



Disponible en ligne sur

ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France

EM|consulte
www.em-consulte.com

Revue française d'allergologie xxx (2013) xxx–xxx

REVUE FRANÇAISE
D'**Allergologie**

Article original

La bronchite plastique : à propos de six cas pédiatriques

Plastic bronchitis: Report of six pediatric cases

N. Amangar*, H. Moubachir, J.E. Bourkadi, Z. Barakat, G. Iraqi

Service de pneumo-pédiatrie, hôpital Moulay-Youssef, CHU Ibn Sina, Rabat, Maroc

Reçu le 20 mai 2013 ; accepté le 5 septembre 2013

Résumé

La bronchite plastique est une affection rare qui se rencontre essentiellement dans les affections respiratoires chroniques et les cardiopathies cyanogènes. Sa survenue est exceptionnelle chez un patient sans pathologie respiratoire chronique. Nous rapportons une série de six enfants hospitalisés au service de pneumo-pédiatrie de l'hôpital Moulay-Youssef de Rabat pour une atélectasie du poumon gauche. La bronchoscopie rigide réalisée dans quatre cas a confirmé l'obstruction étendue de l'arbre gauche par des moules bronchiques permettant leur extraction ; dans les deux cas restants, le rejet du moule bronchique était spontané. L'évolution était favorable après l'extraction ou l'émission du moule. Le bilan étiologique a conclu à un asthme dans deux cas, et à une primo-infection tuberculeuse dans trois cas, il est resté négatif dans un seul cas.

© 2013 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

Mots clés : Bronchite plastique ; Moule bronchique ; Collapsus ; Fibroscopie bronchique

Abstract

Plastic bronchitis is a rare disease which occurs mainly in patients with chronic respiratory diseases and in those with heart failure; it is exceptional in patients without a chronic respiratory disease. We describe a series of six children who were hospitalized in the pediatric pulmonology department of the Moulay-Youssef hospital in Rabat, Morocco, for a collapsed lung. In four of the patients, bronchoscopy revealed significant obstruction in the left tracheobronchial tree due to large intra-bronchial casts; we abstracted these casts. In the two other cases, the bronchial plugs were rejected spontaneously. All the patients became asymptomatic after expulsion of their casts. Clinical investigation revealed asthma in two cases, primary tuberculosis infection in three cases, and no pathology in the other patient.

© 2013 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

Keywords: Plastic bronchitis; Children; Bronchial casts; Collapsed lung; Bronchoscopy

1. Introduction

La bronchite plastique est une pathologie rare, généralement diagnostiquée pendant l'enfance. Elle se caractérise par l'obstruction étendue de l'arbre bronchique par des moules bronchiques ; elle peut entraîner des détresses respiratoires parfois fatales. Elle se rencontre essentiellement au cours d'affections respiratoires chroniques ou de cardiopathies cyanogènes. Sa survenue est exceptionnelle chez un patient sans pathologie respiratoire chronique.

2. Matériels et méthodes

Nous avons mené une étude rétrospective, sur une période de douze ans (de 2000 à 2012), au service de pneumo-pédiatrie de l'hôpital universitaire Moulay-Youssef de Rabat, analysant les dossiers des enfants hospitalisés pour une atélectasie pulmonaire unilatérale.

3. Résultats

Sur une période de douze ans, six enfants, d'âge moyen de 9 ans (5–12 ans) étaient pris en charge au service, pour un syndrome des moules bronchiques, il s'agit de cinq garçons et une fille. La symptomatologie clinique était marquée par la toux chronique et la fièvre non améliorées par un traitement

* Auteur correspondant.

Adresses e-mail: amangar.nadia@gmail.com, ibariouen@gmail.com
(N. Amangar).



Fig. 1. Radiographie du thorax initiale : atélectasie du poumon gauche ; opacité homogène sans bronchogramme aérien, avec attraction homolatérale du médiastin, de la trachée, et de la coupole diaphragmatique gauche (ascension de la poche à air gastrique).



Fig. 2. Tomodensitométrie thoracique : atélectasie du poumon gauche avec bronchogramme aérien, déviation du médiastin vers le côté gauche.

antibiotique chez tous nos malades. L'examen clinique avait trouvé un syndrome de condensation gauche dans tous les cas, associé à des adénopathies cervicales chez un patient. Le cliché thoracique avait montré une atélectasie du poumon gauche chez tous les patients (Fig. 1) ; le scanner thoracique avait objectivé une condensation totale gauche avec un collapsus aéré lobaire inférieur chez trois patients, associé à des dilatations de bronches homolatérales chez tous les enfants, à contenu liquidien chez un patient (Fig. 2). La bronchoscopie rigide réalisée chez quatre enfants sous anesthésie générale, avait permis la visualisation d'un moule brunâtre ponctué en noir et friable, obstruant totalement la bronche principale gauche ; l'extraction était difficile et a retiré de véritables bouchons fragmentés parfois moulant le territoire bronchique, d'autres fois, l'étude anatomopathologique de ces bouchons avait objectivé un matériel fibrino-leucocytaire, riche en polynucléaires éosinophiles dans deux cas, et en polynucléaires neutrophiles dans un seul cas. Les deux enfants n'ayant pas bénéficié de fibroscopie avaient présenté au cours de leur hospitalisation des accès de quintes de toux, cyanogènes parfois, avec émission à plusieurs reprises d'un matériel mou tubulé brunâtre de quelques millimètres à 3 cm de longueur. Tous les patients ont été mis, dès l'admission, sous traitement antibiotique et corticothérapie orale à 1 mg/kg par jour. L'évolution radiologique était progressivement favorable après extraction et/ou émission fragmentée du bouchon bronchique, avec aération du parenchyme pulmonaire chez tous les patients (Fig. 3). La sérologie aspergillaire réalisée chez tous les patients était négative. Le bilan étiologique avait conclu à un asthme chez deux patients, une tuberculose pulmonaire dans trois cas, et n'avait pas retrouvé de cause chez un patient. L'évolution à long terme a été marquée par la récurrence chez une seule patiente, et par la survenue de deux épisodes de pneumopathie bactérienne résolutive après

traitement antibiotique chez un patient ; chez les quatre patients restants, aucun épisode similaire n'a été noté avec un recul moyen de 4 ans.

4. Discussion

La bronchite plastique ou maladie des moules bronchiques, est une affection rare définie par l'obstruction étendue de l'arbre bronchique par des moules épais, ramifiés et fortement adhérents au mur bronchique ; ils sont rarement éliminés spontanément chez le jeune enfant [1]. Tous les niveaux bronchiques peuvent être atteints, en particulier les lobes inférieurs ; elle atteint aussi bien l'enfant que l'adulte, mais la plupart des cas ont été rapportés chez des enfants [2]. Sa prévalence exacte demeure inconnue et semble sous-estimée [3].



Fig. 3. Radiographie thoracique de contrôle après extraction endoscopique ou émission spontanée des moules : reventilation du poumon gauche.

Le moule est formé d'un coagulum mucino-fibrineux constitué dans la lumière de la totalité ou d'une partie de l'arbre bronchique, en réponse à une agression épithéliale de nature inconnue, il adhère fortement à la paroi, rendant ainsi son expectoration difficile, voire dangereuse. Toux tenace et *wheezing* sont les symptômes fonctionnels les plus fréquemment rapportés [4]. Ils peuvent être éliminés par le patient ou nécessiter le recours à la fibroscopie ou à la bronchoscopie rigide [5–7]. Dans de rares cas, l'extraction est impossible et une sanction chirurgicale s'impose [8,9]. Dans notre série, l'extraction par bronchoscopie rigide était faite chez trois enfants, pendant que l'émission du moule était spontanée après des accès de quintes de toux chez les trois restants.

Plusieurs classifications ont été proposées à la bronchite plastique [9,10] dont la plus largement admise est celle de Seear et al. [6], basée sur l'étude anatomopathologique des moules. Elle permet de distinguer deux types : la bronchite plastique inflammatoire caractérisée par des moules renfermant des infiltrats cellulaires importants (cellules épithéliales bronchiques, cellules inflammatoires et éosinophiles), de la fibrine et peu de mucus et la bronchite plastique acellulaire, caractérisée par des moules contenant peu de fibrine, très peu de cellules mononuclées et du mucus en quantité considérable.

La bronchite plastique inflammatoire se développe au cours des affections respiratoires caractérisées par une hypersécrétion muqueuse occasionnée par un processus inflammatoire d'origine allergique (asthme, aspergillose bronchopulmonaire allergique) ou infectieuse (mucoviscidose, bronchiectasies et infections respiratoires sévères) [10]. La diphtérie et la tuberculose étaient autrefois les principales causes de moules bronchiques chez ces patients indemnes d'affection respiratoire chronique, mais elles sont actuellement remplacées par les pneumopathies aiguës virales ou bactériennes [6,7]. La bronchite plastique acellulaire complique les cardiopathies cyanogènes, en particulier la tétralogie de Fallot [11,12], de même que les péricardites chroniques constrictives associées à une hyperpression veineuse pulmonaire. Des cas isolés de leucémie aiguë lymphoblastique et de lupus érythémateux disséminé associés à la bronchite plastique ont été rapportés [13]. Brogan et al. [14] distinguent trois catégories de bronchite plastique en fonction de l'affection sous-jacente : allergique, cardiaque et idiopathique. En effet, plusieurs auteurs ne retrouvent, dans leurs observations, aucun facteur favorisant [7,9]. Récemment, la bronchite plastique a été décrite avec des anomalies lymphatiques pulmonaires [2,11] et dans le syndrome thoracique aigu de la drépanocytose [15]. Dans ces cas, les mécanismes suscités sont souvent intriqués, les moules peuvent être chyleux, fibrineux, cellulaires ou mixtes. Une nouvelle classification proposée par Madsen et al. [16], basée sur la nature de la pathologie sous-jacente et sur l'histologie du moule en l'absence d'affection respiratoire ou cardiaque évidente : autrement dit, chaque fois que la bronchite plastique est d'allure idiopathique.

Chez nos patients, la bronchite plastique a été rapportée à une infection respiratoire tuberculeuse chez trois patients. Toutefois, le diagnostic d'une maladie asthmatique chez deux patients, nous fait penser à la préexistence du processus

inflammatoire, quoique cliniquement inapparent, ce qui rejoint les données de la littérature, puisque sur les 22 cas publiés de bronchite plastique avec des moules à éosinophiles, seuls 12 cas avaient un asthme ou un terrain atopique diagnostiqué. Pour le reste, l'atopie était méconnue [16].

À côté de l'extraction endoscopique du moule, souvent indispensable chez l'enfant, le traitement dépend de l'étiologie. Plusieurs approches thérapeutiques adjuvantes ont été essayées afin de prévenir la récurrence des moules ; la bronchite plastique de type inflammatoire semble mieux contrôlée par la corticothérapie inhalée ou générale que la bronchite plastique de type acellulaire [6]. Une antibiothérapie orale au long cours par les macrolides à faibles doses, par leur effet immun modulateur et mucorégulateur, semble avoir une action bénéfique dans les bronchites plastiques inflammatoires [17]. Une correction chirurgicale d'une cardiopathie ou d'une anomalie lymphatique, associée à un traitement médical et diététique approprié dans les moules acellulaires (fibrineux, chyleux), est préconisée. Dans les moules fibrineux, des tentatives de traitement local par instillation endoscopique de DNase recombinante humaine (rh-DNase) [18], ou par aérosols de l'activateur tissulaire de plasminogène (t-PA) [19] ou d'urokinase [5], ont fait état d'une certaine efficacité concernant des cas isolés ou de faibles séries de BP récidivantes ou nécessitant des bronchoscopies multiples, comme cela a été récemment rapporté par Gibb et al., qui ont traité avec succès et en toute sécurité, une bronchite plastique réfractaire chez un garçon de 6 ans, par l'instillation au cours d'une bronchoscopie d'activateur tissulaire de plasminogène [20]. Ces résultats ont été soutenus par Heath et al. qui ont également observés la dissolution complète du moule chez 4 enfants atteints de cardiopathies congénitales [21].

Quelque fois, ces moules bronchiques ont un caractère récidivant. Une prise en charge adaptée de l'affection pulmonaire sous-jacente ne permet pas toujours d'empêcher la récurrence. Le rôle préventif de la corticothérapie dans ces formes récidivantes est controversé [2,7,9].

5. Conclusion

La bronchite plastique est une affection rare de plus en plus connue grâce au développement des techniques d'endoscopie pédiatrique. Celles-ci doivent être proposées précocement pour prévenir l'installation de bronchiectasie, et limiter le risque d'asphyxie chez l'enfant.

Déclaration d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relation avec cet article.

Références

- [1] Bowen A, Oudjhane K, Odagiri K, et al. Plastic bronchitis: large, branching, mucoid bronchial casts in children. *AJR* 1985;144:371–5.
- [2] Castet D, Lavandier M, Asquier E. Moules bronchiques associés à des anomalies lymphatiques pulmonaires. *Rev Mal Respir* 1998;15:89–91.
- [3] Khemiri M, Hammami O, Zouari S. Plastic bronchitis: report of a pediatric case. *Rev Pneumol Clin* 2008;64:234–7.

- [4] Donato L, Mansilla M. Maladie des moules bronchiques chez l'enfant. *Rev Fr Allergol* 2012;52:90–6.
- [5] Liston SL, Porto D, Siegel LG. Plastic bronchitis. *Laryngoscope* 1986;96:1347–51.
- [6] Seear M, Hui H, Magee F, Bohn D, Cutz E. Bronchial casts in children: a proposed classification based on nine cases and review of the literature. *Am J Respir Crit Care Med* 1997;155:364–70.
- [7] Leroyer C, Couturaud F, Chenu E, et al. La bronchite plastique. *Rev Mal Resp* 1995;12:622–5.
- [8] Borbely BR, Davies AL, Jones M. Left lung atelectasis in a smoker. *Chest* 1994;105:1833–5.
- [9] Park JY, Elshami AA, Kang DS, Jung TH. Plastic bronchitis. *Eur Respir J* 1996;9:612–4.
- [10] Fairshter R, Riley C, Hewlett R. Large bronchial casts. *Arch Intern Med* 1979;139:522–5.
- [11] Languepin J, Scheinmann P, Mahut B, et al. Bronchial casts in children with cardiopathies: the role of pulmonary lymphatic abnormalities. *Pediatr Pulmonol* 1999;28:329–36.
- [12] Colloridi V, Roggini M. Plastic bronchitis as a rare complication of Fontan's operation. *Pediatr Cardiol* 1990;11:228.
- [13] Rebecca K, Christian K, Sun Y. HY, et al. Pediatric plastic bronchitis: case report and retrospective comparative analysis of epidemiology and pathology. *Case Rep Pulmonol* 2013;2013:649365.
- [14] Brogan TV, Finn LS, Pyskaty DJ, et al. Plastic bronchitis in children: a case series and review of the medical literature. *Pediatr Pulmonol* 2002;34:482–7.
- [15] Moser C, Nussbaum E, Cooper D. Plastic bronchitis and the role of bronchoscopy in the acute chest syndrome of sickle cell disease. *Chest* 2001;120:608–13.
- [16] Madsen P, Slah SA, Rubin BK. Plastic bronchitis: new insights and a classification scheme. *Paediatr Resp Rev* 2005;6:292–300.
- [17] Schultz KD, Oermann CM. Treatment of cast bronchitis with low-dose oral azithromycin. *Pediatr Pulmonol* 2003;35:139–43.
- [18] Manna SS, Shaw J, Tibby SM, Durward A. Treatment of plastic bronchitis in acute chest syndrome of sickle cell disease with intratracheal rhDNase. *Arch Dis Child* 2003;88:626–7.
- [19] Costello JM, Steinhorn D, Mc Colley S, Mark E, Kumar SP. Treatment of plastic bronchitis in a Fontan patient with tissue plasminogen activator: a case report and review of the literature. *Pediatrics* 2002;109:e67.
- [20] Gibb E, Blount R, Lewis N, et al. Management of plastic bronchitis with topical tissue-type plasminogen activator. *Pediatrics* 2012;130(2):e446–50.
- [21] Heath L, Ling S, Racz J, et al. Prospective, longitudinal study of plastic bronchitis cast pathology and responsiveness to tissue plasminogen activator. *Pediatr Cardiol* 2012;32(8):1182–9.