

Le syndrome d'ulcère solitaire du rectum. A propos d'une série Tunisienne monocentrique.

Solitary rectal ulcer syndrome. A Tunisian monocentric survey

Ennaifer Rym¹, Elleuch Nour¹, Hefaiiedh Rania¹, Romdhane Hayfa¹, Miloudi Nizar², Ben Nejma Houda¹, Bel Hadj Najet¹, Khalfallah Tahar².

1: Service de Gastro-entérologie. Hôpital Mongi Slim, Tunis. Université de Tunis El Manar Faculté de Médecine de Tunis

2: Service de Chirurgie générale. Hôpital Mongi Slim, Tunis. Université de Tunis El Manar Faculté de Médecine de Tunis

RÉSUMÉ

Prérequis : Le syndrome d'ulcère solitaire du rectum est une affection bénigne et rare de la paroi rectale. Les séries de la littérature occidentale ne sont pas nombreuses, et à notre connaissance, nous ne disposons pas de données Tunisiennes.

Buts : Les buts de notre étude étaient de décrire les caractéristiques épidémiologiques, cliniques, thérapeutiques et évolutives du syndrome de l'ulcère solitaire du rectum.

Méthodes : Etude rétrospective descriptive de 15 patients pris en charge pour un syndrome de l'ulcère solitaire du rectum entre 2001 et 2012. Nous avons recueilli leurs caractéristiques épidémiologiques, cliniques, endoscopiques et anatomopathologiques ainsi que les résultats des explorations fonctionnelles digestives et la prise en charge thérapeutique.

Résultats : Sept hommes et huit femmes ont été inclus (âge moyen: 42,6 ans). Les symptômes étaient dominés par la dyschésie (73%) et les rectorragies (66%). L'aspect endoscopique était un ulcère rectal unique dans 66% des cas. L'anomalie la plus fréquente à la défécographie était une procidence rectale (53%). Seuls sept patients ont eu une manométrie anorectale objectivant un anisme dans 2 cas. Le traitement était chirurgical dans 13 cas, toujours après échec du traitement médical. Une seule patiente a eu une rééducation périnéale. La technique chirurgicale la plus réalisée était la rectopexie par voie abdominale. Après un suivi moyen de 29 mois, parmi les 8 patients opérés, les résultats de la chirurgie étaient favorables dans la moitié des cas.

Conclusion : Dans notre étude, les caractéristiques du syndrome de l'ulcère solitaire du rectum rejoignent celles des séries occidentales, avec néanmoins un accès à la défécographie et la manométrie ano-rectale plus restreint.

Mots-clés

Dyschésie, Rectorragies, Manométrie ano-rectale, Défécographie, Ulcère rectal.

SUMMARY

Background: Solitary rectal ulcer syndrome is an uncommon and benign defecation disorder. Occidental series are scarce and to our knowledge, Tunisian data are not available.

Aims : The aim of this study was to evaluate the clinical, endoscopic and histological spectrum of the solitary rectal ulcer syndrome.

Methods: All the patients diagnosed with solitary rectal ulcer syndrome from January 2001 to 2012 were included in the study. The medical records were reviewed retrospectively to evaluate the clinical spectrum of the patients along with the endoscopic, histological and therapeutic findings.

Results: A total of 15 patients were evaluated: 7 males; mean age 42.6 years. Bleeding per rectum was present in 66% and dyschezia in 73%. Endoscopically, solitary lesion was present in 66% patients. The most frequent dynamic abnormalities shown by defecography were of rectal intussusception (53%). Anorectal manometry was performed in seven cases disclosing dyssynergia in 2 cases. Thirty patients underwent surgery, always after failure of medical treatment and one patient was treated with biofeedback. Rectopexy was the most utilized technic. After a mean follow-up of 29 months, total regression of symptoms was noted in 50% of patients who underwent surgery.

Conclusion: In this cohort, diagnostic and therapeutic spectrum of solitary rectal ulcer syndrome was comparable to occidental features. Nevertheless, accesses to manometry and defecography as well as biofeedback were limited.

Key - words

Dyschezia, Rectal bleeding, Manometry, Defecography, Rectal ulcer.

Le syndrome d'ulcère solitaire du rectum (SUSR) est une affection bénigne de la paroi rectale dont la première description a été faite par Cruveilhier en 1830 [1]. Depuis, sa constatation reste toujours un événement rare à la fois en pratique clinique et dans la littérature scientifique.

Le SUSR se définit principalement par son aspect endoscopique et histologique et survient habituellement chez des adultes jeunes souffrant de troubles de l'évacuation rectale [2].

Du fait de sa faible prévalence, la physiopathologie et la prise en charge thérapeutique du SUSR ne font pas l'objet de recommandations consensuelles. Les séries de la littérature occidentale comportent généralement peu de patients et, à notre connaissance, nous ne disposons pas de données Tunisiennes.

Le but de notre étude était de décrire les caractéristiques épidémiologiques, cliniques, thérapeutiques et évolutives du SUSR d'une série Tunisienne.

MATÉRIEL ET MÉTHODES

Il s'agit d'une étude rétrospective descriptive colligeant les patients pris en charge dans notre hôpital pour un SUSR entre Janvier 2001 et Septembre 2012.

Patients

La recherche des patients a été faite à partir des comptes-rendus de rectoscopie et/ou de coloscopie réalisés au service de Gastro-entérologie et des comptes-rendus opératoires du service de Chirurgie générale entre Janvier 2001 et Septembre 2012. Le diagnostic de SUSR était retenu sur l'association de critères endoscopiques et anatomopathologiques chez des patients se plaignant d'une symptomatologie évocatrice : dyschésie et rectorragies.

Recueil des données

Pour tous les patients inclus, nous avons relevé les données suivantes:

•Données cliniques

L'âge, le sexe,

Les troubles psychiatriques,

La gestité, la parité, le type d'accouchement et la ménopause pour les femmes,

La symptomatologie et la durée d'évolution des troubles,

Les données de l'examen proctologique et périnéal, de l'endoscopie basse et de l'étude anatomopathologique.

- Explorations fonctionnelles

Les résultats des explorations fonctionnelles : défécographie et manométrie ano-rectale ont été précisés. Pour la défécographie, le patient était assis sur un siège radiotransparent, l'ampoule rectale et le sigmoïde distal ont été remplis par de la bouillie barytée homogène reproduisant la consistance des selles molles. L'opacification de l'intestin grêle repérait le niveau du cul de sac de Douglas. Les clichés ont été pris de façon successive : en position indifférente, en effort de retenue, en effort de poussée et après évacuation [2-5].

L'enregistrement des pressions au cours de la manométrie ano-rectale s'est fait à l'aide de sondes anales à ballonnet recueillant les pressions en différents sites et d'un ballonnet de distension rectale. Elle mesurait

ainsi de façon objective et quantitative la fonction sphinctérienne, la sensibilité du rectum, sa fonction de réservoir et le réflexe recto-anal [2,3].

-Modalités thérapeutiques

Le type de traitement et ses résultats ont été recueillis.

-Données évolutives

Le suivi et les cas perdus de vue ont été précisés. La date des dernières nouvelles a été notée. Cette date correspondait à celle de la fin de l'étude soit le 30 Septembre 2012.

Analyse statistique

Les données ont été saisies et analysées au moyen du logiciel Excel. Nous avons calculé des fréquences simples et des fréquences relatives (pourcentages) pour les variables qualitatives. Nous avons calculé des moyennes et déterminé les valeurs extrêmes pour les variables quantitatives.

RÉSULTATS

Données épidémiologiques

Nous avons colligé 15 patients avec un sex ratio égal à 0,87 (7H/8F) d'un âge moyen de 42,6 ans avec des extrêmes allant de 18 à 73 ans. Dix patients étaient directement adressés au service de Chirurgie, 5 ont été au service de Gastro-entérologie. Des antécédents de troubles psychiques étaient retrouvés dans 2 cas : une psychose hallucinatoire chronique et une anxiété généralisée. Des antécédents de troubles neurologiques à type de retard mental étaient notés dans un cas. Parmi les 8 femmes, 4 étaient ménopausées. Deux avaient eu des enfants : une avait eu un seul accouchement par voie basse instrumentale, l'autre, 5 accouchements par voie basse non traumatiques.

Données cliniques

Tous les patients étaient symptomatiques. La dyschésie et les rectorragies étaient les symptômes les plus fréquents. Les symptômes ainsi que leur fréquence sont rapportés dans le tableau 1. Les symptômes évoluaient en moyenne depuis 5 ans avec des extrêmes allant de 6 mois à 12 ans.

Tableau 1 : Fréquence des symptômes

Symptômes	N
Dyschésie	11
Rectorragies	10
Ténesmes	7
Emissions glairo-sanglantes	5
Manoeuvres digitales	5
Faux- besoins	3
Incontinence anale	4
Constipation	5
Prolapsus à la défécation	5

L'examen proctologique et périnéal a montré un prolapsus rectal extériorisé à l'effort de poussée dans 5 cas, une cystocèle grade 1 dans 3 cas et une hystéroptose dans 1 cas. Le toucher rectal a palpé une masse dans 3 cas et une rectocèle dans 3 cas. La contraction sphinctérienne volontaire était jugée faible dans 1 cas et une contraction paradoxale était retrouvée dans 1 cas.

Données endoscopiques et anatomopathologiques

Tous les patients ont eu une rectoscopie ou une coloscopie gauche, la coloscopie était totale dans 7 cas. L'ulcération unique était l'aspect le plus fréquent (10 patients). Une masse polypoïde et un érythème étaient notés dans respectivement 3 et 2 cas. Dans 12 cas, la lésion se situait dans le moyen rectum et dans le bas rectum pour 3 patients. Le siège de la lésion prédominait à la face antérieure du rectum (11 patients), il était postérieur dans 2 cas et circonférentiel dans 2 cas.

Anatomopathologie

L'aspect histologique était évocateur dans tous les cas avec un aspect pseudo-vilieux de la muqueuse rectale et un épithélium ulcéré avec un enduit fibrino-leucocytaire dans 13 cas. Tous les patients avaient un chorion siège de cellules musculaires lisses provenant d'une musculaire fibreuse (Figures 1, 2)

Figure 1: Muqueuse exulcérée, raréfaction des cryptes qui sont tortueuses (Hématoxilline/éosine).

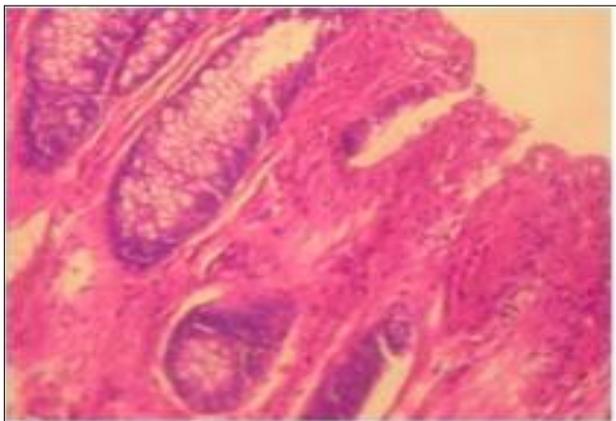
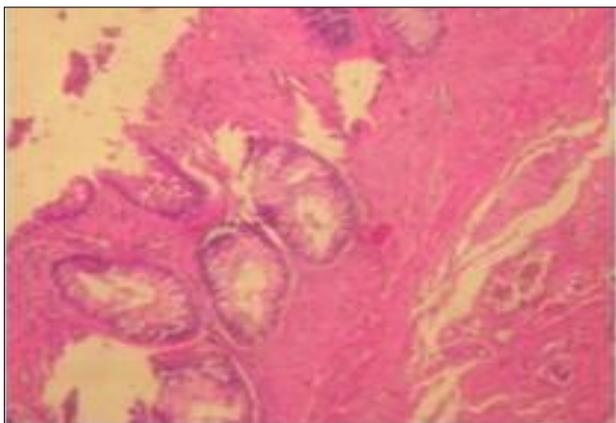


Figure 2: Fibres musculaires lisses infiltrant le chorion (Hématoxilline/éosine).



Explorations fonctionnelles

Une défécographie a été réalisée dans 12 cas (80%). Elle était pathologique dans tous les cas avec une majorité de procidence rectale. Les résultats de la défécographie sont résumés dans le tableau 2 et illustrés dans les figures 3 et 4. La cystocèle grade 1 était confirmée pour les 2 patientes qui ont eu une opacification vésicale devant les constatations de l'examen périnéal. Un patient a eu une déféco-IRM en plus de la défécographie, les résultats étaient concordants montrant une procidence recto-rectale. Une manométrie ano-rectale a été pratiquée dans 7 cas et a montré un anisme dans 2 cas, une diminution du tonus sphinctérien de repos et une compliance rectale diminuée dans respectivement 2 et 4 cas. A noter que pour les deux patients ayant un anisme, la défécographie n'avait pas objectivé de dyssynergie abdomino-périnéale. Aucun patient n'a eu d'électromyographie ni d'échographie endo-rectale.

Figure 3 : Invagination de la paroi rectale dans la lumière rectale à l'effort de poussée réalisant une procidence rectale de bas grade à la défécographie.



Figure 4 : Défécographie : hernie de la paroi antérieure du rectum faisant plus de 2 cm définissant une rectocèle.



Tableau 2 : Résultats de la défécographie

Anomalies	N
Procidence rectal	8
Prolapsus rectal	3
Anisme	1
Vidange rectal incomplète	2
Rectocèle	5
Périnée descendant	2

Données thérapeutiques

Parmi les 15 patients colligés, 14 ont été traités, une patiente est décédée après le diagnostic de la maladie d'une cause non digestive et n'a pas eu de traitement. Tous les patients ont reçu des laxatifs de type osmotique. Un patient a reçu en plus des laxatifs des lavements de corticoïdes. Un seul patient a rapporté une amélioration de la symptomatologie jugée satisfaisante sous laxatifs. Aucun patient n'a eu de rééducation en première intention ou après échec du traitement médical. Treize patients ont été opérés. Une rectopexie a été réalisée dans 12 cas : par voie périnéale type Delorme dans 6 cas et par voie abdominale : selon Orr-Loygue dans 4 cas et Wells dans 2 cas dont une sous coelioscopie. Une patiente a eu des séances de biofeedback après échec du traitement chirurgical permettant une amélioration partielle des symptômes.

Tableau 3 : Indications et résultats du traitement chirurgical parmi les 8 patients suivis en post-opératoire.

Patient	Intervention	Résultats	Suivi
-Homme -34 ans -Procidence de haut grade	Rectopexie selon Wells	-Amélioration initiale -A 3 mois : récurrence faux-besoins et émissions glaireuses	12 mois puis PDV
-Homme -69 ans -Procidence recto-rectale	Delorme	-Amélioration mais constipation de transit confirmée par le temps de transit colique.	6 mois puis PDV
-Homme -22 ans -Procidence recto-rectale et sténose médio-rectale.	Delorme	-Amélioration mais constipation de transit. -A 2 ans post-opératoire : dyschésie, ténésmes, rectorragies avec aspect de rectite congestive. -A 7 ans post-op : récurrence de l'ulcère rectal, biopsies en faveur d'un SUSR.	84 mois puis PDV
-Femme -63 ans -Prolapsus extériorisé	Rectopexie selon Orr-Loygue	-Régression de tous les symptômes, -Rectoscopie à 1 an post-opératoire normale.	60 mois puis PDV
-Homme -21 ans -Prolapsus extériorisé	Rectopexie selon Wells	-Amélioration -A 8 mois post-opératoire : constipation de transit.	12 mois puis PDV
-Femme -35 ans -Pas de procidence ni de prolapsus.	Rectopexie selon Orr-Loygue	-Amélioration initiale -A 2 ans post-opératoire : récurrence des rectorragies avec SUSR confirmé à l'endoscopie et biopsies.	36 mois puis PDV
-Femme -19 ans -Procidence recto-rectale.	Rectopexie selon Orr-Loygue	-Régression des symptômes	3 mois puis PDV
-Femme -53 ans -Prolapsus extériorisé.	Rectopexie selon Orr-Loygue	-Amélioration initiale -A 18 mois post-opératoire : dyschésie et rectorragies -A 7 ans post-opératoire : prolapsus rectal extériorisé avec un aspect de SUSR à l'endoscopie et biopsies. -A 8 ans post-opératoire : Intervention de Delorme : pas de symptômes à 3 mois.	96 mois puis PDV

Suivi

Les patients ont été suivis en moyenne 29 mois (extrêmes : 3-96 mois), délai au terme duquel 12 ont été perdus de vue. Les résultats post opératoires sont connus pour 8 patients et précisés dans le tableau 3. Si on ne considère que les patients suivis, la chirurgie était efficace dans 50% des cas. Pour le reste, la récurrence survenait dans un délai moyen de 18 mois.

DISCUSSION

Notre série, bien que limitée par son nombre de cas, a permis de montrer que le SUSR touche préférentiellement l'adulte jeune et se manifeste essentiellement par des rectorragies et des troubles de l'évacuation rectale. Notre prise en charge essentiellement chirurgicale s'explique par le lieu de recrutement des malades.

Les caractéristiques épidémiologiques, cliniques, morphologiques et thérapeutiques du SUSR de notre étude rejoignent les séries occidentales, avec néanmoins un accès à la défécographie et la manométrie ano-rectale plus restreint.

En effet, le SUSR touche presque équitablement l'homme et la femme avec néanmoins une discrète prédominance féminine [6]. C'est le cas de notre série. Le pic d'incidence se situe entre 30 et 40 ans mais peut s'observer à tous les âges, aussi bien les enfants que les personnes âgées [7]. Dans notre série, l'âge moyen était de 42,6 ans. Comme

pour dans notre cohorte, des troubles d'ordre psychiatriques sont retrouvés dans 10 à 20% des cas.

Sur le plan symptomatologique, les rectorragies constituent le signe le plus fréquent et sont présents dans 56% à 100% dans les séries occidentales [2,6-9]. Les troubles de l'exonération avec un recours quasi –constant aux manœuvres endo-anales défécatoires sont nécessaires au diagnostic du SUSR. Tous nos patients étaient symptomatiques, pourtant il a été rapporté que jusqu'à 26% des patients pouvaient être totalement asymptomatiques [9]. L'examen proctologique et périnéal peut trouver un trouble de la statique pelvirectale associé. Sa fréquence est diversement appréciée dans la littérature mais sa reconnaissance est un argument important pour le diagnostic [3]. Un prolapsus rectal extériorisé est retrouvé dans 11 à 27% des cas dans la littérature occidentale, il est de 46,6 % dans notre série, cette prévalence élevée est probablement expliquée par le biais de recrutement des patients qui ont été adressés en chirurgie. Le toucher rectal perçoit habituellement une zone anormale épaissie à la partie basse et antérieur du rectum, mais peut également percevoir une masse polypoïde, un bourrelet circulaire voire une sténose. Il peut même être normal dans 35% des cas [3,7]. L'aspect endoscopique classique est celui d'un ulcère plan ou superficiel, le plus souvent suspendu, reposant sur un socle d'allure scléreuse avec une muqueuse péri-ulcéreuse congestive limitée en bordure de l'ulcère. La lésion est typiquement antérieure ou antéro latérale entre 4 et 10 cm de la marge anale et étendue de quelques millimètres à plusieurs centimètres. Malgré la dénomination d'ulcère solitaire, et comme pour notre série, des ulcérations multiples se voient dans 30% des cas [6]. Des formes polypoïde et une rectite érythémateuse ou nodulaire peuvent se voir dans respectivement 25% et 18% des cas [6]. L'étude anatomopathologique est un élément important au diagnostic car elle permet d'éliminer une affection inflammatoire ou néoplasique et de regrouper les arguments en faveur du SUSR, dans notre série elle était nécessaire à l'établissement du diagnostic. Les explorations fonctionnelles digestives, notamment la défécographie et la manométrie ano-rectale prennent toutes leur importance dans le SUSR et interviennent à chaque étape de la prise en charge : compréhension des mécanismes physiopathologiques, diagnostic positif et traitement

par biofeedback. Cependant elles n'ont été pas systématiques pour nos patients et ce du fait d'un défaut d'accessibilité à ces techniques. La stratégie thérapeutique n'est pas consensuelle mais ses principes reposent sur la correction des deux principales anomalies intervenant dans sa physiopathologie : règles hygiéno-diététiques et laxatifs, rectopexie en cas de procidence ou prolapsus, et biofeedback en cas de dyssynergie. Dans notre série, il y avait un échec quasi constant du traitement médical mais ceci est certainement biaisé par le fait que les patients sont le plus souvent adressés en chirurgie pour échec du traitement conservateur. Des petites séries prospectives et rétrospectives ont rapporté l'efficacité du biofeedback avec une diminution des efforts de poussée, du recours aux manœuvres digitales et aux laxatifs [10,11]. Nous ne pouvions pas en juger de son efficacité pour nos patients du fait de l'absence de disponibilité de cette technique dans nos structures hospitalières. De ce fait nous avons eu rapidement recours au traitement chirurgical, qui classiquement, s'impose soit d'emblée en raison d'un trouble de la statique de type prolapsus ou procidence de haut grade, soit secondairement en raison de l'échec des traitements conservateurs. Différents techniques sont proposées, visant l'ulcère lui-même ou le trouble de la statique rectale associée et présumé responsable [3,7]. Les résultats du traitement aussi bien médical que chirurgical sont inconstants. La proportion de malades tirant un bénéfice thérapeutique de la chirurgie concerne environ 60% des patients, ce qui correspond globalement aux résultats de notre série [2].

CONCLUSION

Dans cette étude, les caractéristiques épidémiologiques, cliniques, morphologiques et thérapeutiques du SUSR rejoignent celles des séries occidentales, avec néanmoins un accès à la défécographie, à la manométrie ano-rectale et à la rééducation plus restreint. Nous confirmons l'intérêt d'avoir un accès aisé aux explorations fonctionnelles telles que la défécographie et la manométrie ano-rectale qui nous permettraient d'améliorer la prise en charge du SUSR à toutes étapes.

Références

1. Cruveilhier J. Ulcère chronique du rectum. Anatomie pathologique du corps humain. Paris :JB Bailliere 1838.
2. Siproudhis L, Panis Y, Bigard MA. Traité des maladies de l'anus et du rectum. Paris :Ed Elsevier-Marson 2006.
3. Gallot D et Maurel J. Troubles de la statique rectale. Syndrome du prolapsus rectal. Encycl Med Chir, Gastro-entérologie, 9-080-A-10, 2003, 18p.
4. Siproudhis L. Défécographie. Acta endoscopica 2002;32:305-10.
5. Schmutz G, Beljean B, Arhan P, Schwartz C, Regent D, Devroede G. Défécographie: technique d'imagerie de la défécation et de ses désordres fonctionnels. Encycl Med Chir, Radiologie, 33-480-A-10, 1998, 16p.
6. Sharara AI, Azar C, Amr SS, Haddad M, Eloubeidi MA. Solitary rectal ulcer syndrome: endoscopic spectrum and review of the literature. Gastrointest Endoscopy 2005; 62:755-62.
7. Meurette G, Regenat N, Frapas E, Sagan C, Le Borgne J, Lehur PA. Le syndrome de l'ulcère solitaire du rectum. Gastroenterol Clin Biol 2006;30:382-90.
8. Abid S, Khawaja A, Bhimani SA, Ahmad Z, Hamid S, Jafri W. The clinical, endoscopic and histological spectrum of the solitary rectal ulcer syndrome: a single-center experience of 116 cases. BMC Gastroenterology 2012;12:72
9. Tjandra JJ, Fazio VW, Petras RE, Lavery IC, Oakley JR, Milsom JW. Clinical conundrum of solitary rectal ulcer. Dis Colon Rectum 1992;35: 227-34.
10. Rao SS, Ozturk R, De Ocampo S, Stessman M. Pathophysiology and role of biofeedback therapy in solitary rectal ulcer syndrome. Am J Gastroenterol 2006; 101:613-8.
11. Malouf AJ, Vaizey CJ, Kamm MA. Results of behavioral treatment (biofeedback) for solitary rectal ulcer syndrome. Dis Colon Rectum 2001;44: 72-6.