

GANGRÈNE À PYOCYANIQUE ET OSTÉITE SUR MALADIE DE KAPOSI ENDÉMIQUE : UNE OBSERVATION AU BÉNIN

F. ATADOKPEDE, T.A.GNANGNON, M. LAWSON, H. ADEGBIDI, H. YEDOMON,
F. CO-ANGO-PADONOU

Med Trop 2006 ; 66 : 491-493

RÉSUMÉ • Les complications infectieuses d'ulcérations cutanées chroniques sont connues mais la surinfection de nodules kaposiens ulcérés par des germes multirésistants est rarement rapportée. Les auteurs présentent l'observation d'un Noir africain de 57 ans, atteint d'une maladie de Kaposi endémique, séronégatif pour le VIH, qui a présenté une brutale augmentation et une multiplication des nodules de Kaposi sur la jambe droite avec douleur et fièvre. Il s'y associait un syndrome inflammatoire biologique et des lacunes osseuses de deux métatarsiens. Une amputation de la jambe a été nécessaire devant la présence de germes multirésistants : *Pseudomonas aeruginosa*, staphylocoque doré multirésistant, *Candida albicans*. Les atteintes osseuses sous un nodule kaposien surinfecté posent le problème diagnostique différentiel des atteintes spécifiques de la maladie de Kaposi et d'une ostéite infectieuse. Le diagnostic étiologique de l'atteinte osseuse nécessitant des explorations complémentaires qui manquent souvent en milieu hospitalier africain, un geste chirurgical s'avère nécessaire en cas d'échec de l'antibiothérapie.

MOTS-CLÉS • Maladie de Kaposi - Gangrène infectieuse - Atteinte osseuse - Afrique Noire.

GANGRENE WITH PYOCYANIC INFECTION AND OSTEITIS IN A PATIENT PRESENTING ENDEMIC KAPOSI'S SARCOMA: CASE REPORT FROM BENIN

ABSTRACT • Infectious complications involving chronic skin ulcers have been well documented but superinfection of ulcerated Kaposi's sarcoma nodules by multiresistant germs has rarely been reported. The purpose of this report is to describe a case in a 57-year-old HIV-negative black African man. Kaposi's sarcoma nodules appeared suddenly and spread rapidly on the right leg with pain and fever. Onset was associated with a laboratory-documented inflammatory syndrome and two metatarsal bone defects. Amputation of the leg was required due to the presence of multiresistant germs: *Pseudomonas aeruginosa*, multiresistant *Staphylococcus aureus* and *Candida albicans*. Occurrence of bone lesions beneath superinfected Kaposi's sarcoma nodules poses a challenge for differential diagnosis of the underlying cause, i.e. either Kaposi's sarcoma or infectious osteitis. Since etiologic diagnosis of bone defects requires facilities that are rarely available in an African hospital, surgical treatment is the only alternative if antimicrobial therapy fails.

KEY WORDS • Kaposi's sarcoma – Infectious gangrene – Bone lesion – Black Africa.

La maladie de Kaposi est une prolifération conjonctivo-vasculaire dont on distingue classiquement quatre formes clinico-épidémiologiques qui partagent toutes les mêmes images histologiques mais dont le pronostic et les aspects thérapeutiques diffèrent. Ce sont : la forme classique ou méditerranéenne, la forme endémique, la forme épidémique ou maladie de Kaposi associée au sida et la forme associée aux immunodépressions non sida.

Les surinfections d'ulcérations cutanées chroniques par le pyocyanique et d'autres germes multirésistants sont connues (1, 2). Mais les surinfections d'un nodule kaposien par des germes multirésistants sont rarement rapportées.

Nous rapportons un cas de maladie de Kaposi endémique nodulaire devenu agressif après plusieurs années d'évolution et compliqué de gangrène infectieuse et d'atteinte osseuse.

OBSERVATION

Un Noir africain de 57 ans, vivant à Cotonou, est hospitalisé en octobre 2004 pour une tuméfaction multinodulaire du pied droit associé à un lymphœdème chronique évoluant depuis plusieurs années. Récemment étaient apparues des douleurs du membre inférieur droit avec impotence fonctionnelle.

Le début de la maladie remonte à 1973 par un œdème. Les premiers nodules apparaissent en 1999, se multipliant progressivement. Ils touchent d'abord le pied droit puis la jambe droite.

Jusqu'en octobre 2004, l'évolution de la maladie est émaillée d'épisodes de surinfection et d'intertrigo interdigital très bien contrôlés par des soins locaux et une antibiothérapie par voie générale. Ce patient n'avait pas d'antécédent diabétique connu.

• Travail de l'Hôpital d'instruction des armées (F.A., Dermatologue du SSA ; T.A.G., Professeur agrégé du SSA), Cotonou, Bénin, du Service de chirurgie orthopédique (M.L., Chirurgien orthopédiste) Centre national hospitalo-universitaire Cotonou, Bénin et du Service de dermatologie (H.Y., Professeur agrégé de dermatologie ; F.C-A-P., Professeur de dermatologie), Centre national hospitalo-universitaire Cotonou, Bénin.

• Correspondance : Félix ATADOKPEDE, 05 BP 1218, Cotonou, Bénin.

• Courriel : felixatadokpede@yahoo.fr •

• Article reçu le 10/04/2004, définitivement accepté le 30/06/2006.



Figure 1 - Nodules rougeâtres du dos du pied droit et œdème du pied gauche.

L'examen clinique montre la présence de nodules du dos et de la face plantaire des orteils, du dos des pieds, de la plante du pied droit, de la jambe et la cuisse droite.

Ces nodules, de couleur rouge noirâtre, de tailles variables, à surface kératosique, de consistance ferme ou molle, sont associés à des ulcérations du bord interne du gros orteil qui est partiellement nécrotique et à un lymphoedème.

Les espaces inter-orteils sont macérés, suintants, d'aspect verdâtre, malodorants. La jambe et le pied droits sont chauds et douloureux à la palpation.

Il n'y a pas d'atteinte des muqueuses buccale et génitale.

L'état général est altéré, la température est à 38,3°C. Il existe des adénopathies inguinales droites sensibles à la palpation et une diminution de l'amplitude des mouvements de la cheville droite.

Le reste de l'examen clinique est normal.

L'histologie cutanée (lue par le Dr J-H Patte du service d'anatomie pathologique de l'Hôpital d'Instruction des Armées Laveran à Marseille) montre une prolifération tumorale nodulaire associant des cavités vasculaires de tailles variables et des cellules fusiformes au cytoplasme mal visible et au noyau allongé à chromatine fine. L'anisocaryose est modérée et de nombreuses figures mitotiques sont notées.

La prolifération est dissociée par de nombreuses suffusions hémorragiques. Le stroma est parsemé de quelques petits lymphocytes matures.

A l'immunohistochimie, les cellules sont marquées par les anticorps anti-vimentine, anti-CD31 et anti-CD34. Elles ne sont pas marquées par les anticorps anti-KL1 et anti-AML. Elles ne présentent pas de signal nucléaire avec l'anticorps anti-HHV8.

L'héogramme révèle une anémie à 11,2 g/dl, microcytaire hypochrome, une hyperleucocytose à 10 200/mm³ avec des polynucléaires neutrophiles à 7 140 /mm³, un taux de plaquettes de 430 000/mm³, une vitesse de sédimentation de 90/101 mm.

La glycémie est de 2,08 g/dl, la créatininémie de 9,36 g/dl, la kaliémie de 5,2 mEq/l, les transaminases hépatiques sont élevées portant sur les ALAT qui sont à 1,5 x N. La sérologie du VIH est négative.

Le prélèvement local bactériologique et mycologique des espaces interdigitaux permet d'isoler *Pseudomonas aeruginosa* sensible seulement aux quinolones et à la gentamicine, *Staphylococcus aureus* méthiR mais sensible aux quinolones et *Candida albicans*.

La radiographie du pied droit révèle des lacunes osseuses du 1^{er} et du 5^e métatarsien droit associées à des calcifications des parties molles. Il n'y a pas d'atteinte des os de la cheville droite.

Au terme de ce bilan clinique et para clinique, le diagnostic retenu est celui d'une gangrène infectieuse polymicrobienne de la jambe droite, avec atteinte osseuse compliquant une maladie de Kaposi dans sa forme nodulaire.

Le traitement comprend des soins locaux (bains de pied avec la solution de Dakin associée à une pulvérisation locale de catalase (Pulvo®47), une application de miconazole poudre dans les espaces inter orteils matin et soir), une première antibiothérapie empirique *per os* (oxacilline : 1 g toutes les 8 heures, ciprofloxacine 500 mg : 2 comprimés par jour), l'association dextropropoxyphène-paracétamol gélules : 6 gélules par jour et une prévention des phlébites par l'énoxaparine sodique 0,4 ml : 1 injection sous-cutanée par jour. Cette antibiothérapie a été maintenue pendant trois semaines.

Au cours de l'évolution, l'état local et général ne s'améliore pas sous le traitement institué. La nécrose du premier orteil droit s'étend au bord latéral interne du pied, avec des douleurs lancinantes nocturnes, insomniantes.

La décision d'une amputation a été prise à cause des germes multi-résistants. Cette amputation est réalisée sous anesthésie générale.

Au décours de l'amputation, l'état général s'est amélioré, après transfusion d'une unité de sang total. Une seconde antibiothérapie par voie générale associant métronidazole et clindamycine a été instaurée par le chirurgien. Trois mois après le geste radical, l'état clinique est satisfaisant.



Figure 2 - Pied droit nécrotique sphacélé.

DISCUSSION

Les formes cliniques de la maladie de Kaposi endémique comprennent une forme nodulaire bénigne, une forme floride, une forme agressive et une forme lymphadénopathique qui est l'apanage de l'enfant (3,4).

Notre patient présentait une forme nodulaire bénigne qui est devenue secondairement agressive en l'espace de 5 ans.

Les nodules kaposiens peuvent s'ulcérer au cours de l'évolution. Nous n'avons pas relevé dans la littérature des cas de surinfection spécifique de nodules de maladie de Kaposi. Cependant les surinfections d'ulcérations cutanées chroniques par *Pseudomonas aeruginosa* et *Staphylococcus aureus* multirésistant sont rapportées en particulier chez les sujets neutropéniques et les patients immuno-déprimés (5, 6) ce qui n'était pas le cas de notre patient.

Alcaraz *et Coll* (1) rapportent un cas de surinfection d'un nodule rhumatoïde ulcéré par *Pseudomonas aeruginosa* avec ostéomyélite du calcanéum. Colsky *et Coll* (2) ont montré que chez les patients hospitalisés dans un service de dermatologie, les ulcérations chroniques de jambe se surinfectent à égale fréquence par *Pseudomonas aeruginosa* (42 %) et *Staphylococcus aureus* (43 %) alors que ce dernier représente 77 % des germes isolés sur les plaies superficielles.

Ecthyma gangrenosum est la présentation habituelle des infections cutanées à *Pseudomonas aeruginosa* avec ou sans bactériémie. Il siège avec prédilection sur les extrémités et les régions périnéales (5-8).

L'aspect de fasciite nécrosante fait évoquer chez notre patient le rôle probable de *Pseudomonas aeruginosa* dans la survenue des lésions.

Les formes agressives de maladie de Kaposi endémique peuvent s'accompagner d'atteinte osseuse comme dans le cas rapporté par Simon *et Coll* (9). Une atteinte osseuse existe également chez notre patient et elle a fait discuter une ostéite associée. La faiblesse du plateau technique dans notre pays n'a pas permis de faire la part entre une ostéite bactérienne et une atteinte spécifique osseuse par la maladie de Kaposi.

La présence de germes multirésistants complique l'évolution des ulcérations chroniques avec atteinte osseuse. Ainsi dans leur étude portant sur 82 patients, Aloush *et Coll* (10) ont montré que la présence de *Pseudomonas* multirésistant était associée à une mortalité élevée.

La chirurgie fait partie du traitement de la maladie de Kaposi endémique particulièrement lorsque la maladie se résume à quelques nodules. Ainsi 6 patients sur 17 cas de maladie de Kaposi endémique ont bénéficié d'un traitement chirurgical dans la série de Pitche *et Coll* (11). L'amputation de jambe est rarement réalisée chez les patients ayant une maladie de Kaposi endémique comme ce fut le cas chez notre patient. Elle peut être la sanction de certaines dermo-hypodermes bactériennes chez les patients hospitalisés comme

dans l'étude de Carratala *et Coll* (12). La mise en jeu du pronostic vital et la présence de germes multirésistants expliquent le geste radical dans notre cas.

CONCLUSION

L'originalité de notre observation est l'évolution tardive sur un mode agressif d'une maladie de Kaposi endémique bénigne qui s'est compliquée d'une gangrène infectieuse avec atteinte osseuse ayant nécessité une amputation de jambe. Les atteintes osseuses sous un nodule kaposien surinfecté posent le problème du diagnostic différentiel des atteintes spécifiques de la maladie de Kaposi et d'une ostéite infectieuse. Le diagnostic étiologique de l'atteinte osseuse nécessitant des explorations complémentaires qui manquent souvent en milieu hospitalier africain, un geste chirurgical s'avère nécessaire en cas d'échec de l'antibiothérapie.

RÉFÉRENCES

- 1 - ALCARAZ P, AUBRAN C, JAOUA S, ROUDIER C *et Coll* - Calcaneal osteomyelitis due to fistulization of an ulcerated rheumatoid nodule. *Joint Bone Spine* 2006 ; **73** : 102-4.
- 2 - COLSKY A S, KIRSNER R S, KERDEL F A - Microbiologic evaluation of cutaneous wounds in hospitalized dermatology patients. *Ostomy Wound Manage* 1998 ; **44** : 40-2.
- 3 - COLEMAN R, LEENE E, BARKER J N - Generalized endemic Kaposi's sarcoma. *Clin Exp Dermatol* 1995 ; **20** : 471-3.
- 4 - LEBBE C - Maladie de Kaposi. *Rev Prat* 1999 ; **49** : 843-7.
- 5 - SINGH T N, DEVI K M, DEVI K S - *Ecthyma gangrenosum*: a rare cutaneous manifestation caused by *Pseudomonas aeruginosa* without bacteraemia in a leukaemic patient - a case report. *Indian J Med Microbiol* 2005 ; **23** : 262-3.
- 6 - SOLOWSKI N L, YAO F B, AGARWAL A, NAGORSKY M - *Ecthyma gangrenosum*: a rare cutaneous manifestation of a potentially fatal disease. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2004 ; **113** : 462-4.
- 7 - EL BAZE P, THYSS A, VINTI H, DEVILLE A *et Coll* - A study of nineteen immunocompromised patients with extensive skin lesions caused by *Pseudomonas aeruginosa* with and without bacteremia. *Acta Derm Venereol* 1991 ; **71** : 411-5.
- 8 - SONG W K, KIM Y C, PARK H C, CINN Y W - *Ecthyma gangrenosum* without bacteraemia in a leukaemic patient. *Clin Exp Dermatol* 2001 ; **26** : 395-7.
- 9 - SIMON F, CHOUC P-Y, CHOUC-LARRIVIERE C *et Coll* - Les atteintes osseuses au cours du sarcome de Kaposi endémique africain. A propos d'une observation. *Med Trop* 1997 ; **57** : 174-6.
- 10 - ALOUSH V, NAVON-VENEZIA S, SEIGMAN-IGRA Y, CABILI S, CARMELI Y - Multidrug-resistant *Pseudomonas aeruginosa* : risk factors and clinical impact. *Antimicrob Agents Chemother* 2006 ; **50** : 43-8.
- 11 - PITCHE P, KOMBATE K, NAPO-KOURA G *et Coll* - La maladie de Kaposi en consultation dermatologique à Lomé, Togo. *Med Trop* 1995 ; **55** : 246-8.
- 12 - CARRATALA J, ROSON B, FERNANDEZ-SABEN *et Coll* - Factors associated with complications and mortality in adult patients hospitalized for infectious cellulitis. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis* 2003 ; **22** : 151-7.