

DIROFILARIOSE SOUS-CUTANÉE À *DIROFILARIA REPENS* EN TUNISIE : UNE OBSERVATION À LOCALISATION SCROTALE

A. SOUISSI, F. FARAH KLIBI, R. ZERMANI, S. RAMMEH, O. ISMAIL, A. ZAKRAOUI, K. ATALLAH,
S. BEN JILANI

Med Trop 2004; 64 : 375-378

RÉSUMÉ • La dirofilariose sous-cutanée à *Dirofilaria repens* est une anthroponose rare et bénigne, rencontrée exclusivement dans l'ancien monde, notamment en Italie. Le chien constitue le réservoir de cette filaire et le parasite est accidentellement transmis à l'homme suite à une piqûre d'insecte. Nous présentons l'observation d'un jeune homme âgé de 27 ans résidant dans une région rurale du Nord de la Tunisie, qui consultait pour un nodule sous-cutané scrotal simulant un abcès. L'examen anatomopathologique de la pièce d'exérèse révélait de façon inattendue la présence de sections parasitaires, dont l'examen morphologique avait conduit au diagnostic de dirofilariose sous-cutanée à *D. repens*. Cette nouvelle observation de dirofilariose sous-cutanée scrotale à *Dirofilaria repens*, représente le sixième cas rapporté en Tunisie et permet de rappeler la présence de cette parasitose dans notre pays, où sa fréquence est probablement sous-estimée. Dans cette localisation exceptionnelle, le diagnostic différentiel peut se poser avec un processus néoplasique ou simuler une urgence chirurgicale. L'exérèse permet en même temps le diagnostic et le traitement de cette affection.

MOTS-CLÉS • Nodule sous-cutané - *Dirofilaria repens* - Scrotum - Tunisie.

SUBCUTANEOUS DIROFILARIASIS DUE TO *DIROFILARIA REPENS* IN TUNISIA: A CASE INVOLVING THE SCROTUM

ABSTRACT • *Dirofilariasis* is a rare anthroponotic disease encountered only in the old world with most cases having been reported from Italy. The dog is the reservoir of this parasite. Man is accidentally infected by mosquitoes. We report the case involving a 27-year-old man living in a rural region of northern Tunisia who presented with a subcutaneous abscess-like scrotal nodule. Microscopic examination of the surgical specimen unexpectedly revealed parasitic involvement. Morphologic examination led to diagnosis of subcutaneous dirofilariasis due to *Dirofilaria repens*. This case of subcutaneous dirofilariasis brings the total number of cases reported in Tunisia to 6 and is a reminder that this parasitic disease is present in our country and that its incidence is probably underestimated. The scrotum is a rare location that poses the problem of differential diagnosis with malignant tumor or can simulate a surgical emergency. Excision allows diagnosis and treatment.

KEY WORDS • Subcutaneous nodule - *Dirofilaria repens* - Scrotum - Tunisia.

La dirofilariose sous-cutanée est une zoonose cosmopolite, rare et bénigne chez l'homme, réalisant des atteintes sous-cutanées et plus rarement viscérales. Le sous-genre *Dirofilaria Nochiella repens* (*D. repens*) sévit exclusivement dans l'ancien monde et particulièrement autour du bassin méditerranéen où il constitue le principal agent des dirofilarioses humaines. Le diagnostic est anatomopathologique, permettant l'identification de la filaire avec sa cuticule striée caractéristique. Nous rapportons un nouveau cas de dirofilariose sous-cutanée scrotale à *D. repens*. Il s'agit du 6^e cas répertorié en Tunisie toutes localisations confondues et du deuxième cas à localisation scrotale.

• Travail du Service d'anatomie et de cytologie pathologiques (A.S., Interne en dermatologie; F.F.K., S.R., Assistantes hospitalo-universitaires en anatomie et cytologie pathologiques; R.Z., Professeur agrégé en anatomie et cytologie pathologiques; O.I., A.Z., Spécialistes en anatomie et cytologie pathologiques; S.B.J., Chef de service) Hôpital Charles Nicolle, Tunis, Tunisie et du chirurgien de libre pratique (K.A., Spécialiste en chirurgie) Tunis, Tunisie.

• Correspondance : F. FARAH KLIBI, Laboratoire d'anatomie et de cytologie pathologiques, Hôpital Charles Nicolle, Boulevard 9 avril 1938, Code postal : 1006, Tunis, Tunisie.

• Courriel : amel_souissi@yahoo.fr

• Article reçu le 09/02/2004, définitivement accepté le 16/09/2004.

OBSERVATION

Jeune homme tunisien âgé de 27 ans, berger, résidant à Utique, ville rurale au nord du pays, sans antécédent particulier. Il présentait depuis plusieurs mois, un nodule sous-cutané scrotal droit, asymptomatique et peu évolutif. Il consultait en avril 2001 devant l'augmentation du volume de ce nodule, qui est devenu chaud et douloureux. L'examen somatique retrouvait une tuméfaction sous-cutanée de 2,5 cm de diamètre, sensible, inflammatoire et peu mobile par rapport aux plans superficiel et profond. Il n'y avait pas d'adénopathie satellite et le reste de l'examen physique était normal. Les examens hématologiques de routine étaient sans anomalie. Le diagnostic d'abcès scrotal était suspecté et le patient était opéré en urgence.

L'examen macroscopique de la pièce d'exérèse montrait une formation de consistance mi-solide mi-kystique centrée par des débris nécrotiques. L'examen histopathologique montrait, dans le derme profond, une réaction granulomateuse associant des lymphocytes, des plasmocytes et de nombreux polynucléaires neutrophiles réalisant des abcès (Fig. 1). Au sein de ce granulome plusieurs coupes transversales et longitudinales d'un ver rond étaient retrouvées.

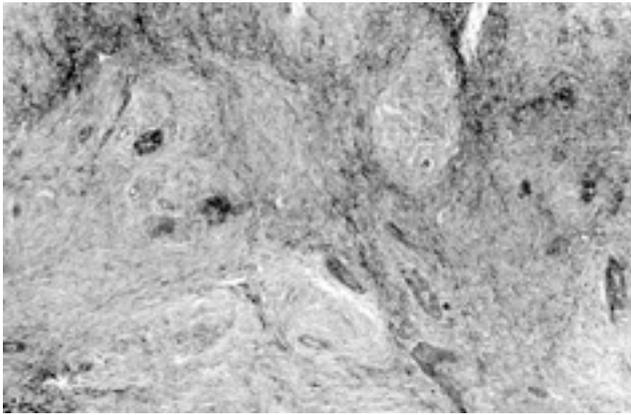


Figure 1 - Réaction inflammatoire granulomateuse avec abcès (HE X 200).

Ces sections comportaient une cuticule épaisse et une couche musculaire de type polymyaire bien développée délimitant une cavité pseudocœlomique contenant deux tubes utérins dépourvus de microfilaires (Fig. 2). Ceci cadrerait avec l'aspect d'un nématode adulte femelle correspondant à une filaire immature. L'étude des différents paramètres morphologiques avait permis d'identifier l'espèce *D. repens* : le diamètre mesurait 400 µm et l'épaisseur de la cuticule variait entre 7,5 et 15 µm. Cette cuticule d'aspect festonné caractéristique, était hérissée au niveau de sa couche la plus externe de crêtes longitudinales dont la hauteur était de 5 µm et l'écartement variait entre 12 et 15 µm (Fig. 3).

L'interrogatoire rétrospectif confirmait l'absence de séjour à l'étranger et révélait, en outre, la présence d'un nombre élevé de chiens dans la région et la concentration très abondante de moustiques durant la saison chaude. Le diagnostic de dirofilariose sous-cutanée à *D. repens* permettait de rassurer le patient et de n'instituer aucune thérapeutique supplémentaire.

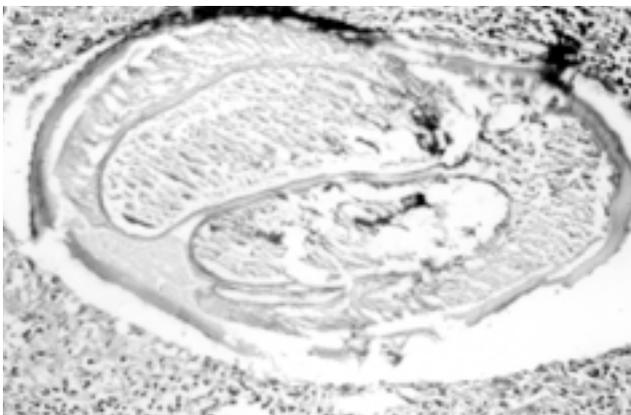


Figure 2 - Section transversale de *D. repens*; cuticule épaisse mamelonnée, structure musculaire bien développée et deux cavités utérines (HE x 200)

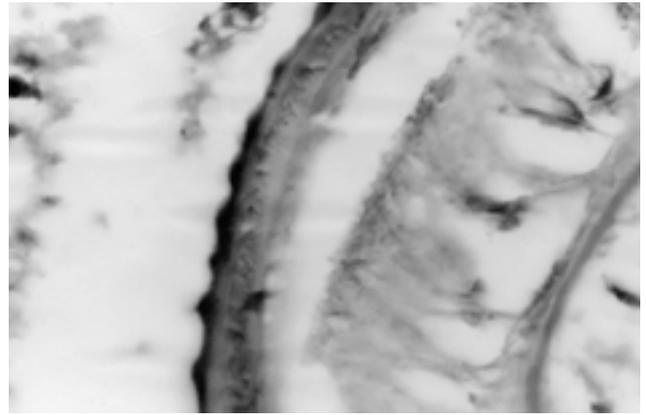


Figure 3 - Cuticule : mise en évidence au fort grossissement des stries longitudinales externes caractéristiques (HE X 400).

DISCUSSION

En dehors des zones où sévissent les filarioses exotiques humaines, plus de 27 espèces de filaires habituellement parasites des animaux domestiques ou sauvages peuvent se transmettre accidentellement à l'homme. Dans l'ancien monde et particulièrement dans le pourtour méditerranéen, seules deux espèces peuvent infester l'homme : essentiellement le sous-genre *Nochtiella* représenté par *Dirofilaria repens* (*D. repens*) et également le sous-genre *Dirofilaria* représenté par *Dirofilaria immitis* (*D. immitis*) (1).

D. immitis, filaire cosmopolite, est l'agent de la dirofilariose humaine pulmonaire et plus exceptionnellement d'autres localisations viscérales. *D. repens* est, quant à elle, répandue en Asie, en Europe, en Afrique et particulièrement autour du bassin méditerranéen. Elle est à l'origine d'atteintes sous-cutanées ou conjonctivales (d'où l'ancienne dénomination de *D. conjunctivae*), plus rarement génitales, péritonéales, voire même pulmonaires (1, 2). Notre observation décrit un nématodose bénigne, rare mais aujourd'hui de mieux en mieux documentée : la dirofilariose sous-cutanée à *D. repens*.

Dans le cycle reproductif des dirofilaires, l'hôte définitif est un mammifère carnivore (surtout le chien). L'hôte intermédiaire et vecteur est un diptère de la famille des culicidés, appartenant essentiellement au genre *Aedes*. Cependant les genres *Anopheles* et *Culex* peuvent être impliqués. Ce vecteur puise les microfilaires dans le sang de l'animal à l'occasion d'un repas infestant. Celles-ci se développent dans les muscles de l'insecte pour donner des larves infestantes qui migrent vers les trompes pour être retransmises par une nouvelle piqûre à l'animal mais aussi d'une façon accidentelle à l'homme. Chez ce dernier, la dirofilaire est en général immature car en impasse parasitaire où l'absence de microfilariémie.

Les infections humaines à *D. repens* sont de plus en plus rapportées en Europe et dans les pays du pourtour méditerranéen avec un foyer important en Italie (2-4).

En Tunisie, seuls 5 cas ont été rapportés. Il s'agit d'une localisation scrotale (5), de deux localisations oculaires (6,7), d'une localisation axillaire (6) et d'une localisation mammaire (8).

L'abondance des vecteurs culicidés et des réservoirs canins non négligeables, autour du bassin méditerranéen, est en contradiction apparente avec un si faible nombre de cas humains de dirofilariose. Il est donc possible que cette pathologie soit sous-estimée du fait d'une symptomatologie souvent discrète et non spécifique (4).

Sur le plan clinique, l'affection se manifeste après une incubation de 4 à 8 mois par l'apparition d'un nodule sous-cutané de 1 à 3 cm, peu ou pas douloureux, précédé parfois d'une sensation de cuisson locale et/ou d'œdèmes douloureux et fugaces (3). Ce nodule est généralement unique. Une seule observation d'une double localisation sous-cutanée était rapportée par Bazex et Coll (9). Il siège essentiellement aux zones découvertes. Les localisations les plus fréquentes sont le segment céphalique, les membres supérieurs et la région thoracique. Dans 70 % des cas, il s'agit de localisations sous-cutanées et dans 30 % des cas la région oculaire (paupière et globe oculaire) est concernée. L'atteinte des organes génitaux masculins est rare (3). L'originalité de cette dernière localisation rejoint notre observation où le ver siégeait au scrotum. Nous pensons qu'il est utile de la signaler, vu son extrême rareté chez l'homme et la possibilité de simuler une urgence chirurgicale (torsion testiculaire) ou un processus néoplasique (10). La présence du ver à ce niveau peut être expliquée par sa pénétration dans la moitié inférieure du corps suite à une piqûre du vecteur, il aurait alors fini dans le scrotum en se déplaçant par contiguïté dans les espaces connectifs plus lâches. La piqûre du vecteur sur la peau du scrotum et la pénétration directe du nématode ne sont néanmoins pas à exclure, le sujet ayant pu se découvrir dans son sommeil à cause de la chaleur (11).

Les localisations viscérales (mésentère, poumons, péritoine, épидидyme...) sont également très rares, mais leur prévalence réelle est vraisemblablement sous-estimée en raison du caractère asymptomatique des lésions (2,4,12).

L'anamnèse est peu contributive en raison de la large diffusion de l'animal réservoir sous nos climats et du fait que la piqûre d'insecte est souvent absente ou négligée. Enfin, il n'existe pas de signes biologiques spécifiques ; l'hyperéosinophilie est généralement absente et il n'existe pas de microfilarémie. Les rares cas où l'on a retrouvé une microfilarémie concernent des sujets immunodéprimés (13).

La présence d'un nodule sous-cutané peut faire discuter plusieurs autres étiologies : essentiellement les kystes épidermoïdes et les lipomes, mais aussi les granulomes à corps étranger, les neurofibromes et surtout une néoplasie primitive ou secondaire dans certaines localisations particulières (testicules, seins, poumons) (12).

Le diagnostic est très souvent de découverte fortuite. L'examen anatomopathologique révèle des sections de *D. repens* généralement sous la forme de vers adultes femelles généralement immatures (dépourvues de microfilaires), comme a été le cas chez notre patient. En effet, l'analyse morphologique des sections parasitaires a permis de conclure au

diagnostic de dirofilariose à *D. repens* sur le diamètre du nématode (sections de 300 à 600 µm chez la femelle et de 250 à 450 µm chez le mâle), la présence d'une structure musculaire bien développée de type polymyaire, la présence d'organes internes ne comblant pas la cavité et la présence d'une cuticule multilamellaire ornée de crêtes longitudinales parallèles et régulièrement espacées de 3 à 4 µm, soit environ 25 par quadrant (14).

Toutefois des erreurs d'identification sont possibles ; *D. immitis* ayant une cuticule lisse en surface sauf au niveau de la partie ventrale de l'extrémité postérieure du mâle, où elle prend un aspect crénelé, peut prêter à confusion avec *D. repens*. L'identification peut aussi être délicate si le ver est mort ou altéré par la réponse tissulaire de l'hôte (12).

Plus rarement le diagnostic sera réalisé en parasitologie par un examen du nématode conservé dans l'alcool absolu après extraction chirurgicale. Il s'agit généralement d'un ver vivant retrouvé au niveau conjonctival.

Le diagnostic sérologique des sous-gènes *D. repens* et *D. immitis* est actuellement réalisable mais reste peu sensible et peu spécifique aussi bien en pratique humaine que vétérinaire (12).

Le diagnostic par biologie moléculaire semble prometteur. Il permettrait de dépister le parasite chez l'homme avant l'exérèse et pourrait aider à la reconnaissance de l'espèce. L'analyse de l'ADN par PCR, mise au point par Favia et Coll est apparue comme la méthode de référence, même en cas d'utilisation de fragments de larves de petite taille ou altérés par la réaction inflammatoire de l'hôte (15).

Ces nouvelles méthodes semblent donc intéressantes pour le diagnostic des formes viscérales difficilement accessibles à la chirurgie, de même que pour la réalisation d'enquêtes épidémiologiques de masse tentant d'établir la prévalence réelle de l'infestation humaine par *D. repens*. En effet *D. repens* est incriminée dans la majorité des cas de dirofilarioses de l'ancien monde alors que la prévalence de *D. immitis* est plus élevée chez la population canine de ces régions (4). Toutefois l'utilisation de ces méthodes sérologiques ou de biologie moléculaire n'est pas de pratique courante et le diagnostic de la dirofilariose sous-cutanée repose encore essentiellement sur l'étude morphologique de la filaire couplée aux données épidémiologiques et géographiques.

CONCLUSION

L'identification de *D. repens*, filaire autochtone, permet d'affirmer le caractère localisé et bénin de l'affection. La guérison est obtenue par la seule exérèse et les anti-helminthiasiques n'ont aucune indication dans les atteintes à *D. repens* (contrairement à *D. immitis*). Le corps médical, qu'il s'agisse de cliniciens, de radiologues ou de pathologistes, est désormais de plus en plus confronté à cette parasitose. Il doit savoir la reconnaître et l'évoquer devant tout nodule sous-cutané, quel que soit sa localisation, surtout quand elle prend le masque trompeur d'une tumeur maligne. Enfin, des programmes de dépistage et de traitement du réservoir canin méritent d'être établis afin de contribuer à la diminution des cas humains.

REFERENCES

- 1 - RACCURT CP - La dirofilariose, zoonose émergente et méconnue en France. *Med Trop* 1999; **59** : 389-400.
- 2 - PAMPIGLIONE S, RIVASI F - Human dirofilariasis due to *Dirofilaria (Nochtiella) repens* : an update of world literature from 1995 to 2000. *Parassitologia* 2000; **42** : 231-254.
- 3 - PAMPIGLIONE S, CANESTRI-TROTTI G, RIVASI F - Human dirofilariasis due to *Dirofilaria (Nochtiella) repens* : a review of world literature. *Parassitologia* 1995; **37** : 149-193.
- 4 - MURO A, GENCHI C, CORDERO M, SIMON F - Human Dirofilariasis in the European Union. *Parasitology Today* 1999; **15** : 386-389.
- 5 - KASSAR L, KCHIR N, BOUBAKER S *et Coll* - A case of subcutaneous dirofilariasis in Tunisia. *Bull Soc Pathol Exot* 1990; **83** : 517-520.
- 6 - BEN SAID M, KORBI S, ABDELHEDI M *et Coll* - La dirofilariose sous-cutanée humaine : à propos de deux nouveaux cas tunisiens. *Med Mal Infect* 1995; **25** : 519-521.
- 7 - CHAABOUNI M, SALLAMI R, BEN SAID M *et Coll* - Conjunctival dirofilariasis, a case discovered in the Kairouan region. *Arch Inst Pasteur Tunis* 1990; **67** : 5-9.
- 8 - MRAD K, ROMANI RAMAH S, DRISS M *et Coll* - Mammary Dirofilariasis. *Int J Surg Pathol* 1999; **7** : 175-178.
- 9 - BAZEX A, CARRERE S, LARROUY G, SEGUELA JP - Les dirofilarioses. Revue générale à propos d'un cas toulousain. *Rev Med* 1970; **6** : 315-321.
- 10 - MARTY P, GARI TOUSSAINT M, LE FICHOUX Y *et Coll* - Dirofilariose épididymaire simulant une torsion testiculaire chez un adolescent. *Presse Med* 1992; **21** : 1872-1873.
- 11 - PAMPIGLIONE S, MONTEVECCHI R, LORENZINI P, PUCETTI M - *Dirofilaria (Nochtiella) repens* dans le cordon spermatique : un nouveau cas humain en Italie. *Bull Soc Pathol Exot* 1997; **90** : 22-44.
- 12 - CORDONNIER C, CHATELAIN D, NEVEZ G *et Coll* - Problèmes soulevés par le diagnostic de la dirofilariose humaine à distance d'une région enzootique connue. *Rev Med Interne* 2002; **23** : 71-76.
- 13 - Nozais JP, Bain O, Gentilini M - A case of subcutaneous dirofilariasis (*Nochtiella) repens* with microfilaremia originating in Corsica. *Bull Soc Pathol Exot* 1994; **87** : 183-185.
- 14 - GUTIERREZ Y - diagnostic features of zoonotic filariae in tissue sections. *Hum Pathol* 1984; **15** : 514-525.
- 15 - FAVIA G, LANFRANCOTTI A, DELLA TORRE A *et Coll* - Polymerase chain reaction-identification of *Dirofilaria repens* and *Dirofilaria immitis*. *Parasitology* 1996; **113** : 567-571.

**Consultations de Prévention des Maladies du Voyageur
Centres de Vaccination anti-amarile
des Hôpitaux d'Instruction des Armées**

	Consultation pour le public	Renseignements téléphoniques (réservés aux médecins et pharmaciens)
<u>BORDEAUX</u>		
Hôpital Robert-Picqué Route de Toulouse	05 56 84 70 99 Du lundi au jeudi sur rendez-vous	05 56 84 70 38
<u>BREST</u>		
Hôpital Clermont-Tonnerre Rue du Colonel Fonferrier	02 98 43 76 16 Lundi et mercredi après-midi sur rendez-vous	02 98 43 76 16 02 98 43 73 24
<u>LYON</u>		
Hôpital Desgenettes 108 Boulevard Pinel	04 72 36 61 24 Du lundi au vendredi sur rendez-vous. Vendredi matin sans rendez-vous	04 72 36 61 24
<u>MARSEILLE</u>		
Hôpital Laveran Boulevard Laveran	04 91 61 73 54 ou 56 du lundi au vendredi sur rendez-vous	04 91 61 71 13 04 91 61 72 32
<u>METZ</u>		
Hôpital Legouest 27 avenue de Plantières	03 87 56 48 62 Lundi, mercredi et jeudi après-midi sur rendez-vous	03 87 56 48 62
<u>SAINT-MANDE</u>		
Hôpital Bégin 69 avenue de Paris	01 43 98 50 21 Lundi, mercredi et vendredi après-midi avec et sans rendez-vous	01 43 98 50 21
<u>TOULON</u>		
Boulevard Sainte-Anne	Lundi, mercredi et vendredi après-midi avec et sans rendez-vous	