

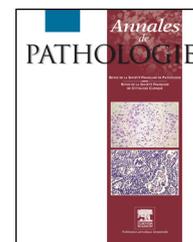


Disponible en ligne sur

ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France

EM|consulte
www.em-consulte.com



CAS ANATOMOCLINIQUE

La cholangite à lésion épithéliale granulocytaire : une nouvelle entité avec un traitement spécifique



Cholangitis with granulocytic epithelial lesion: A new entity with a specific treatment

Jessica Calvo^{a,*}, Valérie Dhalluin-Venier^b,
Lionel Arrivé^{c,d}, Christophe Corpechot^e,
Dominique Wendum^{a,d}

^a Service d'anatomie et cytologie pathologiques, hôpital Saint-Antoine, AP-HP, 184, rue du Faubourg-Saint-Antoine, 75571 Paris cedex 12, France

^b Service de gastro-entérologie, centre hospitalier de Gonesse, 25, rue Bernard-Février, 95500 Gonesse, France

^c Service d'imagerie médicale, hôpital Saint-Antoine, AP-HP, 184, rue du Faubourg-Saint-Antoine, 75571 Paris cedex 12, France

^d UPMC, université Paris 06, 75005 Paris, France

^e Service d'hépatologie, hôpital Saint-Antoine, AP-HP, 184, rue du Faubourg-Saint-Antoine, 75571 Paris cedex 12, France

Accepté pour publication le 6 mai 2015
Disponible sur Internet le 15 juillet 2015

MOTS CLÉS

Cholangite ;
IgG4 ;
Pancréatite
auto-immune ;
Lésion épithéliale
granulocytaire

Résumé Nous rapportons un cas de cholangite à lésion épithéliale granulocytaire associée à une pancréatite chez un homme de 22 ans. L'association d'une cholangite à une augmentation du volume du pancréas évoque en premier lieu une cholangite à IgG4 associée à une pancréatite auto-immune de type I (à IgG4). Cependant, nous n'avons trouvé aucun infiltrat tissulaire à IgG4 et il existait une cholangite à lésion épithéliale granulocytaire sur la biopsie hépatique. Récemment, la cholangite à lésion épithéliale granulocytaire, dont les lésions ressemblent aux lésions microscopiques de la pancréatite auto-immune de type II, a été décrite. La possibilité d'une entité commune regroupant des lésions biliaires et la pancréatite auto-immune de type II est proposée dans la littérature. Cette affection est retrouvée dans environ 2% des cas ayant un tableau de cholangite sclérosante. Elle touche plus volontiers les enfants et les adultes jeunes, serait souvent associée à la présence d'une maladie inflammatoire chronique intestinale et parfois d'une pancréatite. Cette entité est définie histologiquement par la présence sur la

* Auteur correspondant.

Adresse e-mail : calvojessica@yahoo.fr (J. Calvo).

biopsie hépatique de lésions épithéliales granulocytiques au niveau des canaux biliaires. Cette forme particulière de cholangite, contrairement à la cholangite sclérosante primitive, répond très bien au traitement par corticoïdes d'où l'importance de son diagnostic.

© 2015 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

KEYWORDS

Cholangitis;
IgG4;
Auto-immune
pancreatitis;
Granulocytic
epithelial lesion

Summary Herein, we report a case of cholangitis with granulocytic epithelial lesion associated with pancreatitis in a 22-year-old patient. The association of bile duct lesions and pancreatitis is usually very suggestive of IgG4 related disease. However, in our case, we found no IgG4 tissue infiltration and we found a granulocytic epithelial on the liver biopsy. Recently, cholangitis with granulocytic epithelial lesion was described in the literature. This entity is identified in 2% of patients with sclerosing cholangitis. Patients are more likely children or young adults and often have an associated inflammatory bowel disease or rarely a pancreatitis. It is defined by the presence of neutrophilic bile duct lesions on a liver biopsy. Although rare, the diagnosis of cholangitis with granulocytic epithelial lesion is important because of its excellent response to immunosuppressive treatment.

© 2015 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

Observation

Il s'agissait d'un patient de 22 ans, d'origine martiniquaise, ayant consulté son médecin traitant pour des douleurs abdominales associées à des diarrhées non glairoanglantes et un amaigrissement de 6 kg en 1 mois. Biologiquement, il existait une cholestase importante (phosphatases alcalines supérieures à 10N, gammaGT supérieures à 20N, bilirubinémie à 68 micromol/L) associée à une cytolyse (ASAT et ALAT supérieures à 10N). La lipasémie était à 102 UI/mL (normale supérieure à 78 UI/mL). Il s'y associait un syndrome inflammatoire biologique avec une CRP à 81 et une hypergammaglobulinémie importante à l'électrophorèse des protéines plasmatiques. Les sérologies virales B, C et HIV étaient négatives. La recherche d'auto-anticorps était négative (antimuscle lisse, antimitocondries, anti-LKM1, antinoyaux et pANCA). Une cholangio-IRM a été faite et a montré une sténose du bas cholédoque (Fig. 1) et une augmentation de volume du pancréas sans atteinte des voies biliaires intrahépatiques.

En raison de l'atteinte cholédocienne et pancréatique, le diagnostic de cholangiopancréatite auto-immune à IgG4 a été évoqué. Le dosage des IgG4 sériques était normal. Une échoendoscopie confirmait l'aspect de pancréatite et de cholangite avec une tête du pancréas globuleuse, hypertrophiée, d'échostructure homogène sans différenciation entre le pancréas ventral et le pancréas dorsal, un canal de Wirsung court, et un cholédoque dilaté dans le hile avec des parois épaissies lorsqu'il pénètre dans le pancréas.

Une biopsie de la papille duodénale fut pratiquée pour recherche de plasmocytes IgG4. Celle-ci était histologiquement normale sans augmentation des plasmocytes IgG4 (2 plasmocytes IgG4+ pour un grand champ au grossissement 40 après étude immunohistochimique).

Le patient a également eu une coloscopie avec biopsies iléocoliques en raison des troubles du transit. Sur les prélèvements biopsiques, on observait quelques remaniements architecturaux avec des lésions inflammatoires aiguës focales, prédominant dans le côlon sans granulome épithélioïde et gigantomultifoculaire. L'aspect était évocateur d'une maladie inflammatoire chronique de l'intestin (MICI)

peu active. Une biopsie hépatique fut pratiquée. Celle-ci montrait des espaces portes très élargis par un infiltrat inflammatoire abondant constitué de lymphocytes formant parfois des amas lymphoïdes, avec de rares plasmocytes, quelques polynucléaires éosinophiles et de rares mastocytes. Il existait des lésions de cholangite particulières dites de cholangite granulocytaire (Fig. 2). Ces lésions étaient constituées d'un infiltrat à polynucléaires neutrophiles dans l'épithélium biliaire avec destruction canalaire, sans pus dans la lumière canalaire. Il n'y avait pas de fibrose péricanalaire concentrique, ni de ductopénie, ni de réaction ductulaire. On observait une légère activité avec quelques amas inflammatoires mononucléés intralobulaires et de minimes lésions d'hépatite d'interface. Il n'y avait pas de fibrose, ni de granulome épithélioïde. L'étude

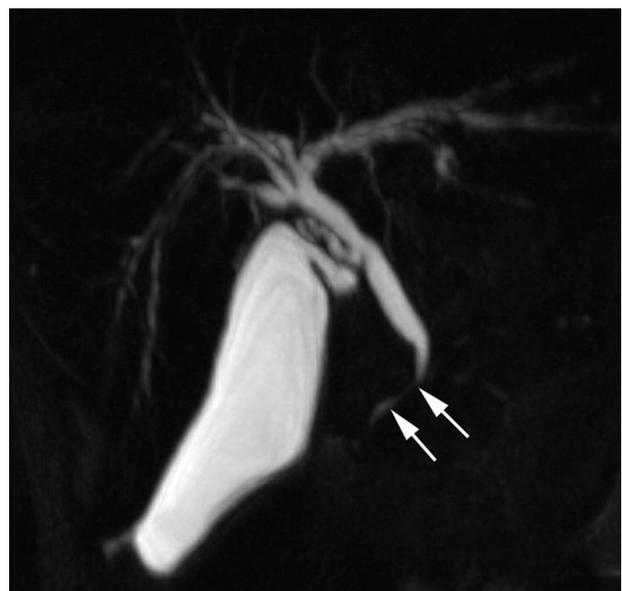


Figure 1. Bili-IRM: sténose du bas cholédoque indiquée par les flèches.
Magnetic resonance cholangiopancreatography: lower bile duct stenosis.

Download English Version:

<https://daneshyari.com/en/article/4128045>

Download Persian Version:

<https://daneshyari.com/article/4128045>

[Daneshyari.com](https://daneshyari.com)