

TÉRATOME SACRO-COCCYGIEN DE L'ADULTE

S. A. EL BANNA¹, O. DELAHAUT¹, J. HUSTIN²

Il s'agit d'un cas de cette pathologie rare appartenant au groupe des tumeurs pré-sacrées. La présentation clinique est très variable. Dans notre observation, la tumeur se présentait sous forme d'un kyste pilonidal, qui est une forme atypique.

Le tératome était associé à une malformation rachidienne, ce qui est décrit dans 25% des cas.

Celui-ci fut traité par résection en bloc avec sacrectomie.

Keywords : sacro-coccygeal teratoma ; pilonidal cyst ; sacrectomy ; spina bifida.

Mots-clés : tératome sacro-coccygien ; kyste pilonidal ; sacrectomie ; spina bifida.

INTRODUCTION

Le tératome sacro-coccygien appartient à la famille hétérogène des tumeurs pré-sacrées : celles-ci sont rares chez l'adulte, comme le démontre le tableau I qui reprend les séries publiées dans la littérature.

Depuis 1949, ces tumeurs sont répertoriées selon la classification de Lovelady et Dockerty (8) : celle-ci est détaillée sur le tableau II avec leur fréquence (9, 10, 13, 15).

La symptomatologie de ces tumeurs est diverse : le plus fréquemment, il s'agit de compression d'organes voisins entraînant des problèmes de défécation, de miction, de lombosciatalgies (1, 4, 14).

Plus rarement, elles peuvent se manifester par une masse abdominale, une rupture ou une infection.

Enfin, une fistule anale peut révéler la tumeur : il n'existe qu'un seul cas décrit de téra-

tome sacro-coccygien se présentant comme une fistule anale (11).

HISTOIRE CLINIQUE

Une femme de 21 ans est opérée pour récurrence de kyste pilonidal. Dans ses antécédents on note une première intervention pour kyste lombaire à 17 mois et une cure de kyste pilonidal l'année précédente.

Lors de l'intervention, l'enveloppe médullaire est effractée avec écoulement de liquide céphalo-rachidien (LCR) : la patiente est transférée dans notre institution.

Un premier bilan démontre :

- une fistule sacro-coccygienne avec écoulement de LCR
- une méningite à *E. coli*.

Dans un premier temps, on applique une antibiothérapie et des soins locaux. Les résultats des examens sont :

— *Radiographie du sacrum* : présence d'un rachischisis ainsi que d'une masse pré-sacrée refoulant le rectum avec présence de calcifications.

— *CT scanner pelvis* : présence d'une masse rétrorectale avec calcosphérites ; forte suspicion de tératome sacro-coccygien avec méningocèle sur spina bifida (fig. 1).

¹ CHU A. Vésale, Département d'Orthopédie, Route de Gozée 706, 6110 Montigny-le-Tilleul, Belgique.

² Institut de Morphologie, Allée des Templiers 41, 6280 Loverval, Belgique.

Correspondance et tirés à part : S. A. El Banna.

Tableau I. — Séries historiques internationales

1953	Mayo Clinic (Mayo C. W., Baker G. S., Smith L. R.)	161 cas	(10)
1963	St Mark's Hospital (Mac Coll. L.)	23 cas en 20 ans	(9)
1975	Portland (Uhlrig B. E., Johnson R. L.)	63 cas en 30 ans	(15)
1978	Marseille (Sarles J. C., Renet S., Salax B.)	3 cas en 11 ans	(13)

Tableau II. — Classification de Lovelady et Dockerty

1. Tumeurs congénitales	57%
— kystes dermoïdes	15%
— chondromes	24%
— tératomes	9%
— tératocarcinome	1%
— méningocèle antérieure	
— duplication rectale	
2. Tumeurs inflammatoires chroniques secondaires aux infections anorectales	10%
3. Tumeurs neurologiques	10%
4. Tumeurs osseuses	7%
5. Tumeurs du tissu conjonctif	15%

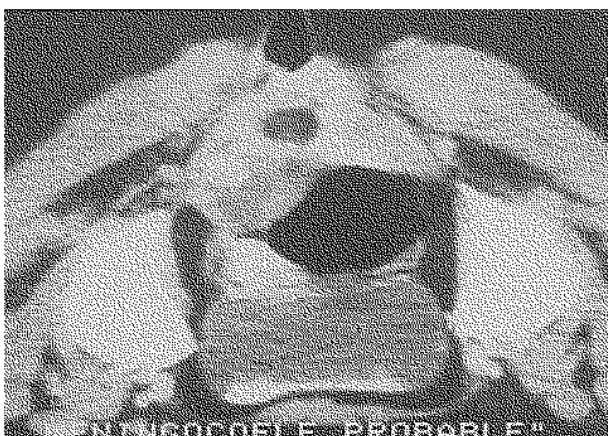


Fig. 1. — CT scanner du pelvis : méningocoele, tumeur présacrée avec calcosphérite.

— *Urographie intravéineuse* : rein en fer à cheval avec double appareil excréteur.

— *Fistulographie* : pas de communication avec l'arbre urinaire.

— *Lavement baryté* : le rectum est refoulé par la tumeur.

Après quelques jours d'antibiothérapie, la patiente est apyrétique.

Une première intervention est réalisée par voie postérieure : elle consista en une fermeture de la brèche méningée. En per-opératoire, nous avons pu constater la présence d'un spina bifida du sacrum, d'une fistule méningée sur un cul-de-sac bas et d'un tractus fibreux entre celui-ci et la tumeur.

La période post-opératoire fut marquée par le développement d'une cellulite ischio-rectale et d'un abcès de l'espace de Retzius : ils furent traités par drainage et antibiothérapie. Le germe incriminé était le staphylocoque doré.

Après trois mois, une deuxième intervention eut lieu : par voie postérieure, nous avons pratiqué la résection en bloc des pièces sacrées S4 et S5 et du coccyx avec la tumeur qui lui était mêlée. La plaie fut laissée ouverte dans un premier temps.

Après deux mois, la patiente bénéficia d'un lambeau musculo-cutané. L'examen anatomopathologique de la pièce opératoire confirma le diagnostic de tératome sacro-coccygien : les figures 2, 3 et 4 représentent des coupes caractéristiques de la tumeur.

L'évolution clinique a été totalement satisfaisante avec une récupération totale sans séquelle neurologique.

DISCUSSION ET CONCLUSIONS

Ce cas est intéressant pour deux raisons : la première est la présentation atypique de ce tératome.

Il n'existe à l'heure actuelle qu'un cas décrit de ce type de tumeur se manifestant par une fistule postérieure (dans ce cas, anale) (11). Le kyste pilonidal est rarissime chez l'enfant (4, 14).

De plus, les multiples récurrences de ce kyste auraient dû évoquer un diagnostic de ce type.



Fig. 2. — Histologie du tératome : paroi du kyste avec épithélium (1) et stroma (2) — faible grossissement.

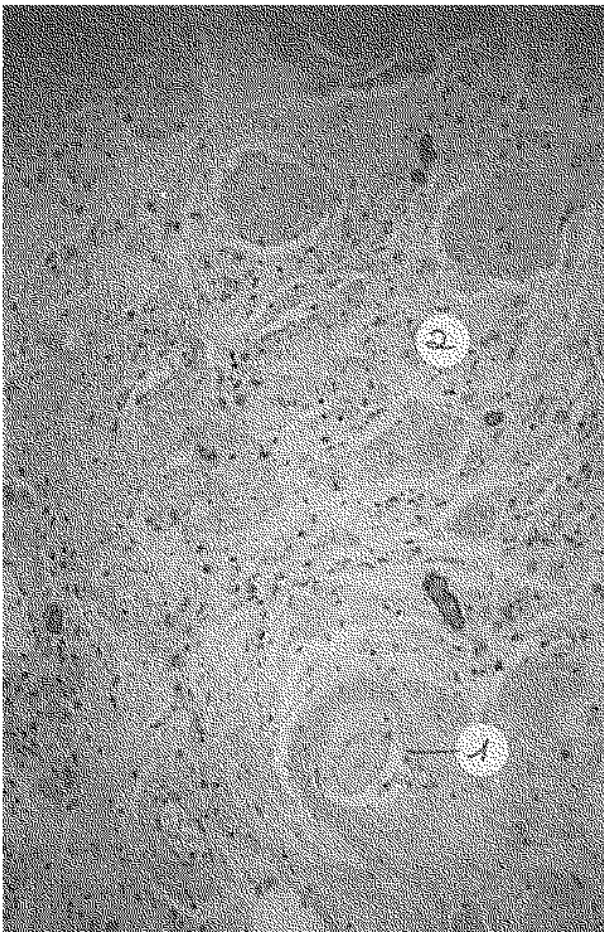


Fig. 3. — Histologie du tératome : un poil dénudé (1) et du tissu glial (2). Fort grossissement.

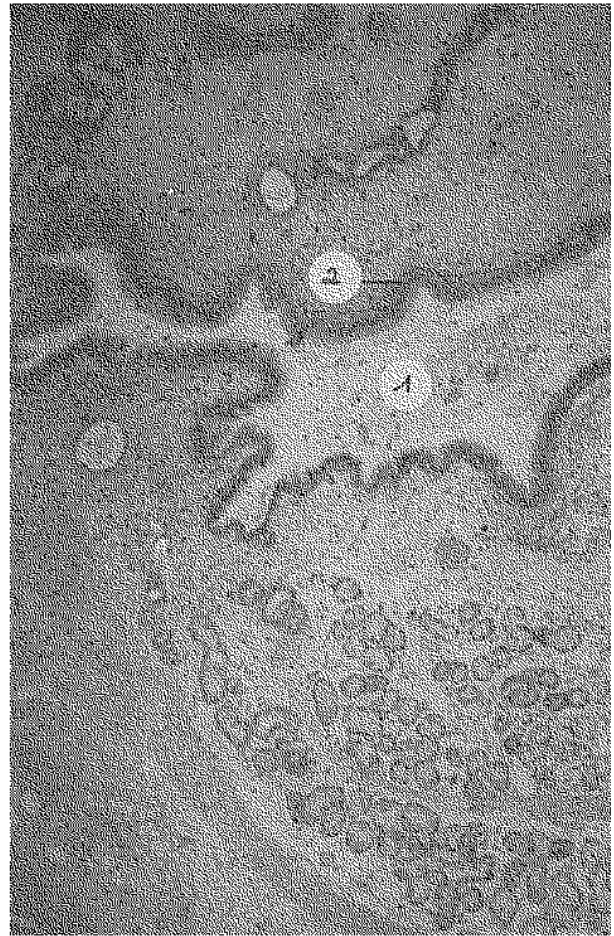


Fig. 4. — Histologie du tératome : formation kystique secondaire (1), épithélium respiratoire (2), glandes bronchiques — Fort grossissement.

La deuxième raison est l'association avec un dysraphisme.

Cette association est fréquente chez l'enfant (2, 3, 7, 12). Une étude australienne (6) évoque le chiffre de 25%. Le plus souvent, il s'agit du spina bifida.

Dans ce cas, une méningocèle lui était associée.

Il existe d'autres associations telles que les anomalies rectales. Par exemple, la triade de Currarimo qui est la plus fréquente (5) associe une tumeur pré-sacrée congénitale, une sténose rectale et un spina bifida sacré.

BIBLIOGRAPHIE

1. Alexandre J. H., Picard D., Bonan A., Camilleri J. P. Trois nouveaux cas de tumeurs pré-sacrées. Sem. Hôp. Paris, 1980, 56, 424-429.
2. Brem H., Beaver B. L., Colombani P. M., Zinaciel J., Sheree L. R., Carson B. S., Haller J. A. Jr. Neonatal diagnosis of a presacral mass in the presence of congenital anal stenosis and partial sacral agenesis. J. Pediatr. Surg., 1989, 24, 1076-1078.
3. Garrick D. J., Gilbert E. F. Teratoma in children and young adults. Med. Pediatr. Oncol., 1979, 6, 235-242.
4. Goligher J. C., Duthie H. L., Nixon H. H. Surgery of anus, colon and rectum. Ed. Baillière Tindall, London, 1984, 689-690.
5. Holthuser W., Birtel T., Brinkmann B., Gunkel J., Janneck C., Richter E. The curranino Triad. ROFO, 1985, 143, 83-89.
6. Leung A. K., Rubin S. Z., Seagram G. F., Hwang W. S. Sacro-coccygeal teratoma. Austr. Pediatr. J., 1985, 21, 123-125.
7. Levine E., Batnitzky S. Computed tomography of sacral and perisacral lesions. CRC Crit. Rev. Diagn. Imaging, 1984, 21, 307-374.
8. Lovelady S. B., Dockerty M. B. Extragenital pelvic tumors in women. Am. J. Obstet. Gynecol., 1949, 58, 215.
9. Mac Coll L. The classification of presacral cystic tumors. Proc. Roy. Soc. Med., 1963, 56, 297-299.
10. Mayo C. W., Baker G. S., Smith L. R. Presacral tumors differential diagnosis and report of a case proceeding. Mayo Clinic, 1953, 28, 616.
11. Pye G., Blundell J. W. Sacro-coccygeal teratoma masquerading as fistula-in-ano. J. Royal Soc. Med., 1987, 80, 251-252.
12. Sannino Chou S., Gutman F. M. Hereditary sacro-coccygeal teratoma. J. Pediatr. Surg., 1989, 24, 1074-1075.
13. Sarles J. C., Renet S., Salax B. Retrorectal tumours. Colo-proctology, 1982, 4, 144-151.
14. Schwartz S. I., Shineo G. T., Spencer F. C. Principles of surgery. Ed. Mac Graw Hill, New York, 1989, 1721-1722.
15. Uhlig B. E., Johnson R. L. Presacral tumors and cysts in adults. Dis. Col. Rect., 1975, 18, 581-596.

SAMENVATTING

S. A. EL BANNA, O. DELAHAUT en J. HUSTIN. Sacro-coccygiaal teratoom bij en volwassene.

De auteurs rapporteren een geval van deze weinig voorkomende pathologie in de groep der pre-sacrale tumoren.

De klinische tekenen zijn wisselend. In het beschreven geval had de tumor het aspect van een sinus pilonidalis, wat atypisch is. Het teratoom was geassocieerd met een wervelmalformatie, hetgeen in 25% der gevallen beschreven wordt. Het werd behandeld met totale sacrectomie.

SUMMARY

S. A. EL BANNA, O. DELAHAUT and J. HUSTIN. Sacrococcygial teratoma in an adult.

This report describes a case of sacrococcygeal teratoma, a rare pathology belonging to the group of presacral tumors. Its clinical presentation is very variable. In this case, the tumor presented as a pilonidal cyst, which is an atypical form. The teratoma was associated with a spinal malformation, described in 25% of all cases. It was treated by «en bloc» resection with sacrectomy.