

Importance des shunt lympho-veineux chez des patientes avec un œdème des membres inférieurs : à propos de leur démonstration lymphoscintigraphique dans 5 cas

Importance of the lympho-venous shunt in patients with lower limb lymphedemas: lymphoscintigraphic demonstrations in 5 cases

Roman M.¹, Barbieux R.², Leduc O.³ et Bourgeois P.²

¹Service de Chirurgie mammo-pelvienne, ²Service de Médecine nucléaire et clinique multidisciplinaire de Lymphologie, Institut Jules Bordet, Université libre de Bruxelles (ULB), ³Laboratoire de Physiologie environnementale - Lympho-phlebology Unit, Haute Ecole Paul-Henri Spaak, Bruxelles

RESUME

L'existence de communications lymphatico-veineuses a été décrite il y a plus de cinquante ans et leur présence a été mise en évidence à l'aide de radio-isotopes et dans le cadre de lymphangiographies radiologiques chez des malades présentant un cancer ou un lymphœdème. Nous rapportons ici les imageries lymphoscintigraphiques de 4 femme et un homme avec un œdème des membres inférieurs secondaire à une chirurgie pour cancer (3 ovaires, 1 col utérin, 1 prostate) où la présence d'une communication lymphatico-veineuse pouvait être suspectée ou a été démontrée. En rapportant ces cas, le but de cet article est (1) de rappeler au corps médical l'existence de ces shunts entre le système lymphatique et la circulation systémique avec ses implications potentielles, (2) d'attirer l'attention des spécialistes en médecine nucléaire pratiquant leurs investigations dans le cadre de lymphœdèmes des membres inférieurs sur les images évoquant ces situations mais aussi (3) de leur proposer la réalisation de la phase 4 pour pouvoir les mettre en évidence.

Rev Med Brux 2019 ; 40 : 101-7
Doi : 10.30637/2019.18-049

ABSTRACT

The existence of lymphatico-venous shunts was described more than fifty years ago in the framework of the realization of diagnostic radiological lymphangiographies and of the therapeutic intra-lymphatic injections of radio-labeled materials in patients presenting a cancer or a lymphedemas. We report lymphoscintigraphic observations of 4 women and 1 men with a secondary oedema of lower limb to a surgery for cancer (3 ovarian, 1 uterine cervix, 1 prostate) where the presence of lymphatico-venous shunt could be suspected or was demonstrated. By reporting these cases, the aim of the present paper is (1) to remind to medical profession the existence of these shunts between the lymphatic system and the systemic circulation with its potential implications, (2) to draw the attention of the specialist in nuclear medicine practicing their investigations within the framework of lymphedemas lower limbs on the images evoking these situations but also (3) to propose them the realization of the phase 4 to be able to highlight them.

Rev Med Brux 2019 ; 40 : 101-7
Doi : 10.30637/2019.18-049

Key words : shunt lymphatico-venous, lymphoscintigraphie, cancer

INTRODUCTION

Les lymphœdèmes (LO) sont la conséquence d'une stase lymphatique provoquant une augmentation de volume du membre atteint. Ils sont classés en LO primitifs et LO secondaires. Les LO primitifs sont le plus souvent sporadiques, parfois familiaux ou font partie de syndromes malformatifs plus complexes. Les formes secondaires, les plus fréquentes, sont liées à des lésions des ganglions ou des voies lymphatiques, principalement après un geste à visée thérapeutique, ainsi, pour cancer du sein au niveau du membre supérieur et pour cancer du col utérin, de la vulve, de la prostate, de la vessie, de l'ovaire, du rectum ou à la maladie de Kaposi au niveau du membre inférieur. Le diagnostic de LO est essentiellement clinique mais dans les formes primitives, la lymphoscintigraphie permet d'évaluer la fonction lymphatique¹⁻⁴. De par sa simplicité, la lymphoscintigraphie a depuis longtemps remplacé la lymphographie radiologique dans l'évaluation des pathologies vasculaires et la démonstration des ganglions du système lymphatique⁵. Du point de vue physiologique et dans le cadre de ces examens, il est parfois difficile de comprendre comment est maintenue l'homéostasie de ces situations lymphoedémateuses en particulier quand il n'y a pas de collatérales permettant à la charge lymphatique de rejoindre le système veineux. Le but du présent article est de rapporter des images lymphoscintigraphiques qui démontrent comment le corps humain peut s'adapter dans de telles situations via l'ouverture de shunt lympho-veineux, une de ces adaptations qui a été démontrée il y a plus de 40 ans dans le cadre d'investigations radiologiques du système lymphatique⁶.

METHODES ET PATIENTS

Toutes utilisations des dossiers et examens cliniques ont été réalisées en accord avec les règles de conduite dictées par la Direction de l'institution et en accord avec la Commission d'Éthique de l'Institut Jules Bordet (numéro de Comité d'Éthique 2048).

Nos examens lymphoscintigraphiques ont été réalisés selon un protocole standard⁷. Des nanocolloïdes de albumine sérique humaine (Nanocoll®) marqués au ^{99m}Tc (3 mCi par site dans 0,2 ml) sont injectés en sous-cutanée dans le 1^{er} espace interdigital de chaque pied les membres au repos, patientes couchées sur le lit de la caméra depuis au moins 5 minutes. Après injections, le patient toujours au repos, l'arrivée spontanée du traceur au niveau des 1^{ers} relais inguinaux est étudiée pendant 30 minutes (phase I) puis pendant 5 minutes de flexion extension des pieds et orteils (phase 2). Des imageries scintigraphiques corps entier (de la tête aux pieds) sont réalisées après chacune de ces 2 phases de même qu'après une heure de marche (phase 3). Dans certains cas, 0,4 cc du flacon de Nanocoll sont injectés en intradermique au niveau de la partie haute et externe de la cuisse (phase 4 : sa réalisation pratique, le jour même dans la foulée des phases précédentes ou dans le cadre d'un examen ultérieur, dépend de la disponibilité de la personne

investiguée, de l'investigateur et des caméras).

CAS CLINIQUES

Cas n° 1 (figure 1)

Une femme âgée de 48 ans a été opérée en 2014 d'une hystérectomie radicale totale, omentectomie et lymphadénectomie (pelvienne et lombo-aortique) par laparoscopie pour un carcinome papillaire séreux de l'ovaire de grade III de 3 cm. Un ganglion positif (iliaque commun droit) sur 34 prélevés. Un an après la chirurgie elle a développé un œdème des membres inférieurs. La phase 1 de la lymphoscintigraphie montre un drainage lymphatique normal du pied jusqu'en inguinal, mais avec une activité moindre à gauche qu'à droite. Une activité est visible au niveau de la vessie et très faible au niveau du foie. Après la phase 2, l'activité dans les ganglions inguinaux est nettement augmentée et des reflux lymphatiques à partir de ces ganglions sont observés des deux côtés. Bien que les axes ganglionnaires intra-abdominaux ne soient pas mis en évidence, le foie et la rate apparaissent nettement. Après la phase 3, nous notons des reflux lymphatiques inguinaux limités aux 1/3 supéro-internes de la cuisse (plus à gauche qu'à droite), une absence de visualisation des ganglions intra-abdominaux mais une visualisation intense de la rate, du foie et de la moelle osseuse (figure 1).

En ce qui concerne notre problématique, les interprétations de ces images sont claires : nous avons le trajet lymphatique normal des pieds aux relais ganglionnaires inguinaux, des reflux lymphatiques au niveau de la racine des 2 membres, mais aussi :

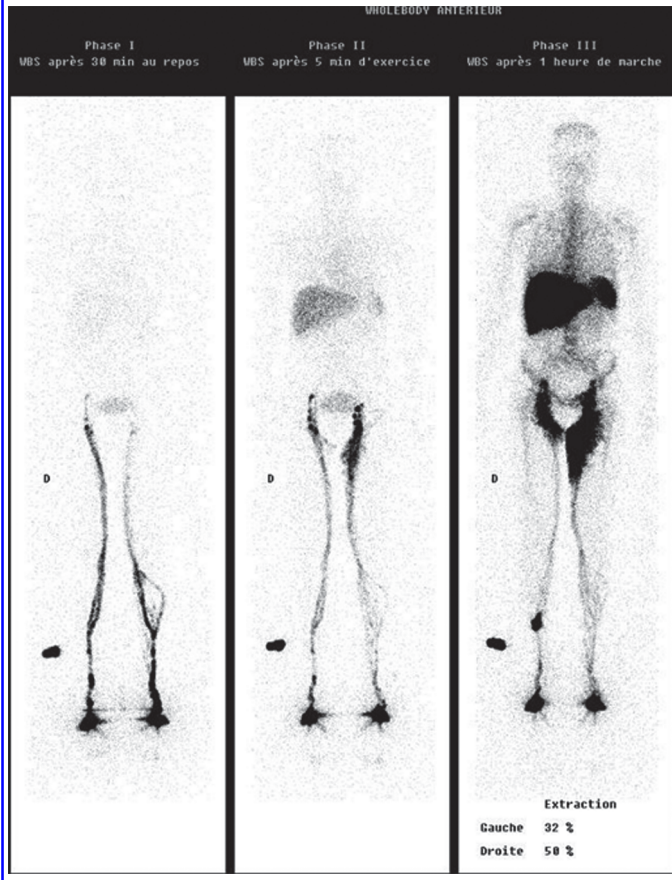
- 1) Une faible activité hépatique après la phase 1 (le premier témoignage de la présence et du passage des colloïdes dans la circulation veineuse) ;
- 2) Après la phase 2, une accentuation de l'activité hépatique et l'apparition de la rate mais aussi une activité au niveau des structures cardiovasculaires (témoignage de la présence des colloïdes dans la circulation veineuse) et
- 3) Enfin après la phase 3, l'augmentation de l'activité hépatique, splénique mais aussi médullaire osseuse (témoignage de la présence des colloïdes ayant massivement rejoint la circulation veineuse), sans que nous ayons de ganglions intra-abdominaux (par lesquels transite normalement la lymphe et ici nos colloïdes avant que de rejoindre la circulation systémique via le canal thoracique) ni de signe de collatérales qui expliqueraient le retour habituel de la lymphe de ganglions inguinaux vers la circulation.

Ces images sont fort suggestives pour la présence d'une communication lympho-veineuse.

Cas n° 2 (figure 2)

Femme de 77 ans, opérée en 2015 d'une hystérectomie radicale totale, omentectomie et lymphadénectomie (pelvienne et para-aortique) pour un carcinome papillaire séreux de haut grade

Figure 1 : De gauche à droite, images de lymphoscintigraphie pédiéuse avec les membres au repos (phase 1), puis " *tip-toeing* " des pieds et orteil pendant 5 min (phase 2) et puis après 1 h de déambulation, de promenade normale (phase 3). Les points d'injections (le premier espace interdigital de chaque pied) sont visualisés dans la partie plus basse de chaque image avec un " *hot spot* " correspondant à une source standard (seringue avec son reliquat éventuel d'activité) placé latéralement à l'extérieur du membre.



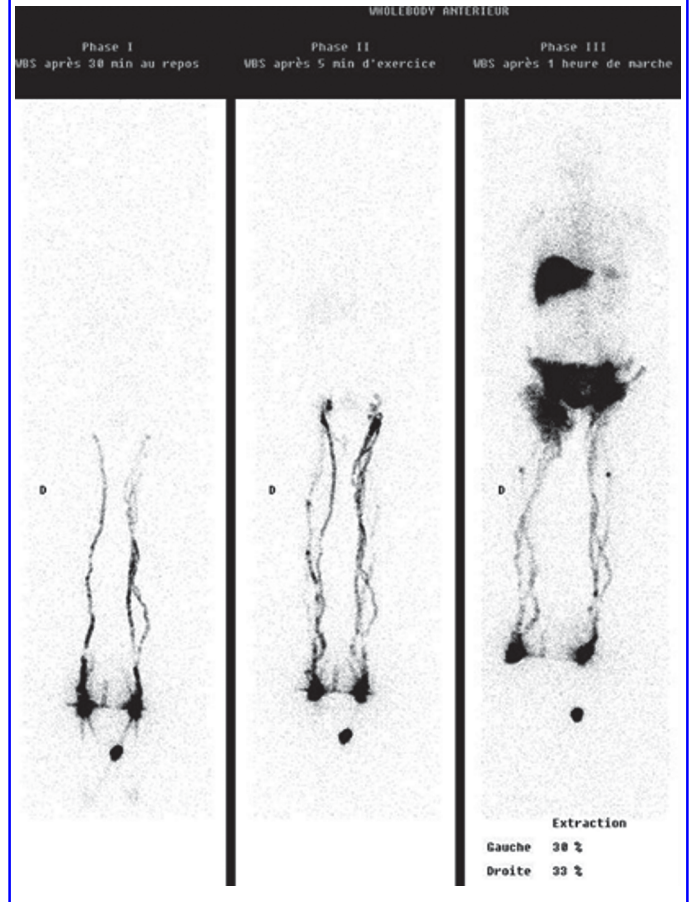
envahissant les 2 ovaires, les trompes et le corps utérin. Invasion massive des 24 ganglions isolés. La patiente développe un œdème du membre inférieur droit un mois après la chirurgie.

En ce qui concerne notre problématique, les interprétations de ces images sont moins claires que pour le cas précédent, mais restent très suggestives d'un shunt lymphatico-veineux avec nos colloïdes qui atteignent les ganglions inguinaux, avec des reflux lymphatiques inguinaux et au niveau de la paroi abdominale, absence de visualisation des ganglions lymphatiques intra-abdominaux mais présence d'une activité nette au niveau du foie, de la rate et, moins, de la moelle osseuse.

Cas n° 3 (figure 3)

Femme de 72 ans avec antécédent de cancer de l'ovaire il y a 21 ans consulte pour un œdème au niveau des pieds. Elle a bénéficié d'une hystérectomie radicale totale, omentectomie et lymphadénectomie (pelvienne et para-aortique). Dans ce cas, notre image après la phase 3 montre nos colloïdes qui atteignent les ganglions inguinaux avec des reflux vasculaires lymphatiques limités, mais une visualisation des ganglions lymphatiques intra-abdominaux iliaques

Figure 2 : De gauche à droite, images de lymphoscintigraphie pédiéuse avec les membres au repos (phase 1), puis " *tip-toeing* " des pieds et orteil pendant 5 min (phase 2) et puis après 1 h de déambulation, de promenade normale (phase 3). Les points d'injections (le premier espace interdigital de chaque pied) sont visualisés dans la partie plus basse de chaque image avec un " *hot spot* " correspondant à une source standard (seringue avec son reliquat éventuel d'activité) placé sous le pied gauche (phase 3).



externes des deux côtés et iliaques communs gauches (mais pas des lombo-aortiques) avec présence d'une activité nette au niveau du foie, de la rate et, moins, de la moelle osseuse.

Comparativement à nos deux premiers cas, la présence d'une communication lymphatico-veineuse apparaît ici moins évidente pour expliquer l'activité hépato-splénique. Or c'est ce que montre clairement notre phase 4. Sur la 1^e image, deux vaisseaux lymphatiques vont du point d'injection fessier droit vers la région ganglionnaire inguinale. Sur la 2^e image, nous retrouvons un des deux vaisseaux lymphatiques, avec 3 ganglions inguinaux, mais surtout une ligne d'activité qui monte sus-jacente à ceux-ci et disparaît sur les images ultérieures alors qu'apparaît en même temps une activité dans la partie inférieure du foie (prise dans le champ de nos images) sans visualisation des ganglions iliaques communs. En fait, nos images s'interprètent comme suit : le colloïde a atteint par voie lymphatique les ganglions inguinaux puis est passé de ceux-ci dans une veine où il a transité et dont il a disparu emporté vers le foie où il a été capté.

Cas n° 4 (figure 4)

Homme âgé de 77 ans consulte pour un œdème

Figure 3 : Du côté gauche, image obtenue après 1 h de marche (phase 3) à la fin d'examen. Les points d'injections (le premier espace interdigital de chaque pied) sont visualisés dans la partie plus basse de chaque image avec un " hot spot " correspondant à une source standard placé entre les pieds. Du côté droit, six images consécutives, de gauche à droite et de haut en bas, centrées sur le bassin et l'abdomen, obtenues plusieurs jours plus tard après l'injection de radio-colloïdes au niveau de la partie externe et latérale de la cuisse droite.

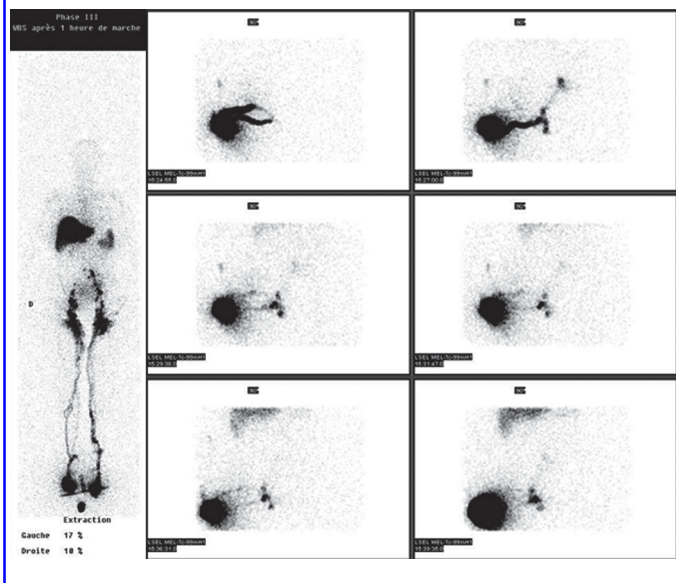
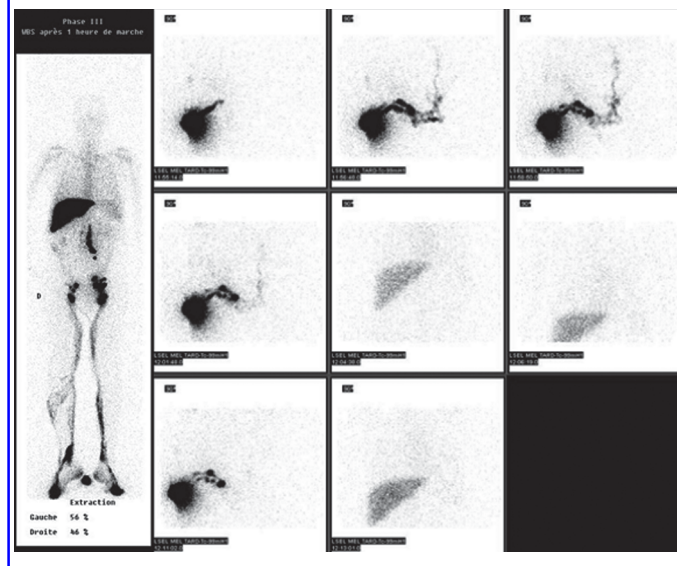


Figure 4 : Du côté gauche, image obtenue après 1 h de marche (phase 3) à la fin d'examen. Les points d'injections (le premier espace interdigital de chaque pied) sont visualisés dans la partie plus basse de chaque image avec un " hot spot " correspondant à une source standard placé entre les pieds. Du côté droit, huit images consécutives, de gauche à droite et de haut en bas, obtenues plusieurs jours plus tard après l'injection de radio-colloïdes au niveau de la partie externe et latérale de la cuisse droite et centrées sur le pelvis et l'abdomen pour images (1-4 et 7) et sur l'abdomen supérieur (5) et le thorax (6 et 8).



des membres inférieurs droits plus que gauche 11 mois après une cysto-prostatectomie totale avec curage ganglionnaire pour un carcinome urothélial de haut grade. Sur 22 ganglions prélevés 5 étaient positifs.

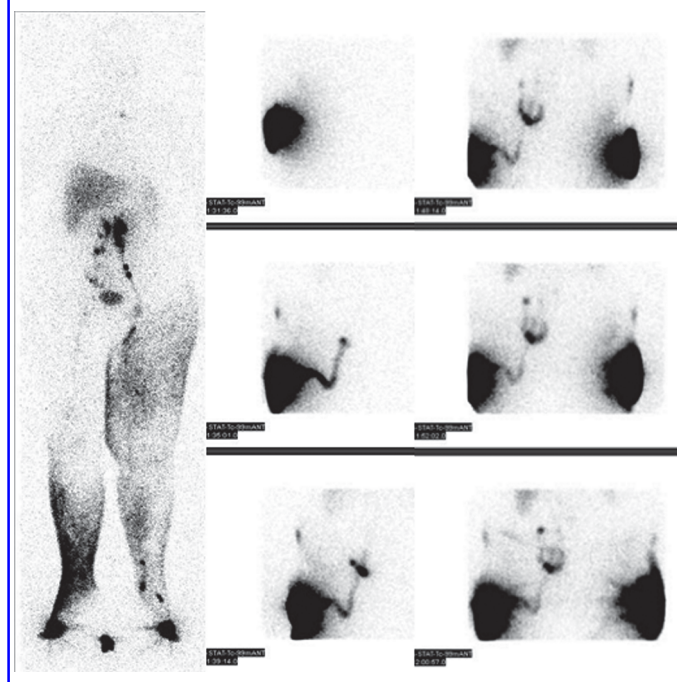
Nous avons ici une visualisation des ganglions inguinaux droits et gauches et des lombo-aortiques gauches. En fait, la visualisation de ces derniers serait suffisante que pour expliquer la visualisation du foie de la rate et de la moelle. Les images de notre phase 4 montrent un résultat analogue (sinon plus parlant) à celui du cas précédant avec des vaisseaux lymphatiques aboutissant dans un ganglion inguinal supérieur puis de ceux-ci une activité qui en disparaît vers le foie où le colloïde est capté.

Cas n° 5 (figure 5)

Patiente âgée de 61 ans consulte pour un œdème des membres inférieurs, gauche plus que droit. La patiente a été opérée en 2002 d'une hystérectomie radicale avec curage ganglionnaire pelvien. Aucun ganglion envahi.

Nous avons ici une image plus parlante de lymphoœdème avec des reflux dans le réseau de collatéralisation dermique superficielle du pied jusque sous le genou à droite et du pied jusqu'à la racine du membre à gauche, mais avec visualisation de ganglions intra-abdominaux et aussi d'un ganglion sus-diaphragmatique rétroclaviculaire gauche qui se situe sur la terminaison du canal thoracique. Avec ce dernier élément, nous avons en soi une explication de nouveau suffisante contre la présence de shunt lymphatico-

Figure 5 : Du côté gauche, image obtenue après 1 h de marche (phase 3) à la fin d'examen. Les points d'injections (le premier espace interdigital de chaque pied) sont visualisés dans la partie plus basse de chaque image avec un " hot spot " correspondant à une source standard placé entre les pieds. Du côté droit, six images consécutives, de haut en bas, obtenues après l'injection de radio-colloïdes au niveau de la partie externe et latérale de la cuisse droite (les premiers 3 images) et après deuxième injection au niveau de la cuisse gauche (les dernières 3 images).



veineux. Dans le cadre de la réalisation de phase 4 (à la recherche de collatérales), nos images montrent de nouveau la présence d'une telle communication à partir des 1ers ganglions iliaques à droite.

DISCUSSION

Les investigations scintigraphiques du système lymphatique ou lymphoscintigraphies représentent l'équivalent en médecine nucléaire des anciennes lymphangiographies radiologiques. Leur principe est simple : si de taille adéquate (ici, des agrégats d'albumine d'une taille inférieure à 100 nanomètres), des particules injectées dans un tissu ne peuvent être reprises que par les lymphatiques initiaux, transiter ensuite dans les vaisseaux lymphatiques et, si de nature colloïdale être captées par les éléments réticulo-endothéliaux des ganglions lymphatiques présents et intercalés sur ces voies lymphatiques avant de rejoindre la circulation systémique et s'accumuler dans le foie et la rate (et la moelle osseuse). Marquées avec un radio-élément émetteur gamma (ici le Technétium-99m), elles permettent alors l'imagerie des vaisseaux et ganglions lymphatiques dépendant anatomiquement du site injecté et d'étudier le fonctionnement de ce système lymphatique. Si cet examen est maintenant très largement connu pour sa démonstration des " ganglions sentinelles " et son utilité pour leur lymphadénectomie sélective dans de multiples cancers (sein, mélanomes), il est aussi connu depuis longtemps pour son intérêt diagnostique dans la mise au point des œdèmes et est devenu la référence pour le diagnostic et l'évaluation des œdèmes suspectés d'origine lymphatique, surtout au niveau des membres inférieurs, lymphœdèmes dits primaires ou dans des situations cliniques peu évidentes⁸. Quand les données morphologiques (reflux vasculaire lymphatique, reflux dermiques, démonstration de voies collatérales profondes, de l'absence de ganglions ou groupes ganglionnaires) sont combinées aux données fonctionnelles et quantitatives (quantités de colloïdes extraits des points d'injection et/ou accumulés dans les ganglions et/ou dans le foie, cinétique d'apparition et/ou temps de demi accumulation au niveau des premiers relais ganglionnaires au repos et/ou à l'exercice, comparant le membre œdématié au membre sain ou en cas d'œdème bilatéral aux données d'une population normale) obtenues dans le cadre d'examen aux protocoles méthodologiques bien standardisés⁹ ceux-ci affichent en effet des valeurs élevées (supérieures à 90 %) de sensibilité et spécificité pour l'établissement du diagnostic de lymphœdème. L'utilisation (plus récente) des appareillages dits de SPECT-CT¹⁰, combinant une imagerie scintigraphique de la distribution dans l'espace du signal lymphatique du radio-colloïde (*Single Photon Emission Computed Tomography* ou Tomographie d'Emission Mono-Photonique) à l'imagerie de Tomographie Computée (CT) radiologique, a également affiné l'analyse et l'interprétation des images. Indépendamment de son apport pour le diagnostic de lymphœdème, l'examen permet de caractériser la situation lymphatique sous-jacente à tout œdème et a différentes implications thérapeutiques. Pour les physiothérapeutes, les images montrent où poser leurs gestes de drainages lymphatiques manuels visant à résorber l'œdème et/ou à stimuler les vaisseaux lymphatiques le drainant ou les collatérales l'évacuant. Pour les chirurgiens, elles

montrent les vaisseaux et/ou ganglions lymphatiques qu'ils peuvent utiliser pour réaliser leurs anastomoses à des veines¹¹.

Les images présentées sont bien illustratives de ces résultats, de ces contributions diagnostiques dans les lymphœdèmes secondaires. Certaines sont néanmoins quelque peu interpellantes avec apparition et accumulation normale du colloïde dans le foie et la rate (et la moelle) alors que le chemin qui les ramène du membre dans la circulation systémique et qui passe ainsi à travers les ganglions lymphatiques abdominaux puis le canal lymphatique thoracique, n'est pas mis en évidence. Ces situations (qui peuvent même être observées chez des malades sans œdème net) soulèvent en fait la question de communications entre le système lymphatique et le système veineux dont la démonstration de l'existence est ancienne dans la littérature médicale et qui sont bien montrées dans les cas ici présentés.

Si les images présentées associées au cas 1 et 2 sont connues, celles montrées associées à nos phases 4 n'ont pas d'équivalent dans la littérature médicale du moins de médecine nucléaire et en fait elles apparaissent pour l'une d'entre elle (cas 5) superposable à celle publiée par Edwards et Kinmonth⁶. Comme signalé en introduction de cet article, ces auteurs ont décrit ces shunts lymphatico-veineux dans le cadre d'investigations radiologiques et/ou d'interventions thérapeutiques sur le système lymphatique des membres inférieurs de patients présentant un cancer sous-diaphragmatiques. Ils ont ainsi défini les images suivantes comme représentatives de tels shunts lymphatico-veineux :

- 1) La démonstration d'une veine anatomiquement reconnaissable (confirmée par phlébographie) ;
- 2) La présence de globules de Lipiodol quand le produit de contraste est entré dans la circulation sanguine ; leur " signe du caviar " ;
- 3) La démonstration d'un gros vaisseau initialement non reconnu comme une veine, mais qui montre un *wash-out* rapide du produit de contraste ;
- 4) La visualisation d'un organe -par exemple, le foie- que l'on ne peut pas expliquer d'autre manière que par la présence d'un shunt lymphatico-veineux, (mais aussi l'accumulation du Lipiodol radioactif dans le foie dans le cadre de l'utilisation thérapeutique de ce produit radiopharmaceutique.

Ces auteurs rapportent que de telles communications lymphatico-veineuses (entre vaisseau lymphatique et veine et/ou entre structure lymphatico-ganglionnaire et système veineux) ne sont pas présentes quand le système lymphatique est considéré comme normal, mais ne seraient visualisées que chez les patients avec une tumeur -envahissement ganglionnaire- ou chez les patients avec un lymphœdème. Dans leur analyse, l'incidence de ce type de communications est de 1 % chez les patients avec lymphœdème primaire et d'au moins 5 % chez les patients avec un envahissement ganglionnaire d'origine cancéreuse (mélanomes, lymphomes, cancer du sein,

de la vulve, de la vessie, prostate et rectum). Il faut néanmoins garder à l'esprit que les images obtenues à travers la lymphographie radiologique (où l'agent de contraste est injecté sous pression) diffèrent toutefois de celles de la lymphoscintigraphie classique (où l'apparition des colloïdes dans les différentes structures dépend des flux lymphatiques normaux).

En lymphoscintigraphie classique, chez les patients avec œdème de membre inférieur (comme chez nous après la phase 3 de notre protocole), de tels shunts lymphatico-veineux peuvent être suspectés sur base des images suivantes :

- 1) Quand, comme dans les 2 premiers cas, un drainage vasculaire lymphatique normal est observé du pied aux ganglions inguinaux ;
- 2) quand le radiocolloïde apparaît au niveau du foie et la rate (et parfois au niveau de la moelle osseuse) ; mais et aussi surtout
- 3) Quand il n'y a pas de structures ganglionnaires intra-abdominales observées (ce qui suggère un blocage sur le retour lymphatique normal) et
- 4) Quand il n'y a pas de collatérales qui expliqueraient comment les radiocolloïdes arrivent dans la circulation systémique.

Stamp et Soares^{12,13} ont élégamment démontré que des shunts lymphatico-veineux pouvaient être suspectés dans 9 % des cas avec lymphoedème et lymphoscintigraphie normale, mais dans 38 % des cas avec lymphoscintigraphie anormale. Pour ce faire, ces auteurs se basent sur une approche quantitative, soit des ratios d'activités dans les ganglions inguinaux par rapport aux activités hépatiques. Cette approche n'est néanmoins pas applicable à notre cas n° 5 (dont la présentation sans que nous puissions en donner une fréquence exacte n'est pas rare) et son résultat pourrait dépendre du dessin des régions d'intérêt.

Les images de nos phases 4 présentées pour les cas 3, 4 et 5 ne sont réalisées que chez des malades avec lymphoedèmes chez qui nous cherchons ainsi à démontrer la présence de voies collatérales. Comme les images des lymphographies radiologiques de Kinmonth⁶, elles apportent la preuve qu'une communication peut naturellement s'installer entre un ganglion lymphatique et le système veineux (ce que des microchirurgiens réalisent dans le but d'améliorer certains lymphoedèmes)¹⁴.

D'autres examens sont maintenant proposés pour visualiser le système lymphatique. Par rapport au sujet spécifique abordé dans le cadre de cet article, l'imagerie par résonance magnétique avec injection sous-cutanée de produit de contraste magnétique pourrait démontrer la présence de communication lymphatico-veineuse, mais n'a pas été rapportée dans la littérature à notre connaissance. L'imagerie en fluorescence infrarouge, après injection intradermique ou sous-cutanée de vert d'indocyanine, permet de visualiser les vaisseaux lymphatiques et notamment de démontrer la perméabilité d'anastomose lymphatico-veineuse¹⁵. Mais par contre vu l'atténuation importante du signal

fluorescent à partir de quelques millimètres sous la peau, cette méthode ne permet de visualiser que les structures vasculaires lymphatiques superficielles et la démonstration de l'existence de tels shunts lymphatico-veineux naturels n'a pas été jusqu'ici rapportée à notre connaissance et pas les profondes comme c'est le cas ici. Dans une approche postopératoire (d'anastomose lymphatico-veineuse ou ganglio-veineuse), l'approche lymphoscintigraphique, par contre, permet de suivre le signal du radio-colloïde (indépendamment de sa profondeur), soit dans le vaisseau lymphatique jusqu'à son abouchement au niveau du site d'anastomose dans la veine et la disparition rapide du signal emporté par le flux veineux (puis son accumulation hépatique), soit jusque dans le ganglion anastomosé à une veine.

Au final, nos observations doivent rappeler que l'existence de telles communications lymphatico-veineuses naturellement ouvertes peut avoir des implications cliniques :

- 1) Dans les lymphoedèmes primaires et secondaires, la présence de ces communications lymphatico-veineuses (entre vaisseau lymphatique et veine et/ou entre une structure lympho-ganglionnaire et le système veineux) peut protéger le membre contre le développement un lymphoedème. L'apparition d'un sévère lymphoedème secondaire à une simple lymphadénectomie, comme nous l'avons observé, souligne l'importance de ces modifications dont la présence contribue au maintien de l'équilibre lymphatique du membre¹⁶ ;
- 2) Comme soulevé par Edwards et Kinmonth⁶, la présence d'une communication lympho-veineuse peut et devrait amener à prendre des précautions dans certaines circonstances. Ces auteurs soulignaient en effet le risque d'embolisation lipiodolée au niveau du poumon, spécialement quand ils utilisaient du Lipiodol radio iodé pour traiter les patientes avec envahissement ganglionnaire. Actuellement, la présence d'une communication lympho-veineuse devrait être prise en compte quand de nouveaux agents diagnostiques ou thérapeutiques sont administrés par voie lymphatique ;
- 3) D'un point de vue oncologique, il doit être considéré que la présence d'une communication lympho-veineuse représente une voie de dissémination cancéreuse à distance quand les ganglions lymphatiques sont envahis ;
- 4) Considérant la prise en charge physiothérapeutique de ces lymphoedèmes, la démonstration de l'existence de ces shunts lymphatico-veineux représente une information favorable sinon rassurante pour les thérapeutes. Elle signifie que les liquides lymphatiques de l'œdème que leurs manœuvres déplacent vers ces ganglions vont pouvoir s'y évacuer vers la circulation systémique. En outre, elle représente un argument pour pratiquer sur ces ganglions leurs manœuvres de massage les vidangeant ;
- 5) Enfin, du point de vue chirurgical, ces communications lympho-veineuses ouvertes naturellement pourraient poser la question de l'intérêt de la réalisation d'anastomoses lymphatico-

veineuses additionnelles.

CONCLUSION

En rapportant ces cas, le but de cet article était (1) de rappeler au corps médical l'existence de ces shunts entre le système lymphatique et la circulation systémique avec ses implications potentielles, (2) d'attirer l'attention des spécialistes en médecine nucléaire pratiquant leurs investigations dans le cadre de lymphœdèmes des membres inférieurs sur les images évoquant ces situations, mais aussi (3) de leur proposer la réalisation de la phase 4 pour pouvoir les mettre en évidence.

Conflits d'intérêt : néant.

BIBLIOGRAPHIE

1. Bourgeois P. Combined role of Lymphoscintigraphy, X-ray Computed Tomography, Magnetic Resonance Imaging and Positron Emission Tomography in the management of lymphedematous diseases. In: BB Lee, JJ Bergan and SG Rockson. Lymphedema: a concise compendium of theory and practice. Springer UK Ed;2011.
2. See comment in PubMed Commons below Szuba A, Shin WS, Strauss HW, Rockson S. The third circulation: radionuclide lymphoscintigraphy in the evaluation of lymphedema. J Nucl Med. 2003;44:43-57.
3. Jensen MR, Simonsen L, Karlsmark T, Bülow J. Lymphoedema of the lower extremities-background, pathophysiology and diagnostic considerations. Clin Physiol Funct Imaging. 2010; 30(6):389-98.
4. Warren AG, Brorson H, Borud LJ, Slavin SA. Lymphedema: a comprehensive review. Ann Plast Surg. 2007;59:464-72.
5. Voutilainen A, Wiljasalo M. On the correlation of lymphography and lymphoscintigraphy in metastases of tumours of the pelvic region. Ann Chir Gynaecol Fenn. 1965;54:268-77.
6. Edwards JM, Kinmonth JB. Lymphovenous shunts in man. Br Med J. 1969;4:579-81.
7. P. Bourgeois. (Consulté le 15/04/2018). Lymphoscintigraphie pédieuse-Protocole d'investigation lymphoscintigraphique des œdèmes des membres inférieurs en 3 à 5 phases. Institut Jules Bordet. [Internet]. https://www.bordet.be/fichiers_web/lymphologie/lymphoscintigraphie_pedieuse.pdf

8. Bourgeois P. Scintigraphic investigations of the lymphatic system: the influence of injected volume and quantity of labeled colloidal tracer. J Nucl Med. 2007;48(5):693-5.
9. Bourgeois P. Critical analysis of the literature on lymphoscintigraphic investigations of limb edemas. Eur J Lymphology Relat Probl.1996;6:1-9.
10. Baulieu F, Bourgeois P, Maruani A, Belgrado JP, Tauveron V, Lorette G *et al.* Lymphology. 2013;46(3):106-19.
11. Boccardo F, Casabona F, De Cia F, Friedman D, Villa G, Bogliolo S *et al.* Lymphedema microsurgical preventive healing approach : a new technique for primary prevention of arm lymphedema after mastectomy . Ann Surg Oncol. 2009;16(3):703-8.
12. Stamp GF, Peters AM. Peripheral lymphovenous communication in lymphoedema. Nucl Med Commun. 2012;33(7):701-7.
13. Soares MM, Keramida G, Glass DM, Mortimer PS, Peters AM. Lymph proteins may access peripheral blood without entering thoracic duct in patients with lymphatic dysfunction. J Vasc Surg Venous Lymphat Disord. 2016;4(2):215-20.
14. Yokoyama A, Numahata T, Koshima I. Multisite Lymphaticovenular Anastomosis Using Vein Graft for Uterine Cancer-Related Lymphedema after Pelvic Lymphadenectomy. Vasc Endovascular Surg. 2015;49(7):195-200.
15. Winters H, Tielemans HJP, Hameeteman M, Paulus VAA, Beurskens CH, Slater NJ *et al.* The efficacy of lymphaticovenular anastomosis in breast cancer-related lymphedema. Breast Cancer Res Treat. 2017;165(2):321-7.
16. Bourgeois P, Dargent JL, Larsimont D, Munck D, Sales F, Boels M, De Valck C. Lymphoscintigraphy in angiomyomatous hamartomas and primary lower lymphedema. Clin Nucl Med. 2009;34:405-9.

Correspondance :

M. ROMAN
Institut Jules Bordet
Service de Chirurgie mammo-pelvienne
Boulevard de Waterloo, 121
1000 Bruxelles
E-mail : mirela-mariana.roman@bordet.be

Travail reçu le 16 mai 2018 ; accepté dans sa version définitive le 22 août 2018.