



## CAS CLINIQUE

# Pseudo-anévrisme aortique sous-rénal à *Coxiella burnetii*

## Infrarenal aortic pseudo-aneurism due to *Coxiella burnetii*

A. Paumier, J. Penard, E. Maugin, B. Enon, J. Picquet\*

Service de chirurgie cardiovasculaire et thoracique, centre hospitalier universitaire, 4, rue Larrey, 49033 Angers cedex 01, France

Reçu le 14 juin 2007 ; accepté le 5 juillet 2007  
Disponible sur internet le 11 septembre 2007

### MOTS CLÉS

*Coxiella burnetii* ;  
Fièvre ;  
Pseudo-anévrisme ;  
Allogreffe ;  
Aorte cryoconservée

### KEYWORDS

*Coxiella burnetii* ;  
Q fever ;  
Pseudo-aneurism ;  
Cryopreserved aorta ;  
Allograft

**Résumé** Les expressions vasculaires périphériques de la fièvre Q à *Coxiella burnetii* sont peu connues. La présentation clinique la plus fréquente de la fièvre Q chronique est l'endocardite dite à « hémocultures négatives ». Seuls, quelques cas d'infections d'anévrismes ou de prothèses vasculaires ont été décrits. Nous rapportons, ici, le cas d'un homme de 54 ans victime d'une infection de l'aorte abdominale sous-rénale responsable d'un pseudo-anévrisme. *C. burnetii* a été identifié par analyse sérologique sanguine et par amplification PCR (*polymerase chain reaction*) de son ADN dans du thrombus aortique après cure chirurgicale du pseudo-anévrisme. Le traitement a associé un remplacement de l'aorte abdominale sous-rénale pathologique par une allogreffe d'aorte thoracique cryoconservée et une antibiothérapie adaptée de longue durée.

© 2007 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

**Abstract** Peripheral vascular expressions of *Coxiella burnetii* Q fever are not well known. Endocarditis with negative blood culture is the most frequent clinical presentation of chronic Q fever. To date, very few cases of aneurisms or vascular grafts infections have been described. We report the case of a 54-year-old man who presented an infrarenal abdominal aorta infection, leading to a giant pseudo aneurismal formation. Blood serology and polymerase chain reaction amplification identified *C. burnetii* from the aortic thrombus after pseudo aneurism surgery. The treatment associated infrarenal abdominal aorta repair using a cryopreserved aorta allograft, and long-term antibiotic therapy.

© 2007 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

\* Auteur correspondant.

Adresse e-mail : JePicquet@chu-angers.fr (J. Picquet).

## Introduction

*Coxiella burnetii* est l'agent causal de la fièvre Q (*query fever*). Il s'agit d'une zoonose ubiquitaire transmise surtout par des animaux domestiques (bovins, ovins et caprins). Le mode de contamination le plus fréquent est l'inhalation d'aérosols contaminés au printemps ou en été.

Il existe deux formes de la maladie : la forme aiguë représentée par des pneumopathies, hépatites ou fièvres prolongées, et la forme chronique dont la présentation clinique la plus fréquente est l'endocardite dite à « hémoculture négative ». Aussi, l'ensemble des manifestations cliniques restent peu spécifiques [1]. Les expressions vasculaires périphériques sont, elles, peu connues, seuls quelques cas principalement d'infections d'anévrismes et de prothèses vasculaires ayant été décrits.

Dans cet article, nous rapportons un cas d'infection à *C. burnetii* de l'aorte abdominale sous-rénale, responsable de la formation d'un pseudo-anévrisme géant avec rupture de la paroi postérieure aortique et d'une infection osseuse vertébrale par contiguïté. Le diagnostic a été posé après culture de thrombus aortique prélevé au cours de l'intervention et sur des sérologies sanguines préopératoires.

## Observation

Un homme de 54 ans, aux antécédents d'éthylisme et de tabagisme chroniques, a été hospitalisé en octobre 2005 en réanimation pour un accident vasculaire cérébral ischémique pariéto-occipital droit associé à une pneumopathie de la base gauche, une rhabdomyolyse et une insuffisance rénale aiguë. Il présentait depuis une dizaine de jours avant son admission à l'hôpital un tableau d'anorexie et d'altération de l'état général. Une échographie cardiaque transœsophagienne réalisée dans le cadre du bilan de l'accident vasculaire cérébral n'avait permis de retrouver ni thrombus intra-auriculaire ni végétation valvulaire. Seul, un foramen ovale perméable avait été mis en évidence. De même, le doppler des troncs supra-aortiques était normal.

Après un mois en réanimation, il a été transféré en rééducation fonctionnelle, où il décrit des douleurs abdominales, justifiant la réalisation d'un doppler artériel. Cet examen mit en évidence un pseudo-anévrisme de l'aorte abdominale sous-rénale sacciforme. Un scanner abdominal a objectivé l'existence d'un pseudo-anévrisme aortique abdominale sous-rénale de 13 cm de plus grand diamètre et d'allure mycotique (Fig. 1a,b). Le reste du réseau artériel exploré en artériographie (membres inférieurs, troncs supra-aortiques) s'avérait normal.

La protéine C réactive ainsi que l'hémogramme préopératoire étaient normaux. De même, il n'existait aucune thrombopénie.

En décembre 2005, le patient a été transféré dans notre service. Une laparotomie xyphopubienne permit la découverte, après clampage aortique sous-rénal, d'une perforation de la face postérieure de l'aorte communiquant largement avec le très volumineux pseudo-anévrisme (Fig. 2a). Le ligament vertébral antérieur lombaire était détruit et il existait, avec le corps vertébral L3, un contact osseux spongieux. À noter que la veine cave inférieure était refoulée en avant. Le segment aortique sous-rénal fut réséqué et rem-

placé par une allogreffe d'aorte thoracique cryoconservée. (Fig. 2b). Une épiploplastie de protection du greffon fut également réalisée. De nombreux fragments de paroi du pseudo-anévrisme et du thrombus furent envoyés pour examens bactériologiques et anatomopathologiques.

L'analyse anatomopathologique de la paroi a conclu à une réaction granulomateuse épithélioïde et gigantomégaclaire. L'analyse PCR du thrombus aortique au Centre national de référence (unité des rickettsies, Assistance publique-Hôpitaux de Marseille) conclut en la présence d'ADN de *C. burnetii* dans les prélèvements opératoires. De même, les résultats d'un bilan sérologique sanguin exhaustif préopératoire témoignèrent secondairement d'une infection chronique à *C. burnetii* (Tableau 1).

Un traitement associant doxycycline 200 mg deux fois par jour et chloroquine 200 mg une fois par jour a alors été instauré pour une durée de 18 mois. Les suites opératoires ont été simples. Le contrôle tomodensitométrique montrait un bon résultat immédiat de la chirurgie. Une nouvelle échographie cardiaque transœsophagienne postopératoire ne permettait toujours pas de mettre en évidence des végétations valvulaires, le foramen ovale restant peu perméable. Une scintigraphie osseuse à la recherche d'un autre foyer infectieux rachidien ne retrouvait aucun signe évocateur de spondylodiscite, et l'imagerie par résonance magnétique rachidienne confirmait que l'infiltration vertébrale n'était que corporéale.

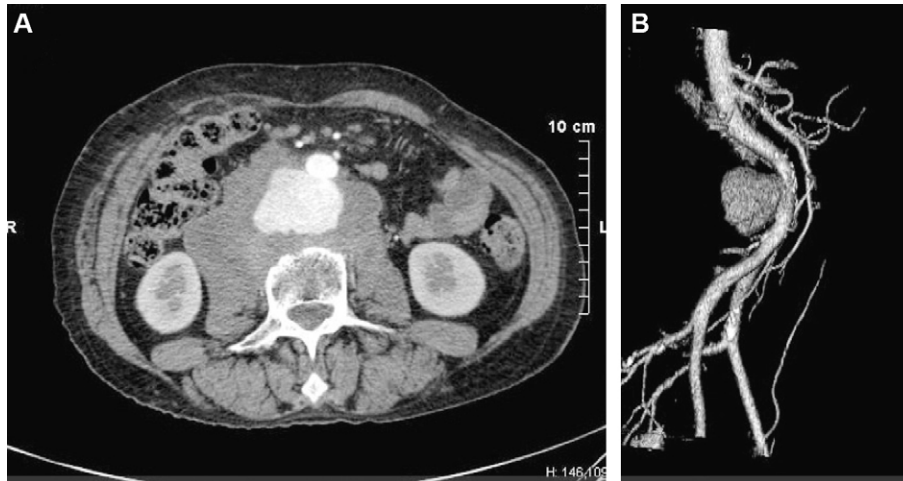
## Discussion

Les micro-organismes responsables d'anévrismes artériels mycotiques les plus fréquemment identifiés, lorsqu'ils le sont, sont *Salmonella*, *Brucella*, *Staphylococcus aureus*, *Pasteurella multocida*, et *Klebsiella pneumoniae* [2]. Ils sont en général différents de ceux identifiés en cas d'infections de prothèses vasculaires, c'est-à-dire *Staphylococcus epidermidis*, *S. aureus*, et les bacilles Gram négatifs d'origine digestive [3].

Ici, nous rapportons une infection aortique rare. Dans les quelques cas précédemment rapportés, *C. burnetii* fut à la fois responsable d'infection d'anévrismes ou de pseudo-anévrismes et de matériels prothétiques [3-5]. Il s'agit d'une bactérie se multipliant dans le phagolysosome intracellulaire où le pH est acide expliquant l'inactivation des antibiotiques. Elle se présente sous deux phases en culture : la phase I virulente exprimant des antigènes et la phase II non infectieuse. Elle est responsable de la fièvre Q, zoonose ubiquitaire. La contamination se fait par l'inhalation d'aérosols contaminés. Il existe deux formes cliniques de la maladie.

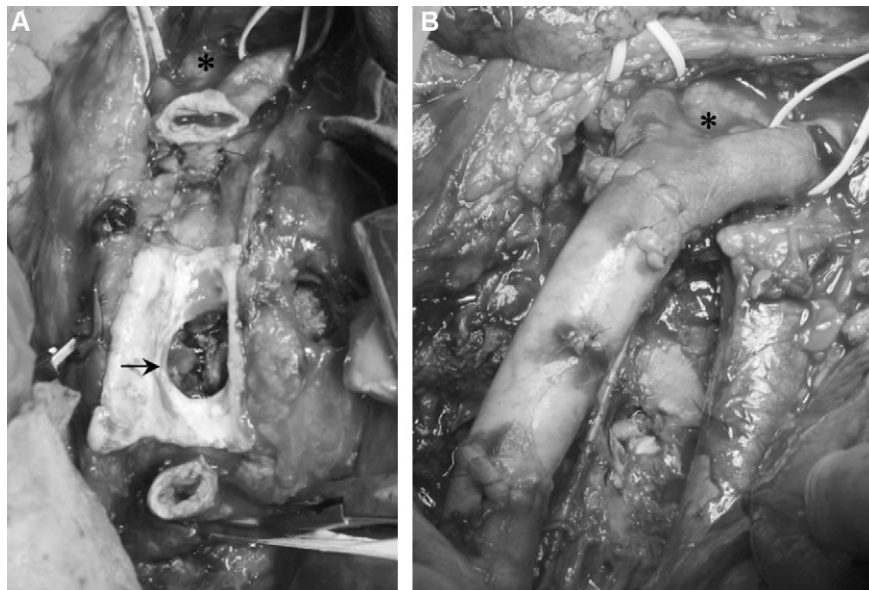
La fièvre Q aiguë est caractérisée par un syndrome fébrile d'allure pseudogrippale. L'hépatite fébrile est le mode de présentation le plus fréquent en France (65 %). L'autre mode le plus fréquent est la pneumopathie fébrile associée ou non à une atteinte hépatique. Il peut exister une thrombopénie modérée (100 à 150 g/l). Le diagnostic est sérologique par immunofluorescence indirecte montrant une élévation des anticorps dirigés contre la phase II de *C. burnetii* : IgG II > 200, IgM II > 50.

La fièvre Q chronique (5 % des fièvres Q) a pour principales manifestations l'endocardite « à hémocultures négatives », le



**Figure 1** a : scanner abdominal injecté montrant un pseudo-anévrisme aortique sous-rénal postérieur étendu au corps vertébral adjacent ; b : reconstruction scanographique en oblique antérieur droit objectivant le refoulement antérieur de l'aorte abdominale sous-rénale normale par le très volumineux pseudo-anévrisme postérieur.

**Figure 1** a: abdominal CT-scan with contrast showing a posterior infra-renal aortic pseudo-aneurism extended to the vertebra; b: CT-scan reconstruction in right oblique view demonstrating the normal infra-renal aorta moved forward by a large posterior pseudo-aneurism.



**Figure 2** a : vue peropératoire de la résection de l'aorte abdominale sous-rénale et de la large perforation arrondie de la face postérieure de la paroi aortique ; b : vue peropératoire de la reconstruction aortique par une allogreffe cryoconservée, après déclantage.

**Figure 2** a: intra-operative view of the aorta resection and of the large hole in the posterior aorta wall; b: intra-operative view of the aortic repair using a cryopreserved allograft.

plus souvent sur valvulopathie cardiaque préexistante. Les végétations, très souvent petites, ne sont retrouvées à l'échographie que dans 15 % des cas. Ainsi, les manifestations vasculaires périphériques de la fièvre Q ne sont que très rarement rapportées ou même citées. La biologie est comparable à celle de la forme aiguë. Les autres manifestations cliniques sont les ostéomyélites et les hépatites. Le diagnostic sérologique est défini par l'élévation des anticorps dirigés contre la phase I : IgG  $> 800$  et IgA. La PCR est, elle, réservée aux laboratoires spécialisés [1].

Notre patient est un homme aux antécédents de tabagisme et d'éthylisme, vivant en milieu rural au contact d'animaux domestiques. Les échographies cardiaques transœsophagiennes réalisées à deux mois d'intervalle n'ont pas mis en évidence de végétations valvulaires. Toutefois, aucune étiologie n'a été retrouvée à l'accident vasculaire cérébral ischémique. Dans ce contexte, on peut légitimement considérer, par une analyse uniciste de l'anamnèse, que le malade a présenté un accident vasculaire cérébral d'origine cardiaque à partir de microvégétations à

**Tableau 1** Sérologies préopératoires de la fièvre Q  
**Table 1** Preoperative Q fever serologies

	Ig	Titre	
Ig antiphase I	IgG	1024	N < 16
	IgM	Négatif	N < 16
	IgA	50	
Ig antiphase II	IgG	4096	N < 16
	IgM	128	N < 16
	IgA	100	

Ig : immunoglobuline.  
 Ig : immunoglobulin.

*C. burnetii*, embolus septiques qui ont également contaminé la paroi aortique abdominale et provoqué le développement du pseudo-aneurisme.

Le patient a bénéficié d'une allogreffe d'un segment d'aorte thoracique cryoconservée complétée d'une épiploplastie de protection. Cette réparation vasculaire nous est apparue la plus adaptée, étant donné le contexte manifestement septique associant infection vasculaire et ostéomyélite vertébrale par contiguïté [6-8]. Une prothèse vasculaire en polytétrafluoroéthylène (PTFE), protégée par une épiploplastie, aurait toutefois aussi pu se discuter, notamment en l'absence de matériel cryoconservé disponible.

Enfin, un traitement antibiotique par doxycycline 200 mg deux fois par jour a été institué pour une durée d'au moins 18 mois. Nous y avons adjoint de la chloroquine 200 mg par jour, agent alcalinisant, permettant d'augmenter le pH du phagolysosome intracellulaire et de restituer le pouvoir bactéricide de la cycline [1].

## Conclusion

La fièvre Q est une infection grave dont les manifestations vasculaires périphériques sont peu connues comparativement aux valvulopathies cardiaques. L'atteinte vasculaire est certainement sous-estimée, car non systématiquement

recherchée, d'autant plus que les signes cliniques de la fièvre Q sont souvent peu spécifiques. L'infection à *C. burnetii* devrait donc faire partie des pathologies à évoquer et à dépister dans les cas difficiles où des manifestations vasculaires périphériques ayant une présentation inhabituelle, laissent suspecter la présence d'un agent infectieux. De même, la recherche d'une atteinte vasculaire périphérique, potentiellement gravissime, semble justifiée chez un patient atteint de fièvre Q.

## Références

- [1] APPIT. Coxiellose, fièvre Q. In: Pilly E, editor. Maladies infectieuses et tropicales. Montmorency: 2M2; 2001. p. 325-6.
- [2] Sessa C, Farah I, Voirin L, Magne JL, Brion JP, Guidicelli H. Infected aneurisms of the infrarenal abdominal aorta: diagnostic criteria and therapeutic strategy. *Ann Vasc Surg* 1997;11: 453-63.
- [3] Piquet P, Raoult D, Tranier P, Mercier C. *Coxiella burnetii* infection of pseudo-aneurism of an aortic bypass graft with contiguous vertebral osteomyelitis. *J Vasc Surg* 1994;19:165-8.
- [4] Fournier PE, Casalta JP, Piquet P, Tournigand P, Branchereau A, Raoult D. *Coxiella burnetii* infection of aneurisms or vascular grafts: report of seven cases and review. *Clin Infect Dis* 1998; 26:116-21.
- [5] Sessa C, Vokri L, Porcu P, Maurin M, Stahl JP, Magne JL. Abdominal aortic aneurism and *Coxiella burnetii* infection: report of three cases and review of the literature. *J Vasc Surg* 2005;42: 153-8.
- [6] Kitamura T, Morota T, Motomura N, Ono M, Shibata K, Ueno K, et al. Management of infected grafts and aneurisms of the aorta. *Ann Vasc Surg* 2005;19:335-42.
- [7] Leseche G, Castier Y, Petit MD, Bertrand P, Kitzis M, Mussot S, et al. Long-term results of cryopreserved arterial allograft reconstruction in infected prosthetic grafts and mycotic aneurisms of the abdominal aorta. *J Vasc Surg* 2001;34:616-22.
- [8] Kieffer E, Gomes D, Chiche L, Fleron MH, Koskas F, Bahnini A. Allograft replacement for infrarenal aortic graft infection: early and late results in 179 patients. *J Vasc Surg* 2004;39: 1009-17.