

Un cas de cécourétérocèle : une entité rarement diagnostiquée en anténatal

A case of cecoureterocele: an entity rarely diagnosed antenatally

GUEUNING A.¹, BONOMO I.¹ et DONNER C.²

¹Service de Gynécologie-Obstétrique, CH Cahors, France

²Service de Gynécologie-Obstétrique - Médecine fœtale, H.U.B - Hôpital Erasme, Université libre de Bruxelles (ULB)

RÉSUMÉ

Nous rapportons un cas de découverte anténatale d'une urétérocèle et d'une cécourétérocèle typiquement associées à l'abouchement du pôle supérieur multikystique d'un système urinaire dupliqué.

Une cécourétérocèle est une forme rare d'urétérocèle dans laquelle la poche borgne descend en dessous de l'abouchement urétéral par tunnelisation dans la sous-muqueuse sous le trigone vésical puis à travers l'urètre. Le diagnostic anténatal est rare mais permet un traitement *in utero* en cas d'obstruction complète des voies urinaires. En période postnatale, il permet une prise en charge rapide et une préparation correcte de la famille. Le bilan post-natal consiste en une échographie des voies urinaires et une cystographie rétrograde. Le traitement n'est pas toujours nécessaire mais souvent une antibioprophylaxie est mise en place à la naissance. Dans certains cas, une intervention chirurgicale est indiquée mais il n'existe pas de recommandations uniformes à ce sujet.

Dans le cas présenté, une intervention chirurgicale a été nécessaire. Les suites opératoires ont été marquées par une pyonéphrose et la récurrence d'une cécourétérocèle visible à la vulve.

Rev Med Brux 2023; 44 : 582-586

Doi : 10.30637/2023.22-056

Mots-clés : urétérocèle, cécourétérocèle, traitement de l'urétérocèle, diagnostic anténatal de l'urétérocèle

ABSTRACT

We report a case of antenatal discovery of ureterocele and cecoureterocele typically associated with the upper polycystic pole of a duplicate urinary system.

A cecoureterocele is a rare form of ureterocele in which the blind pouch descends below the ureteral neck by tunneling into the submucosa below the bladder trigone and then through the urethra. The antenatal diagnosis of such malformation is rare and allows possible prenatal treatment in case of complete urinary tract obstruction. At birth, it allows quick support and correct family preparation.

Post-natal assessment consists of urinary tract ultrasound and retrograde cystography. A treatment is not always compulsory but often antibiotic prophylaxis is started at birth. Surgical procedures are indicated in some case but there are no clear recommendations on the subject.

In the present case, surgery was necessary. Postoperative days were marked by a pyonephrosis and a relapse of the cecoureterocele perceivable by the vulva.

Rev Med Brux 2023; 44: 582-586

Doi: 10.30637/2023.22-056

Key words: ureterocele, cecoureterocele, ureterocele treatment, ureterocele antenatal diagnosis

INTRODUCTION

La cécourétérocèle est une anomalie du système urinaire pouvant engendrer des infections à répétition, un syndrome obstructif avec répercussions rénales irréversibles et/ou une masse au niveau de l'introitus vaginal. La reconnaissance des caractéristiques échographiques anténatales de cette pathologie est cruciale afin d'anticiper la prise en charge multidisciplinaire à la naissance de l'enfant. A notre

connaissance, seuls 6 cas de diagnostic anténatal de cécourétérocèle sont décrits dans la littérature, malgré l'amélioration des techniques d'imagerie prénatale (tableau 1). A travers ce cas de diagnostic anténatal de cécourétérocèle, nous rappelons les caractéristiques de cette pathologie ainsi que sa prise en charge, basée sur une revue de la littérature actuelle.

Tableau 1

Comparaison des cas de *diagnostic anténatal de cécorutérocèle*.

	Âge gestationnel à la découverte / sexe	Anomalies anténatales échographiques / IRM	Mode de naissance et terme	Examen naissance	Premier traitement	Deuxième traitement / Suivi
Austin 1998	29 SA Féminin	Duplication rénale gauche avec hydronéphrose du pôle supérieur, dilatation vésicale sur urétérocèle prolabé	35 SA	/	Incision de l'urétérocèle	Néphro-urétérectomie gauche Suivi échographique des voies urinaires et dosage de la créatinine sérique (durée non précisée)
Quintero 2001	20 SA Féminin	Dilatation urétérale droite, mégavessie, oligoamnios	36 SA 6 AVB	/	Anténatal par fœtoscopie, incision au laser de l'urétérocèle	Néphrectomie droite Suivi non précisé
Sozubir 2003	30 SA Féminin	Duplication urétérale droite, hydronéphrose du pôle rénal supérieur droit, urétérocèle prolabé	38 SA Césarienne	Masse protruse entre les lèvres	Cystoscopie + incision urétérocèle	Réintervention à 3 mois de type excision de l'urétérocèle et réimplantation. Antibioprophyllaxie et suivie par imagerie (non précisée laquelle)
Hill 2004	22 SA Féminin	Masse kystique intravésicale s'étendant jusque dans l'urètre, hydronéphrose droite	38 SA AVB	Masse protruse entre les lèvres	Incision de la partie externe de l'urétérocèle	Excision de la partie externe de l'urétérocèle Surveillance au long court non précisée
Mendez-Gallart 2013	29 SA Féminin	Duplication rénale droite, dilatation urétérale droite, masse kystique intravésicale s'étendant jusque dans l'urètre	38 SA AVB	Masse protruse entre les lèvres	Héminéphrectomie droite et aspiration de l'urétérocèle	Asymptomatique durant 2 ans de suivi, fonction rénale Surveillance non précisée
Torres Montebruno 2016	21 SA Féminin	Duplication rénale droite, hydronéphrose, masse intravésicale, oligohydramnios	37 SA AVB	/	Héminéphrectomie droite	Asymptomatique à 4 ans de surveillance, sous antibioprophyllaxie, fonction rénale normale
Gueuning 2022	24 SA 3 Féminin	Dilatation rénale droite avec pôle supérieur kystique, image kystique intravésicale	39 SA Césarienne	/	Incision de la cécorutérocèle par endoscopie	Pyonéphrose post-opératoire, suivi par échographie rénale jusqu'à 1 an, asymptomatique à 1 an

SA = Semaines d'aménorrhée ; AVB = accouchement par voie basse.

CAS CLINIQUE

Une patiente caucasienne de 43 ans, sans antécédent médico-chirurgical, sans malformation congénitale familiale connue, G3P1 (une césarienne à terme en 2016 pour hypoxie fœtale, naissance d'un garçon en bonne santé) est référée à 24 semaines 3/7 suite à la découverte de malformations du système urinaire à l'échographie du deuxième trimestre. L'échographie du premier trimestre et le résultat du NIPT (*Non Invasive Prenatal Test*) sont normaux et révèlent un fœtus de sexe féminin. L'échographie du deuxième trimestre réalisée dans notre service met en évidence une duplication rénale droite avec un pôle supérieur multikystique, un rein gauche d'aspect normal avec dilatation pyélique mesurée à 7 mm et une vessie avec image kystique liquidienne correspondant le plus probablement à une urétérocèle. Une amniocentèse avec analyse par CGH micro-array (mutations gènes *HNF1β* et *PAX2* dans le syndrome *CAKUT congenital anomaly of kidney and urinary tract*) et un mendéliome n'ont pas montré d'anomalie. L'échographie réalisée à 30 semaines a mis en évidence une collection pelvienne en continuité avec la vessie. L'IRM fœtale a confirmé un rein droit dupliqué avec pôle supérieur multikystique, un rein gauche présentant un parenchyme normal avec une dilatation pyélocalicielle minime et une collection pelvienne en continuité avec la vessie. Le diagnostic de cécourétérocèle a été posé. La patiente a accouché d'un fœtus de sexe féminin pesant 3940 g avec un Apgar à 9/10/10 à 39 semaines d'aménorrhée par césarienne. Une antibioprofylaxie par Triméthoprime-Sulfaméthoxazole a été instaurée à la naissance compte-tenu du haut risque d'infections urinaires à germes GRAM négatifs et positifs (fréquence plus élevée en cas de malformation du tractus urinaire). La fonction rénale à la naissance était normale avec une créatinine sérique à 0,22 mg/dl. L'échographie abdominale néonatale et la cystographie rétrograde ont confirmé la duplication rénale droite avec pôle supérieur multikystique, l'hydronéphrose bilatérale et la cécourétérocèle. Une prise en charge chirurgicale endoscopique a permis d'inciser la cécourétérocèle. Le suivi

post-opératoire a été marqué par une pyonéphrose pour laquelle l'antibiothérapie a été modifiée sur base de l'antibiogramme (Céfépime IV pendant 3 semaines puis relais oral par Ciproxine pendant 1 semaine pour traiter une infection à *Enterobacter* spp multirésistant dont le Triméthoprime; aucun autre germe n'a été retrouvé à la culture). Au dixième jour post-opératoire, la patiente a présenté une récurrence de la cécourétérocèle qui a été suivie par échographie (taille variable selon le remplissage vésical à l'échographie) avant une réintervention à 1 mois de vie. Le suivi à un an de vie n'a pas mis en évidence de récurrence de la pathologie chez l'enfant qui est asymptomatique.

DISCUSSION

L'urétérocèle consiste en une dilatation borgne kystique de la portion distale de l'uretère. Elle peut être accompagnée d'autres malformations du système urinaire : une duplication rénale unilatérale/bilatérale (70%/6%), une dysplasie rénale multikystique (20%), une hydronéphrose controlatérale (35%) ou un rein pelvien (4%)¹. Dans de rares cas, l'urétérocèle s'inscrit dans un tableau malformatif. Ainsi 2 cas de syndrome VACTERL (syndrome caractérisé par une association d'au moins trois des anomalies suivantes : malformations rénales, malformations des membres, atrésie anale, fistule trachéo-œsophagienne et anomalies vertébrales), 4 cas d'association à une malformation cardiaque congénitale et 3 cas d'atrésie bilatérale des canaux déférents ont été rapportés².

À l'échographie, l'urétérocèle se présente comme une formation kystique à paroi fine dans la vessie, connu sous le nom de « signe de Foley » (figure 1). Elle peut passer inaperçue lorsque la vessie est distendue ou au contraire vide³. Lorsqu'une urétérocèle est suspectée à l'échographie fœtale, les reins et les organes génitaux externes doivent être évalués attentivement à la recherche d'autres malformations. La cécourétérocèle est une forme rare d'urétérocèle (3% des cas) où la poche borgne s'étire sous le méat urétéral dans la sous-muqueuse sous le trigone vésical

Figure 1

Echographie de l'urétérocèle.



à travers l'urètre³. Cette malformation congénitale est 4 à 7 fois plus fréquente chez les fœtus féminins et est associée à une duplication rénale dans 80 % des cas^{4,5}. A l'échographie on observe une formation kystique s'allongeant à la base de la vessie, en continuité avec cette dernière³ (figure 2). A ce jour, en utilisant les termes croisés anglais « prenatal »/« ureterocele » et « ureterocele »/« prolapsed » dans Scopus, Pubmed et Google Scholar, seuls 6 cas de diagnostic anténatal de cécorétérocèle ont été retrouvés, ceux-ci sont comparés à notre cas dans le tableau 1^{3,6-10}.

Figure 2

Echographie de la cécorétérocèle.



Si l'obstruction urétrale survient en anténatal, elle peut entraîner des altérations rénales sévères ainsi que l'apparition d'un oligoamnios. Dix cas de traitement prénatal d'urétérocèle ont ainsi été rapportés par Chalouhi *et al.*¹. Le traitement par incision laser sous fœtoscopie ou contrôle échographique permettrait un traitement efficace dans 80% des cas. Ces thérapies sont encore expérimentales et exposent à des risques fœtaux et obstétricaux.

Le bilan postnatal comprend une échographie du système urinaire et une cystographie rétrograde à la recherche d'un reflux vésico-urétéral. Si nécessaire, une urographie intra-veineuse permet une évaluation fonctionnelle du pyélon supplémentaire³.

La prise en charge a pour objectifs de diminuer les risques infectieux, de préserver la fonction rénale, d'éviter la dysfonction vésicale, de maintenir la continence urinaire et de minimiser les gestes chirurgicaux potentiellement morbides^{5,11}. Les options de traitement des urétérocèles chez l'enfant sont réparties en 3 catégories principales : la surveillance, la décompression et l'ablation de l'urétérocèle.

Une antibioprophylaxie est généralement administrée directement après la naissance jusqu'à l'âge de propreté ou jusqu'à l'âge de 5 ans en cas de reflux vésico-urétéral^{11,12}. Les candidats idéaux pour une surveillance seraient les urétérocèles non associées à une duplication rénale et celles associées à une duplication rénale chez des patients masculins¹². Les indications de prise

en charge chirurgicale sont les infections urinaires sous antibioprophylaxie ou l'hydronéphrose progressive. Les options chirurgicales comprennent des techniques endoscopiques (ponction/incision/WCP « watering can puncture ») et des techniques laparoscopiques/tomiques (urétérourostomie/ligature pôle supérieur/héminéphrectomie). En cas d'absence d'anomalie urinaire associée, une intervention chirurgicale est nécessaire dans 20 % des cas. Ce pourcentage s'élève à 67 % en cas de duplication rénale associée¹². Une méta-analyse a montré que parmi les patients traités par incision/ponction de l'urétérocèle, ceux présentant une urétérocèle extravésicale et ceux présentant une urétérocèle associée à une duplication rénale étaient plus à risque de réintervention¹³.

Le suivi comprend une échographie rénale et vésicale tous les 3 à 6 mois^{1,3,5,12}. Les critères d'observation proposés sont : moins de 10% de fonction du pôle rénal supérieur, un pôle inférieur non obstrué, un reflux vésico-urétéral \leq grade 3 et l'absence d'obstruction à la vidange vésicale⁵.

La littérature ne fournit pas de réponse concernant la raison de la rareté du diagnostic anténatal. Nous émettons ici plusieurs hypothèses. La première est que la rareté du diagnostic anténatal de la cécorétérocèle serait liée à la très faible incidence de cette pathologie dans la population générale. La seconde pourrait être que les anomalies de l'arbre urinaire fréquemment associées à la cécorétérocèle sont plus facilement identifiées à l'échographie anténatale. La cécorétérocèle ne serait dès lors pas mise en évidence soit parce que celle-ci est peu visible ou parce que son diagnostic est omis. La troisième hypothèse serait que la cécorétérocèle se majore en période postnatale et devient donc symptomatique, nous amenant à investiguer.

La surveillance à long terme est principalement symptomatique et dépend de la présentation et du traitement initial. En cas de chirurgie réussie, le suivi est principalement échographique jusqu'à l'âge d'entrée à l'école. Les enfants présentant un système collecteur dupliqué ou une urétérocèle non opérée sont plus à risque de développer des infections urinaires malgré une antibioprophylaxie⁴. Selon Lee *et al.*, si l'urétérocèle est non obstructive, le risque d'infection urinaire est maximal durant les 6 premiers mois de vie¹⁴. Visuri *et al.* ont montré que 82% des infections urinaires n'étaient pas dues à un *Escherichia coli* et 57 % étaient dues à des germes multirésistants⁴. Le choix de l'antibioprophylaxie doit être discuté avec l'infectiologue et adapté au cas par cas. Le monitoring biologique de la fonction rénale n'est pas recommandé. En cas de symptômes ou d'infection urinaire à répétition, il convient de référer l'enfant pour une échographie en urgence. Celle-ci conditionnera les suites de la prise en charge qui sera assurée par un urologue pédiatrique si nécessaire. Afin d'assurer une surveillance adéquate à domicile et de rassurer les parents, ceux-ci doivent bénéficier d'une consultation avec un urologue qui leur expliquera la pathologie et ses possibles prise en charge.

CONCLUSION

La cécourétérocèle est une forme rare d'urétérocèle dont les principales complications sont les infections urinaires à répétition et le reflux vésico-urétéral. Le diagnostic anténatal permet d'anticiper la prise en charge multidisciplinaire à la naissance. Le traitement anténatal semble prometteur mais est encore expérimental et limité aux cas d'obstruction complète des voies urinaires. La prise en charge postnatale varie selon les malformations associées et la présentation échographique/clinique. Elle va de la simple surveillance à l'intervention chirurgicale. Des études plus larges et multicentriques sont nécessaires pour améliorer les performances du diagnostic anténatal en apportant des données de haut niveau de preuve rendant plus uniforme le choix de la stratégie thérapeutique.

Conflits d'intérêt : néant.

BIBLIOGRAPHIE

1. Turkyilmaz G, Cetin B, Sivrikoz T, Erturk E, Oktar T, Kalelioglu I *et al.* Antenatally detected ureterocele: Associated anomalies and postnatal prognosis. *Taiwan J Obstet Gynecol.* 2019;58(4):531-5.
2. Blane CE, Ritchey ML, DiPietro MA, Sumida R, Bloom DA. Single system ectopic ureters and ureteroceles associated with dysplastic kidney. *Pediatr Radiol.* 1992;22(3):217-20.
3. Méndez-Gallart R, Estévez-Martínez E, Rodríguez-Barca P, García-Palacios M, Bautista-Casasnovas A. Prolapsed cecoureterocele presented as a prenatal genital mass: A urological challenge. *Can Urol Assoc J.* 2013;7(11-12):E757-60.
4. Visuri S, Jahnukainen T, Taskinen S. Prenatal complicated duplex collecting system and ureterocele-Important risk factors for urinary tract infection. *J Pediatr Surg.* 2018;53(4):813-7.
5. Le HK, Chiang G. Long-term Management of Ureterocele in Duplex Collecting Systems: Reconstruction Implications. *Curr Urol Rep.* 2018;19(2):14.
6. Austin PF, Cain MP, Casale AJ, Hiett AK, Rink RC. Prenatal bladder outlet obstruction secondary to ureterocele. *Urology.* 1998;52(6):1132-5.
7. Quintero RA, Homsy Y, Bornick PW, Allen M, Johnson PK. In-utero treatment of fetal bladderoutlet obstruction by a ureterocele. *Lancet.* 2001;357(9272):1947-8.
8. Sozubir S, Lorenzo AJ, Twickler DM, Baker LA, Ewalt DH. Prenatal diagnosis of a prolapsed ureterocele with magnetic resonance imaging. *Urology.* 2003;62(1):144.
9. Hill DS. Prolapsed, ectopic cecoureterocele. *J Diagn Med Sonogr.* 2004;20(6):436-9.
10. Torres Montebruno X, Martinez JM, Eixarch E, Gómez O, García Aparicio L, Castañón M *et al.* Fetoscopic laser surgery to decompress distal urethral obstruction caused by prolapsed ureterocele. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2015;46(5):623-6.
11. Paye-Jaouen A, Pistolesi F, Botto N, Enezian G, Grapin-Dagorno C, Peycelon M *et al.* Long-term bladder function after ureterocele decompression in children. *J Urol.* 2015;193(5 Suppl):1754-9.
12. Andrioli V, Guerra L, Keays M, Keefe DT, Tang K, Sullivan KJ *et al.* Active surveillance for antenatally detected ureteroceles: predictors of success. *J Pediatr Urol.* 2018;14(3):243-e1.
13. Pohl HG. Recent advances in the management of ureteroceles in infants and children: why less may be more. *Curr Opin Urol.* 2011;21(4):322-7.
14. Lee JH, Choi HS, Kim JK, Won HS, Kim KS, Moon DH *et al.* Nonrefluxing neonatal hydronephrosis and the risk of urinary tract infection. *J Urol.* 2008;179(4):1524-8.

Travail reçu le 2 juillet 2022 ; accepté dans sa version définitive le 20 décembre 2022.

AUTEUR CORRESPONDANT :

A. GUEUNING

C.H. Cahors

Service de Gynécologie-Obstétrique

Place Antonin Bergon, 52 - 46005 Cahors, France

Email : ariane.gueuning@hotmail.com