

LITHIASES VÉSICULAIRES ET CHOLÉCYSTECTOMIE CHEZ LE NOURRISSON

PERUGINI P (1), VERDIN V (1), PIRLET C (2), BEQUET E (3), LEDURE F (4), DEMARCHE M (1)

RÉSUMÉ : La pathologie lithiasique biliaire est rare chez l'enfant et encore plus chez le nourrisson. Nous exposons le cas d'une jeune patiente de 3 mois présentant un ictère cholestatique secondaire à un obstacle de la portion terminale du cholédoque. Le traitement appliqué chez cette patiente a été une cholécystectomie avec cholangiographie trans-cystique et désobstruction du cholédoque. L'évolution a été excellente. La littérature actuelle sur la pathologie lithiasique biliaire de l'enfant et du nourrisson est pauvre en études de grande cohorte. Les différents traitements proposés, si nécessaire, comportent le lavage biliaire par ponction percutanée, la cholangiopancreatographie rétrograde endoscopique avec sphinctérotomie et la cholécystectomie par voie laparoscopique ou ouverte avec cholangiographie peropératoire. Aucune de ces procédures n'a montré de supériorité par rapport aux autres. Aucun algorithme de traitement n'est donc actuellement défini. Les patients sont traités au cas par cas selon leurs symptômes, leurs antécédents et le niveau d'expertise de chaque centre pour ces procédures rares, difficiles et spécifiques.

MOTS-CLÉS : Lithiase vésiculaire - Nourrisson - Cholestase - Cholécystectomie

CHOLELITHIASIS AND CHOLECYSTECTOMY IN INFANTS

SUMMARY : Cholelithiasis is rare in children and even more so in infants. We report the case of a 3-month-old patient with cholestatic jaundice secondary to an obstruction of the terminal portion of the bile duct. The treatment applied in this patient was a cholecystectomy with trans-cystic cholangiography and common bile duct clearance. The evolution was excellent. The current literature on biliary lithiasis in children and infants is poor in large cohort studies. The various treatments proposed, if necessary, include biliary lavage by percutaneous puncture, endoscopic retrograde cholangiopancreatography with sphincterotomy and laparoscopic or open cholecystectomy with intraoperative cholangiography. None of these procedures has shown superiority over the others. Therefore, no treatment algorithm is currently defined. Patients are treated on a case-by-case basis according to their symptoms, previous history and the level of expertise of each centre for these rare, difficult and specific procedures.

KEYWORDS : Cholelithiasis - Infants - Cholestasis - Cholecystectomy

INTRODUCTION

La pathologie lithiasique biliaire est assez rare chez les enfants et plus particulièrement chez les nouveau-nés et nourrissons. La prise en charge des patients présentant des lithiases vésiculaires et cholédociennes représente un challenge. Aucune recommandation n'est actuellement publiée dans la littérature. Nous rapportons le cas d'une jeune patiente de 3 mois présentant un enclavement cholédocien symptomatique traité par cholécystectomie laparoscopique avec levée de l'obstacle par lavage et sphinctéroplastie trans-cystique à l'aide d'un cathéter de coronarographie.

La description de ce cas sera également agrémentée d'une revue de la littérature concernant la prise en charge de cette pathologie.

CAS CLINIQUE

Une jeune patiente est hospitalisée à 3 mois de vie pour des douleurs abdominales, des selles décolorées depuis 5 jours et un ictère clinique depuis 24 heures. Les parents rapportent plusieurs épisodes douloureux antérieurs de type inconfort digestif avec crampes et pleurs.

Aucune anomalie n'avait été décelée durant la grossesse et l'enfant est née à 41 semaines d'aménorrhée. La période périnatale a été marquée par une suspicion d'infection materno-fœtale, ensuite infirmée. Une hospitalisation à l'âge de 6 semaines pour vomissements transitoires, de résolution spontanée, est notée. Un reflux gastro-œsophagien, *versus* une allergie à la protéine de lait de vache, a été suspecté. L'enfant n'a, par ailleurs, jamais reçu d'antibiotiques.

La biologie d'admission montre une cholestase avec une bilirubine totale et directe, respectivement, à 4,28 mg/dL et 3,26 mg/dL (NI : < 1,2 mg/dL et < 0,3 mg/dL). Une cytolyse est également présente avec des TGO à 214 U/L (NI : < 79 U/L) et TGP à 232 U/L (NI : 3-30 U/L). La formule hémoleucocytaire est normale et il n'existe pas de syndrome inflammatoire.

L'échographie abdominale montre un «sludge» vésiculaire, avec une lithiase de 5 mm, associé à un épaississement modéré de la

(1) Service de Chirurgie abdominale et pédiatrique, CHR Liège, Belgique.

(2) Service de Cardiologie, CHR Liège, Belgique.

(3) Service de Gastro-Entérologie, Hépatologie et Nutrition pédiatrique, CHU Liège, Belgique.

(4) Service de Radiologie, CHR Liège, Belgique.

vésicule biliaire. Il existe également une discrète ectasie des voies biliaires intra-hépatiques et un enclavement probablement lithiasique du bas-cholédoque. La biologie répétée le lendemain de l'admission montre une augmentation de la cholestase avec une bilirubine totale et directe à 4,4 mg/dL et 4,2 mg/dL, respectivement, ainsi qu'une aggravation de la cytolysé hépatique.

Devant la persistance des symptômes douloureux et l'aggravation du tableau biologique, une cholécystectomie avec cholangiographie peropératoire est proposée. L'intervention est réalisée par laparoscopie. Lors de la cholangiographie effectuée par voie trans-cystique, les voies biliaires intra-hépatiques sont bien visualisées et présentent une irrégularité de calibre compatible avec une cholangite. Le cholédoque présente une dilatation importante avec un obstacle dans la portion terminale. Grâce à un cathéter d'angiographie coronaire Turbo-Ject 3 Fr de la marque COOK, un lavage du cholédoque à l'aide de liquide physiologique est effectué ainsi qu'une sphinctéroplastie au ballonnet de la papille. La cholangiographie de contrôle en fin d'intervention montre la levée de l'obstacle (Figure 1) qui est composé de sludge et de micro-calculs pigmentaires retrouvés dans les selles les jours suivant l'intervention.

En raison de l'aspect cholestatique du foie, une biopsie hépatique est réalisée en peropératoire, démontrant une cholangite aiguë avec

cholestase et une évolution cirrhogène incomplète. L'exploration de la vésicule biliaire montre la présence de quelques calculs pigmentaires millimétriques.

La patiente est libérée du service le lendemain de l'intervention avec un traitement par acide ursodésoxycholique au vu de la cholangite associée. Le contrôle à 6 semaines montre une enfant anictérique, non douloureuse avec une bonne prise pondérale. La biologie est quasi normalisée. L'échographie objective une normalisation de calibre de la voie biliaire principale, l'absence de lithiasé cholédocienne ainsi qu'une hépato-structure normale. Le traitement par acide ursodésoxycholique est arrêté à cette consultation.

DISCUSSION

L'existence de lithiasés vésiculaires chez l'enfant est rare (0,13 à 2 % en fonction des séries) (1-5). L'incidence est encore plus faible lorsqu'il s'agit de nourrissons. Dans cette tranche d'âge, 10 % présenteront une lithiasé au niveau du cholédoque (5). Cependant, avec l'utilisation de plus en plus fréquente des échographies dans le diagnostic et le suivi des pathologies infantiles, nous sommes de plus en plus confrontés à la reconnaissance de cette pathologie. À noter également l'augmentation de sensibilité de cette technique ultrasonographique grâce aux appareils de plus en plus performants et à l'expertise des radiologues.

La formation des calculs est due à un déséquilibre des composants de la bile (acides biliaires, cholestérol, eau et mucines sécrétées par les hépatocytes). Les principales causes de lithiasés biliaires chez le nourrisson sont la nutrition parentérale totale, le traitement par diurétique (furosémide) ou par céphalosporines de 3^{ème} génération, les résections étendues de l'intestin grêle, les maladies hémolytiques, les malformations et chirurgies cardiaques ainsi que la dilatation congénitale ou kyste du cholédoque. Les causes et facteurs favorisant la formation des lithiasés chez le nourrisson et l'enfant peuvent être classés en réversibles et non réversibles et sont représentés dans le Tableau I (1, 6, 7). La composition des calculs est différente en fonction des périodes de la vie, avec une majorité de calculs pigmentaires chez l'enfant et le nourrisson alors que l'adolescent, comme l'adulte, présente une grande proportion de calculs cholestéroliques.

Selon les études, les symptômes sont absents dans 50 à 80 % des cas (3, 7). Lorsqu'ils sont présents, ils comprennent des douleurs

Figure 1. Cholangiographie peropératoire après désobstruction de la partie distale



Tableau I. Causes et facteurs favorisant la formation de lithiases biliaires

Causes et facteurs réversibles	Causes et facteurs non réversibles
Nutrition parentérale totale	Réssection étendue de l'intestin grêle
Diurétiques (furosémide)	Maladies hémolytiques (sphérocytose, drépanocytose)
Céphalosporines de 3^{ème} génération (ceftriaxone)	Malformations et chirurgies cardiaques
Déshydratation	Dilatation congénitale du cholédoque
	Prématurité
	Sténose acquise du cholédoque
	Hémolyse transitoire du nouveau-né
	Maladie de Crohn
	Mucoviscidose

En gras, les facteurs spécifiques du nourrisson.

abdominales, des vomissements, et un ictère. Chez le nourrisson, il est difficile d'interpréter de tels symptômes et de les attribuer à la pathologie biliaire lorsque des lithiases sont découvertes. Cela peut expliquer les différences retrouvées dans la littérature.

Le taux de complications est faible et va de 4,6 à 9 % selon les séries. Nous pouvons citer la cholécystite aiguë, l'obstruction des voies biliaires par une lithias cholédocienne, la pancréatite aiguë et, plus rarement, la perforation spontanée avec péritonite biliaire (1,5 cas par million de naissances) (6-8).

Contrairement à l'adulte, l'évolution naturelle des calculs biliaires de l'enfant montre une disparition spontanée de ceux-ci dans 30 à 60 % des cas, permettant de privilégier initialement une attitude attentiste (8-11). Cette absence de lithias à l'échographie de contrôle se rencontre le plus souvent chez les patients présentant une cause réversible comme l'utilisation d'antibiotiques. Elle est expliquée par une dissolution du calcul ou une migration de celui-ci.

La littérature comprend surtout des rapports de cas cliniques ou des petites séries rétrospectives concernant la prise en charge de la lithias cholédocienne qui nous importe ici. Outre le traitement médical à base d'antibiotiques, d'acide ursodésoxycholique et d'antalgiques, il existe plusieurs traitements invasifs dont le lavage biliaire par ponction percutanée, la cholangiopancréatographie rétrograde endoscopique (CPRE) avec sphinctérotomie et la cholécystectomie avec cholangiographie peropératoire et manœuvres d'extraction. Il n'existe pas d'essais contrôlés randomisés démontrant la supériorité d'une prise en charge par rapport à une autre et un algorithme de traitement est difficile à établir.

Au vu du taux important de résolution spontanée, certains auteurs (1, 3, 10) prônent un traitement médical pour les patients symptomatiques non compliqués. Une période d'observation attentive est préconisée pendant 15 jours. Si la résolution de l'épisode n'est pas obtenue après ce délai, ils recommandent un traitement radiologique ou endoscopique et ne réservent la chirurgie qu'aux complications. Selon Debray et coll., le traitement par acide ursodésoxycholique n'est, par ailleurs, pas indiqué pour la dissolution des calculs pigmentaires (1). Son utilisation est prônée pour favoriser le drainage biliaire en cas d'atteinte parenchymateuse secondaire à l'obstruction.

Selon les équipes, le traitement radiologique par ponction percutanée avec lavage des voies biliaires est de moins en moins réalisé au vu de l'évolution de la CPRE (5).

Newman et coll. (12) ont montré que la prise en charge première par CPRE est sûre et efficace chez les enfants et nourrissons présentant une lithias cholédocienne. Cependant, la sphinctérotomie endoscopique n'est pas sans risque avec des taux de complications rapportés de 3,2 à 13,5 % selon les séries chez l'adulte (1, 4-5). En pédiatrie, le taux de complications n'a jamais été évalué, mais peut être considéré comme équivalent, voire plus élevé, au vu des difficultés techniques de cet examen dans cette population particulière. Parmi ces complications, citons la pancréatite, la sténose papillaire, la cholangite récidivante et les abcès hépatiques. Dans leur série, la CPRE est suivie d'une cholécystectomie rapide dont l'indication reste sujette à discussion au vu du taux de résolution spontanée.

Jeanty et coll. (7) ont montré, sur une série de 50 patients âgés de moins d'un an, dont 13 symptomatiques, que le traitement chirurgical

par cholécystectomie, avec cholangiographie peropératoire associée à des manœuvres de libération du cholédoque, est efficace. Dans le groupe symptomatique, 9 patients ont subi l'opération et les autres ont été traités médicalement ou endoscopiquement avec succès. À noter toutefois une plaie cholédocienne dans le groupe des patients opérés.

Vrochides et coll. (13), dans leur revue de 100 cholécystectomies sur des patients âgés de moins de 18 ans, ont montré l'efficacité du traitement chirurgical de lithiases cholédociennes dans 11 cas sur 12. Le dernier patient a dû subir une CPRE faute de libération adéquate peropératoire du cholédoque. Bien que les interventions se réalisent de plus en plus par voie laparoscopique, la libération de la voie biliaire peut être difficile à réaliser lors d'une intervention par laparotomie sous-costale avec un taux d'échec de 23 % (14).

Enfin, Bonnard et coll. (15), dans une série de 10 enfants présentant une lithiase cholédocienne traitée chirurgicalement, décrivent une efficacité de 70 % dans la libération peropératoire du cholédoque par «flushing» ou utilisation d'un cathéter de Fogarty ou d'une sonde de Dormia. En cas d'échec, une sphinctérotomie endoscopique est nécessaire.

La prise en charge des patients doit donc être réalisée au cas par cas, en fonction des antécédents, de l'histoire clinique, mais surtout des habitudes et du niveau d'expertise dans les différents services de l'institution.

En ce qui concerne la cholécystectomie prophylactique, elle n'est recommandée que chez les enfants présentant des lithiases de causes non réversibles comme l'hémolyse chronique (drépanocytose, sphérocytose héréditaire) et la résection étendue du grêle, et l'opération est de mise même si l'enfant est asymptomatique (9-16). Cette intervention permet d'éviter les complications fréquentes chez ces patients.

Dans notre cas, l'indication thérapeutique a été posée en raison de la mauvaise tolérance clinique et de l'altération biologique de la patiente. Ne disposant pas des compétences techniques pour réaliser une CPRE ou un drainage percutané radiologique chez le nourrisson, nous avons privilégié la désobstruction biliaire par laparoscopie avec des trocars, une optique et des instruments de 3 mm. Ces instruments permettent d'être le moins invasif possible. L'originalité de notre technique est d'utiliser un cathéter d'angiographie trans-cystique qui permet de réaliser une dilatation au ballonnet du sphincter d'Oddi pour permettre le passage des lithiases cholédociennes. Le passage dans le

canal cystique, assez étroit à cet âge, est possible grâce au petit calibre de ce cathéter. L'indication de la cholécystectomie, dans ce cas, peut être discutable, mais celle-ci permet de réaliser l'abord trans-cystique, moins délétère que la cholédocotomie.

IMPLICATION CLINIQUE

Cet article permet de découvrir une pathologie rare mais à laquelle nous sommes confrontés plusieurs fois par an dans un centre spécialisé de pédiatrie. Les complications de cette pathologie peuvent être lourdes et aucune recommandation n'est définie pour son traitement actuellement. Celui-ci peut être réalisé par voie radiologique, endoscopique ou chirurgicale.

Plusieurs institutions en Belgique ne possèdent pas l'expertise dans le traitement par voie radiologique ou endoscopique de cette pathologie.

Notre approche chirurgicale par cholécystectomie avec abord trans-cystique pour la libération du cholédoque est une solution aisément reproductible. Dans la littérature, nous n'avons pas trouvé d'article décrivant l'utilisation d'un cathéter de coronarographie pour réaliser une procédure semblable, ni la réalisation d'une sphinctéroplastie.

Une série sur plusieurs patients traités par cette technique nous permettrait d'apprécier la sécurité et, potentiellement, la supériorité de cette approche sur les autres décrites dans la littérature.

CONCLUSION

Les lithiases biliaires chez l'enfant et particulièrement chez le nourrisson sont rares. On estime que 10 % de ces patients présentent une lithiase cholédocienne associée. Une grande proportion des patients sont asymptomatiques et les complications sont peu fréquentes. Contrairement à l'adulte, une résolution spontanée est possible dans 30 à 60 % des cas.

La prise en charge de ces patients doit se réaliser au cas par cas en fonction des symptômes, de la présentation clinique, des facteurs de risques et maladies pouvant causer les lithiases, mais aussi des habitudes de l'institution prenant en charge le patient.

Notre prise en charge chirurgicale avec drainage laparoscopique des voies biliaires par voie trans-cystique est efficace, mini-invasive et paraît aisément reproductible.

BIBLIOGRAPHIE

1. Debray D, Franchi-Abella S, Irtan S, Girard M. Lithiase biliaire du nourrisson, de l'enfant et de l'adolescent. *Presse Med* 2012;**41**:466-73.
2. Asabe K, Handa N. Infant cholelithiasis: report of a case. *Surg Today* 1997;**27**:71-5.
3. Bogue CO, Murphy AJ, Gerstle JT, et al. Risk factors, complications, and outcomes of gallstones in children: a single-center review. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2010;**50**:303-8.
4. Lau BJ, Sydorak RM, Shaul DB. Laparoscopic techniques for safe and successful removal of common bile duct stones in pediatric patients. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2014;**24**:362-5.
5. Yu PT, Fenton SJ, Delaplain PT, et al. Management of choledocholithiasis in an infant. *J Pediatric Surg Case Rep* 2018;**29**:52-58.
6. Debray D, Pariente D, Gauthier F, et al. Cholelithiasis in infancy: a study of 40 cases. *J Pediatr* 1993;**122**:385-91.
7. Jeanty C, Derderian SC, Courtier J, Hirose S. Clinical management of infantile cholelithiasis. *J Pediatr Surg* 2015;**50**:1289-92.
8. Currò G, Meo A, Ippolito D, et al. Asymptomatic cholelithiasis in children with sickle cell disease: early or delayed cholecystectomy? *Ann Surg* 2007;**245**:126-29.
9. Robertson JF, Carachi R, Sweet EM, Raine PA. Cholelithiasis in childhood: a follow-up study. *J Pediatr Surg* 1988;**23**:246-9.
10. Rivet C. Lithiase vésiculaire. Cours d'hépatologie pédiatrique. Hôpitaux de Lyon. 2011. 44p.
11. Klar A, Branski D, Akerman Y, et al. Sludge ball, pseudolithiasis, cholelithiasis and choledocholithiasis from intrauterine life to 2 years: a 13-year follow-up. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2005;**40**:477-80.
12. Newman K D, Powell DM, Holcomb GW. The management of choledocholithiasis in children in the era of laparoscopic cholecystectomy. *J Pediatric Surg* 1997;**32**:1116-9.
13. Vrochides DV, Sorrells DL, Jr, Kurkchubasche AG, et al. Is there a role for routine preoperative endoscopic retrograde cholangiopancreatography for suspected choledocholithiasis in children? *Archives Surg* 2005;**140**:359-61.
14. Farrow GB, Dewan PA, Taylor RG, et al. Retained common-duct stones after open cholecystectomy and duct exploration in children. *Pediatr Surg Int* 2003;**19**:525-8.
15. Bonnard, A, Segulier-Lipszyc, E, Liguory C, et al. Laparoscopic approach as primary treatment of common bile duct stones in children. *J Pediatr Surg* 2005;**40**:1459-63.
16. Poddar U. Gallstone disease in children. *Indian Pediatr* 2010;**47**:945-53.

Les demandes de tirés à part doivent être adressées au Dr Perugini P, Service de Chirurgie abdominale, CHR Citadelle, Liège, Belgique.
Email : pierreperugini@gmail.com