



HAL
open science

Syndrome de Lemierre inversé: à propos d'un cas et revue de la littérature

Y. Kherabi, G. Chevrel, D. Roux, L. Federici

► To cite this version:

Y. Kherabi, G. Chevrel, D. Roux, L. Federici. Syndrome de Lemierre inversé: à propos d'un cas et revue de la littérature. *La Revue de Médecine Interne*, 2020, 41, pp.493 - 495. 10.1016/j.revmed.2020.02.012 . hal-03491624

HAL Id: hal-03491624

<https://hal.science/hal-03491624v1>

Submitted on 5 Sep 2022

HAL is a multi-disciplinary open access archive for the deposit and dissemination of scientific research documents, whether they are published or not. The documents may come from teaching and research institutions in France or abroad, or from public or private research centers.

L'archive ouverte pluridisciplinaire **HAL**, est destinée au dépôt et à la diffusion de documents scientifiques de niveau recherche, publiés ou non, émanant des établissements d'enseignement et de recherche français ou étrangers, des laboratoires publics ou privés.



Distributed under a Creative Commons Attribution - NonCommercial 4.0 International License

Syndrome de Lemierre inversé : à propos d'un cas et revue de la littérature

Gynecological Lemierre's syndrome: A case report and literature review

Y. Kherabi ^a, G. Chevrel ^b, D. Roux ^{a,c}, L. Federici ^{a,b}

a. AP-HP, Hôpital Louis Mourier, Service de Réanimation Médico-Chirurgicale, F-92700 Colombes, France

b. Centre Hospitalier Sud Francilien, Service de Réanimation Médico-Chirurgicale, F-91100 Corbeil-Essonnes, France

c. Université de Paris, INSERM, IAME, UMR-1137, F-75018 Paris, France

Correspondance :

Yousra Kherabi

Mél : yousra.kherabi@aphp.fr

RESUME

Introduction. Le syndrome de Lemierre est une thrombophlébite septique de la veine jugulaire interne causée par une infection oro-pharyngée à *Fusobacterium necrophorum*. Il existe une rare variante pelvienne à ce syndrome oro-pharyngé, peu décrite dans la littérature.

Observation. Nous rapportons l'observation d'une patiente de 19 ans présentant un tableau de détresse respiratoire aiguë fébrile avec douleurs pelviennes dans les suites d'un premier rapport sexuel, faisant découvrir une thrombophlébite de la veine iliaque interne gauche avec embolies septiques pulmonaires, satellite d'une salpingite avec bactériémie à *F. necrophorum*.

Conclusion. Le syndrome de Lemierre gynécologique est rare et souvent méconnu. En l'absence de traitement adapté, l'issue peut en être fatale. Le traitement repose sur une antibiothérapie pendant 4 à 6 semaines, et la discussion d'une anticoagulation curative dont la place dans l'arsenal thérapeutique est encore incertaine à l'heure actuelle.

Mots clés : syndrome de Lemierre ; *Fusobacterium necrophorum* ; infection génitale.

ABSTRACT

Introduction. Lemierre's syndrome is defined as an oropharyngeal infection due to *Fusobacterium necrophorum*, associated with septic thrombophlebitis of the internal jugular vein. The uncommon pelvic variant of the syndrome is a rare condition, poorly described in literature.

Case report. We report a case of gynecological Lemierre's syndrome in a 19-year-old woman after a first sexual intercourse, who presented acute respiratory failure, left internal iliac vein thrombosis with pulmonary embolism, in the setting of salpingitis and *F. necrophorum* bacteriemia.

Conclusion. Gynecological Lemierre's syndrome is a rare and unrecognized condition, which could be lethal. Early recognition of the disorder enables initiation of appropriate antibiotic therapy for 4 to 6 weeks, and discussion of anticoagulant therapy which indications are not yet well defined.

Keywords: Lemierre's syndrome, *Fusobacterium necrophorum*, genital infection.

1. Introduction

Décrit pour la première fois par André Lemierre en 1936, l'association d'une thrombose de la veine jugulaire interne et d'une infection oro-pharyngée est un syndrome bien connu des internistes [1]. Cette infection est dans la très grande majorité des cas due à *Fusobacterium necrophorum*, un bacille à Gram négatif anaérobie commensal du tube digestif, de la cavité orale et du vagin [2]. Plusieurs cas cliniques de thrombophlébite septique satellite d'une infection à *F. necrophorum* ont été rapportés dans la littérature mais les descriptions d'infections à point de départ gynécologique sont très rares.

2. Observation

Une patiente de 19 ans, sans antécédent, consultait aux urgences pour fièvre, dyspnée et douleur pelvienne gauche. Elle avait eu un premier rapport sexuel non protégé un mois plus tôt. La température à l'arrivée était de 40,2°C, la pression artérielle à 102/62 mmHg, la fréquence cardiaque à 130 battements par minute et la saturation en oxygène pulsée au doigt à 98% en air ambiant.

A l'examen clinique, la patiente présentait un abdomen sensible en fosse iliaque gauche avec un toucher vaginal douloureux à gauche. Les examens biologiques révélaient une hémoglobine à 119 g/L, une hyperleucocytose à 10,3 G/L dont 9,8 G/L de polynucléaires neutrophiles, une thrombopénie à 139 G/L, une créatininémie à 89 µmol/L. Le reste de la numération formule sanguine et le ionogramme sanguin étaient normaux. Les béta-HCG sanguins étaient négatifs.

La patiente était admise en gynécologie avec initiation d'un traitement antibiotique empirique par ofloxacine et métronidazole. Le prélèvement vaginal réalisé à l'admission était positif à *Streptococcus agalactiae* au sein d'une flore aéro-anaérobie polymorphe.

Quarante-huit heures après son admission dans le service de gynécologie s'installaient des signes de lutte respiratoire avec désaturation à 88% en air ambiant. Un nouveau bilan biologique montrait l'aggravation de la thrombopénie à 48 G/L. La douleur abdominale persistait sans défense ni contracture.

La patiente était transférée au bloc opératoire pour une cœlioscopie finalement convertie en laparotomie devant une instabilité hémodynamique qui mettait en évidence macroscopiquement un aspect de salpingite modérée de la trompe gauche, sans signe de péritonite ni abcès.

En post-opératoire, la défaillance respiratoire se majorait ainsi que la thrombopénie à 24 G/L. Le bilan biologique révélait par ailleurs l'apparition d'une acidose métabolique avec un pH à 7,34, des bicarbonates à 22 mmol/L et une hyperlactatémie à 4,6 mmol/L. La patiente était alors transférée en unité de surveillance continue où une expansion volémique par sérum salé isotonique était initiée, sans

nécessité d'introduire un support catécholaminergique. Une tomодensitométrie thoraco-abdomino-pelvienne injectée avec acquisition au temps portal mettait en évidence, à l'étage thoracique, une pneumopathie bilatérale d'allure infectieuse avec lésions périphériques compatibles avec un processus embolique, des épanchements pleuraux liquidiens bilatéraux (figure 1A), et à l'étage abdomino-pelvien une thrombose de la veine iliaque interne gauche segmentaire et partielle sur 19 mm sans foyer profond (figure 1B).

En unité de surveillance continue, le flacon anaérobie de l'hémoculture réalisée à l'admission aux urgences avant le début de l'antibiothérapie se positivait après 28 h de culture en automate, permettant d'identifier *F. necrophorum* (flacons d'hémoculture BD BACTEC™ Plus aérobie/anaérobie, automate BD BACTEC™ FX, identification par VITEK® 2 de Biomérieux). L'antibiothérapie était alors adaptée avec l'association d'amoxicilline-acide clavulanique. En raison de la persistance de la fièvre après 48 heures de ce traitement bien conduit, l'antibiothérapie était finalement élargie de nouveau avec l'association de céfotaxime et de métronidazole. Après récupération de l'antibiogramme et évolution clinique favorable, le spectre de l'antibiothérapie était finalement réduit avec l'association d'amoxicilline et de métronidazole par voie orale, avec une durée totale d'antibiothérapie efficace de 4 semaines. Parallèlement, une anticoagulation curative était débutée dès la normalisation du taux de plaquettes, initialement par enoxaparine sous-cutanée pendant 10 jours avec un relai oral par rivaroxaban pour une durée totale de 6 semaines.

La patiente rentrait au domicile après 19 jours d'hospitalisation. A un mois du début de la prise en charge, un contrôle scanographique mettait en évidence une perméabilisation complète de la veine iliaque interne gauche et une régression quasi-complète des lésions pulmonaires.

3. Discussion

Notre observation est un des rares cas de syndrome de Lemierre gynécologique dit « syndrome de Lemierre inversé » décrits dans la littérature. En effet, plusieurs cas d'infections génito-urinaires à *F. necrophorum* ont été rapportés, mais très peu rapportent l'association d'une infection à *Fusobacterium* associée à une thrombophlébite : seuls 6 cas ont été décrits à ce jour à notre connaissance [3-9]. Les présentations cliniques de ces 6 patientes âgées de 15 à 47 ans sont décrites dans le tableau 1. Sur ces 6 cas, 1 décès a été rapporté [8]. Le point de départ gynécologique était variable, avec à noter 2 cas d'infection de dispositif intra-utérin [3, 4, 9]. Seul un cas présentait un syndrome de Lemierre gynécologique post-coïtal [5].

La pathogénie de *F. necrophorum* est due à l'intrication de plusieurs facteurs bactériens : le lipopolysaccharide, la libération d'exotoxine thermostable entretenant la réaction inflammatoire, la production d'hémolysine, d'adhésine, de leucotoxine et d'hémagglutinine activant les plaquettes humaines [2]. La physiopathologie exacte de la thrombophlébite dans le syndrome de Lemierre n'est

pas tout à fait connue mais plusieurs mécanismes sont proposés : dissémination hématogène de *F. necrophorum* par voie veineuse, dissémination lymphatique causant une inflammation péri-veineuse responsable d'une thrombose intra-luminale et invasion locale des tissus conjonctifs entourant le foyer infectieux jusqu'à la paroi veineuse, avec périphlébite puis endophlébite [10].

La place de l'anticoagulation curative des thrombophlébites associées aux infections à *F. necrophorum* est encore très controversée [11]. L'indication formelle d'une anticoagulation curative dans le cadre du syndrome de Lemierre classique est celle d'une thrombose du sinus sigmoïde avec une extension rétrograde au sinus caverneux [10]. Des données rétrospectives suggèrent cependant que l'absence d'anticoagulation dans le syndrome de Lemierre oro-pharyngé n'est pas associé à une évolution plus défavorable [12, 13]. Néanmoins, certaines études rapportent un bénéfice de l'anticoagulation curative pour les thrombophlébites septiques pelviennes tous germes confondus [14], et il n'existe pas d'étude contrôlée randomisée permettant d'établir avec certitude la formalité de cette indication. Quatre des 6 cas de syndrome de Lemierre gynécologique rapportés dans la littérature ont reçu une anticoagulation curative [3-9]. Dans le cas que nous rapportons, la patiente a été anticoagulée par enoxaparine puis rivaroxaban pendant 6 semaines. A noter que le temps d'injection du scanner thoraco-abdomino-pelvien de la patiente ne permettait pas de bien visualiser les artères pulmonaires sous-segmentaires, ni donc d'affirmer avec certitude l'absence d'embolie pulmonaire (figure 1A).

En outre, il n'existe pas de recommandations quant à l'antibiothérapie des infections à *Fusobacterium* qui est naturellement sensible à la plupart des bêta-lactamines, y compris l'amoxicilline, et naturellement résistant aux macrolides, aux fluoroquinolones et aux aminosides. L'antibiothérapie probabiliste doit probablement prendre en compte le risque de production de bêta-lactamase et consister en l'association d'une bêta-lactamine avec inhibiteur de bêta-lactamase auquel de nombreux auteurs suggèrent d'ajouter un imidazolé, sans qu'il n'y ait de données dans la littérature sur un éventuel bénéfice d'une telle association [10]. La clindamycine n'est pas recommandée étant donné le taux de résistance élevé à 19,5% [3]. L'antibiothérapie est ensuite adaptée à l'antibiogramme. La durée de l'antibiothérapie est mal codifiée, allant de 4 à 6 semaines dans la plupart des cas rapportés, sans qu'il n'y ait de preuve dans la littérature pour justifier cette antibiothérapie prolongée. Certaines équipes proposent un traitement antibiotique de 2 semaines [15, 16].

4. Conclusion

Le syndrome de Lemierre inversé peut être responsable de tableaux cliniques graves de choc septique avec détresse respiratoire aiguë. Il s'agit d'une entité rare mais que l'interniste doit garder en tête : en l'absence de diagnostic rapide, l'évolution peut être fatale. Le traitement repose sur une antibiothérapie prolongée et la discussion d'une anticoagulation curative au cas par cas.

Conflit d'intérêts : les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêt concernant cet article.

REFERENCES

1. Lemierre A. On certain septicæmias due to anaerobic organisms. *Lancet*. 1936;227:701–3.
2. Kuppalli K, Livorsi D, Talati NJ, Osborn M. Lemierre's syndrome due to *Fusobacterium necrophorum*. *Lancet Infect Dis* 2012;12:808–15.
3. Huynh-Moynot S, Commandeur D, Deserts MDD, Drouillard I, Leguen P, Ould-Ahmed M. Choc septique d'origine gynécologique à *Fusobacterium necrophorum* compliqué d'un syndrome de détresse respiratoire aigu : une variante du syndrome de Lemierre. *Ann Biol Clin (Paris)* 2011;69:202–7.
4. Rousset J, Garetier M, Chinellato S, Barberot C, Feuvrier Y, Nicolas X, et al. Ovarian venous thrombosis during septicemia due to *Fusobacterium necrophorum*. *Diagn Interv Imaging* 2012;93:894–6.
5. Pol H, Guerby P, Cassin LD, Chantalat E, Tournemire A, Baujat M, et al. Dangerous Liaisons: Pelvic Variant of Lemierre Syndrome by Right Common Iliac Vein Thrombophlebitis After Sexual Intercourse. *J Low Genit Tract Dis* 2017;21:e37-e39.
6. Hedengran KK, Hertz J. Lemierre's syndrome after evacuation of the uterus: a case report. *Clin Case Rep* 2014;2:60–1.
7. Treszezamsky A, Florencia Molina Boero M, Mehta I. Cervical Conization Complicated by Sepsis With Lung and Liver Abscesses. *J Low Genit Tract Dis* 2010;14:130–3.
8. Reymond B, Huette P, Roger P-A, Tredez E, Gagneur O, Sanguin S, et al. Fatal *Fusobacterium necrophorum* infection with gynecological Lemierre's syndrome. *Medecine Mal Infect* 2019;49:72–4.
9. Yamamoto S, Okamoto K, Okugawa S, Moriya K. *Fusobacterium necrophorum* septic pelvic thrombophlebitis after intrauterine device insertion. *Int J Gynecol Obstet* 2019;145:122–3.
10. Riordan T. Human Infection with *Fusobacterium necrophorum* (Necrobacillosis), with a Focus on Lemierre's Syndrome. *Clin Microbiol Rev* 2007;20:622–59.
11. Phua CK, Chadachan VM, Acharya R. Lemierre Syndrome—Should We Anticoagulate? A Case Report and Review of the Literature. *Int J Angiol* 2013;22:137–42.
12. Cupit MC, NageswaraRao A, Warad DM, Khan S, Rodriguez V. Lemierre's Syndrome: Role of Anticoagulation and Thrombosis Outcomes, a Retrospective Study. *Blood* 2015;126:2296.
13. Cupit-Link MC, Nageswara Rao A, Warad DM, Rodriguez V. Lemierre Syndrome: A Retrospective Study of the Role of Anticoagulation and Thrombosis Outcomes. *Acta Haematol* 2017;137:59–65.
14. Garcia J, Aboujaoude R, Apuzzio J, Alvarez JR. Septic Pelvic Thrombophlebitis: Diagnosis and Management. *Infect Dis Obstet Gynecol* 2006;2006:15614.
15. Kristensen LH, Prag J. Human Necrobacillosis, with Emphasis on Lemierre's Syndrome. *Clin Infect Dis* 2000;31:524–32.
16. Lacaze O, Bocquel V, Fournel P, Emonot A. Syndrome de Lemierre : caractéristiques cliniques et radiologiques d'un diagnostic rare. *Rev Mal Respir* 2000;17:1105-6.

Tableau 1. Revue de la littérature : 6 cas de syndrome de Lemierre gynécologique

cas	Référence	Age (années)	Source de l'infection	Localisation(s) secondaire(s)	Thrombose(s)	Evolution
1	[3,4]	47	DIU	Poumons	Veine ovarienne gauche	Survie
2	[5]	15	Vagin	Poumons	Veine iliaque commune droite	Survie
3	[6]	26	Utérus	Poumons, foie	Veine jugulaire interne	Survie
4	[7]	44	Utérus	Poumons, plèvre, foie	Veine jugulaire interne	Survie
5	[8]	22	Vagin	Poumons, plèvre, foie	Artères pulmonaires	Décès
6	[9]	29	DIU	Poumons, foie	Veine iliaque interne droite	Survie

Légendes : DIU : dispositif intra-utérin

Légendes des figures

Figure 1. Tomodensitométrie thoraco-abdomino-pelvienne avec injection de produit de contraste. **A.** Infiltrats pulmonaires bilatéraux, lésion d'allure embolique du lobe supérieur droit (cercle noir) avec épanchement pleural bilatéral. **B.** Thrombophlébite de la veine iliaque interne gauche (flèche blanche).

