

Dysphagie et sténose œsophagienne récidivante associée à une pseudodiverticulose intramurale de l'œsophage. A propos d'un cas clinique

Dysphagia and recurrent esophageal stenosis associated with intramural pseudodiverticulosis of the esophagus. A case report

D. Ifrim¹, F. Rickaert² et M. Van Gossum³

¹Etudiant en Médecine ULB, ²Anatomie pathologique, Laboratoire CMP, 1070 Bruxelles,

³Service de Gastroentérologie, C.H.U. Saint-Pierre

RESUME

Nous discutons le cas clinique d'un patient présentant une dysphagie récidivante avec épisodes d'impaction alimentaire secondaires à une sténose œsophagienne bénigne associée à une pseudodiverticulose intramurale de l'œsophage. Sur base d'une revue de la littérature, nous revoyons la symptomatologie, la pathogénie, le traitement et l'évolution de cette affection rare qui doit faire partie du diagnostic différentiel d'une sténose œsophagienne. L'intérêt de notre cas clinique réside dans un suivi prolongé de 10 ans.

Rev Med Brux 2010 ; 31 : 529-32

ABSTRACT

Intramural pseudodiverticulosis of the esophagus is a rare benign disease of the esophageal wall, with dilation of the submucosal glands, and the predominant symptom is dysphagia.

This disorder may be associated with gastroesophageal reflux, motility disorders, candidiasis and alcoholism.

Inflammation, resulting in periductal fibrosis and compression of the duct orifices, may be a causative factor.

Good and long-lasting therapeutic success can be achieved by bouginage of the stenosis with concomitant treatment of the associated esophageal diseases.

Esophageal intramural pseudodiverticulosis is a differential diagnosis in cases of dysphagia and/or esophageal strictures if no other causes are found.

Rev Med Brux 2010 ; 31 : 529-32

Key words : intramural pseudodiverticulosis, esophageal stenosis

HISTOIRE CLINIQUE

L'histoire clinique est celle d'un patient âgé de 73 ans, d'origine belge, et débute il y a 10 ans par des plaintes de dysphonie avec une gêne rétrosternale irradiant entre les omoplates et des épisodes de dysphagie lors de la prise de café, de vin ou de certains aliments solides.

L'appétit est conservé et le poids est stable.

Le patient a bénéficié d'un triple pontage en 1993 et présente un diabète de type 2.

Le traitement consiste en Daonil® et Asaflow®. Le patient a stoppé un tabagisme actif (20-40 cigarettes/j) depuis 2 ans et consomme 50 à

70 g d'alcool/j depuis plus de 30 ans.

Une endoscopie digestive haute montre une œsophagite de reflux de grade 1 selon Savary-Miller, associée à une hernie hiatale par glissement de 3 cm et des plages microérosives recouvertes de dépôts blanchâtres dans les 1/3 moyen et inférieur compatibles avec une œsophagite infectieuse. Les biopsies confirment une œsophagite avec surinfection mycotique.

Traité par inhibiteurs de la pompe à protons (IPP) et anti-fongiques, le patient consulte à nouveau 18 mois plus tard pour un épisode d'impaction alimentaire.

Le contrôle endoscopique montre une substénose du 1/3 moyen et décrit de multiples petits orifices punctiformes dans les 2/3 supérieurs. Un transit œsophagien baryté montre de multiples petits diverticules intramuraux évocateurs du diagnostic de pseudodiverticulose intramurale de l'œsophage (PDIO) (figure).

L'aggravation des symptômes de dysphagie va justifier 2 mois plus tard une première dilatation par bougies de type Sarary. L'évolution clinique va se caractériser par une dysphagie récidivante avec 2 autres épisodes d'impaction alimentaire justifiant 8 séances de dilatation par bougies ou ballon entraînant systématiquement des lacérations importantes de la paroi œsophagienne. De multiples biopsies n'ont montré ni dysplasie ni surinfection mycotique.

Une tomodensitométrie du médiastin n'a pas montré d'anomalies significatives.

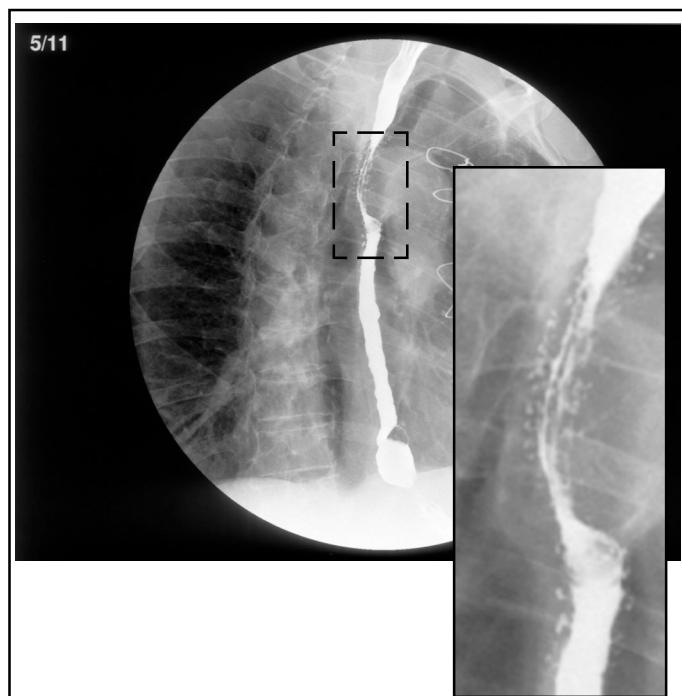


Figure : Radiographie de l'œsophage baryté : fines images d'addition en tête d'épingle de 1 à 5 mm de longueur, perpendiculaires à l'axe de la lumière œsophagienne, situées à hauteur d'une sténose localisée dans la partie distale du 1/3 supérieur de l'œsophage et correspondant aux pseudodiverticules intramuraux.

Le traitement consiste en la prise prolongée d'IPP et une nouvelle dilatation œsophagienne par voie endoscopique en cas de récurrence de la dysphagie.

Notre observation décrit un cas rare de pseudodiverticulose intramurale de l'œsophage avec un suivi clinique et endoscopique de 10 ans caractérisé par la survenue d'une sténose bénigne, symptomatique et récidivante traitée par dilatations endoscopiques itératives.

DISCUSSION

La PDIO est une affection rare dont le premier diagnostic fut établi radiologiquement par Mendl en 1960 et consiste en une dilatation kystique des glandes et canaux excréteurs sous-muqueux¹. Depuis lors, moins de 200 cas ont été rapportés dans la littérature internationale.

Elle apparaît à tout âge avec une fréquence plus grande entre 50 et 70 ans et une prédominance masculine (*sex ratio* 3/2)²⁻⁴. Selon une étude menée par Levine, la prévalence de la PDIO est de 0,15 % dans une série de 14.350 examens radiologiques de l'œsophage⁵.

La localisation est segmentaire, essentiellement dans le 1/3 supérieur, dans 59 % des cas et diffuse dans 41 % des cas⁴.

La PDIO peut être asymptomatique et découverte fortuitement lors d'un examen de l'œsophage par transit baryté ou endoscopie. Le symptôme le plus fréquent est la dysphagie, constante ou intermittente, le plus souvent progressive, secondaire à l'apparition d'une sténose œsophagienne. La sténose peut se manifester par des épisodes d'impaction alimentaire³.

L'intensité de la dysphagie n'est proportionnelle ni au nombre de diverticules ni à l'étendue des lésions.

Des complications plus sévères ont rarement été décrites :

- hémorragie digestive haute ;
- médiastinite sur perforation et/ou fistule³.

L'examen radiologique avec transit baryté - de préférence en double contraste - est spécifique en mettant en évidence de petits diverticules en forme de tête d'épingle, de 1 à 5 mm de longueur, perpendiculaires à l'axe de la lumière œsophagienne. L'examen baryté démontre également l'existence d'une éventuelle sténose œsophagienne.

L'examen endoscopique permet d'observer de multiples orifices diverticulaires punctiformes de même que les sténoses œsophagiennes³. Les biopsies permettent de confirmer une surinfection mycotique ou herpétique, une dysplasie ou la survenue d'un cancer œsophagien.

Les biopsies muqueuses superficielles n'ont rien de spécifique.

La tomodynamométrie peut montrer une lumière irrégulière en cas de sténose, une paroi épaissie, de multiples petites poches intramurales ou une éventuelle lésion proliférative parfois associée à l'affection⁶.

L'échoendoscopie met en évidence un rétrécissement de la muqueuse et de la sous-muqueuse ainsi que des zones hypoéchogènes dues aux diverticules intramuraux⁷.

La manométrie œsophagienne montre des anomalies non spécifiques dans 3/4 des cas⁸.

Des biopsies transmurales de la paroi œsophagienne montrent une dilatation des glandes sous-muqueuses et des canaux excréteurs associée souvent à :

- une obstruction de la lumière par des squames, du mucus ou des cellules inflammatoires ;
- une réaction inflammatoire et de la fibrose en périphérie des glandes ;
- une colonisation secondaire par du *Candida albicans*.

Les glandes et canaux dilatés sont recouverts d'un épithélium squameux stratifié qui apparaît parfois hyperplasique.

L'étiologie de la PDOI reste peu claire et plusieurs causes ont été évoquées : anomalies de la sécrétion glandulaire, troubles moteurs ou inflammation chronique. Cette dernière hypothèse est la plus probable eu égard à l'association de la PDOI avec les facteurs suivants^{3,9-11} :

- infection mycotique ou herpétique de la muqueuse œsophagienne ;
- reflux acide gastro-œsophagien ;
- consommation d'alcool ;
- œsophagite à éosinophiles¹² ;
- une association de la PDOI est également décrite avec le diabète qui pourrait s'expliquer par le biais de la survenue plus fréquente de surinfection mycotique ou de troubles moteurs¹³.

Dans le cas clinique décrit, on retrouve ainsi plusieurs facteurs responsables d'une inflammation chronique de la muqueuse œsophagienne. Si les biopsies muqueuses sont trop superficielles pour se prononcer sur une composante ischémique, les rares biopsies transmurales effectuées sur pièce opératoire et décrites dans la littérature ne soutiennent pas cette hypothèse.

La prévalence de la PDOI est plus importante en cas de cancer œsophagien probablement par le biais de facteurs causaux communs : alcool, reflux acide, sexe masculin¹⁴.

Inversement, la survenue plus fréquente de

cancer œsophagien en cas de PDOI faisant de celle-ci un facteur de risque en elle-même reste controversée.

Dans le cas décrit de PDOI, il est à noter que l'endoscopie initiale, qui remonte à plus de 10 ans, décrivait une œsophagite d'allure infectieuse confirmée comme étant mycotique sans lésions diverticulaires ni sténosantes.

L'évolution clinique s'est caractérisée par une dysphagie progressive avec plusieurs épisodes d'impaction alimentaire. Sur le plan endoscopique et radiologique, on a noté l'apparition de multiples lésions diverticulaires surtout du 1/3 supérieur et d'une sténose concentrique fibreuse récidivante, justifiant plusieurs dilatations par bougies ou ballon.

Le traitement médical de la PDOI est non spécifique :

- traitement par inhibiteurs de la pompe à protons en cas de reflux gastro-œsophagien¹⁵ ;
- traitement antifongique en cas d'infection à *Candida albicans*^{3,15} ;
- traitement par corticoïdes topiques (exemple : fluticasone ou budésonide dégluti et non inhalé) en cas d'œsophagite à éosinophiles¹² ;
- les inhibiteurs calciques (exemple : diltiazem) ont été proposés à titre symptomatique mais les rares études cliniques réalisées pour les spasmes diffus de l'œsophage n'ont pas démontré de résultats significatifs^{3,10,15} ;
- réduction de la consommation d'alcool ;
- mesures diététiques en cas de sténose œsophagienne pour éviter l'impaction alimentaire.

En présence de sténose œsophagienne significative, la dilatation endoscopique par bougies de Savary ou par ballon est le traitement de choix et est efficace dans 95 % des cas^{3,7}.

Le risque principal des dilatations est une perforation avec médiastinite secondaire¹⁶.

La chirurgie n'est à envisager qu'en cas d'échec des dilatations endoscopiques ou en cas de complication. Deux techniques s'offrent au chirurgien : une œsophagectomie avec remplacement œsophagien par un tube gastrique ou une coloplastie, ou une coloplastie rétrosternale sans œsophagectomie¹⁷.

CONCLUSION

La PDOI est une affection rare caractérisée par une dilatation des glandes et des canaux excréteurs sous-muqueux probablement secondaire à une inflammation chronique associée à différents facteurs notamment infectieux.

La dysphagie - avec éventuelle impaction alimentaire - en est le principal symptôme faisant de la PDOI un des diagnostics différentiels à évoquer.

Le diagnostic repose sur le transit œsophagien baryté et l'endoscopie digestive.

Outre le traitement des pathologies associées, la dilatation endoscopique des sténoses est le principal traitement. Une solution chirurgicale est exceptionnellement indiquée en cas d'échec des dilatations ou de complications.

BIBLIOGRAPHIE

1. Mendl K, McKay JM, Tarmer CH : Intramural diverticulosis of the esophageus and Rokitansky-Asscheff sinuses in the gall bladder. *Br J Radiol* 1960 ; 33 : 496
2. Bhattacharya S, Mahmud S, McGlinchey I, Nasar AH : Intramural pseudodiverticulosis of esophagus. *Surg Endosc* 2002 ; 16 : 714-5
3. Hahne M, Schilling A, Arnold JC, Riemann JP : Esophageal intramural pseudodiverticulosis. Review of symptoms including upper gastrointestinal bleeding. *J Clin Gastroenterol* 2001 ; 33 : 378-82
4. Sabanathan S, Salama FD, Morgan WE : Esophageal intramural pseudodiverticulosis. *Thorax* 1985 ; 40 : 849-57
5. Levine MS, Moolten DN, Herlinger H, Laufer I : Esophageal intramural diverticulosis : a reevaluation. *Am J Roentgenol* 1986 ; 147 : 1165-70
6. Pearlberg JL, Sandler MA, Madrazo BL : Computed tomographic features of esophageal intramural pseudodiverticulosis. *Radiology* 1983 ; 147 : 189-90
7. Yoshimoto T, Suzuki K, Yazumi S *et al.* : Esophageal intramural pseudodiverticulosis. *Gastrointest Endosc* 2004 ; 59 : 691-2
8. Murney RG Jr, Linne JH, Curtis J : High-amplitude peristaltic contractions in a patient with esophageal intramural pseudodiverticulosis. *Dig Dis Sci* 1983 ; 28 : 843-7
9. Herter B, Dittler HJ, Wuttge-Hannig A, Siewert JR : Intramural pseudodiverticulosis of the esophagus : a case series. *Endoscopy* 1997 ; 29 : 109-13
10. Flora KD, Gordon MD, Lieberman D, Schmidt W : Esophageal intramural pseudodiverticulosis. *Dig Dis* 1997 ; 15 : 113-9
11. Yamamoto N, Nakamura M, Tachibana S, Konno H, Nakamura S, Nishino N : Esophageal intramural pseudodiverticulosis with Mallory-Weiss syndrome : report of a case. *Surg Today* 2002 ; 32 : 519-22
12. Engel MA, Raithe M, Amann K, Gress H, Hahn EG, Konturek PC : Rare coincidence of eosinophilic esophagitis with esophageal stenosis and intramural pseudodiverticulosis. *Dig Liver Dis* 2008 ; 40 : 700-6
13. Zimmer T, Tschiedrich M, Ritz JP *et al.* : Intramural pseudodiverticulosis of the esophagus. *Z Gastroenterol* 1997 ; 35 : 939-44
14. Plavsic BM, Chen MY, Gelfand DW *et al.* : Intramural pseudodiverticulosis of the esophagus detected on barium esophagograms : increased prevalence in patients with esophageal carcinoma. *AJR Am J Roentgenol* 1995 ; 165 : 1381-5
15. Lax JD, Haroutiounian G, Attia A : An unusual case of dysphagia : esophageal intramural pseudodiverticulosis. *Am J Gastroenterol* 1986 ; 81 : 1002-4
16. Brenke D, Wanzar I, Will U : Esophageal intramural pseudodiverticulosis with symptomatic stricture : mediastinitis and papillomatosis as a complication of endoscopic intervention. *Endoscopy* 2006 ; 38 : 764
17. Elabsi M, Echarrab M, Oudanane M, El Ounani M, Chkoff R, Zizi A : La pseudo-diverticulose œsophagienne. *Ann Chir* 2002 ; 127 : 637-40

Correspondance et tirés à part :

M. VAN GOSSUM
C.H.U. Saint-Pierre
Service de Gastroentérologie
Rue Haute 322
1000 Bruxelles
E-mail : marc_vangossum@stpierre-bru.be

Travail reçu le 29 décembre 2009 ; accepté dans sa version définitive le 29 octobre 2010.