

CASE REPORT

Bilateral Spontaneous Pneumothorax: A Rare Clinical Presentation of Pulmonary Metastases of Synovialosarcoma

Pneumothorax spontané bilatéral : présentation clinique rare des métastases pulmonaires d'un synovialosarcome

Layla BELLIRAJ ¹  ; Chaymae HEJJAR ² ; Yassine OUADNOUNI ^{1,3} ; Mohamed SMAHI ^{1,3}

1 :Service de chirurgie thoracique, CHU HASSAN II, Fès, MAROC.

2 :Service de radiologie, CHU HASSAN II, Fès, MAROC.

3: Faculté de médecine et de pharmacie, Université Sidi Mohamed Ben Allah, Fès, MAROC

ABSTRACT : Bilateral spontaneous pneumothorax is a very rare condition that occurs mainly in patients with underlying lung disease. We present the case of a spontaneous bilateral pneumothorax in a young patient treated for a synovialosarcoma of the right foot.

KEYWORDS: spontaneous pneumothorax, metastasis, synovialosarcoma, talcage, thoracoscopy.

RESUME : Le pneumothorax spontané bilatéral est une affection très rare qui se rencontre principalement chez les patients atteints d'une maladie pulmonaire sous-jacente. Nous présentons le cas d'un pneumothorax spontané bilatéral chez un jeune patient suivi depuis un an pour un synovialosarcome du pied droit.

MOTS CLES : Pneumothorax spontané, Métastase, Synovialosarcome, Talcage, Thoracoscopie.

Corresponding author: Dr Layla Belliraj, Service de chirurgie thoracique, CHU HASSAN II, Fès, MAROC

E-mail: lbelliraj@yahoo.fr

Copyright © 2020 Dr Layla Belliraj et al.

This is an open access article distributed under the [Creative Commons Attribution 4.0 International](https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

INTRODUCTION : Le pneumothorax spontané (PS) bilatéral (PSB) du sujet jeune est une situation clinique très rare. Il survient généralement chez des patients ayant une pathologie pulmonaire sous-jacente tel que l'emphysème et les causes infectieuses [1-4]. L'origine métastatique du pneumothorax spontané est extrêmement rare, mais

elle doit être évoquée chez tout patient ayant un antécédent de pathologie néoplasique, notamment un sarcome [2]. Nous rapportons un cas d'un PSB, compliquant des métastases pulmonaires d'un synovialosarcome du pied droit.

CAS CLINIQUE : Il s'agit d'un jeune patient âgé de 21 ans, suivi depuis 14 mois pour un synoviosarcome de haut grade du pied droit. Le protocole thérapeutique réalisé était une chirurgie d'emblée (amputation trans-tibiale avec curage ganglionnaire) et complété par une chimiothérapie adjuvante (4 cycles du protocole MAI : Methotrexate- Adriamycine, Ifosfamide). Le bilan d'extension réalisé avant le début du traitement, notamment le scanner thoracique et abdomino-pelvien, était négatif.

Alors que le patient était asymptomatique sur le plan respiratoire, le scanner thoracique réalisé 2 mois après la dernière cure de chimiothérapie révélait un pneumothorax gauche de grande abondance, avec des lésions métastatiques pulmonaires (figure 1). Ces lésions étaient bilatérales, de siège central et périphérique, et dont certaines étaient excavées.



Figure 1 : TDM thoracique qui montre une lésion métastatique pulmonaire excavée (flèche rouge) communicante avec un pneumothorax gauche (flèche bleue).

Le patient était hospitalisé en service de pneumologie. L'examen thoracique trouvait un syndrome d'épanchement aérien gauche. Un drainage thoracique gauche était réalisé, mais sans retour du poumon à la paroi. L'indication d'un traitement chirurgical a été retenue. Un jour avant son admission au bloc opératoire, le patient présentait une dyspnée brutale avec oppression thoracique. L'examen clinique trouvait un patient polypnéique, avec des signes de luttés et un syndrome d'épanchement aérien droit. La radiographie pulmonaire objectivait un pneumothorax droit de grande abondance (figure2). Un drainage axillaire droit a été réalisé en urgence. La thoroscopie mettait en évidence de multiples lésions pulmonaires excavées périphériques. Une abrasion pleurale et une électro-coagulation des lésions excavées sous thoroscopie étaient réalisées du côté gauche. Le talacage n'as pas été fait par manque de moyen.

L'évolution était favorable des deux côtés, et le patient fut mis sous chimiothérapie. Le patient décédait 6 mois après, dans un tableau de détresse respiratoire, avec à la dernière TDM thoracique une progression des lésions métastatiques pulmonaires avec épanchement pleural liquidien gauche de grande abondance.



Figure 2 : Radiographie thoracique qui montre un pneumothorax bilatéral de grande abondance, avec drain thoracique en place du côté gauche.

DISCUSSION : Le pneumothorax spontané bilatéral est une maladie rare, survenant dans 1,9 % des cas des pneumothorax spontanés [4]. L'origine métastatique du pneumothorax, ne représente que 1 % des pneumothorax spontanés [2,5,6]. Après l'ostéosarcome et l'angiosarcome, le synoviosarcome est parmi les tumeurs primitives les plus pourvoyeuses de métastases excavées, et donc de PS [2,3,7]. Ces métastases sont généralement multiples et bilatérales, de siège sous-pleural [7,8].

Les mécanismes du pneumothorax d'origine métastatique sont multiples [2,3,5,7]. Le plus souvent il s'agit de métastases volumineuses, nécrosées et excavées dans la plèvre spontanément ou après une chimiothérapie [5] comme le cas de notre patient (tableau1). En cas de synoviosarcome, le pneumothorax spontané survient particulièrement au cours du traitement par chimiothérapie responsable d'une nécrose et donc d'un PS.

Plusieurs facteurs sont considérés comme facteurs de risque du pneumothorax d'origine métastatique tel que le caractère excavé des métastases pulmonaires,

le type histologique de la tumeur primitive et l'antécédent d'un pneumothorax. L'administration d'une chimiothérapie multimodale, est également

incriminée avec un délai moyen de survenue du pneumothorax spontané entre 1 et 8 jours après la cure [3,9].

Tableau 1 : Les différents mécanismes pouvant expliquer le développement d'un pneumothorax en cas de métastase pulmonaire [7]

- L'obstruction bronchique partielle par une tumeur à valve avec distension alvéolaire, déhiscence de la paroi alvéolaire et passage de l'air dans les septa interlobulaires vers la plèvre formant des blebs qui peuvent se rompre ;
- Une embolie tumorale avec infarctus et nécrose ;
- Une infiltration tumorale de la paroi d'une cavité bénigne préexistante, et sa rupture dans l'espace pleural ;
- La constitution d'une fistule entre le parenchyme et la plèvre due à la nécrose du nodule tumoral sous-pleural secondaire à une lésion vasculaire ou à une chimiothérapie.

Cliniquement, le PS peut être asymptomatique et de découverte fortuite au cours de l'imagerie de contrôle de la pathologie néoplasique. Le scanner constitue le moyen le plus adapté pour rechercher les métastases pulmonaires surtout celle de localisation sous pleurale [2]. Le traitement consiste dans un premier temps en un drainage thoracique. En cas de récurrence ou de persistance du pneumothorax, un talcage par vidéo-thoracoscopie sera indiqué. Certaines équipes, préfèrent l'exérèse chirurgicale des métastases pulmonaires avant l'installation du pneumothorax. Cette attitude n'est possible que lorsque deux principales conditions sont atteintes : le contrôle de la tumeur primitive et des métastases extra-thoraciques, ainsi que la possibilité d'une résection chirurgicale complète. La chirurgie n'a pas de place en cas de métastases rapidement progressive ou qui surviennent peu de temps après un traitement efficace de la tumeur primitive [2,8].

D'après Jeffrey et al, la survenue d'un pneumothorax spontané chez patient atteint d'un sarcome est un facteur de mauvais pronostic, il témoigne de la progression et de l'agressivité de la maladie [3].

REFERENCES

- [1] S.Blel S.Joobeur S.Cheikh MhamedI. El Mjendel H.Mribah A.Ben Saad et al. Profil étiologique du pneumothorax spontané secondaire chez le sujet jeune : à propos de 43 cas Revue des Maladies Respiratoires Volume 32, Supplement, January 2015, Page A199. doi.org/10.1016/j.rmr.2014.10.268
- [2] Gwenaelle Le Garff, Herve Lena, Herve Corbineau, Pierre Kerbrat, and Philippe Delaval. Unusual Cause of Recurrent

CONCLUSION : Bien que le pneumothorax spontané d'origine métastatique soit une entité pathologique rare, il risque de devenir une complication fréquente des cancers chimio-sensibles avec des indications de plus en plus larges de la chimiothérapie, d'où l'intérêt de la prévention par la recherche systématiques des métastases pulmonaires et leur résection dès que possible.

REMERCIEMENTS : Les auteurs remercient le service de pneumologie et d'oncologie médicale du CHU Hassan II de Fès.

AUTHORS' CONTRIBUTIONS

The participation of each author corresponds to the criteria of authorship and contributorship emphasized in the [Recommendations for the Conduct, Reporting, Editing, and Publication of Scholarly work in Medical Journals](#) of the [International Committee of Medical Journal Editors](#). Indeed, all the authors have actively participated in the redaction, the revision of the manuscript and provided approval for this final revised version.

COMPETING INTERESTS

The authors declare no competing interests.

Pneumothorax: Excavated Metastasis of Osteosarcoma. *Ann Thorac Surg* 2001;72:2111-3

- [3] Jeffrey B. Hoag; Michael Sherman; Quadeer Fasihuddin and Mark E. Lund. A Comprehensive Review of Spontaneous Pneumothorax Complicating Sarcoma. *CHEST* 2010; 138(3):510-518. DOI: 10.1378/chest.09-2292
- [4] R.S. Boersm, J. Buijs. Simultaneous bilateral spontaneous pneumothorax as a presenting symptom of osteosarcoma.

- European Journal of Internal Medicine 18 (2007) 342–343
doi:10.1016/j.ejim.2006.09.036
- [5] Raphaëlle Barnoud, Sophie Collardeau-Frachon, Éric de la Roche, Alexandre Vasiljevic, Vivien Thomson, Dominique Ranchère. Métastases pulmonaires d'un sarcome épithélioïde révélées par un pneumothorax spontané bilatéral : un diagnostic anatomopathologique exclusif. *Annales de pathologie* (2010) 30, 139–142. doi:10.1016/j.annpat.2010.01.004
- [6] Stein ME, Haim N, Drumea K, Ben-Itzhak O, Kuten A. Spontaneous pneumothorax complicating chemotherapy for metastatic seminoma. *Cancer* 1995;75:2710–3
- [7] S. MEZGHANI, M. BENZARTI, H. NJIMA, A. HAYOUNI, A. GARROUCHE, N. KLABI, M. JERRY. Un pneumothorax spontané récidivant compliquant les métastases pulmonaires d'un ostéosarcome. *REV. PNEUMOL. CLIN.*, 2005, 61, 1-50-52
- [8] Ellis PM, Tatersall MHN, Mc Caughan B, Stalley P. Osteosarcoma and pulmonary metastases: 15-year experience from a single institution. *Aust NZ J Surg* 1997;67:625-9.
- [9] H. M. FENLON, D. CARNEY* and E. BREATNACH. Case Report: Bilateral Recurrent Tension Pneumothorax Complicating Combination Chemotherapy For Soft Tissue Sarcoma. *Clinical Radiology* (1996) 51, 302304.