

PNEUMORACHIS AVEC PNEUMOMEDIASTIN SPONTANES AU COURS D'UNE EXACERBATION AIGUE DE BRONCHOPNEUMOPATHIE CHRONIQUE OBSTRUCTIVE

SPONTANEOUS PNEUMORACHIS WITH PNEUMOMEDIASTINUM DURING AN ACUTE EXACERBATION OF CHRONIC OBSTRUCTIVE PULMONARY DISEASE

N. KALLEL^{1,2}; I. BEN SALAH^{1,2}; R. GARGOURI^{1,2}; N. KALLEL^{1,2}; N. MOUSSA^{1,2}; S. KAMMOUN^{1,2}

1 : Service de pneumologie ,CHU Hedi Chaker Sfax- Tunisie.

2 : Faculté de médecine de Sfax, Université de Sfax- Tunisie.

Résumé

Introduction : Le pneumorachis est une affection rare, définie par la présence d'air dans le canal rachidien. Il est souvent décrit après un traumatisme ou un geste iatrogène, mais peut s'associer spontanément à un pneumomédiastin en réponse à une hyperpression thoracique.

Objectif : Signaler le pneumorachis comme complication exceptionnelle d'une exacerbation aiguë de bronchopneumopathie chronique obstructive (BPCO).

Observation : Un homme de 72 ans, suivi pour une BPCO, a été hospitalisé pour exacerbation aiguë compliquée d'emphysème sous-cutané diffus. La tomographie thoracique a mis en évidence un pneumomédiastin associé à un pneumorachis cervico-thoracique. Le traitement médical (bronchodilatateurs, corticothérapie, anticoagulation préventive, antalgiques) a permis une évolution favorable avec disparition complète du pneumorachis.

Conclusion : Le pneumorachis, complication rare et souvent bénigne, mérite d'être reconnu. Ce cas illustre pour la première fois son association avec un pneumomédiastin au cours d'une exacerbation aiguë de BPCO.

Mots - Clés: Pneumorachis ; BPCO ; Exacerbation aiguë ; pneumomédiastin ; spontané

Abstract

Introduction: Pneumorrhachisis is a rare condition defined by the presence of air within the spinal canal. It is mostly described in traumatic or iatrogenic settings but may spontaneously be associated with pneumomediastinum in response to a sudden rise in intrathoracic pressure.

Objective: To report pneumorrhachisis as a rare complication of acute COPD exacerbation.

Case Report: A 72-year-old man, being treated for COPD, was hospitalised for acute exacerbation complicated by diffuse subcutaneous emphysema. Chest CT scan revealed pneumomediastinum associated with cervical-thoracic pneumorachis. Medical treatment (bronchodilators, corticosteroids, preventive anticoagulation, analgesics) resulted in a favourable outcome with complete resolution of the pneumorachis.

Conclusion: Pneumorrhachisis, a rare and often benign complication, deserves recognition. This case illustrates for the first time its association with pneumomediastinum during an acute exacerbation of COPD.

Key-words : Pneumorrhachisis ; COPD ; Acute exacerbation ; pneumomediastinum ; spontaneous

ملخص

يعرف الاسترواح داخل القناة الشوكية بوجود هواء ضمن القناة النخاعية، وهو اختلاط نادر غالبًا ما يظهر بعد الرضوض أو التدخل الطبي، وقد يحدث نتيجة ارتفاع مفاجئ في الضغط داخل الصدر.

الهدف: التنبيه إلى الاسترواح داخل القناة الشوكية كتعكر نادر وحاد لمرض تضيق القصبات الهوائية المزمن وهو أمر نادر الذكر في الأدبيات. عرض الحالة: رجل عمره 72 عامًا مصاب بمرض تضيق القصبات الهوائية المزمن تم إيواؤه بسبب تعكر حالته و ألم بالصدر مع استرواح تحت جلدي. أظهر التصوير بالسكانار وجود استرواح بالناصف مع استرواح داخل القناة الشوكية العنقية الصدرية. تم العلاج و المداواة بالكورتيكوستيرويدات، مضاد تخثر وقائي، ومسكنات. تحسنت حالته سريريًا وشعاعيًا مع زوال الاسترواح داخل القناة الشوكية.

الخاتمة: لاسترواح داخل القناة الشوكية اختلاط نادر غالبًا حميد، ويستحق الانتباه، وتعد هذه الحالة الأولى المرتبطة بتفاقم حاد لداء تضيق القصبات الهوائية المزمن.

الكلمات المفاتيح: لاسترواح داخل القناة الشوكية ; داء تضيق القصبات الهوائية المزمن ; التفاقم الحاد ; استرواح تحت الجلد

Correspondance

Nesrin kallel : Service de pneumologie, CHU Hedi Chaker Sfax- Tunisie

E-mail : kallel.nesrin@yahoo.com

Cet article est en libre accès distribué selon les termes et conditions de la licence Creative Commons Attribution (CC BY) (<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>).

INTRODUCTION

Le pneumomédiastin spontané est une affection bénigne rare qui est parfois associée à la présence d'air dans le canal rachidien et qui survient en dehors de toutes manœuvres respiratoires associées à une élévation de la pression pulmonaire, notamment l'inhalation de drogues illicites, les vomissements, la toux, l'exercice physique intense, les éternuements ou la défécation, ainsi que le barotraumatisme résultant d'un vol ou d'une plongée [1].

Dans sa forme spontanée, le pneumomédiastin s'associe dans 5 à 10% des cas à un pneumorachis. L'absence de barrières fasciales entre le médiastin postérieur et les espaces épidual et rétropharyngé permet à l'air de diffuser à travers les forams intervertébraux vers l'espace épidual [2].

Le pneumorachis ou pneumomyélogramme est défini par la présence d'air dans le canal rachidien [3,4] avec possibilité de passage de l'air dans le compartiment intradural ainsi que extradural. Ce phénomène a été découvert pour la première fois en 1977 par Gordon et Hardman [4] et le terme de pneumorachis y était attribué par Newbold et al en 1987 [5].

C'est une entité de survenue rare surtout en dehors d'un traumatisme grave [4-7].

Seulement quelques cas ont été décrits dans la littérature [6-8]. L'entrée d'air peut être secondaire à des plaies profondes d'origine traumatique ou iatrogène mais aussi suite à des événements entraînant l'augmentation de la pression intrathoracique comme les vomissements, la toux et l'éternuement. Dans 10% des cas le pneumorachis est associé à un pneumomédiastin spontané [3,9].

Malgré l'existence de plusieurs étiologies, la traduction clinique du pneumorachis reste pauvre et exceptionnellement symptomatique. De ce fait, il existe peu de recommandations concernant sa prise en charge thérapeutique à cause de sa rareté et la diversité de ses étiologies [10].

Dans le but d'attirer l'attention des cliniciens à cette complication rare, nous rapportons le cas d'un pneumorachis compliquant une exacerbation aiguë de broncho-pneumopathie chronique obstructive (BPCO).

PATIENT ET OBSERVATION

Il s'agit d'un homme âgé de 72 ans suivi pour une BPCO classée groupe GOLD B avec une obstruction bronchique modérée (VEMS à 57%) et hospitalisé pour une majoration de la toux et de l'abondance des expectorations, une douleur thoracique diffuse à type d'oppression thoracique avec une dyspnée de repos. Cette aggravation est survenue de façon spontanée. L'examen clinique a objectivé une saturation artérielle en oxygène à 92 % à l'air ambiant, un important emphysème sous cutané cervico-thoracique, une diminution des murmures vésiculaires aux deux champs pulmonaires avec un signe de Hamman positif à l'auscultation. L'examen neurologique était sans anomalies. Le bilan biologique n'a pas montré de syndrome inflammatoire biologique. La gazométrie sanguine a montré une hypoxémie (PaO₂ à 68%) sans hypercapnie.

La radiographie du thorax de face (Figure 1) objectivait une distension thoracique avec une hyperclarté des deux champs pulmonaires associée à un emphysème sous cutané diffus cervico-thoracique.

La tomodensitométrie thoracique (Figure 2) montrait des lésions d'emphysème paraseptal et centrolobulaire diffus, une bulle d'emphysème géante apico-dorsale gauche, un pneumomédiastin de grande abondance avec un pneumorachis cervico-dorsal sous forme d'hypodensités franches dans le canal rachidien (Figure 3) associé à un emphysème sous cutané cervico-thoracique.

La conduite thérapeutique était de traiter l'exacerbation de la BPCO par des nébulisations de bronchodilatateurs, une corticothérapie par voie générale, une anticoagulation préventive avec un traitement antalgique.

L'évolution ultérieure était marquée par une amélioration clinique progressive avec disparition de la douleur thoracique et de la dyspnée et régression de l'emphysème sous cutané. Une tomodensitométrie cervico-thoracique de contrôle a été réalisée après 1 mois montrant une nette amélioration avec disparition du pneumorachis et de l'emphysème sous cutané.



Figure 1 : Radiographie de thorax de face montrant une distension thoracique avec un emphysème sous cutanée diffus.

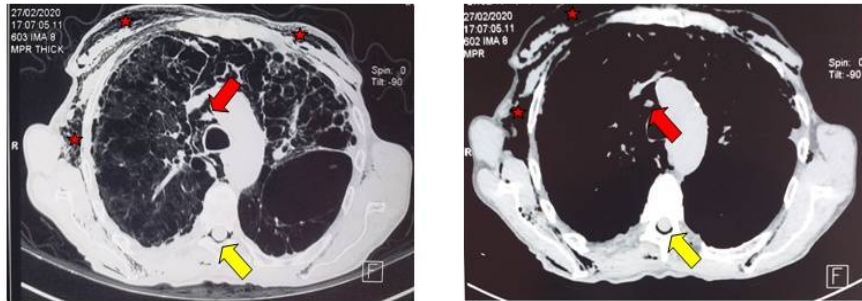


Figure 2 : Tomodensitométrie thoracique : coupes parenchymateuses et médiastinale de la TDM thoracique. Présence d'un emphysème sous cutané cervicothoracique diffus (étoiles rouges), une grande bulle d'emphysème du lobe inférieur gauche associée à un pneumomédiastin (flèches rouges) et un pneumorachis (flèches jaunes)

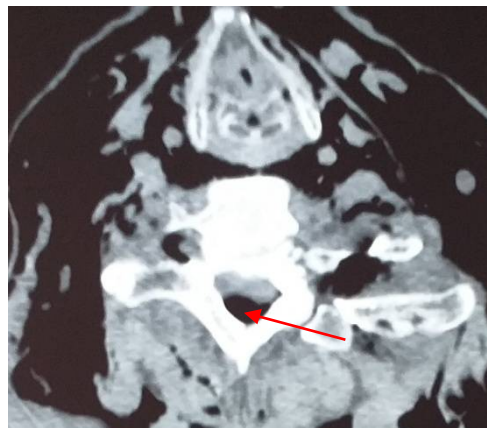


Figure 3 : Lecture en fenêtre osseuse de la TDM thoracique Hypodensité au sein du canal rachidien mesurée à -550 UH confirmant le diagnostic de pneumorachis (flèche rouge).

DISCUSSION

Le pneumorachis (PR) est un phénomène rare défini par la présence d'air en intra rachidien. D'autres termes ont été attribués à cette entité tels que l'emphysème épidual, l'aérorachie, le pneumomyélogramme, le pneumocèle intra rachidien [8]. La pathogénie et les étiologies sont multiples et posent parfois un problème diagnostique. Gelalis et al [11], dans une revue de la littérature incluant 37 articles et 44 cas, ont étudié les étiologies, les mécanismes physiopathologiques, le diagnostic et le traitement du PR. En effet, il s'agit d'une pathologie le plus souvent sous diagnostiquée car elle est généralement peu ou pas symptomatique avec des signes cliniques non spécifiques. C'est grâce au progrès de l'imagerie que le diagnostic devient de plus en plus facile. La tomodensitométrie multibarrettes, examen de référence, permet de détecter le PR sous forme de clartés aériques siégeant à l'intérieur du canal rachidien et disséquant les méninges. Dans certains cas, l'imagerie par résonance magnétique est très utile pour analyser les anomalies épidurales permettant un meilleur diagnostic étiologique [12]. De multiples étiologies du PR sont de nos jours reconnues. Il peut être d'origine intrinsèque au rachis, la cause la plus souvent retrouvée [13], ou d'origine extrinsèque par rupture ou fistule d'un organe creux [14]. On distingue ainsi 3 importantes classes d'étiologies du PR : iatrogène, traumatique et non traumatique [15]. Les causes iatrogènes viennent en premier lieu, compliquant un acte chirurgical, un geste d'anesthésie péri ou épidurale ou une intubation nasotrachéale [16]. Les traumatismes graves (cérébral, cervical, thoracique, abdominale, pelvien...) peuvent aussi être à l'origine d'un pneumorachis [17]. Concernant les étiologies non traumatiques, il peut s'agir des complications de certaines pathologies respiratoires et toutes conditions entraînant une augmentation de la pression intra-thoracique. Dans la littérature, il était décrit 13 cas de PR causés par une toux prolongée secondaire à l'asthme bronchique et la bronchite aiguë [18–19], 1 cas de PR survenant à la suite d'une réanimation cardio-respiratoire; 1 cas survenant après un exercice physique intense [20], 1 cas après l'inhalation de drogues (Ecstasy, marijuana) [21], 1 cas d'obstruction des VAS par inhalation de corps étranger [22] et 3 autres cas de PR secondaire à des vomissements incoercibles compliquant une décompensation acido-cétosique

d'un diabète [23]. Les pathologies tumorales et les complications induites par leurs thérapeutiques (surtout la radiothérapie) ont été aussi retrouvées parmi les causes de PR [24–25].

Il faut toujours éliminer une atteinte dégénérative [26], inflammatoire [27] ou infectieuse du rachis [28] qui peut être la cause de la pénétration d'air en intrarachidien. Dans certains cas, l'étiologie reste inconnue [29].

Dans notre observation, aucune cause déclenchante à part l'exacerbation de BPCO n'a été trouvée. C'est le premier cas qui identifie l'exacerbation de BPCO comme cause de PR. Comme il a été décrit dans la littérature, le mécanisme physiopathologique impliqué dans la genèse de cette entité rare consiste à une augmentation importante de la pression intraalvéolaire avec une rupture alvéolaire permettant la migration d'air le long des axes bronchovasculaires jusqu'au médiastin [30].

La collection d'air ainsi formée, sépare la plèvre médiastinale de l'aorte et la plèvre pariétale du rachis et entre dans l'espace épidual via les trous de conjugaisons. La pénétration d'air en intra rachidien peut être associée au passage d'air dans d'autres compartiments de l'organisme et dans ce cas, on aura la formation d'un pneumothorax dans 52% des cas, un emphysème sous cutané ou un pneumomédiastin dans 48% des cas et un pneumocéphalus dans 26% des cas [31]. Dans notre cas, le PR était associé à un pneumomédiastin de grande abondance et un emphysème sous cutané diffus de la face jusqu'au thorax. Le PR est localisé par ordre décroissant au niveau cervical (50%), thoracique (42%) et lombosacré (24%) [31]. Dans notre observation, le PR était au niveau cervico-thoracique.

Concernant la prise en charge thérapeutique, aucun consensus clair n'a été élaboré. Le traitement sera adapté au cas par cas selon l'agent causal. Généralement, un repos strict et une oxygénothérapie à haut débit suffisent pour assurer la résorption de l'air intra rachidien. Rovalias et al [32] ainsi que Song et al [30] sont les seuls qui ont préconisé la laminectomie pour évacuer l'air intra rachidien. Devant le risque accru de méningite, l'antibiothérapie prophylactique a été discutée mais son rôle reste controversé [33].

Selon la littérature [34], l'évolution du PR ainsi que du pneumomédiastin est souvent favorable et une résolution spontanée en quelques jours est la règle chez 98% des patients [15], tel est le cas de notre patient. Le PR se complique rarement d'une

compression médullaire. Un seul cas reporté dans la littérature où l'évolution a été marquée par une aggravation rapide et le décès du patient [35]

CONCLUSION

Le PR est une entité rare d'étiologies multiples. L'exacerbation de BPCO n'a pas été rapportée dans la littérature comme cause de PR. L'originalité de cette observation nous a incités à la rapporter pour intégrer l'exacerbation de BPCO comme étiologie du pneumorachis. La TDM thoracique est très performante pour détecter le PR, préciser son origine et son étendue. L'évolution est souvent spontanément favorable.

CONFLITS D'INTÉRÊT : aucun

REFERENCES

- [1] Eva A. Belotti; Mattia Rizzi; Paola Rodoni-Cassis; Monica Ragazzi; Maura Zanolari-Caledrerari; and Mario G. Bianchetti; Air Within the Spinal Canal in Spontaneous Pneumomediastinum ;CHEST ;137 ;5 ;2010.
- [2] Kono T, Kuwashima S, Fujioka M, Kobayashi C, Koike K, Tsuchida M, Seki I. Epidural air associated with spontaneous pneumomediastinum in children: uncommon complication? *Pediatr Int.* 2007
- [3] Chaichana KL, Pradilla G, Witham TF, Gokaslan ZL, Bydon A. The clinical significance of pneumorachis: a case report and review of the literature. *J Trauma.*2010;68(3):736 ;44.
- [4]Gordon IJ, Hardman DR. The traumaticpneumomyelogram. A previously undescribed entity. *Neuroradiology.* 18 avr 1977;13(2):107; 8.
- [5] Newbold R, Wiener M, Vogler J, Martinez S. Traumatic pneumorrhachis. *Am J Roentgenol.* mars 1987;148(3):615-616.
- [6]Çayli SR, Koçak A, Kutlu R, Tekiner A. Spinal pneumorrhachis. *Br J Neurosurg.* janv 2003;17(1):72□4.
- [7]Scialdone CJ, Wagle W. Intraspinale air: an unusual manifestation of blunt chest trauma. *Clin Imaging.* mars 1990;14(1):59-60.
- [8]Yip L, Sweeny PJ, McCarroll KA. The traumatic air myelogram. *Am J Emerg Med.* juill 1990;8(4):332-334.
- [9] Belotti EA, Rizzi M, Rodoni-Cassis P, Ragazzi M, Zanolari-Caledrerari M, Bianchetti MG. Air within the spinal canal in spontaneouspneumomediastinum. *Chest.* mai 2010;137(5):1197-1200.
- [10]. Aujayeb A, Doe S, Worthy S. Pneumomediastinum and pneumorrhachis: a lot of air about nothing? *Breathe.* juin 2012;8(4):331-334.
- [11]Gelalis ID, Karageorgos A, Arnaoutoglou C, Gartzonikas D, Politis A, Georgakopoulos N, et al. Traumaticpneumorrhachis: etiology, pathomechanism, diagnosis, and treatment. *Spine J.* 1 févr 2011;11(2):153-157.
- [12] Oertel MF, Korinth MC, Reinges MHT, Krings T, Terbeck S, Gilsbach JM. Pathogenesis, diagnosis and management of pneumorrhachis. *EurSpine J Off PublEurSpine Soc Eur Spinal Deform Soc EurSectCervSpineRes Soc.* oct2006;15 Suppl 5(Suppl 5):636-643.
- [13]Giraud F, Fontana A, Mallet J, Fischer LP, Meunier PJ. La sciatique par bulle de gaz épидurale : quatre observations. *Rev Rhum.* 1 oct 2001;68(9):870-873.
- [14]Konya D, Ozgen S, Sun IH, Pamir NM. Intraspinale gas. *J Clin Neurosci Off J Neurosurg Soc Australas.* juin 2007;14(6):569-572.
- [15]Al-Mufarrej F, Gharagozloo F, Tempesta B, Margolis M. Spontaneous cervicothoracolumbarpneumorrhachis, pneumomediastinum and pneumoperitoneum. *Clin Respir J.* oct2009;3(4):239-243.
- [16]Dalens B, Bazin JE, Haberer JP. Epidural bubbles as a cause of incomplete analgesia during epidural anesthesia. *Anesth Analg.* juill 1987;66(7):679-683.
- [17]Chibbaro S, Selem M, Tacconi L. Cervicothoracolumbarpneumorrhachis. Case report and review of the literature. *Surg Neurol.* juill 2005;64(1):80-82.
- [18]Chiba Y, Kakuta H. Massive subcutaneous emphysema, pneumomediastinum, and spinal epidural emphysema as complications of violent coughing: a case report. *Auris Nasus Larynx.* 1995;22(3):205-208.
- [19]Tsuji H, Takazakura E, Terada Y, Makino H, Yasuda A, Oiko Y. CT demonstration of spinal epidural emphysema complicating bronchial asthma and violent coughing. *J Comput Assist Tomogr.* 1989;13(1):38-39.
- [20]Yoshimura T, Takeo G, Souda M, Ohe H, Ohe N. CT demonstration of spinal epidural emphysema after strenuous exercise. *J Comput Assist Tomogr.* 1990;14(2):303-304.
- [21]Delabrousse E, Lerais JM, Jacob D, Fourrer C, Narboux Y. [Spontaneous pneumorachis during sports exertion with a closed glottis]. *J Radiol.* nov1999;80(11):1587-1588.
- [22]Hazouard E, Koninck JC, Attucci S, Fauchier-Rolland F, Brunereau L, Diot P. Pneumorrhachis and pneumomediastinum caused by repeated Müller's maneuvers: complications of marijuana smoking. *Ann Emerg Med.* déc 2001;38(6):694-697.
- [23]Tambe P, Kasat LS, Tambe AP. Epidural emphysemaassociatedwithsubcutaneousemphysemafollowing foreign body in the airway. *PediatrSurg Int.* sept 2005;21(9):721-722.
- [24]Pooyan P, Puruckherr M, Summers JA, Byrd RP, Roy TM. Pneumomediastinum, pneumopericardium, and epidural pneumatosis in DKA. *J Diabetes Complications.* 2004;18(4):242-247.
- [25]Wippold FJ, Schnapf D, Bennett LL, Friedman AC. Esophago-subarachnoidalfistula: an unusual complication of esophagealcarcinoma. *J Comput Assist Tomogr.* févr 1982;6(1):147-149.
- [26]Ford LT, Gilula LA, Murphy WA, Gado M. Analysis of gas in vacuum lumbar disc. *AJR Am J Roentgenol.* juin 1977;128(6):1056-1057.
- [27]Burke V, Mall JC. Epidural gas: an unusual complication of Crohn disease. *AJNR Am J Neuroradiol.* 1984;5(1):105□6.
- [28]Kirzner H, Oh YK, Lee SH. Intraspinale air: a CT finding of epiduralabscess. *AJR Am J Roentgenol.* déc 1988;151(6):1217-1218.
- [29]Chibbaro S, Selem M, Tacconi L. Cervicothoracolumbarpneumorrhachis. Case report and review of the literature. *Surg Neurol.* juill 2005;64(1):80-82.
- [30]Song KJ, Lee KB. Spontaneous extradural pneumorrhachis causing cervical myelopathy. *Spine J Off J North Am Spine Soc.* févr 2009;9(2):e16-18.
- [31]Chaichana KL, Pradilla G, Witham TF, Gokaslan ZL, Bydon A. The clinical significance of pneumorachis: a case report and review of the literature. *J Trauma.* mars 2010;68(3):736-744.

PNEUMORACHIS AVEC PNEUMOMEDIASTIN SPONTANES

[32] Rovlias A, Pavlakis E, Kotsou S. Symptomatic pneumorachis associated with incidental durotomy during microscopic lumbar disc surgery: Case report. *J Neurosurg Spine*. août 2006;5(2):165-167.

[33] Krishnam, Mallick A. Air in the epidural space leading to a neurological deficit. *Anaesthesia*. mars 2003;58(3):292-293.

[34] Aribas OK, Gormus N, AydogduKiresi D. Epidural emphysema associated with primary spontaneous pneumothorax. *Eur J Cardio-ThoracSurg Off J Eur Assoc Cardio-Thorac Surg*. sept 2001;20(3):645-646.

[35] Balachandran S, Guinto FC, Goodman P, Cavallo FM. Epiduralpneumatisisassociatedwithspontaneouspneumomediastinum. *AJNR Am J Neuroradiol*. 1993;14(1):271-272.