

Le syndrome de l'ulcère solitaire du rectum chez l'enfant : une entité pas si fréquente. Cas clinique et mise au point

The solitary rectal ulcer syndrome in children: a rare condition. A case report and review

Karim AIT IDIR^{1,4}, Abdelghani TIBOUK², Slimane KORDJANI³, Nouredine ZIDANE⁴

¹ Service de pédiatrie. Centre de Consultations Spécialisées de l'Armée. H-Dey, Alger - Algérie.

² Service d'anatomopathologie. Hôpital Central de l'Armée, Alger - Algérie.

³ Service de gastro-entérologie. Hôpital Central de l'Armée, Alger - Algérie.

⁴ Groupe de gastro-entérologie pédiatrique de l'ouest, Oran - Algérie.

Correspondance à :

Karim AIT IDIR

aitidir22@gmail.com

DOI: <https://doi.org/10.48087/BIMS.cr.2019.6.120>

Il s'agit d'un article en libre accès distribué selon les termes de la licence Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0), qui autorise une utilisation, une distribution et une reproduction sans restriction sur tout support ou format, à condition que l'auteur original et la revue soient dûment crédités.

Introduction

Le syndrome de l'ulcère solitaire du rectum (SUSR) est une pathologie rare en pédiatrie. Il s'agit d'une cause bénigne de rectorragies associée parfois à des troubles défécatoires. Le diagnostic repose sur des éléments cliniques, endoscopiques et surtout histologiques.

Case report

Garçon A.R, âgé de 7 ans, asthmatique sous traitement de fond. C'est le second d'une fratrie de 3 dont le frère aîné est encoprésique. Depuis 6 mois, apparition de rectorragies peu abondantes faites de sang rouge avec quelques épisodes d'incontinence fécale sans autres symptômes digestifs ou extra-digestifs. L'examen clinique retrouve un poids de 25 kg [p50], une taille de 125 cm [p50], un IMC à 16 kg/m² [p50-p75]), une température à 37°C. Bonnes constantes hémodynamiques. Cicatrice du BCG présente. Abdomen souple, l'examen de la marge anale réalisé en position décubitus latéral gauche et après déplissement des plis radiés de l'anus n'a pas noté ni fissure, ni fistule. Le toucher rectal était non douloureux, sphincter normotonique, paroi souple avec un doigtier qui revient propre.

L'hémogramme a objectivé une hémoglobine à 12,6 g/dl, des plaquettes à 239.000/ml, des globules blancs à 10000/ml avec équilibre normal par rapport à son âge. VS à 05 mm. Bilan biochimique normal. Les sérologies ANCA et ASCA sont revenues négatives ainsi que les IgE spécifiques (panel alimentaire et respiratoire). La rectoscopie a révélé la présence d'une ulcération arrondie recouverte de fibrine avec prise de biopsies dans la région antérolatérale à 10 cm de la marge anale (figure 1).

L'étude histologique a montré une muqueuse rectale siège d'une exulcération faite de dépôts fibrino-leucocytaires avec une fibrose qui s'insinue entre les glandes aux berges de l'ulcération. Absence de néoplasie (figures 2). Vu l'incontinence fécale, il a été décidé de pratiquer une manométrie objectivant un tracé évocateur d'un anisme. Devant l'ensemble de ces données, ont été instaurés des règles hygiéno-diététiques et un laxatif osmotique adaptés puis l'utilisation du Tartrate acide de potassium / Bicarbonate de sodium avec un suppositoire par jour.

Après un recul d'environ 9 mois, l'évolution était favorable, avec diminution des rectorragies, amélioration du transit et surtout de la qualité de vie.



Figure 1. Ulcération rectale arrondie avec dépôt fibrineux.

RÉSUMÉ

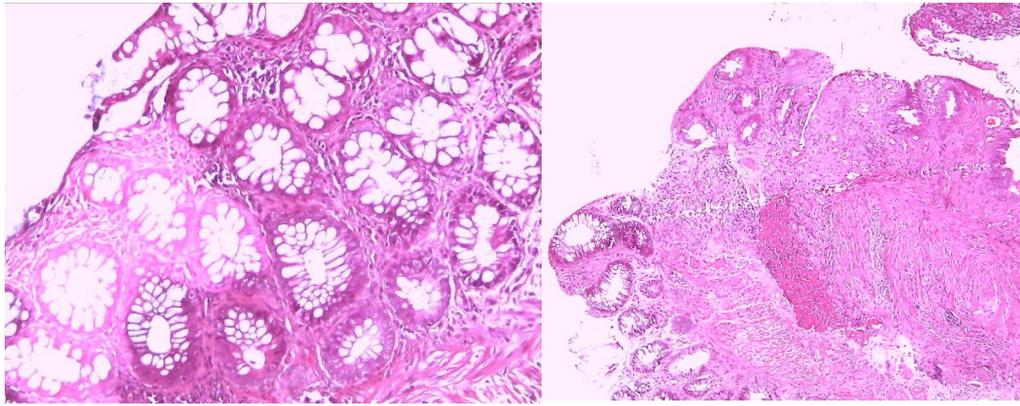
Le syndrome de l'ulcère solitaire du rectum (SUSR) constitue une entité peu fréquente en pédiatrie ; c'est l'apanage de l'adulte jeune. C'est l'une des causes de rectorragie chez l'enfant. Son diagnostic repose sur un ensemble d'arguments surtout endoscopiques et histologiques. C'est une pathologie bénigne qui ne bénéficie d'aucun protocole thérapeutique précis. Son pronostic est généralement bon. Nous vous présentons le cas d'un garçon 7 ans, qui présente une SUSR révélé par des rectorragies et une encoprésie.

Mots-clés : ulcère, rectum, solitaire, endoscopie, histologie, enfant.

ABSTRACT

The solitary rectal ulcer syndrome is a rare pediatric condition. It's more frequent in young adults. It is one of the causes of rectal bleeding in children. Diagnostic consists in a combination of clinical, endoscopic and histological findings. It's a mild pathology and does not have a specific therapy. Prognosis is generally favorable. We present a case report about a 7 years old boy, revealed by the association of rectal bleeding and fecal incontinence.

Keywords: ulcer, rectum, solitary, endoscopy, histology, child.



Figures 2. Muqueuse rectale au faible et fort grossissement siège d'une lésion typique d'un SUSR.

Discussion

Le SUSR est une entité très peu fréquente en pédiatrie (1). Il touche beaucoup plus l'adulte jeune entre 20-35 ans avec 80 % des patients de moins de 50 ans. Pour certains, il y a prédominance féminine (2) et pour d'autres, le sexe ratio est égal à 1 (3). Sa prévalence est de l'ordre de 1 pour 100.000 (4-6). Les études pédiatriques sont rares, l'une des plus grandes séries recensées comporte 22 patients (7) ; une autre étude iranienne comportant 13 patients avec un SUSR sur 363 enfants avec hémorragie digestive basse (8). Dans une cohorte américaine, Perito *et al.* ont publié 15 cas colligés entre 1997 et 2009 (5). Dans une série que nous avons publiée, nous avons retrouvé 3 cas chez 96 enfants âgés de moins de 15 ans et qui ont présenté une rectorragie entre janvier 2014 et décembre 2018.

Il s'agit d'une pathologie chronique bénigne, dont la première description remonte à 1829 par Cruveilhier (9) avant d'être mise à jour par Madigan *et al.* en 1969 se basant sur une définition surtout histologique (5-6). Les signes cliniques sont peu spécifiques. 60-80% des cas se révèlent par des rectorragies le plus souvent peu abondantes avec mucus (20-75 %), envie de défécation prolongée, sensation de défécation incomplète, proctalgies, ténésme, et rarement prolapsus rectal ou des épisodes aigus de constipation (1,4,6,8).

Souvent, il existe un retard diagnostique qui est justifié par le fait que pas moins de 25 % des SUSR sont asymptomatiques ou dont les lésions sont sous-estimées et prises par erreur comme secondaires à un excès de préparation endoscopique et/ou même la lésion unique n'est pas considérée comme SUSR (8).

La rectoscopie avec biopsies représente la pierre angulaire du diagnostic. Typiquement, il s'agit d'une ulcération superficielle unique, entourée d'un halo érythémateux de morphologie variable (ovale linéaire, serpigneuse...) et localisée sur la face antérieure ou antérolatérale du rectum ; parfois elle est multiple, circonférentielle ou polipoïde (6- 10). Selon les données de la littérature, l'aspect typique (rencontré dans notre présentation) ne se voit que dans 20 % des cas (11).

Les données histologiques sont similaires à celles retrouvées chez l'adulte (2,5,10,12). Elles sont toujours bénignes et limitées à la paroi rectale. Sont touchées essentiellement la muqueuse et la musculature muqueuse. Classiquement, il y'a un épaississement muqueux, une élongation et distorsion glandulaire avec hyperplasie régénérative, une *lamina propria* oedématisée riche en collagène avec prolifération variable des fibroblastes. La musculature muqueuse est épaissie avec des fibres musculaires qui se développent selon un sens ascendant en direction des cryptes.

La présence du collagène infiltrant la *lamina propria* est un élément clé pour différencier le SUSR des maladies inflammatoires intestinales notamment la colite ulcéreuse (13). En plus de cette dernière, d'autres diagnostics doivent être discutés, comme une néoplasie rectale exceptionnelle chez l'enfant ou un ulcère stercoral (8).

L'origine de la maladie reste encore mal élucidée. Elle résulterait de trois probables mécanismes (8,9,13,14) :

- ✓ Dyschynésie motrice de la musculature puborrectale provoquant une augmentation de la pression intra-rectale, prolapsus muqueux, fermeture de l'angle ano-rectal et ischémie muqueuse récidivante.
- ✓ Traumatisme rectal suite à des manœuvres digitales pour extraction de matière fécales solides.
- ✓ Infection par une mycobactérie atypique qu'est le mycobacterium Chelonae mais qui reste une cause exceptionnelle.

Il n'y a pas de protocole ou de consensus thérapeutiques bien définis. Les bases du traitement reposent sur les mesures hygiéno-diététiques, quelques agents pharmaceutiques, biofeedback et parfois la chirurgie (1,15,16). Il faut rassurer l'enfant en âge de comprendre et ses parents et bien expliquer la bénignité de la maladie. L'évolution est en général bonne. Dans notre cas, et notamment l'association à une encoprésie, nous avons utilisé un laxatif type polyéthylène glycol à raison de 10 g deux fois par jour associé à une diététique riche en fibre, une organisation du calendrier défécatoire de l'enfant, puis nous avons eu recours au Tartrate acide de potassium / Bicarbonate de sodium sous forme de suppositoires effervescents avec un bon résultat jusqu'à un an d'évolution. Pour la prise en charge chirurgicale, elle consiste en une rectopexie et n'est généralement indiquée que lorsqu'il y a échec du traitement médical ou à l'existence d'un prolapsus rectal important.

Conclusion

Depuis sa première description peu de séries pédiatriques ont été publiées. La rareté de cette maladie durant l'enfance, et à la méconnaissance diagnostique chez les sujets peu-symptomatiques et la non spécificité des signes cliniques, rendent intéressant d'évoquer ce diagnostic devant tout enfant présentant une encoprésie avec rectorragie qui est souvent par erreur reliée uniquement à la constipation. Une simple rectoscopie avec prise de biopsie posera le diagnostic. L'étude histologique est pathognomonique et permettra d'écartier d'autres pathologies digestives plus graves qui nécessiteront un traitement spécifique, ce qui n'est pas le cas du SUSR.

Déclaration d'intérêts : les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêt en rapport avec cet article.

Références

1. Blanco Rodríguez M, et al. Úlcera rectal solitaria como causa infrecuente de rectorragia. *Acta Pediatr Esp.* 2011 ; 69(10) : 258-262.
2. Soudan D. Constipation et syndrome de l'ulcère solitaire du rectum. *Pelvi-Périnéologie* (2010) 5:178-180.
3. Vergis P et al. Case of Solitary Rectal Ulcer Presenting With Hemorrhagic Shock : Review of Literature and Case Report. *Journal of Dental and Medical Sciences.* 2015 ; 14 : 93-95.
4. Borrelli O, de Angelis G. Solitary Rectal Ulcer Syndrome : It's Time to Think About It. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.*2012 ; 54 : 167–8.
5. Perito ER, Mileti E, Dalal DH, Cho SJ, Ferrell LD, McCracken M, Heyman MB: Solitary rectal ulcer syndrome in children and adolescents. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2012; 54: 266–270.
6. Hernández Martínez A, et al. Úlcera rectal solitaria en paciente adolescente. *Gastroenterol Hepatol.* 2015. <http://dx.doi.org/10.1016/j.gastrohep.2015.09.016>.
7. Suresh N, Ganesh R, Sathiyasekaran M .Solitary rectal ulcer syndrome : a case series. *Indian Pediatr* 2010 ; 47:1059–1061
8. Zahmatkeshan M et al. Etiology of lower gastrointestinal bleeding in children: a single center experience from southern iran. *Middle East journal of digestive diseases* vol. 4,4 (2012) : 216-23.
9. Qing-Chao Zhu et al. Solitary rectal ulcer syndrome : Clinical features, pathophysiology, diagnosis and treatment strategies. *World J Gastroenterol.* 2014 Jan 21 ; 20(3) : 738–744.
10. Tjandra JJ et al. Clinical conundrum of solitary rectal ulcer. *Dis ColonRectum.* 1992; 35:227-34.9.
11. Madigan MR, Morson BC. Solitary ulcer of the rectum. *Gut.*1969; 10:871-81.2.
12. Dehghani SM, Malekpour A, Haghighat M : Solitary rectal ulcer syndrome in children : a literature review. *World J Gastroenterol* 2012; 18:6541–6545.
13. Ertem D, Acar Y, Karaa EK, Pehlivanoglu E: a rare and often unrecognized cause of hematochezia and tenesmus in childhood: solitary rectal ulcer syndrome. *Pediatrics* 2002; 110:e79.
14. Bowels MJ, Benjamin I. ABC of the upper gastrointestinal tract : Cancer of the stomach and pancreas. *BMJ.* 2001 ; 323:1413-4.
15. Rodríguez JC et al. Mycobacterium chelonae y úlceras rectal solitaria. *Gastroenterol Hepatol* 2000; 23:474-6.
16. Abreu M, et al. Solitary Rectal Ulcer Syndrome: A Paediatric Case Report. *GE Port J Gastroenterol* 2017; 24:142–146 .

Cet article a été publié dans le « *Batna Journal of Medical Sciences* » **BJMS**, l'organe officiel de « *l'association de la Recherche Pharmaceutique – Batna* »

Le contenu de la Revue est ouvert « Open Access » et permet au lecteur de télécharger, d'utiliser le contenu dans un but personnel ou d'enseignement, sans demander l'autorisation de l'éditeur/auteur.

Avantages à publier dans **BJMS** :

- *Open access* : une fois publié, votre article est disponible gratuitement au téléchargement
- Soumission gratuite : pas de frais de soumission, contrairement à la plupart des revues « Open Access »
- Possibilité de publier dans 3 langues : français, anglais, arabe
- Qualité de la relecture : des relecteurs/reviewers indépendants géographiquement, respectant l'anonymat, pour garantir la neutralité et la qualité des manuscrits.

Pour plus d'informations, contacter BatnaJMS@gmail.com ou connectez-vous sur le site de la revue : www.batnajms.net

