

Localisation rare de l'actinomyose : atteinte cérébrale

A rare localization of actinomycosis : cerebral involvement

CHAKROUN A.¹, KOUBAA M.¹, HAMMAMI F.¹, REKIK K.¹, HENTATI Y.², MNIF Z.², SMAOUI F.¹ et BEN JEMAA M.¹

¹Service des Maladies infectieuses, CHU Hédi Chaker,

²Service de Radiologie, CHU Habib Bourguiba, Sfax, Tunisie

RÉSUMÉ

Introduction : L'actinomyose est une maladie infectieuse suppurative chronique. L'atteinte cérébrale est inhabituelle. L'objectif de ce travail est de décrire les difficultés diagnostiques et la prise en charge de l'actinomyose cérébrale.

Patients et méthodes : Nous avons inclus tous les cas d'actinomyose cérébrale hospitalisés dans le service de maladies infectieuses de Sfax. Le diagnostic était confirmé par l'isolement d'*Actinomyces sp.*

Résultats : Deux hommes et une femme d'âge moyen 31 ans ont été hospitalisés pour des céphalées holo-crânienne (3 cas) associées à une altération de l'état de conscience (2 cas). L'examen clinique trouvait deux patients confus. Il n'y avait ni déficit sensitivomoteur, ou syndrome méningé. On a noté une mauvaise hygiène bucco-dentaire chez tous les patients et de multiples petites télangiectasies de la muqueuse de la bouche dans un cas, révélant la maladie d'Osler Weber. La sérologie du virus d'immunodéficience humaine (VIH), la recherche de bacille de Kock (BK) dans les crachats et les urines étaient négatives (3 cas). A l'imagerie, on a trouvé des abcès cérébraux associés ou non à un effet de masse (2 cas). Deux patients ont eu une biopsie stéréotaxique et un patient a bénéficié d'une exérèse chirurgicale. Le diagnostic étiologique était confirmé par l'examen bactériologique : culture du pus positive à *Actinomyces meyeri* dans 2 cas et à *Actinomyces israelii* dans un cas. Un traitement antibiotique empirique a été initialement instauré, associant cefotaxime, fosfomycine et métronidazole. Après la récupération des résultats bactériologiques, les patients ont été traités par ampicilline en association avec métronidazole (2 cas) ou rifampicine (1 cas). L'antibiothérapie a été ensuite adaptée selon la sensibilité et la tolérance au traitement. La durée moyenne du traitement était de 6 mois. L'évolution était favorable dans tous les cas.

Conclusion : L'actinomyose cérébrale pose des difficultés diagnostiques pour le clinicien. Le plus souvent, le diagnostic est posé en post-opératoire. Devant des signes neurologiques et en présence d'une porte d'entrée dentaire, il faut évoquer l'actinomyose cérébrale. Un traitement débuté précocement améliore le pronostic vital de cette affection.

Rev Med Brux 2022 ; 43 : 145-148
Doi : 10.30637/2022.20-082

ABSTRACT

Introduction: Actinomycosis is a chronic suppurative infectious disease. Brain involvement is unusual. The aim of this study was to describe the diagnostic difficulties and the management of cerebral actinomycosis.

Patients and methods: We included all cases of cerebral actinomycosis hospitalized in the Infectious Diseases Department in Sfax. The diagnosis was confirmed by the isolation of *Actinomyces sp.*

Results: There were two men and a woman with a mean age of 31 years admitted for holo-cranial headache (3 cases) with altered consciousness (2 cases). Clinical examination found two patients confused. There were no sensitivomotor deficit or meningeal syndrome. Poor dental hygiene was noted in all patients and multiple small telangiectasias of the lining of the mouth in one case related to Osler Weber disease. Human immunodeficiency virus (HIV) serology, test for Kock's bacillus (BK) in sputum and urine were negative (3 cases). Computed tomography showed cerebral abscesses whether or not associated with a mass effect (2 cases). Two patients had a stereotaxic biopsy and one patient underwent surgical excision. The etiological diagnosis was confirmed by bacteriological examination. Culture was positive in all cases : *Actinomyces meyeri* in 2 cases and *Actinomyces israelii* in one case. Empirical antibiotic treatment was initially started, combining cefotaxime, fosfomycin and metronidazole. After recovery of the bacteriological results, the patients were treated with ampicillin in combination with metronidazole (2 cases) or rifampicin (1 case). Antibiotic therapy was then adapted according to the sensitivity and tolerance to the treatment. The mean duration of treatment was 6 months. The outcome was favorable in all cases.

Conclusion: Cerebral actinomycosis poses diagnostic difficulties for the clinician. Most often the diagnosis is made postoperatively. In the presence of neurological signs and a dental portal, cerebral actinomycosis should be mentioned. Treatment started as early as possible improves the prognosis of this disease.

Rev Med Brux 2022 ; 43 : 145-148
Doi : 10.30637/2022.20-082

Key words : actinomyces, brain, abscess, ampicillin, computed tomography, actinomycosis

INTRODUCTION

L'actinomyose est une maladie granulomateuse d'évolution lente, due à une infection par un bacille gram positif anaérobie du genre *Actinomyces*. L'actinomyose du système nerveux central est rare. Elle est de pronostic sévère et de diagnostic difficile^{1,2}. L'objectif de ce travail est de décrire les difficultés diagnostiques et la prise en charge de l'actinomyose cérébrale.

PATIENTS ET METHODES

Nous avons inclus tous les cas d'actinomyose cérébrale hospitalisés dans un service de maladies infectieuses. Le diagnostic était confirmé par l'isolement d'*Actinomyces sp.*

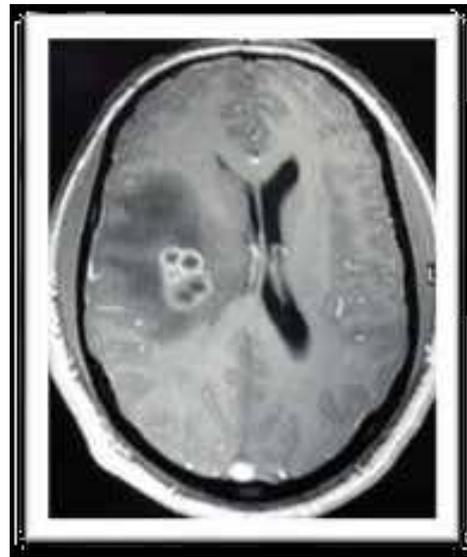
OBSERVATIONS

Observation 1

Un homme âgé de 31 ans, sans antécédents particuliers, a été hospitalisé pour céphalées et trouble de la conscience évoluant depuis 3 semaines. L'examen clinique montrait un patient confus avec un score de Glasgow à 13/15. Il n'y avait ni déficit sensitivomoteur ou syndrome méningé. Les réflexes ostéodentaireux étaient présents et symétriques. L'examen bucco-dentaire a montré la présence de multiples caries. A la biologie, on a trouvé un syndrome inflammatoire. La sérologie VIH, l'intradermoréaction à la tuberculine (IDR) et la recherche de BK dans les crachats et les urines étaient négatives. L'imagerie par résonance magnétique (IRM) du cerveau a montré de multiples abcès cérébraux, contigus, agencés en grappes, de siège pariétal droit, dont le plus grand mesurait 20 mm de diamètre. Les lésions étaient entourées par une large composante œdémateuse, responsable d'un important effet de masse sur le ventricule latéral droit (figure 1). La ponction stéréotaxique d'un abcès cérébral a ramené du pus d'aspect jaunâtre dont l'examen direct a montré de nombreux polynucléaires neutrophiles. Un traitement antibiotique empirique par voie intraveineuse a été instauré, associant céfotaxime (12 g/j), fosfomycine (12 g/j) et métronidazole (1,5 g/j). La radiographie du thorax, l'échographie abdominale et l'échographie cardiaque ne montraient pas d'anomalies. L'examen ORL était normal. L'examen stomatologique a montré de multiples caries dentaires. Après 3 semaines, la culture du pus de ponction est revenue positive pour *Actinomyces meyeri*. Le diagnostic d'actinomyose cérébrale a été alors retenu et le patient a été traité par ampicilline (12 g/j) et métronidazole (1,5 g/j). A 5 semaines de traitement, l'ampicilline a été interrompue en raison d'une réaction allergique. Le traitement a été poursuivi en ambulatoire par une bithérapie par voie orale associant rifampicine (1,2 g/j) et thiamphénicol (2 g/j), durant 6 mois. L'évolution était favorable avec disparition de toutes les lésions cérébrales. Le recul actuel est de 3 ans.

Figure 1

Coupe axiale d'une IRM cérébrale en séquence pondérée T1 après injection de Gadolinium montrant des lésions nodulaires multiples, contigües, agencées en grappes, de siège pariétal droit, prenant le contraste de façon annulaire avec un œdème péri-lésionnel, occasionnant un effet de masse sur le ventricule latéral droit.



Observation 2

Une femme âgée de 32 ans, aux antécédents d'épistaxis spontané et récurrent, a été admise pour céphalées et vomissements évoluant depuis 1 mois. Son examen physique a révélé de multiples petites télangiectasies sur la muqueuse buccale, la langue et les lèvres. La patiente était apyrétique, consciente avec un score de Glasgow à 15/15. Il n'y avait ni déficit sensitivo-moteur ou syndrome méningé. Les réflexes ostéodentaireux étaient présents et symétriques. La sérologie VIH, l'IDR à la tuberculine et la recherche de BK dans les crachats et les urines étaient négatives. L'IRM cérébrale a montré deux abcès de siège temporo-pariétal droit mesurant respectivement 35 x 20 mm et 33 x 19 mm avec un important effet de masse sur la ligne médiane et sur le système ventriculaire droit. La patiente a subi une craniotomie avec excision de l'abcès pariétal. Un traitement antibiotique empirique par voie intraveineuse a été instauré, associant céfotaxime (12 g/j), fosfomycine (12 g/j) et métronidazole (1,5 g/j). Une semaine après, la culture du pus prélevée en per opératoire est revenue positive pour *Actinomyces israelii*. Le diagnostic d'actinomyose cérébrale a été alors retenu et la patiente a été traitée par ampicilline (12 g/j) et rifampicine (1,2 g/j), en intraveineux. L'échographie cardiaque était normale. L'examen stomatologique et la radiographie panoramique ont montré un abcès dentaire. Un scanner thoraco-abdominal a révélé de multiples malformations artério-veineuses (MAV) pulmonaires et hépatiques (figure 2). La maladie de Rendu Osler Weber a été retenue devant la notion d'épistaxis spontané et récurrent, la présence de télangiectasies des muqueuses et des MAV pulmonaires et hépatiques. A quatre semaines de traitement antibiotique, l'ampicilline a été arrêtée en raison d'une réaction allergique. La patiente a eu une bithérapie par

voie orale associant thiamphénicol (1,5 g/j) et rifampicine (1,2 g/j), durant 4 mois. Le scanner cérébral de fin de traitement était normal. L'évolution était favorable sans rechute après un recul de 4 ans.

Figure 2

Coupe axiale d'un Scanner abdominal passant par le foie montrant une malformation artério-veineuse intra-hépatique.



Observation 3

Un homme âgé de 31 ans, sans antécédents particuliers, a été hospitalisé pour céphalées, troubles de la marche et de l'état de conscience évoluant depuis deux jours. A l'admission, il était apyrétique. Il avait un score de Glasgow à 12/15. Il n'y avait pas de signes de localisations neurologiques. L'examen bucco-dentaire a montré la présence de multiples caries. A la biologie, on n'a pas trouvé de syndrome inflammatoire. La sérologie VIH, la recherche de BK dans les crachats et les urines étaient négatives. L'IRM cérébrale a montré des lésions nodulaires et micronodulaires contiguës, frontales postérieures droites, entourées par une large composante œdémateuse péri lésionnelle, responsables d'un effet de masse sur le ventricule latéral avec début d'engagement sous-falcien. Le patient a subi une ponction stéréotaxique ramenant du pus. Un traitement antibiotique empirique par voie intraveineuse a été instauré, associant céfotaxime (12 g/j), fosfomycine (12 g/j) et métronidazole (1,5 g/j). Trois semaines après, la culture du pus de ponction est revenue positive pour *Actinomyces meyeri*. Le diagnostic d'actinomycose cérébrale a été alors retenu et le patient traité par ampicilline (12 g/j) et métronidazole (1,5 g/j). Après deux semaines, l'ampicilline a été arrêtée en raison d'une réaction allergique et le métronidazole a été arrêté à cause d'une cytolyse hépatique. Le patient a été mis sous rifampicine et thiobactam par voie orale. La radiographie du thorax et l'échographie abdominale étaient sans anomalies. L'examen stomatologique a montré de multiples caries dentaires. Le patient a eu 6 mois de traitement. Le scanner cérébral de la fin du traitement était normal. L'évolution était favorable sans rechute après un recul de 4 ans.

DISCUSSION

L'actinomycose est une affection bactérienne granulomateuse, suppurative et chronique. L'actinomyète est un bacille gram positif, anaérobie strict, asporulé et ramifié. Il est saprophyte de la cavité buccale, des tractus digestif et génital féminin. La localisation cérébrale est rare (2 %), elle peut simuler une pathologie néoplasique ou une tuberculose³.

Les facteurs de risque de développer une telle infection sont essentiellement, un état bucco-dentaire précaire (comme dans le cas de nos patients) et l'éthylisme chronique^{2,4,5}. L'atteinte cérébrale est généralement secondaire à une dissémination par voie hémotogène à partir d'un foyer primaire distant⁶. Une extension directe à partir d'une localisation cervico-faciale est possible.

L'abcès du cerveau à *Actinomyces sp* associé à la maladie de Rendu Osler Weber a été rapporté dans sept cas⁷. La traduction clinique est celle d'un abcès cérébral et fonction de la topographie et de la taille de la lésion. Il s'agit le plus souvent d'abcès hémisphérique, unique ou multiple, ou d'une méningite. D'autres formes peuvent se voir comme un abcès épidual, un empème sous dural ou une ostéomyélite de la voûte. L'intervalle libre entre l'apparition des symptômes et le diagnostic est d'environ 2 mois²⁻⁸. L'imagerie permet d'orienter le diagnostic mais surtout de préciser l'étendue de la lésion. L'IRM permet une bonne analyse topographique et une meilleure caractérisation tissulaire.

Le diagnostic étiologique est basé sur la ponction-biopsie des lésions avec études bactériologique et histologique. La lésion anatomopathologique pathognomonique repose sur la mise en évidence de lésions en forme de grains jaunes donnant un aspect en rayon de roue. La culture du pus est longue jusqu'à 3 semaines, exigeant après l'avertissement du microbiologiste, la mise en œuvre de techniques de culture en anaérobiose, incubées à 37 °C dans une atmosphère enrichie en CO₂³. La confirmation diagnostique chez nos patients a été obtenue par l'isolement d'*Actinomyces* sur les prélèvements.

Le traitement est médico-chirurgical. Le traitement radical de la porte d'entrée est primordial pour la guérison. *Actinomyces* est habituellement sensible à la pénicilline G, qui constitue le traitement de référence². Elle doit être administrée à forte dose (10 à 20 millions unités/j) par voie intraveineuse pendant 6 semaines puis relayée par la pénicilline A ou V par voie orale^{2,5,8}. D'autres antibiotiques actifs et à bonne diffusion cérébrale peuvent être utilisés en cas d'allergie à la pénicilline ou d'échec thérapeutique. Il s'agit essentiellement des céphalosporines, de la clindamycine, des sulfamides, de la rifampicine et de la ciprofloxacine^{2,9}. La bithérapie n'est pas recommandée mais souvent utilisée⁹. La durée totale du traitement n'est pas consensuelle. Plusieurs auteurs préconisent une durée prolongée allant de six à douze mois, afin de faire disparaître toutes les lésions et de minimiser les risques de rechute. La question de la réduction de la durée de l'antibiothérapie est actuellement posée. Ainsi certaines

publications rapportent une durée d'antibiothérapie plus courte, réduite même à 2 mois¹⁰. Elle est discutée en cas d'évolution clinique et radiologique favorable. L'actinomycose cérébrale est associée à une mortalité de 28 % et une morbidité de 54 %¹¹. Dans une revue de la littérature par Ravindra *et al.*, l'évolution sous traitement précoce et adéquat était favorable dans tous les cas étudiés¹², comme pour nos 3 patients.

CONCLUSION

En raison de complications potentiellement sévères, le diagnostic d'actinomycose cérébrale devrait être évoqué devant toute lésion cérébrale pseudo-tumorale associée à une porte d'entrée dentaire. Ainsi il faut insister pour avertir le microbiologiste et réaliser systématiquement l'examen anatomopathologique.

Conflits d'intérêt : néant.

Ethique : Il s'agit d'une étude rétrospective non interventionnelle ne nécessitant pas l'accord du Comité d'Ethique selon la législation en vigueur en Tunisie

BIBLIOGRAPHIE

1. Ham HY, Jung S, Jung TY, Heo SH. Cerebral actinomycosis : unusual clinical and radiological findings of an abscess. *J Korean Neurosurg Soc.* 2011;50(2):147-50.
2. Battikh R, M'Sadek F, Bougrine F, Madhi W, Ben Abdelhafidh N, Bouziani A *et al.* Actinomycose cérébrale d'aspect pseudotumoral : à propos d'un cas. *Rev Neurol (Paris).* 2011;167(3):260-3.
3. Fabbri G, Guardigni V, Sarubbo S, Cultera R, Contini C. Actinomyces meyeri in an Immunocompetent Patient. *J Neurol Neurophysiol.* 2014;5(1):184.
4. Liotier J, Venet C, Chambonnière ML, Fournier C, Fotso MJ, Ewencyk I *et al.* Multiple actinomycosis brain abscesses. *Press Medicale.* 2004;33(5):318-20.
5. Lee S-O, Park HJ, Park K-H, Kim S-H, Sung H, Choi S-H *et al.* A Case of Disseminated Infection due to Actinomyces meyeri Involving Lung and Brain. *Infect Chemother.* 2014;46(4):269-73.
6. Akhaddar A, Elouennass M, Baallal H, Boucetta M. Focal intracranial infections due to Actinomyces species in immunocompetent patients: diagnostic and therapeutic challenges. *World Neurosurg.* 2010;74(2-3):346-50.
7. Koubaa M, Lahiani D, Mâaloul I, Fourati H, Chaari L, MARRAKCHI Ch *et al.* Actinomycotic brain abscess as the first clinical manifestation of hereditary hemorrhagic telangiectasia--case report and review of the literature. *Ann Hematol.* 2013;92(8):1141-3.
8. Adeyemi OA, Gottardi-Littell N, Muro K, Kane K, Flaherty JP. Multiple brain abscesses due to Actinomyces species. *Clin Neurol Neurosurg.* 2008;110(8):847-9.
9. Vinard JL, Adam G, Loubrieu G, Provendier B, Gazaigne J, Dreyfus A, Ntarudenga U. Actinomycose thoracique pseudo-tumorale avec métastases pulmonaires et cérébrales. A propos d'un cas. *Revue de cent trente et un cas de la littérature.* *Ann Chir.* 1992;46(8):748-61.
10. Winking M, Deinsberger W, Schindler C, Joedicke A, Boeker DK. Cerebral manifestation of an actinomycosis infection. A case report. *J Neurosurg Sci.* 1996;40(2):145-8.
11. Mishra A, Prabhuraj AR, Bhat D, Nandeesh BN, Mhatre R. Intracranial Actinomycosis Manifesting as a Parenchymal Mass Lesion: A Case Report and Review of Literature. *World Neurosurg.* 2019;1:122:190-4.
12. Ravindra N, Sadashiva N, Mahadevan A, Bhat DI, Saini J. Central Nervous System Actinomycosis—A Clinicoradiologic and Histopathologic Analysis. *World Neurosurg.* 2018;1:116:e362-70.

Travail reçu le 20 octobre 2020 ; accepté dans sa version définitive le 19 janvier 2021.

CORRESPONDANCE :

A. CHAKROUN
CHU Hédi Chaker
Service des Maladies Infectieuses
Sfax 3029, Tunisie
E-mail: docamalchakroun@gmail.com