mais vu la non disponibilité immédiate du greffon elle n'a pas pu être réalisé.

Conclusion

Notre observation illustre le risque majeur de survenue d'hépatite fulminante fatale sous traitement par anti-TNF α . En effet, le recours aux anti TNF entraîne une réplication virale importante en diminuant la réponse immunitaire de l'hôte et expose ainsi à un risque de lésions hépatiques majeures (3). Le bilan pré thérapeutique par les anti-TNF comprend une recherche systématique des marqueurs viraux B et C. Le meilleur traitement demeure préventif par la vaccination systématique et le contrôle de l'efficacité vaccinale chez tout malade atteint d'une maladie de Crohn dès le diagnostic de sa maladie (3).

Références

- 1- Gunda Millonig, Michaela Kern, Othmar Ludwig, Karin Nachbaur, Wolfgang Vogel. Subfulminant hepatitis B after infliximab in Crohn's disease: Need for HBV-screening? World J Gastroenterol 2006;12:974-6.
- 2- Pérez Alvarez R, Diaz Lagares C, Garcia Hernández F, Lopez-Roses L, Brito-Zon P, Pérez-de-Lis M et al. Hepatitis B virus reactivation receiving infliximab in Crohn's disease: a case report and review of the literature. Med Clin (Barc) 2011;6:359-71.
- 3- Debbie M Nathan, Peter W Angus and Peter R Gibson. Hepatitis B and C virus infections and anti-tumor necrosis factor- α therapy: Guidelines for clinical approach. Journal of Gastroenterology and Hepatology 2006;21:1366-71.

Olfa Hellara, Aroua Gueddiche, Aya Hammami, Wissem Melki, Wafa Ben Mansour, Hichem Loghmari, Nabil Ben Chaabène, Fethia Bdioui, Leila Safer, Hammouda Saffar.

Service de Gastro-entérologie, EPS Monastir.

Management of epithelial ovarian tumors in children

Ovarian tumor represents 1 to 2% of all tumors in girls aged less than 16 years old. They represent 60 to 70% of all gynecological tumors in this age. Epithelial tumors are rare in infant even exceptional before puberty. Their frequency varies from 5 to 31% of ovarian tumor (1). We distinguish between benign, borderline or invasive epithelial tumor. Borderline ovarian tumors (BOT) have intermediary morphological criteria between benign and invasive tumor. Usually they have a favorable evaluative profile. Their incidence is up to three times higher in the pediatric age than in adults. Herein, we report a case of 4-year-old girl presenting a bilateral ovarian serous borderline tumor with a non-invasive peritoneal implant.

Case report

A 4-year-old girl was admitted to the hospital because of

abdominal discomfort and an abdominal mass noticed a few months before. There was no history of weight loss. She had a normal premenarchal phenotype. Abdominal and rectal examination revealed a large painless mass of 10cm. This mass was tender and was unattached to the abdominal wall. Ultrasonography confirmed the presence of two cystic masses. The left one measured 9*6 cm with fine calcifications. The right one measured 8*3 cm. a third 4cm cystic mass was also visualized in the retro-uterine space. The two ovaries were not visualized. CT findings confirmed the ovarian origins, and showed bilateral ovarian multicystic tumors (fig1).

Figure 1 : Ct scan showing bilateral ovarian multicystic tumors.



Biological findings revealed a normal rate of ovarian tumor markers (alpha fetoprotein and chorionic gonadotropin hormone) and a high serum level of CA125 (636 IU/ml; normal value < 37 IU/ml).

Laparoscopic exploration showed bilateral ovarian multicystic tumors with surface excrescences which were biopsied (fig2).

Figure 2: Bilateral ovarian multicystic tumors with surface excrescences



Neither normal residual ovarian tissue nor adhesences with other organs was found. Extemporaneous histological exploration concluded to a serous borderline tumor of both ovaries. The retro-uterine cystic mass was therefore considered as an

implant. Ulteriorly, a decision to perform a bilateral salpingo-oophorectomy with excision of the implant by laparotomy was made. Two months later, parents had given their permission, and the intervention was performed. Examination of the pelvis, abdominal walls, diaphragmatic surface, and peritoneum revealed no other peritoneal implants. The girl is in good health at a follow-up period of 3 years and she has remained disease free since that time without further treatment. Measurement of serum CA-125 levels remained normal and abdomino-pelvic ultrasonographic examination never revealed any masses. Pathologic findings showed left and right ovarian masses measured respectively 7 * 5 * 4 cm and 9 * 8.5 * 4.5 cm. The implant measured 4*4*1.5 cm. On cut section, these masses were cystic, multilocular with papillary excrescences on external and inner surfaces. Histologic study of biopsy laparoscopic specimens and samples from both ovarian masses showed cystic spaces occupied by branching papillae with a fibrous stalk containing numerous psammoma bodies and lined by several layers of moderately atypical epithelial cells associated with detached or floating cell clusters. The implant disclosed similar microscopic features and was of the non-invasive type.

Conclusion

Very little is known about the outcome of BOT in premenarchal girls. In fact because of the rarity of epithelial ovarian tumors in the pediatric premenarchal population, data are sparse, especially concerning the borderline tumors. Our literature review found only 4 ovarian borderline tumors in premenarchal girls (1-3-4). To our knowledge, herein we present the second reported case of ovarian borderline serous tumor with bilateral involvement of both ovaries and an apparently unique non-invasive implant. Considering the good prognosis of borderline ovarian tumors, the low incidence of relapse and the high progression free survival, laparoscopic conservative surgery may represent an attractive option for pediatric population.

References

- 1- Deprest J, Moerman P, Corneillie P, et al: Ovarian borderline mucinous tumor in a premenarchal girl: Review on ovarian epithelial cancer in young girls. *Gynecol Oncol* 1992; 45:219
- 2- Cesare Romagnolo a, Angiolo Gadducci b, Enrico Sartori c, Paolo Zola d, Tiziano Maggino. Management of borderline ovarian tumors: Results of an Italian multicenter study. *Gynecologic Oncology* 101 (2006) 255 – 260
- 3- Flotho C, Rućkauer K, Duffner U, et al: Mucinous cystadenoma of the ovary in a 15-year-old girl. *J Pediatr Surg* 2001; 36:E6
- 4- Stankovic Z, Djuricic S, Djukic M, et al: Epithelial ovarian tumors and CA125 in premenarchal girls. *Eur J Gynaecol Oncol* 2006; 27:597
- 5- Ahmed Sekotory M. Ahmed *, Frank Grang Lawton. Borderline ovarian tumours: Current concepts and management. *Reviews in Gynaecological Practice* 5 (2005) 139–151
- 6- Xavier Deffieux, Philippe Morice, Sophie Camatte, Virginie Fourchette, Pierre Duvillard, Damienne Castaigne. Results after laparoscopic management of serous borderline tumor of the ovary with peritoneal implants. *Gynecologic Oncology* 97 (2005) 84–89

Y.kerkeni, A.Ksaa, L.Sahnoun, M. Belghith, I. Krichene, M. Mekki, A. Nouri
Pediatric surgery department, CHU Fattouma bourghiba, 5000 Monastir, Tunisia