

Œdème d'un membre inférieur et stéatorrhée : apports des techniques isotopiques

Lower limb edema and steatorrhea : contributions of the scintigraphic techniques

P. Bourgeois¹, D. Munck² et O. Leduc³

¹Service de Médecine Nucléaire, Institut J. Bordet, ²Service de Chirurgie Vasculaire, H.I.S., Site Etterbeek-Ixelles, ³Institut Supérieur d'Education Physique et Kinésithérapie, U.L.B.

RESUME

Les auteurs rapportent le cas d'une jeune femme présentant un œdème du membre inférieur droit et une stéatorrhée. Son histoire clinique est typique d'un lymphœdème primaire et l'investigation lymphoscintigraphique des membres inférieurs confirme le caractère lymphatique de l'œdème. Cet examen montre notamment l'absence de ganglions iliaques et lombo-aortiques droits mais suggère également la présence d'un canal thoracique fonctionnel. Un test respiratoire à la trioléine marquée au carbone-14 pathologique confirme la malabsorption des graisses.

Les auteurs discutent l'intérêt des techniques isotopiques dans ce cas et revoient le problème de l'association entre lymphœdèmes des membres et troubles digestifs de la résorption des graisses.

Rev Med Brux 2003 ; 2 : 101-4

ABSTRACT

The authors report the case of a young woman with right lower limb edema who also presented one steatorrhea. Her clinical history is typical for one primary lymphedema and the lymphoscintigraphic investigation of the lower limbs confirms the diagnosis. The scan showed the absence of the right iliac and lombo-aortic lymph nodes but also that the thoracic duct was normally present. One C14-triolein breath test is pathological and proves the malabsorption of the fats.

The authors discuss the interest of the scintigraphic techniques in such case and review the problem of the association between lower limb lymphedemas and fatty malabsorption.

Rev Med Brux 2003 ; 2 : 101-4

Key words : lymphedema, steatorrhea, lymphoscintigraphy, C14-triolein breath test

HISTOIRE CLINIQUE

En février 1995, une patiente alors âgée de 22 ans et sans antécédents particuliers présente un œdème transitoire du membre inférieur droit (limité à la cuisse et au genou). Une première investigation lymphoscintigraphique des membres inférieurs est réalisée qui amène à poser le diagnostic de lymphœdème primaire précoce. En octobre 1997, elle souffre d'un épisode de lymphangite au niveau du membre œdématié. En mai 1998, suite à un coup de soleil sur le membre, l'œdème s'étend alors au niveau du pied et répond de moins en moins bien aux traitements appliqués. Une réévaluation lymphoscintigraphique des membres est réalisée en

octobre 1998. A ce moment et dans le cadre de l'interrogatoire clinique, il apparaît également que, depuis quelques mois, la patiente présente des pertes blanches vaginales. Un reflux chyleux vers le vagin est exclu par un examen gynécologique normal. Un interrogatoire plus orienté fait néanmoins apparaître que la patiente présente également de fréquents épisodes de selles grasses et une intolérance digestive aux graisses. Une mise au point biologique et un test respiratoire à la trioléine marquée au carbone-14 sont alors demandés. Le taux basal de tryglycérides se révèle normal-bas pour l'âge de la patiente (48 mg % pour une valeur limite inférieure de la normale égale à 40 mg %). Le test respiratoire à la trioléine C14 ramène une valeur

maximale d'excrétion pathologique (égale à 2,4 % alors que pour les sujets normaux elle doit être supérieure à 3,5 %) traduisant une insuffisance de résorption des graisses.

L'investigation lymphoscintigraphique des membres inférieurs réalisée suivant un protocole en trois phases¹ montre une situation normale à gauche mais les anomalies suivantes à droite (Figures 1 et 2) :

- au repos, une absence de drainage lymphatique du traceur injecté au niveau du 1^{er} espace interdigital ;
- une progression ultérieure du traceur qui ne se fait qu'à travers un réseau de collatéralisation dermique au niveau du pied, de la cheville et du mollet jusqu'à hauteur du genou ;
- un drainage vasculaire profond qui monte de la partie externe du genou pour aboutir à au moins

deux ganglions inguinaux haut situés ;

- une absence de mise en évidence des ganglions intra-abdominaux droits.

En fin d'examen, le foie est bien visualisé de même qu'un foyer ganglionnaire de localisation rétroclaviculaire gauche. Aucune perte intra-abdominale de lymphes n'est clairement objectivée.

COMMENTAIRES

La patiente présente une histoire clinique relativement typique pour un lymphoedème primaire précoce : âge d'apparition de l'œdème, complication sous forme d'un épisode de lymphangite, progression de l'œdème suite à un incident, une réponse de moins en moins bonne avec le temps aux traitements physiques. Ces œdèmes peuvent apparaître dès la puberté mais l'âge d'apparition peut s'étaler

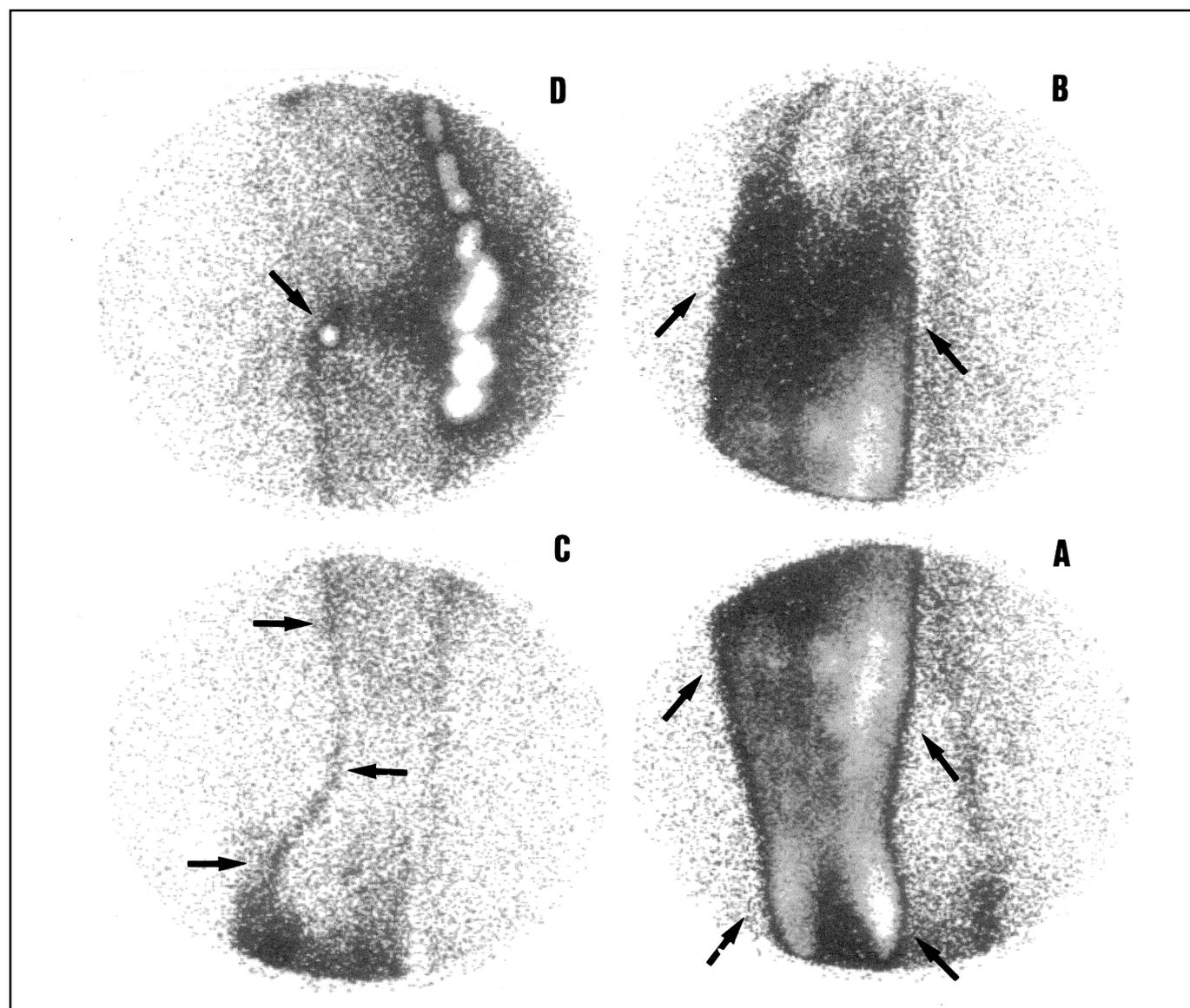


Figure 1 : Images lymphoscintigraphiques (vues antérieures) obtenues en fin d'examen : A : centrées sur les pieds, chevilles et moitiés inférieures des mollets ; B : centrées sur les genoux ; C : centrées sur les cuisses ; D : centrées sur les aires ganglionnaires inguino-iliaques. Un important réseau de collatéralisation dermique superficielle avec lymphostase est observé à droite au niveau du pied, de la cheville et du mollet (flèches obliques ascendantes, clichés A et B) ; un vaisseau lymphatique unique monte à partir de la partie externe de ce réseau (flèches horizontales, cliché C) pour aboutir à deux ganglions inguinaux droits isolés (flèche descendante, cliché D) alors que l'image lymphatico-ganglionnaire est normale à gauche.

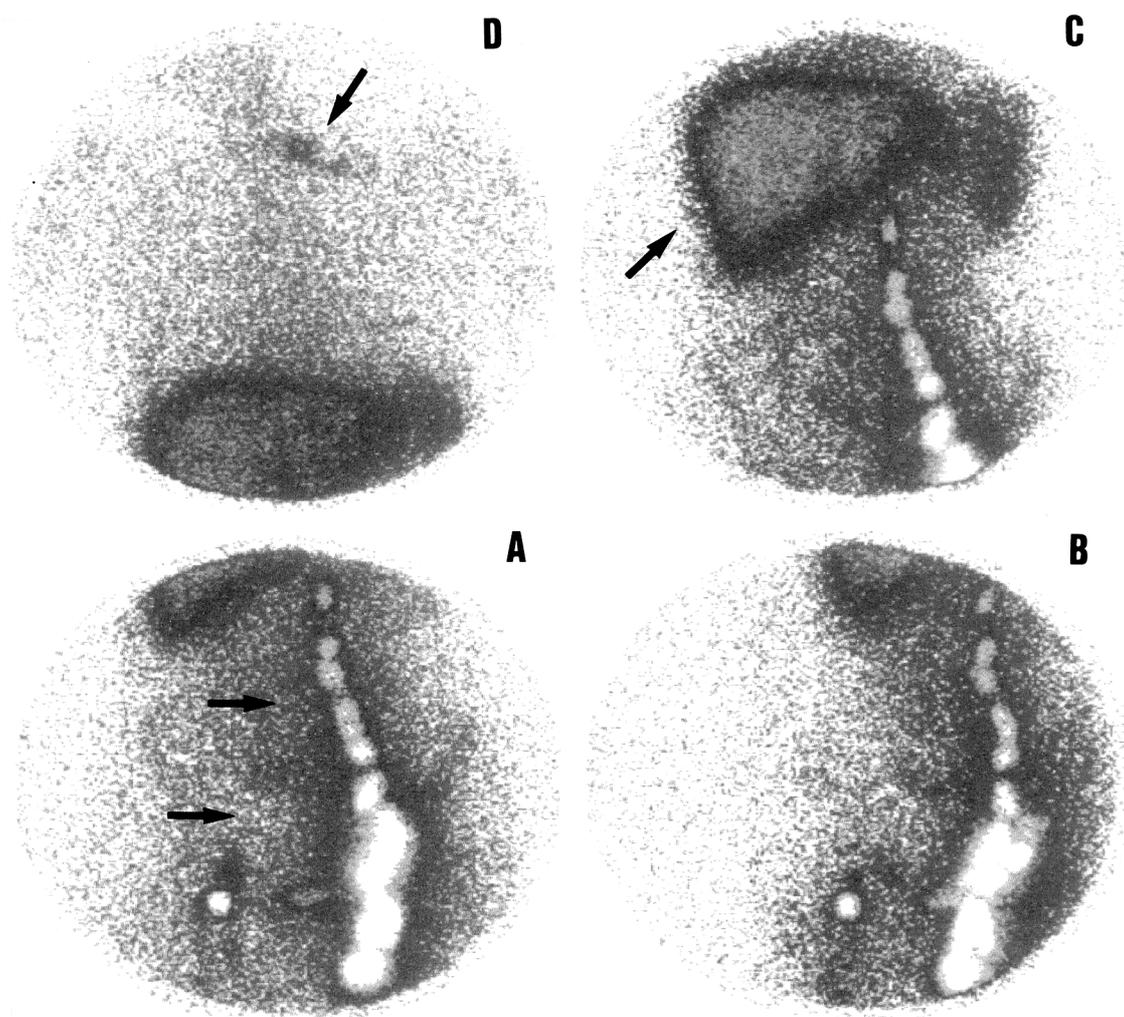


Figure 2 : Images scintigraphiques obtenues en fin d'examen : A : centrées sur les aires ganglionnaires inguino-iliaques (vue antérieure) ; B : centrées sur ces mêmes aires (vue oblique antérieure gauche) ; C : centrées sur l'abdomen (vue antérieure) ; D : centrées sur le thorax (vue antérieure).

Aucune structure ganglionnaire intra-abdominale droite n'est observée là où elles devraient l'être (flèches horizontales, cliché A). Une importante activité hépato-splénique est visualisée (flèche oblique ascendante, cliché C) de même que (au moins) un ganglion de localisation sus- ou rétro-claviculaire gauche (flèche oblique descendante, cliché D).

jusque 35 ans. Ils touchent plus fréquemment le membre inférieur gauche mais, ici, nous avons une atteinte du seul membre inférieur droit.

L'intérêt clinique particulier de ce cas tient à l'association avec des symptômes évocateurs de problèmes à point de départ intra-abdominal : des pertes blanches vaginales (pouvant évoquer un reflux de chyle vers cet organe) et, moins évidents, des épisodes de stéatorrhée.

Les reflux de chyle vers les membres (chylorrhée) ou leurs conséquences abdominales (ascites chyleuses, entéropathies à perte de protéines, chylurie, etc.) ou thoraciques (chylothorax) sont des complications majeures et bien connues des lymphœdèmes. Ils sont en général associés à un canal thoracique absent. Leur clinique est souvent évidente. De tels reflux lymphatiques ont pu être dans certains cas démontrés dans le cadre de lymphoscintigraphie des membres inférieurs²⁻⁵.

Les troubles de la résorption des graisses sont, par contre, un élément du tableau des lymphœdèmes

auquel il est peu fréquemment porté attention. Ils ont pourtant été bien décrits par Servelle et Noguès il y a maintenant près de 20 ans¹. Au moyen d'un " test au beurre " (un test de surcharge lipidique orale avec mesures de l'apparition des graisses dans le sang durant les heures qui suivent), ces auteurs ont pu en effet les objectiver chez 25 personnes sur 40 présentant un lymphœdème et sans signe clinique évident de reflux chyleux. Ils précisent que, dans 9 de ces cas, l'œdème ne touchait qu'un membre et que dans 18 cas, ce trouble de la résorption des graisses était sans manifestation clinique. Ils signalent aussi que cette anomalie était présente dans 5 des 7 cas de maladie de Millroy mais et surtout chez trois quarts des personnes présentant un œdème des organes génitaux.

Dans quelques cas, Servelle et Noguès ont pu démontrer peropératoirement la présence d'anomalies lymphatiques au niveau du tube digestif même¹. Les données lymphangiographiques des membres infé-

rieurs qu'ils rapportent consistent en des anomalies au niveau lombo-aortique avec injection des lymphatiques des reins, du pancréas ou du diaphragme dans certains cas.

L'imagerie lymphoscintigraphique pourrait être cohérente avec les symptômes de la patiente. L'absence de visualisation ganglionnaire iliaque et lombo-aortique droite pourrait d'une part suggérer un drainage lymphatique insuffisant d'une partie du vagin qui serait responsable d'infections vaginales intermittentes et des pertes blanches (association œdème génital - trouble de résorption lipidique décrit par Servelle et Noguès) mais d'autre part refléter une atteinte de tout le réseau lymphatique intra-abdominal droit dont l'iléon terminal, site de résorption des graisses.

L'intérêt de la lymphoscintigraphie des membres inférieurs est quadruple dans ce cas :

- elle vient confirmer le diagnostic de lymphœdème primaire touchant la jambe droite ;
- elle montre la présence d'un drainage lymphatique partiellement conservé jusqu'à la racine du membre avec un vaisseau ou des ganglions potentiellement anastomosables ;
- elle ne met surtout en évidence aucune anomalie du système lymphatique au niveau du membre non œdématié (qui traduirait une situation de lymphœdème latent). La démonstration d'un drainage lymphatique conservé au niveau du membre controlatéral permet en effet d'envisager de traiter avec efficacité l'œdème du membre droit par un drainage lymphatique manuel s'effectuant (ouvrant des voies de collatéralisation) à travers la région prépubienne et de la racine du membre œdématié vers la région inguinale gauche. Cette approche thérapeutique a été celle proposée et appliquée (en cours) à cette patiente.
- enfin, et à travers la visualisation d'un ganglion rétroclaviculaire gauche, elle montre indirectement la présence et l'intégrité du canal thoracique, ce qui représente un point favorable dans le contexte de cette patiente. Ces ganglions sont (normalement) présents dans 43,2 % des cas. Leur absence peut donc être normale mais, dans un contexte de suspicion de reflux chyleux, leur non-visualisation peut toujours faire craindre que le canal thoracique soit non fonctionnel, non présent, ce qui péjore le pronostic de la maladie.

Le test au beurre tel qu'il était pratiqué par Servelle et Noguès et pour lequel ces auteurs ont publié leurs normes interprétatives¹ n'est plus d'application. Sa réalisation actuelle impliquerait l'établissement préalable de courbes de réponses sur des sujets normaux et d'âges identiques. Nous avons néanmoins pu démontrer chez cette patiente un taux de triglycérides fort bas dans le sang et confirmer le trouble de la résorption des lipides au moyen du test respiratoire à la trioléine C14. Couramment pratiqué dans d'autres indications⁶, le principe de ce test est superposable à celui du test au beurre : administration orale d'une charge de graisse (dont une partie - "traceuse" - est marquée) suivie ici de l'analyse de

l'apparition du CO₂ marqué dans l'air expiré (correspondant au métabolisme de ces graisses).

En conclusion, devant des patients présentant un lymphœdème d'un membre inférieur sans reflux chyleux évident mais avec des signes digestifs (auxquels il faut être attentif), nous recommandons de réaliser, outre une lymphoscintigraphie des membres inférieurs, un test respiratoire à la trioléine C14. Il sera intéressant de corréler le résultat de ce test respiratoire avec la latéralisation clinique de l'œdème et avec les anomalies lymphoscintigraphiques correspondantes.

BIBLIOGRAPHIE

1. Servelle M, C Noguès : *The Chyliferous Vessels*. Paris, Expansion Scientifique Française, 1981
2. Bourgeois P, Munck D, Becker C, Leduc O, Leduc A : A Three phase lymphoscintigraphic investigation protocol for the evaluation of the lower limb edemas. *Eur J Lymphol Rel Prob* 1997 ; 6 : 10-21
3. Bourgeois P, Wolter F : Lymphoscintigraphic demonstration of a protein losing enteropathy. *Eur J Lymphol Rel Prob* 1990 ; 1 : 18-22
4. Pui MH, Yueh TC : Lymphoscintigraphy in chyluria, chyloperitoneum and chylothorax. *J Nucl Med* 1998 ; 39 : 1292-6
5. Howarth D, Gloviczki P : Lymphoscintigraphy and lymphography of lymphangiectasia. *J Nucl Med* 1998 ; 39 : 1635-8
6. Turner JM, Lawrence S, Fellows JW, Johnson I, Hill GH, Holmes GKT : C14-triolein absorption : a useful test in the diagnosis of malabsorption. *Gut* 1987 ; 28 : 694-700

Correspondance et tirés à part :

P. BOURGEOIS
Institut Jules Bordet
Service de Médecine Nucléaire
Rue Héger-Bordet 1
1000 Bruxelles

Travail reçu le 30 août 2001 ; accepté dans sa version définitive le 25 octobre 2001.