

ARTERE PULMONAIRE GAUCHE RETROTRACHEALE: A PROPOS D'UN CAS

N'GORAN Y.N.K¹, TRAORE F³, AHOURY N.J²,
KOFFI MARIE N³, SALL F³, EKOU K.A³,
KOFFI F, KRAMOH K.E¹, KAKOU M.G¹.

1-Institut de Cardiologie d'Abidjan (Côte d'Ivoire):

Service de cardiologie pédiatrique et congénitale adulte.

2- Institut de Cardiologie d'Abidjan (Côte d'Ivoire): Service de radiologie.

3-Institut de Cardiologie d'Abidjan (Côte d'Ivoire): Service de médecine.

Correspondance : N'goran Yves N'da Kouakou,
Institut de Cardiologie BP V206 Abidjan - Côte d'Ivoire.

E-mail: ngoran.yves@gmail.com

Tel: 0022505814174.

Résumé

L'artère pulmonaire gauche rétrotrachéale est caractérisée par une artère pulmonaire gauche aberrante qui naît de l'artère pulmonaire droite se prolonge par la face postérieure de la trachée et rejoint le hile gauche en passant entre la trachée et l'œsophage. C'est une malformation congénitale rare. Les symptômes sont présents dès la naissance chez environ 50 % des patients. Nous rapportons un cas chez un nouveau-né de sexe masculin, noir africain.

Mots clés: artère pulmonaire gauche, nouveau-né, aberrant, dyspnée, rétrotrachéale.

RETROTRACHEAL LEFT PULMONARY ARTERY: A CASE REPORT

Summary

Retrotracheal left pulmonary artery characterized by an aberrant left pulmonary artery arising from the right pulmonary artery extending through the posterior aspect of the trachea and joining the left hilum passing between the trachea and the esophagus. It is a rare congenital malformation. Symptoms are present at birth in about 50% of patients. We report a case in a newborn male, black African.

Keywords: left Pulmonary artery, new-born, aberrant, dyspnoea, retrotracheal.

INTRODUCTION

L'artère pulmonaire gauche rétrotrachéale (APGRT) est caractérisée par une artère pulmonaire gauche (APG) aberrante qui naît de l'artère pulmonaire droite (APD) se prolonge par la face postérieure de la trachée et rejoint le hile gauche en passant entre la trachée et l'œsophage (1-2). Les symptômes sont présents dès la naissance chez environ 50 % des patients (1).

En Afrique sub-saharienne et en Côte d'Ivoire, nous n'avons pas retrouvé de publication sur cette anomalie. L'APGRT est souvent méconnue dans nos pays, ce qui pose le problème de diagnostic et de prise en charge des dyspnées chez les nouveau-nés.

Nous rapportons un cas chez un nouveau-né noir africain.

OBSERVATION

Il s'agissait d'un nouveau-né de sexe masculin, issu d'une grossesse de déroulement normal et né à terme par voie basse. Il a présenté depuis sa naissance (08/01/2017) une respiration bruyante avec des accès de dyspnée paroxystique. Il a été hospitalisé à l'âge de 08 jours à la polyclinique internationale sainte Anne marie d'Abidjan (PISAM), dans un tableau d'insuffisance respiratoire aiguë avec dyspnée et cyanose. L'examen initial trouvait un enfant eutrophique, fébrile à 38,5 °C et des râles sibilants diffus aux deux champs pulmonaires. La radiographie du thorax a montré une distension thoracique, une dextrocardie (Figure1). Le diagnostic de bronchiolite aiguë était retenu et l'enfant a été traité. L'évolution était marquée par l'apyrexie

et la disparition des râles sibilants avec persistance d'un stridor intense et d'une dyspnée. Une échocardiographie a été demandée pour rechercher une cardiopathie congénitale. Elle a objectivé une large communication inter auriculaire (CIA), très belle artère pulmonaire droite de 8 mm, La branche gauche n'était pas vue. Un angioscanner thoracique (figure 2) a été réalisé, qui a objectivé une artère pulmonaire gauche de trajet aberrant, retro-trachéale et inter trachéo-œsophagien responsable d'un rétrécissement luminal trachéal sus carinaire. Une sténose trachéale basse, située à 1 cm au-dessus de la carène et étendue sur 1 cm de hauteur. La sténose était serrée, régulière. Les bronches principales et lobaires étaient normales. L'enfant a été évacué en France pour être pris en charge chirurgicalement.

Le patient a été opéré par sternotomie médiane, après thymectomie et ouverture du péricarde on observait un tronc pulmonaire bien développé qui donne l'artère pulmonaire droite et il n'existait pas de branche pulmonaire gauche. Après dissection de l'artère pulmonaire droite sur toute sa longueur. L'artère pulmonaire gauche part 3 à 4 mm avant l'artère médiastinale et se dirige en arrière pour passer en arrière de la trachée qui est très sténosée à l'endroit du passage de cette artère pulmonaire. Il a été réalisé une dissection de l'artère pulmonaire gauche et son décroisement la faisant passer en avant de la trachée. Anastomose de cette artère au tronc pulmonaire en sa position habituelle. Fermeture de la CIA sous circulation extracardiaque.

Amélioration des symptômes respiratoires en postopératoire.

L'échocardiographie était normale. L'angioscanner de contrôle montrait un flux normal dans l'artère réimplantée.

Avec un recul de 16 mois l'enfant va bien.

DISCUSSION

Nous présentons un cas d'APGRT chez un nouveau-né de 08 jours. C'est une maladie très rare, 3% de toutes les compressions trachéales extrinsèques selon landing (3). L'APGRT est caractérisée par une APG aberrante qui naît de l'APD se prolonge par la face postérieure de la trachée et rejoint le hile gauche en passant entre la trachée et l'œsophage. Sur le plan embryologique il s'agit d'une agénésie ou une oblitération du sixième arc aortique gauche primitif, habituellement à l'origine de l'APG (4-5). Chez l'enfant et le nouveau-né, le « Pulmonary Sling » ou « Left Pulmonary Artery Sling » a été décrit pour la première fois en 1897 par Glaevecke et Doehle (1). Il existe deux types d'anneaux artériels pulmonaires. Dans le type 1 la carène est normalement située, en regard des corps vertébraux T4-T5. Dans le type 2, la carène est bas située, au niveau de T6 et il existe une sténose trachéale congénitale. Le type 2 est fréquemment associé à d'autres anomalies congénitales (5-6).

Nous pensons que notre cas était de type 2 car la sténose était bas située et il y avait une communication inter auriculaire (CIA) associée. Dans la littérature on retrouve une association au CIA dans 20% des cas, à la communication inter ventriculaire (CIV) dans 10 % des cas, à la persistance du canal artériel (PCA) dans 25 % des cas

et à une veine cave supérieure gauche dans 20% des cas (2,7). D'autres anomalies rares complexes peuvent être associées à l'APGRT: hernie hiatale; diaphragmatique et agénésie rénale (2).

Les symptômes sont présents dès la naissance chez environ 50 % des patients. Le tableau clinique associe une dyspnée expiratoire et un wheezing, la dysphagie et les vomissements sont rares (1). Notre patient a présenté un tableau d'insuffisance respiratoire aiguë avec dyspnée et cyanose à 8 jours de vie. Il est décrit aussi des formes asymptomatiques de découverte fortuite chez le grand enfant lorsqu'il n'y a pas d'anomalies complexes associées (8).

L'écho-doppler cardiaque visualise l'absence de l'APG ou située plus en distale, l'état des valves et fait le diagnostic des cardiopathies congénitales associées mais ne visualise pas la totalité de la longueur en cas de trajet aberrant et les malformations médiastinales associées.

Le diagnostic a été objectivé et confirmé par l'angioscanner thoracique dans notre cas. C'est l'examen de choix elle doit comporter des reconstructions volumiques et tridimensionnelles. L'aspect radiologique dépend du type d'anomalie et de la présence ou non d'anomalie associée (5): dans le type I l'imagerie met en évidence un aspect de compression postérieure caractéristique de la trachée et de la bronche souche droite et de compression œsophagienne antérieure en rapport avec le trajet aberrant de l'artère pulmonaire (5-6); dans le type II, il existe une sténose trachéale circonferentielle associée, une bifurcation de la trachée en regard de T6

avec une horizontalisation des bronches souches (carène en T) (5).

Le traitement est surtout chirurgical; il s'agit de la réimplantation vasculaire [5]. Il existe deux techniques de réparation chirurgicale [9]: la réimplantation sous circulation extracardiaque et la translocation antérieure de l'APG lors de la résection de la sténose congénitale de la trachée. La meilleur technique sûre, facile et avec moins de mortalité est la réimplantation sous circulation extracardiaque [9] qui permet la réparation des lésions intracardiaques. Notre patient a bénéficié de la réimplantation vasculaire sous circulation intracardiaque avec résolution complète de la symptomatologie à moyen terme.

CONCLUSION

L'APGRT est une malformation vasculaire congénitale rare qui est diagnostiquée chez un enfant noir africain. Le diagnostic est essentiellement postnatal devant l'apparition d'une symptomatologie brutale respiratoire et digestive. L'échocardiographique permet de suspecter avec confirmation par l'angio-scanner thoracique. La prise en charge est chirurgicale. Il faudra y penser dans l'exploration des problèmes respiratoires chez les nouveau-nés.

REFERENCES

1. Mailly N., Gandia P, Pesenti-Duterque S, et al. Artère pulmonaire gauche rétrotrachéale chez un adulte: À propos d'un cas. *J Radiol* 2007;88(9):1197-9.
2. Semiz-Oysu A, Basaran I, Barutca H, & Bukte Y. Anomalous left pulmonary artery without sling formation. *Pediatric cardiology*. 2013; 34(8):1928-31.
3. Carfagna L, Lopez R, Bouali O, et al. Artère pulmonaire gauche rétro trachéale: mise au point embryologique et anatomique à propos d'un cas. *Morphologie*. 2007; 91(293): 103.
4. Zylak Cj, Eyler Wr, Spizarni Dl, et al. Developmental lung anomalies in the adult: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics*. 2002; 22 (Spec N0): S25-43.
5. Berteloot L., Bobbio A., Millischer-Bellaïche A. E., Lambot K., Breton S, Brunelle F. Malformations pulmonaires congénitales, le point de vue du radiologue. *Revue des maladies respiratoires*. 2012; 29(6):820-35.
6. Berdon WE. Ring, slings, and other thing: vascular compression of the infant trachea updated from the midcentury to the millennium: the legacy of Robert E. Gross MD, and Edward B. D. Neuhauser,MD. *Radiology*. 2000; 216: 624-32.
7. Loukanov T, Sebening C, Springer W, Hagl S. A case of pulmonary artery sling associated

- with long-segment funnel trachea and bronchus suis. *Ann Thorac Surg.* 2004; 78:1839–42.
8. Valletta EA, Pregarz M, Bergamo-Andreis IA, Boner AL. Tracheoesophageal compression due to congenital vascular anomalies (vascular rings). *Pediatr Pulmonol.* 1997; 24:93–105.
9. Andrew CF et al. surgical treatment of pulmonary artery sling and tracheal stenosis. *Ann Thorac Surg.* 2005; 79:38-46.

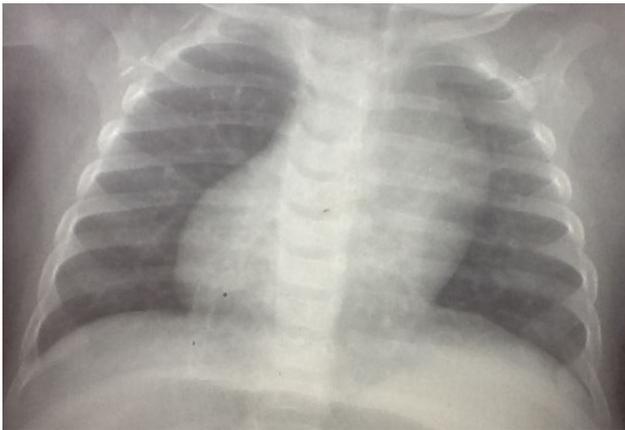


FIGURE 1: *La radiographie du thorax montrant une distension thoracique, une dextrocardie.*

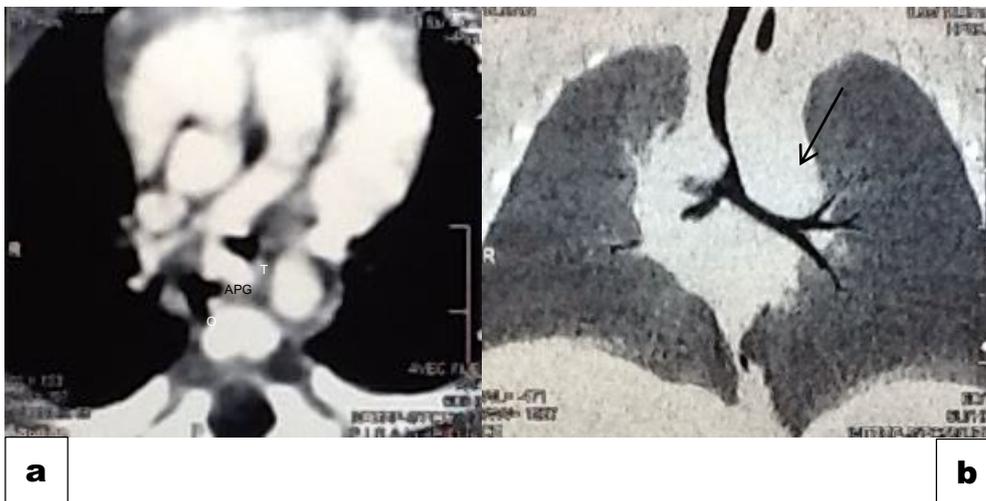


FIGURE 2: angioscanner thoracique: **a)** montrant une artère pulmonaire gauche (APG) de trajet aberrant, rétrotrachéale (T) et inter trachéo-œsophagien (O), **b)** montrant un rétrécissement luminal trachéal (flèche) sus carinaire.