



Fibromatosis Colli : a rare cause of torticollis in infants

Fibromatose Colli : une cause rare de torticollis chez les nourrissons

Fanantenana Nicolas Herinirina¹, Christian Tomboravo², Nathan Ratsimarisol³, Ahmad Ahmad⁴

Corresponding author

Christian Tomboravo

Courriel: ctomboravo@gmail.com

Department of Medical Imaging, University hospital center Place Kabary, Antsiranana, Madagascar

Résumé

La fibromatose colli est une tumeur bénigne, rare, du muscle sternocléidomastoïdien, causant des torticollis congénitaux chez les nouveau-nés ou les nourrissons. A ce jour, le mécanisme étiopathogénique de son apparition reste mal connu. Son diagnostic combine l'examen clinique et l'échographie qui permettent de mettre en évidence un épaississement caractéristique du muscle. Nous rapportons un cas, diagnostiqué par échographie, chez un nourrisson de six semaines sans antécédents particuliers ; dont l'évolution spontanée a été marquée par une régression totale après 3 mois, sans avoir à recourir à un traitement particulier.

Mots-clés : Echographie, fibromatose colli, torticollis

Reçu le 25 mai 2022

Accepté le 15 janvier 2023

<https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.12>

1 Department of Medical Imaging, University hospital center Tanambao, Antsiranana, Madagascar

2 Department of Medical Imaging, University hospital center Place Kabary, Antsiranana, Madagascar

3 Department of Medical Imaging, Soavinandriana Hospital Center, Antananarivo, Madagascar

4 Department of Medical Imaging, University hospital center Joseph

Summary

Fibromatosis colli is a rare benign tumor of the sternocleidomastoid muscle, causing so-called congenital torticollis in newborns or infants. Until now, the etiopathogenic mechanism of its occurrence remains poorly understood. Its diagnosis combines the clinical examination and ultrasound, which makes it possible to highlight a characteristic thickening of the sternocleidomastoid muscle. We report a case of fibromatosis colli, diagnosed by ultrasound, in a six-week-old infant with no particular history whose spontaneous evolution was towards total regression after 3 months without having to resort to any particular treatment.

Keywords: Fibromatosis colli, torticollis, ultrasound

Received: May 25th, 2022

Accepted: January 15th, 2023

<https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.12>

Introduction

Among the causes of perinatal cervical swelling, fibromatosis colli (FC) is a rare tumor of the sternocleidomastoid muscle (SCM), also known as a childhood sternocleidomastoid tumor. It is a benign proliferation of fibrous tissue in the SCM muscle resulting in focal or diffuse hypertrophy of the muscle. The lump is usually not present at birth, but it appears during the first few weeks of life, and it may enlarge over the following weeks (1). The global prevalence of FC is estimated to be around 4 in 1000 live births (2). Although its etiology is still unknown to this day, its main symptom remains congenital torticollis. Ultrasound is generally sufficient for the diagnosis, to ensure the follow-up and its evolution. We report a case of rapidly regressive FC in an infant monitored by ultrasound.

Observation

This was a boy aged 1 month and a half referred for a cervical ultrasound in front of a firm left cervical swelling, evolving for 2 weeks. The patient had no particular history. Indeed, he was born at term of a normal vaginal delivery, weighed 3,200 Kg. The clinical examination found a firm left cervical swelling, mobile compared to the skin, accompanied by a limitation of rotation from the head to the ipsilateral side. Ultrasound found fusiform thickening in the middle third of the left SCM muscle measuring 21 x 10 x 36 mm in diameter with conservation of the muscle fiber, slightly hyper vascularized on color Doppler (figure 1).

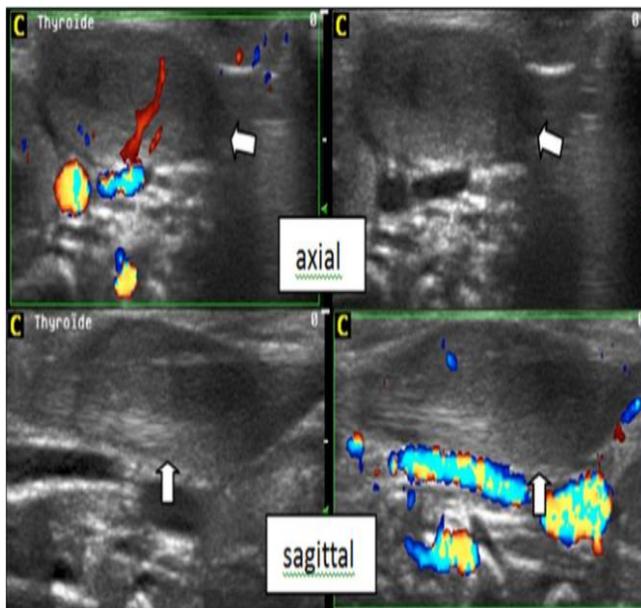


Figure 1. Axial and longitudinal ultrasound sections of the neck, using a 12 MHz linear probe, showing homogeneous fusiform thickening (arrow) of the body of the left SCM muscle, with preservation of its fibrillary appearance and little vascular signal on color Doppler

There is neither sign of infiltration of adjacent tissues, nor associated lymphadenopathy nor mass effect on the jugulocarotid vessels. An abnormality of the contralateral SCM muscle was not detected (figure 2).

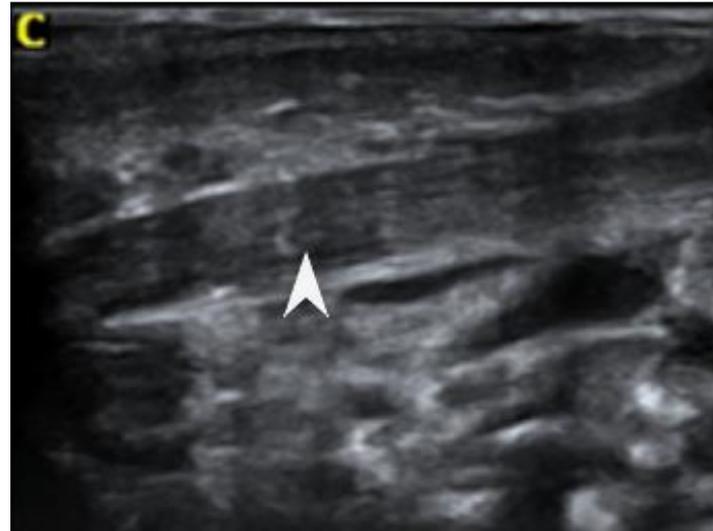


Figure 2. Longitudinal ultrasound sections of the neck, using a 12 MHz linear probe, showing a normal right SCM muscle body (arrow head)

These clinic echographic signs suggested FC of the left SCM muscle. The infant received regular monthly follow-up, then the lesion completely regressed 3 months after the start of treatment.

Discussion

FC is a rare benign tumor of the SCM muscle. Its etiopathogenesis is not known to date. Indeed, its causes are still debated, the theories varying from one author to another. The most common theory links the abnormality of the SCM to fibrosis and contracture of the muscle secondary to compartment syndrome and ischemic lesions favored by intrauterine fetal malposition (3). Another theory would be rather in favor of trauma or microtrauma of the SCM muscle during laborious childbirth (4).

FC is a benign laterocervical swelling of the SCM muscle that occurs between two and four weeks of life after birth, with a vicious neck posture (5). It is located on the right in 60 to 75 % of cases. Bilateral involvement is rare, approximately 2 - 8% of cases and particularly affects the male sex (5). In our observation, the anomaly appeared in the third week and was on the left.

Ultrasound is the standard complementary examination thanks to its accessibility, its low cost and its non-irradiating nature (4). It is an examination which highlights a homogeneous fusiform thickening at the expense of the SCM muscle. While some authors consider that the clinical examination, based on the natural history of the lesion and the clinical presentation (6), is

e5123



sufficient for the diagnosis without resorting to an additional examination, ultrasound makes it possible to eliminate the other causes of cervical swelling on the SCM region such as branchial cyst, hemangioma, lymphangioma, lipoma, sebaceous cyst, neuroblastoma, rhabdomyosarcoma, fibrosarcoma, cystic hygroma, cervical lymphadenopathy (7). The other imaging techniques such as the scanner, in particular computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) can also highlight the thickening of the muscle, but these are not very accessible and are expensive (4). CT shows hypodense hypertrophy of the SCM muscle with surrounding normal fascial planes (1). On MRI, T2-weighted mass shows increased signal intensity compared to normal muscle. On the T1W gradient echo images, the muscle involved is more hyperintense compared to the T2W image, suggesting the presence of fibrous tissue within the mass (8).

Currently, the preferred investigation of these masses is cytology by fine needle aspiration (9). The dedicated technical platform for this examination is not available in our hospital. The anomalies, which will be observed, will depend on the stage of the evolution of the process. During the cell proliferation phase, cytology shows aggregates of uniform plump spindle cells embedded in a myxoid-collagenous ground substance (9), multinucleated skeletal myocytes can be mixed. In tenotomy for persistent torticollis, the lesion is composed of uniform plump fibroblastic and myofibroblastic cells embedded in a collagenous background. Infiltration and entrapment of skeletal myocytes is evident.

From a therapeutic point of view, Chen *et al.* reported that 90 % of congenital torticollis resolve within one year (10). Torticollis secondary to the SCM mass is normally treated with physiotherapy which includes active and passive stretching of the SCM on the affected side. The success rate of physiotherapy is estimated to be 90 to 95 %. The FC evolves even in the absence of treatment, to a spontaneous regression in 4 to 6 months (10), which is consistent with our finding, sometimes even earlier at 3 months of age (4). Regarding the surgical intervention, it consists of a tenotomy of the SCM muscle; it is reserved for patients with persistent swelling of the SCM after one year and infants with craniofacial abnormalities (2).

Conclusion

FC is a rare cervical pseudotumor in newborns and infants. Its diagnosis combines clinical examination and ultrasound. Its spontaneous evolution may be towards total regression. It sometimes requires physiotherapy and rarely surgery.

Conflict of interest

The authors declare no competing interest.

Authors' contributions

Herinirina FN, Tomboravo C and Ratsimarisololo N prepared the manuscript for publication

Herinirina FN and Ahmad A read and edited the manuscript before submission

All authors helped write approve the final and revised version of the manuscript.

References

1. Crawford SC, Harnsberger HR, Johnson L, Aoki JR and Giley J. Fibromatosis colli of infancy: CT and sonographic findings. *AJR Am J Roentgenol* 1988; **151** (6): 1183-1184.
2. Kumar V, Prabhu BV, Chattopadhyay A, Nagendhar MY. Bilateral sternocleidomastoid tumor of infancy. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003; **67** (6): 673-675.
3. Kumar B, Pradhan A. Diagnosis of sternomastoid tumor of infancy by fine-needle aspiration cytology. *Diagn Cytopathol* 2011 Jan; **39** (1): 13-17.
4. Adamoli P, Pavone P, Falsaperla R, Longo R, Vitaliti G, Andaloro C *et al.* Rapid spontaneous resolution of fibromatosis colli in a 3-week-old girl. *Case Rep Otolaryngol* 2014; **2014**: 264940.
5. Garetier M, Breton S, Pennaneach A, Barberot C, Chinellato S, Rousset J. Fibromatosis colli. *Presse Médicale* 2012;**41** (2): 213-214.
6. Lowry KC, Estroff A, Rahbar R. The presentation and management of fibromatosis colli. *Ear, Nose & Throat Journal* 2010; **89** (9): E4-E8.
7. Abdur-Rahman LO, Cameron BH. Sternomastoid tumor of infancy and congenital muscular torticollis. In: Ameh EA, Bickler SW, Lahoo K, Nwomeh BC, Poenaru D, editors. *Pediatric Surgery: a comprehensive text for Africa*. Global HELP. 2010; pp 448-453.
8. Ablin DS, Jain K, Howell L, West DC. Ultrasound and MR imaging of



fibromatosis colli (sternomastoid tumor of infancy). *Pediatr Radiol* 1998 Apr; **28** (4): 230-233.

9. Kurtycz DF, Logrono R, Hoerl HD, Heatley DG. Diagnosis of fibromatosis

colli by fine-needle aspiration. *Diagn Cytopathol* 2000;**23**: 338-342.

10. Chen CE, Ko JY. Surgical treatment of muscular torticollis for patients above 6 years of age. *Arch Orthop Trauma Surg.* 2000; **120**: 149-151.

Cite this paper as: Herinirina FN, Tomboravo C, Ratsimarisolo N, Ahmad A. Fibromatosis Colli: a rare cause of torticollis in infants. *Ann Afr Med* 2023; **16** (2): e5123-e5126. <https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.12>



Lymphome B diffus à grandes cellules splénique primitif : une cause rare de splénomégalie isolée *Primary splenic diffuse large B-cell non-Hodgkin's lymphoma: A rare cause of an isolated splenomegaly*

Amine Benmoussa¹, Kawtar Tlohi¹, Maryam Qachouh¹, Nisrine Khoubila¹, Siham Cherkaoui¹, Mouna Imchaheb¹, Mohamed Rachid¹, Abdellah Madani¹

Auteur correspondant

Amine Benmoussa

Courriel : benmoussa-nadine@outlook.fr

Service d'hématologie clinique, Centre hospitalier universitaire de Casablanca, Faculté de Médecine et de Pharmacie de Casablanca, Maroc

Summary

Primary splenic non-Hodgkin lymphoma is extremely rare, characterized by isolated splenic disease without other lymphoma locations. It's most often revealed by isolated splenomegaly. We report the case of a 43-year-old female patient with an isolated massive splenomegaly. The etiological investigations were normal, however the diagnostic and therapeutic splenectomy was performed and revealed a diffuse large B-cell non-Hodgkin's lymphoma. The patient received a post-splenectomy chemotherapy that had a favorable outcome after two years of follow-up.

Keywords: Primary splenic lymphomas, Splenomegaly, Splenectomy, Chemotherapy

Received: October 6th, 2022

Accepted: January 14th, 2023

<https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.13>

¹ Service d'hématologie clinique, Centre hospitalier universitaire 20 Août Casablanca

Patient et observation

Il s'agissait d'une patiente âgée de 43 ans, sans antécédents morbides particuliers. Elle avait consulté pour des douleurs de l'hypochondre

Résumé

Le lymphome non hodgkinien splénique primitif est une entité extrêmement rare rapportée dans la littérature. Il est caractérisé par une atteinte splénique isolée sans autres localisations lymphomateuses au diagnostic, d'où l'intérêt d'y penser quand elle est d'origine indéterminée. Nous rapportons le cas d'une patiente âgée de 43 ans présentant une volumineuse splénomégalie isolée, les investigations à visée étiologique sont normales, une splénectomie dans un but diagnostique et thérapeutique est réalisée, objectivant un lymphome non hodgkinien à grandes cellules B. Une chimiothérapie post splénectomie est administrée. L'évolution est favorable après 2 ans de recul.

Mots-clés : Lymphome splénique primitif, Splénomégalie, Splénectomie, Chimiothérapie

Reçu le 6 octobre 2022

Accepté le 14 janvier 2023

<https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.13>

Introduction

Les lymphomes non hodgkiniens (LNH) constituent un groupe hétérogène des tumeurs malignes de tissu lymphoïde, et représentent 4 % de tous les cancers.

Les LNH extra ganglionnaires représentent 30 % des LNH, les localisations les plus fréquentes sont digestives, cutanées et pulmonaires (1).

La localisation splénique primitive appelée le lymphome malin primaire de la rate est rare, ne représentant que 1 % de tous les LNH (1).

Le diagnostic est difficile et souvent tardif, du fait de l'absence de signes cliniques et radiologiques spécifiques, et il repose sur l'étude morphologique et immunohistochimique de la pièce de splénectomie (2-3). Nous rapportons une observation clinique de lymphome non hodgkinien splénique primitif dont l'évolution a été favorable sous splénectomie et chimiothérapie.

gauche à type de sensation de pesanteur gauche d'installation progressive évoluant depuis 3 mois. L'examen physique note une altération de l'état général (amaigrissement chiffré à 5 kg en mois ; asthénie ; sans notion de fièvre prolongée ni de



sueurs nocturnes). Les conjonctives palpébrales sont légèrement décolorées. L'examen clinique est normal sur le plan neurologique, hémodynamique et respiratoire. L'examen de l'abdomen découvre une splénomégalie à 5 cm du débord costal, le reste de l'examen somatique était sans particularités, notamment pas d'adénopathies ni hépatomégalie.

L'hémogramme a montré une anémie hypochrome microcytaire (Hb : 10g/dL, VGM : 76 fl, TCMH : 29 pg), le taux des plaquettes était normal à 200 G/L ainsi que la formule leucocytaire avec une ferritinémie normale à 100 mg/L. Le frottis sanguin montrait une microcytose avec des dacryocytes.

Le reste de bilan biologique (urée à 0,3 g/L, créatinine à 6 mg/L, aspartate aminotransférase 12 UI/L, alanine transaminase 14 UI/L, phosphatase alcaline 75UI/L, CRP à 1 mg/L, les sérologies VIH, VHC, VHB négatives) était normal ainsi que le bilan immunologique (anticorps antinucléaires, antiDNA étaient négatifs).

L'échographie abdominale a objectivé une splénomégalie hétérogène estimée à 21 cm, le tronc porte était normal ainsi que la flèche hépatique. La tomодensitométrie cervico-thoraco-abdomino-pelvienne (TDM CTAP) a montré la présence d'une volumineuse splénomégalie sans autres anomalies (figure 1).

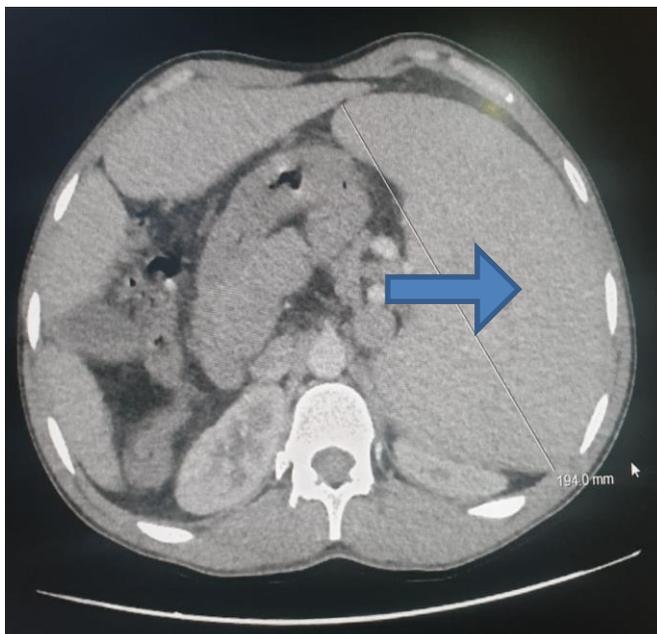


Figure 1. Splénomégalie mesurant 19,4 cm à la TDM abdominale

Le myélogramme et la biopsie ostéo-médullaire (BOM) étaient normaux, la lactico-déshydrogénase était élevée à 700 UI/L.

La patiente a bénéficié d'une splénectomie dont l'étude histologique et immunohistochimique était en faveur de LNH diffus à grandes cellules B CD20+ ; CD19+ ; CD79a+ ; KI67 à 80% (2 lectures dans deux laboratoires différents).

Traitement et l'évolution : La patiente a été mise sous protocole d'immunochimiothérapie (RCHOP : Rituximab 375mg/m² en intraveineux (iv), cyclophosphamide 750mg/m² iv, oncovin 2 mg iv, prednisolone 100mg par voie orale, et doxorubicine 50mg/m² iv) tous les 21 jours qui constitue le traitement de référence de LNH diffus à grandes cellules B avec antibioprophylaxie à base de pénicilline V pour la prévention des infections à pneumocoques. Elle a reçu 6 cures au total sans complications liées à la chimiothérapie. L'évolution était marquée par l'amélioration de l'état général, la TDM cervico-thoraco-abdomino-pelvienne était normale après 3 cures et en fin de traitement. Elle est toujours en rémission complète après 2 ans de recul.



Discussion

Le LNH primitif de la rate se définit par une atteinte limitée à la rate et aux ganglions hilaires spléniques sans notion d'adénopathies superficielles ou profondes, ni hépatomégalie, avec l'absence de leucémisation au moment de diagnostic et l'absence de rechute dans les 6 mois après la splénectomie (4).

La localisation primitive de lymphome splénique est beaucoup moins rare que l'atteinte secondaire à une forme systémique (la rate est envahie dans 50 % des lymphomes de Hodgkin et 33 % des cas de LNH dans le cadre d'une maladie systémique).

Il survient essentiellement chez les sujets âgés (la sixième et la septième décennie). Ce n'est pas le cas dans notre actuelle présentation.

La symptomatologie clinique est non spécifique et polymorphe allant d'une forme plus ou moins asymptomatique faite de splénomégalie isolée qui peut parfois être responsable des douleurs de l'hypochondre gauche jusqu'à une forme brutale responsable d'une altération de l'état général ou rupture splénique ou infiltration d'organe de voisinage (pancréas, colon, estomac) (5-6). Notre patiente avait une splénomégalie symptomatique isolée d'évolution chronique.

Aucun signe biologique n'est spécifique, la lactate déshydrogénase LDH et la B2-microglobuline peuvent être élevés (5-6). Pour le cas en discussion, le taux de LDH était élevé connu un facteur pronostic défavorable tandis que la B2-microglobuline n'a pas été réalisée chez notre patiente.

Aucun signe radiologique n'est spécifique du diagnostic de LNH primitif de la rate. L'échographie abdominale peut montrer plusieurs images dont les plus fréquentes sont celles des lésions spléniques hypoéchogènes. La TDM abdominale objective le plus souvent des masses spléniques tissulaires, tandis que la Tomographie par émission des positons (TEP) montre une hyperfixation splénique dans toutes les localisations néoplasiques spléniques, qu'elles soient primitives ou secondaires (6). Dans le cas présent, on a réalisé tout un bilan infectieux, immunologique et radiologique afin de trouver l'origine de la splénomégalie. Après l'élimination de toute cause évidente, la décision était de réaliser la splénectomie à visée diagnostique et curative.

Le bilan d'extension permet l'appréciation du pronostic, et conditionne la prise en charge thérapeutique. Il doit comporter systématiquement

un examen clinique minutieux, une TDM cervico-thoraco-abdominopelvienne, et une biopsie ostéomédullaire pour éliminer une forme systémique. Le pronostic dépend essentiellement de l'âge > 60 ans, la LDH, la PS >1 et l'étendue de la maladie déterminée lors de l'acte chirurgical (stade I : atteinte limitée à la rate, stade II : atteinte des ganglions hilaires spléniques, stade III : atteinte des autres ganglions en dehors de hile splénique) (7). Dans notre cas, la maladie est classée stade II avec LDH élevée et PS à 2.

La splénectomie est le traitement de choix dans les lymphomes non hodgkiniens diffus à grandes cellules B de localisation splénique primitive malgré sa relative morbi-mortalité du fait de ses complications infectieuses et thrombotiques. Elle permet d'empêcher la diffusion tumorale à travers le site primitif et éliminer la possibilité de rechute locale et prolonger la survie globale.

L'immuno-chimiothérapie type Rituximab, Endoxan, Cyclophosphamide, Prednisolone, Doxorubicine (RCHOP) avec ou sans radiothérapie après splénectomie permet de prolonger la survie globale de LNH splénique primitif diffus à grandes cellules B (8-9). Notre patiente a bénéficié d'une splénectomie suivie d'une chimiothérapie RCHOP.

Conclusion :

LNH splénique primitif est une tumeur rare nécessitant un diagnostic précoce d'où l'intérêt d'y penser devant toute splénomégalie isolée d'origine indéterminée. La prise en charge nécessite une splénectomie diagnostique et thérapeutique avec chimiothérapie adjuvante.

Conflit d'intérêt ^ v

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêt.

Contribution des auteurs ^ v

Tous les auteurs ont contribué à la réalisation de cet article.

Le rapport de cas a été rédigé par Amine Benmoussa, les figures et les références ont été assurées par Kawtar Tlouhi, les autres coauteurs ont révisé l'article. Tous les auteurs ont lu et approuvé la version finale de ce manuscrit.

Références

1. P.G. Sun, B. Cheng, G.F. Wang, P. He. Fever of unknown origin revealed to be



primary splenic lymphoma: a rare case report with review of the literature. *Mol. Clin. Oncol.* 2017; **6**:177–181.

2. Khalid S, Daw JH, Daw H, Haddad A. Primary Splenic Diffuse Large B-Cell Lymphoma: A Rare Case of Massive Splenomegaly and Thrombocytopenia. *Cureus* 2018; **10** (7): e3026.
3. Djokic M, Plesnik B, Petric M, Trotovssek B. Massive splenomegaly due to B-cell lymphoma: A case report. *Int J Surg Case Rep.* 2018; **48**:76-78.
4. Fallah J, Olszewski A. Diagnostic and therapeutic splenectomy for splenic lymphomas: analysis of the National Cancer Data Base. *Hematology* 2019; **24** (1): 378–386.
5. Paes F, Kalkanis D, Sideras P, Serafini A. FDG PET/CT of extra-nodal involvement in Non-Hodgkin lymphoma and Hodgkin disease. *RadioGraphics* 2010; **30**:269–291.
6. VanVliet J. Primary DLBCL spleen. *Journal of Diagnostic Medical Sonography* 2010; **26** (3):147–149.
7. Safe P., Ali M., Ghadi M., Faz A., Peyvandi H. Primary splenic lymphoma, a rare yet possible diagnosis: a case report and review of the literature. *Int. J. Cancer Manage* 2019; **12** (9): e96494.
8. Konstantiadou I, Mastoraki A, Papanikolaou I, Sakorafas G, Safioleas M. Surgical approach of primary splenic lymphoma: Report of a case and review of literature. *Indian J Hematol Blood Transfus* 2009;**25** (3) :120–124.
9. Iannitto E, Tripodo C. How I diagnose and treat splenic lymphomas. *Blood* 2011; **117** (9):2585–2595.

Comment citer cet article: Benmoussa A, Tlohi K, Qachouh M, Khoubila N, Cherkaoui S, Imchaheb M, *et al.* Lymphome B diffus à grandes cellules splénique primitif: une rare cause de splénomégalie isolée. *Ann Afr Med* 2023; **16** (2): e5127-e5130. <https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.13>



Association entre pancréatite aiguë et hyperparathyroïdie : à propos de deux cas observés à Antananarive

Association between acute pancreatitis and hyperparathyroidism: a report of two cases from Antananarivo

Indretsy Mahavivola Ernestho-ghoud¹,
Fanjandrainy Rasoaherinomenjanahary²,
Ny Ony Narindra¹, Lova Hasina Rajaonarison³,
Luc Hervé Samson², Ahmad Ahmad³

Andrianaivalona, Antananarivo 101,
Madagascar

Correspondance

Ernestho-ghoud Indretsy Mahavivola
Courriel: ernesthoughoud@gmail.com

Service de Médecine Interne, Clinique
Médicale Privée, Antananarivo 101,
Madagascar

Summary

Acute pancreatitis (AP) associated to the hyperparathyroidism (PHPT) has been rarely reported, particularly from Sub-saharan Africa. So, we aimed to report a case that illustrates interactions between AP and PHPT. The case consists of a 23-year-old woman who developed AP, primary hyperparathyroidism and hypercalcemia. And the second case consists of 30 years old woman who developed AP, secondary hyperparathyroidism and hypocalcemia. AP and hyperparathyroidism were considered unrelated and their coexistence was attributed to independent hypercalcemia and high level of parathormone.

Keywords: Acute pancreatitis, hyperparathyroidism, Morbidity association

Received: March 26th, 2022

Accepted: January 16th, 2023

<https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.14>

1. Service de Médecine Interne, Clinique Médicale Privée, Antananarivo 101, Madagascar
2. Service de Chirurgie Viscérale, Centre Hospitalier Universitaire Joseph Ravoahangy Andrianaivalona, Antananarivo 101, Madagascar
3. Service d'Imagerie Médicale, Centre Hospitalier Universitaire Joseph Ravoahangy

Résumé

La pancréatite aiguë (PA) est rarement associée à l'hyperparathyroïdie, en particulier en Afrique Subsaharienne. Nous rapportons deux cas cliniques épinglant l'interaction possible entre la PA et l'hyperparathyroïdie. Il s'agissait d'une part d'une patiente âgée de 23 ans, présentant une PA et une hyperparathyroïdie primaire associée à une hypercalcémie, et d'autre part une patiente de 30 ans, suivie pour une pancréatite aiguë associée à une hyperparathyroïdie secondaire avec une hypocalcémie. La PA et l'hyperparathyroïdie étaient considérées comme indépendants et leur coexistence était attribuée à des processus indépendants liés à l'hypercalcémie et l'hyperparathormonémie.

Mots-clés : Pancréatite aiguë, Hyperparathyroïdie, Association morbide

Reçu le 26 mars 2022

Accepté le 16 janvier 2023

<https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.14>

Introduction

Le lien de causalité entre la pancréatite aiguë (PA) et une hyperparathyroïdie est encore controversé (1). La physiopathologie exacte de la PA au cours de l'hyperparathyroïdie est encore mal élucidée. Son évolution est tout aussi imprévisible. Une PA associée à une hyperparathyroïdie est une pathologie grave potentiellement mortelle. Compte-tenu de sa rareté, peu de données sont disponibles en Afrique Subsaharienne. Les auteurs évoquent la possibilité des interactions entre la PA et l'hyperparathyroïdie au travers de deux cas de PA associées à une hyperparathyroïdie afin d'attirer le clinicien sur l'importance d'une



approche multidisciplinaire en vue d'une

Observation 1

Une femme âgée de 23 ans, a été admise en urgence pour douleur abdominale diffuse avec paroxysme associée à des vomissements, évoluant depuis une semaine, dans un contexte apyrétique sans notion d'imprégnation alcoolo-tabagique ni d'antécédent morbide particulier. A l'examen physique, il y avait essentiellement une sensibilité épigastrique, une attitude en position de chien de fusil au moment de la poussée. Il n'y avait pas d'hépatosplénomégalie ni d'adénopathie. L'indice de performance status (IPS) était coté à 3 et l'indice de masse corporelle était à 22 Kg/m² (pour une taille de 1,62 et un poids de 60 kg). La pression artérielle était à 100/60 mmHg avec une fréquence cardiaque à 100 bpm. Le reste de l'examen clinique était sans particularité. Aux examens biologiques: la lipasémie était élevée à 1770U/L (<60 U/L) et la calcémie élevée à 3,08 mmol/L (2,20-2,65 mmol/L), la parathormone intact élevée à 310 pg/ml (8,8-10,6 pg/ml). L'hémogramme a montré une anémie microcytaire avec hémoglobine à 105 (110-160 g/L), une hyperleucocytose à 12 000 (3,8-11 G/L) et des plaquettes normales. On a noté une CRP à 62 mg/dL (< 10 mg/dL). Les bilans auto-immuns étaient normaux. Le scanner abdominal montrait des images en faveur d'une pancréatite aiguë nécrotico-hémorragique de grade E de Balthazar, avec nécrose d'environ du tiers du parenchyme pancréatique notamment céphalique. Il n'existait pas d'argument scanographique pouvant orienter vers la cause de cette pancréatite : pas d'image de calcul suffisamment dense pour être visible au scanner sur les voies biliaires (Figure 1).

meilleure prise en charge.



Figure 1 : scanner abdominal après injection de produit de contraste au temps parenchymateux pancréatique, montrant une pancréatite aiguë nécrotico-hémorragique de grade E de Balthazar, avec nécrose notamment céphalique (Flèche). Il n'existait pas d'argument scanographique pouvant orienter vers la cause de cette pancréatite : pas d'image calcul suffisamment dense pour être visible au scanner sur les voies biliaires. Le pancréas « sain » ne présente pas d'anomalie focale notamment pas d'image de pseudocapsule faisant suspecter une pancréatite auto-immune.

L'échographie parathyroïdienne n'était pas faite. Etait retenu le diagnostic d'une pancréatite aiguë avec une hyperparathyroïdie primaire (HPTP) compliquée d'une hypercalcémie. Elle a bénéficié d'un traitement symptomatique de la pancréatite aiguë et de l'hypercalcémie (pose de sonde nasogastrique, antalgique, repos gastrique, nutrition parentérale, réhydratation). A un an de suivi, l'évolution clinico-biologique était favorable avec normalisation de la lipasémie à 11 (< 60 U/L), une calcémie normale à 2,20 mmol/L (2,20-2,65 mmol/L), une parathormone intact 450 (8,8-10,6 pg/ml). Le scanner abdominal de contrôle était sans particularité.

Observation 2

Une femme de 30 ans sans intoxication alcoolo-tabagique sans antécédent morbide particulier, a été hospitalisée pour des œdèmes



des membres inférieurs et une dyspnée d'effort d'installation progressive. Elle avait une hypertension artérielle aux alentours de 300/160 mmHg, très mal traitée. Elle avait connue aussi une insuffisance rénale chronique terminale, oligo anurique, non dialysée. Son traitement habituel était constitué de Telmisartan®, Amlodipine®, Carvedilol® et Atorvastatine®. A l'entrée, l'indice de performance status (IPS) était coté à 3 et l'indice de masse corporelle était à 26 Kg/m² (pour une taille de 1,60 et poids à 60 kg). La pression artérielle était à 300/180 mmHg avec une fréquence cardiaque à 100 bpm. L'examen retrouvait des œdèmes des membres inférieurs bilatéraux prenant le godet, une pâleur cutanéomuqueuse, souffle mésosystolique à 4/6, la diurèse était conservée à 500 cc par 24 h. Le reste de l'examen clinique était sans particularité sans organomégalie ni d'adénopathie. Aux examens complémentaires, la créatininémie était élevée à 1700 umol/L soit un débit de filtration glomérulaire estimé de 2 ml/min/1,73m² selon la formule MDRDs, la calcémie basse à 1,88 mmol/L (2,20-2,65 mmol/L), la parathormone intacte élevée à 1277 pg/ml (8,8-10,6 pg/ml), une hyperphosphorémie à 3,3 (0,88-1,61 mmol/L). L'hémogramme a montré une anémie normochrome normocytaire avec hémoglobine à 6,5 (110-160 g/L), globules blancs et plaquettes normaux. La CRP était élevée à 48 mg/dL (< 10mg/dL). Les bilans auto-immuns étaient normaux. Devant ces bilans, le diagnostic retenu était la maladie rénale chronique (MRC) au stade 5 sur une néphroangiosclérose probable, compliquée d'une hyperparathyroïdie secondaire. A ce stade, l'objectif du traitement était de suppléer à la fonction rénale et soigner les complications. Ainsi, elle avait bénéficié de 3 séances de dialyses par semaine, adaptation de traitements antihypertenseurs, transfusion sanguine isogroupe isorhésus au moment de la dialyse. L'évolution a été marquée par l'apparition rapide d'une douleur abdominale diffuse avec paroxysme associée à des vomissements, dans un contexte apyrétique. A l'examen physique, il y avait essentiellement

une sensibilité épigastrique, une attitude en position de chien de fusil au moment de la poussée. Aux examens paracliniques supplémentaires, la lipasémie était élevée à 569 U/L (<60 UI/L), l'amylasémie à 562 (<60 UI/L). Le triglycéride était normal. Le scanner abdominal a visualisé une pancréatite aiguë stade D de Balthazar. Ainsi, un repos digestif, un antalgique et une réhydratation ont été prescrits. L'échographie parathyroïdienne n'a pas été réalisée. L'évolution clinico-biologique était favorable à un an de suivi.

Discussion

Nos deux patientes ont présenté une pancréatite aiguë résolutive et respectivement, une hyperparathyroïdie primaire (HPTP) hypercalcémique et une hyperparathyroïdie secondaire hypocalcémique, écartant le lien de causalité entre PA, hypercalcémie et hyperparathyroïdie.

D'après une revue francophone en 2009, l'HPTP peut être considérée comme responsable d'une pancréatite aiguë lorsque la seule étiologie retrouvée est l'hypercalcémie et que la pancréatite ne récidive pas après une parathyroïdectomie (2). Cette hypothèse est confirmée par Misgar *et al.* en 2020 (3), qui rapportent 14 cas de PA sur 242 patients atteints de l'HPTP. Ces patients ne présentent pas d'autre facteur de risque de PA. Le groupe des patients HPTP avec PA avaient un taux de calcium sérique et ALP (Amylasémie, Lipasémie et Parathormone intact) significativement plus élevés que les patients atteints d'HPTP sans pancréatite. Cette PA était le mode initial de découverte de l'HPTP. Après 16 mois de parathyroïdectomie, ces 14 patients ne présentent plus de PA. Ceci semblait supposer que les lésions pancréatiques étaient spécifiques de l'HPTP et que la parathyroïdectomie prévient la PA. En 2009, cette revue Francophone (2) compare un groupe de patients ayant une HPTP avec une pancréatite aiguë (groupe A, 19 patients) à un groupe de patients ayant une HPTP mais pas de pancréatite aiguë (groupe B, 65 patients). L'âge, le taux de parathormone et le substratum anatomopathologique (maladie uni/multiglandulaire) étaient semblables dans



les deux groupes. Le seul facteur pronostique de l'apparition d'une PA était un taux de calcémie qui était plus élevé dans le groupe A (3,16 mmol/l) que dans le groupe B (2,82 mmol/l) ($p < 0,0001$) (C). Ce travail confirme la possibilité d'un lien de causalité entre l'HPTP et la PA. Il montre l'importance de l'hypercalcémie sur l'incidence d'une PA. Plusieurs groupes estiment que l'association pancréatite-hyperparathyroïdie n'est pas fortuite et qu'il existe un lien de causalité entre ces pathologies, même s'il n'existe pas de preuve expérimentale formelle (4-5). En 2016, une étude Sénégalaise (6), avait rapporté cinq cas de PA atteints de l'HPTP. Quatre patients avaient un taux de calcémie en dessous de 130 mg/dL respectivement (104 mg/dL; 117 mg/dL; 119 mg/dL; 128 mg/dL). Parmi ces quatre cas, un seul patient présentait une atteinte pancréatique sévère à l'image scanographique, responsable de son décès. Seul Bess *et al.* (1) sont restés sceptiques quant à leur interaction. Une étude Américaine publiée en 2009 (6) démontre l'absence de lien de causalité et est arrivée à conclure que cette association reste fortuite. Cette même étude avait souligné qu'il était inutile de passer à une parathyroïdectomie devant une pancréatite aiguë récidivante. Cette étude a comparé un groupe de patients ayant une HPTP avec une pancréatite aiguë (groupe A, 10 patients) à un groupe de patients ayant une HPTP mais pas de pancréatite aiguë (groupe B, 674 patients). De plus, les taux de calcium sérique et le groupe HPTP n'étaient pas significativement associés au développement d'une PA. Cette étude n'a pas identifié de PA récurrente malgré le fait que la plupart des patients avec HPTP ont été observés. Ces résultats suggèrent que la relation entre la PA et l'HPTP est une association fortuite, et donc la PA ne devrait pas être considérée comme une indication pour la chirurgie parathyroïdienne.

D'après ce tableau 1 de comparaison entre les deux études francophones et américaines, 65 patients dans l'étude francophone avaient une hypercalcémie à 11,28mg/dL mais ils n'avaient pas développé une PA (2).

Tableau 1. Comparaison du taux de la calcémie dans les études francophones et américaines

Calcémie moyenne en mg/dL	HPTP sans PA	HPTP avec PA	P
Etude francophone en 2009 (2)	11,28 mg/dL (65 patients)	12,64 mg/dL (19 patients)	< 0,0001
Etude américaine en 2009 (7)	10,8 ± 0,5 mg/dL (674 patients)	11,0 ± 0,6 mg/dL (10 patients)	> 0,05

N.B. 1mg/dL correspond à 0,25mmol/L. Il n'existe pas d'intervalle de confiance (IC 95 %) dans l'étude francophone.

En effet, l'hypercalcémie seule aux alentours de 11.0 ± 0,6 mg/dL ne pouvait pas expliquer à elle seule la survenue de l'atteinte pancréatique chez 10 patients dans l'étude américaine, qui est en dessous du seuil de 12 mg/dL (7). Une autre hypothèse a été évoquée et correspond à l'action toxique directe de la parathormone sur le pancréas. Cependant, cette hypothèse n'explique pas pourquoi les dialysés chroniques, qui ont souvent une parathormone élevée, ne font pas plus de pancréatites aiguës que la population générale (8) et la parathormone n'est pas très élevée chez les patients atteints de pancréatite au cours de l'hyperparathyroïdie (2, 8). De plus, cette hypothèse ne justifie pas non plus les pancréatites aiguës dues à des intoxications à la vitamine D. Les auteurs rapportent un cas de PA avec hypercalcémie alors que le taux de parathormone est dans la limite supérieure de la normale (9). Par conséquent, le taux très différents de parathormone dans nos deux cas n'était pas en faveur du rôle direct de cette hormone dans le mécanisme de la PA. D'autant plus que la PA disparaissait mais l'hyperparathyroïdie persistait et n'était pas responsable de récurrences de PA à un an de suivi. Ceci semblait indiquer qu'il s'agissait seulement d'une association fortuite morbide chez un même patient. On pouvait en déduire que l'hyperparathyroïdie est associée à une PA mais pas une cause de cette dernière. Ces études ont été réalisées dans le but de lever le doute au vu de la prévalence élevée de la PA au cours de l'hyperparathyroïdie, d'autant plus que les preuves publiées sont controversées et n'établissent pas un lien de causalité. L'unicité de notre cas ne permettait pas la comparaison avec les données de la littérature. Toutefois, la rareté de cette affection,



fait que notre cas pourrait constituer un supplément de données permettant d'éclaircir certains points et d'apporter des explications sur cette pathologie en Afrique Subsaharienne. La PA et l'hyperparathyroïdie étaient considérées comme étant indépendantes et leur coexistence était attribuée à des processus indépendants liés à l'hypercalcémie et l'hyperparathormonémie. D'après la dernière recommandation de 2014, le traitement chirurgical de l'hyperparathyroïdie est recommandé en cas d'hypercalcémie marquée, d'atteinte osseuse, rénale ou d'âge < 50 ans et chez les patients chez qui la surveillance n'est pas souhaitée ou possible (10).

Pour revenir à notre observation, et en se basant sur les données des littératures Francophones, Américaines et Sénégalaises, malgré les controverses, l'association entre PA et hyperparathyroïdie pouvait aussi affecter les sujets de race noire. Ces études démontrent la présence d'un biais quant à la définition du taux de la calcémie associée à une PA. Même une hypocalcémie ou une calcémie modérément élevée pouvait être associée à une PA. La plupart des auteurs n'ont pas trouvé de liens de causalité mais une simple association morbide de façon fortuite entre la PA et l'hyperparathyroïdie. Cependant, ces deux pathologies étaient considérées comme étant indépendantes et leur coexistence était attribuée à des processus indépendants liés à l'hypercalcémie et l'hyperparathormonémie. Leur présence n'était pas suffisante pour pouvoir établir un lien de causalité. Par ailleurs, la décision de recourir à une intervention chirurgicale devait être bien étudiée car les indications opératoires de parathyroïdectomie de PA sont exceptionnelles voire nulle à ce jour. Pour cette raison, la parathyroïdectomie peut être proposée mais elle ne doit pas être pratiquée dans le but de guérir la récurrence de la PA. A priori, le suivi de ces patients devrait être différent d'un suivi classique afin de dépister et prévenir ces complications.

Conclusion

L'hyperparathyroïdie et la PA coexiste chez notre patiente de façon fortuite mais sans un lien de causalité. Cependant, l'hyperparathyroïdie avec l'hypercalcémie ou hypocalcémie et la PA sont des affections courantes associées à une morbidité, mortalité et une invalidité importante. Ce qui devrait susciter une approche multidisciplinaire entre interniste, gastro-entérologue, endocrinologue et un diététicien afin d'améliorer la

prise en charge. Toutefois, d'autres études sont nécessaires pour identifier de tels facteurs.

Conflit d'intérêt

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêts en relation avec cet article.

Contribution des auteurs

Tous les auteurs ont contribué équitablement à la réalisation et la rédaction du manuscrit. Ils ont tous approuvé la version finale et révisée du manuscrit.

Références

1. Bess MA, Edis AJ, Van Heerden JA. Hyperparathyroidism and pancreatitis. Chance or causal association? *JAMA* 1980; **18**: 246-247.
2. Curtoa C, Caillarda C, Desurmontb T, Sebage F, Brunaudd L, Kraimps JL. Pancréatite aiguë et hyperparathyroïdie primaire : étude multicentrique de l'Association francophone de chirurgie endocrinienne. *J Chir* 2009; **146**:270-274.
3. Misgar RA, Bhat MH, Rather TA, Masoodi SR, Wani AI, Bashir MI, et al. Primary hyperparathyroidism and pancreatitis. *J of Endocrinol Invest* 2020; **43**:1493-1498.
4. Agarwal A, George RK, Gupta SK, Mishra SK. Pancreatitis in patients with primary hyperparathyroidism. *Indian J Gastroenterol* 2003; **22** : 224-225.
5. Felderbauer P, Karakas E, Fendrich V, Bulut K, Horn T, Lebert R, et al. Pancreatitis risk in primary hyperparathyroidism: relation to mutations in the *SPINK 1* trypsin inhibitor (N34S) and the cystic fibrosis gene. *Am J Gastroenterol* 2008; **103**: 368-374.
6. Diallo I, Fall CA, Ndiaye B, Mbaye M, Diedhiou I, Ndiaye AR, et al. Primary Hyperparathyroidism and Pancreatitis: A Rare Association with Multiple Facets. *Int Sch Res Avis* 2016; **2016**: 7294274. doi: 10.1155/2016/7294274.
7. Teck Kim Khoo, SanthiSwaroop Vege, Haitham S. Abu-Lebdeh, EuijungRyu, Sarah Nadeem. Acute Pancreatitis in Primary Hyperparathyroidism: A Population-Based Study. *J Clin Endocrinol Metab* 2009; **94** (6): 2115-2118.



8. Jacob JJ, John M, Thomas N, Chacko A, Cherian R, Selvan B, *et al.* Does Hyperparathyroidism cause pancreatitis? A south Indian experience and a review of published work. *ANZ J Surg* 2006; **76**: 740-744.
9. Knackstedt C, Winograd R, Koch A, Abuzahra F, Trautwein C, Wasmith HE. Acute necrotic pancreatitis induced by severe hypercalcaemia due to tacalcitol ointment. *Br J Dermatol* 2007; **156** : 576-577.
10. Crouzeix G, Kerlan V. Hyperparathyroïdie primaire : nouveaux concepts, nouvelles recommandations. *Ann Endocrinol* 2014 ; **75** (1): S21-S36.

Comment citer cet article: Ernestho-ghoud IM, Rasoaherinomenjanahary F, Rajaonarison NNL, Samson LH, Ahmad A. Association entre pancréatite aigue et hyperparathyroïdie: à propos de deux cas observés à Antananarive. *Ann Afr Med* 2023; **16** (2): e5128-e5136. <https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.14>



Case report

Diagnosed cerebral cortical venous thrombosis after initiation of chemotherapy for Burkitt's lymphoma: a case report

Thrombose veineuse cérébrale corticale diagnostiquée après initiation de la chimiothérapie pour un lymphome de Burkitt : à propos d'un cas

Mohamed Siboub

Correspondence

Mohamed Siboub

Department of Clinical Hematology and Marrow Transplantation, Center Hospitalier Universitaire Mohammed VI, Faculty of Medicine and Pharmacy, Cadi Ayyad University, Marrakech, Morocco

Marrakech, Avenue Ibn Sina, BP 2360, Marrakesh, Morocco

Courriel : simohamedsiboub@hotmail.com

Téléphone : +212645764320

Résumé

La thrombose veineuse cérébrale (TVC) dans le contexte du lymphome constitue un événement rare pouvant être grave et mettre en jeu le pronostic vital. L'évaluation des facteurs de risque pour une bonne stratification des patients est nécessaire avant tout traitement antitumoral. A travers cette observation rare et inhabituelle de TVC survenue après le début du traitement, nous attirons l'attention des praticiens sur l'intérêt d'une prophylaxie primaire des patients diagnostiqués avec lymphome à haut risque de maladie thrombo-embolique veineuse.

Mots-clés : facteurs de risque, lymphome de Burkitt, thrombose veineuse cérébrale

Reçu le 18 décembre 2022

Accepté le 1 février 2023

<https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.15>

Summary

Cerebral venous thrombosis in lymphoma is rare and can be serious and potentially fatal. Evaluation of risk factors for correct stratification is required before antitumor treatment. Initiation of chemotherapy for bulky tumors can induce thrombosis in unusual localizations, which can be a serious diagnostic and therapeutic problem.

Through an unusual and rare observation, we insist on the importance of primary prophylaxis of patients diagnosed with lymphoma with high risk of venous thrombo-embolic disease.

Keywords: Cerebral venous thrombosis, Burkitt's lymphoma, Risk factors

Received: December 18th, 2022

Accepted: February 1st, 2023

<https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.15>

Introduction

Development of thromboembolic complications in patients with solid malignancies is well recognized and studied. This condition was explained by hypercoagulability secondary to excessive production of pro-coagulants in addition to inadequate interaction of tumor cells with the organism's cells, especially platelets (1). Several studies have evaluated risks in lymphomatous pathology according to subtypes, permitting stratification of patients into groups (2). Burkitt's lymphoma, being one of aggressive lymphomas, has not been well included in most of these studies (Burkitt's lymphoma is rare in adults, usually less than 1 % of NHLs).

We report the case of patient with Bulky Burkitt's lymphoma who developed cerebral venous thrombosis after starting chemotherapy.



Patient and observation

A 31-year-old male patient with no prior clinically pathological history developed a rapidly growing cervical mass in the absence of general symptoms. The clinical examination found a performance status of 0, a basic-cervical mass of 3cm/4cm with no inflammatory signs and no other associated abnormalities.

Ultrasonography revealed a cervicomediastinal mass that was biopsied to confirm diagnosis of Burkitt's lymphoma. Extension evaluation did not find any meningeal or spinal cord involvement and Positron emission tomography scanning (Pet-scan) helped to characterize cervical mass with no other lesions (Figure 1).

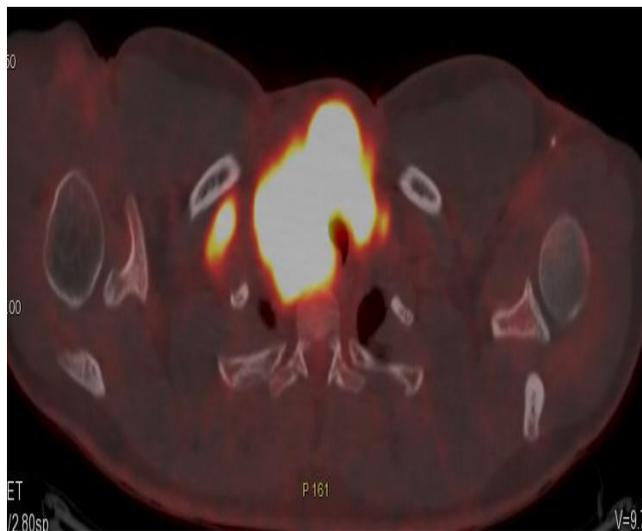


Figure 1: **Pet-CT** showing bulky hypermetabolic mass of the superior mediastinum with tracheal compression.

Patient was classified as group I (no neurological or spinal cord involvement) and stage III of Murphy. Prophylactic anticoagulation was initiated with low-molecular-weight heparin (MWH) and treatment with LMB02 protocol was initiated:

Cyclophosphamide (first day: 300mg/m²), Vincristine (first day: 1mg/m²) and Prednisolone (60 mg/m² D1 to D7). Five days after chemotherapy began, we observed a clear decrease of cervical mass, but unusual headaches appeared. Brain magnetic resonance

imaging (MRI) showed a left parietal cortical venous thrombosis with minor venous infarction (Figure 2).

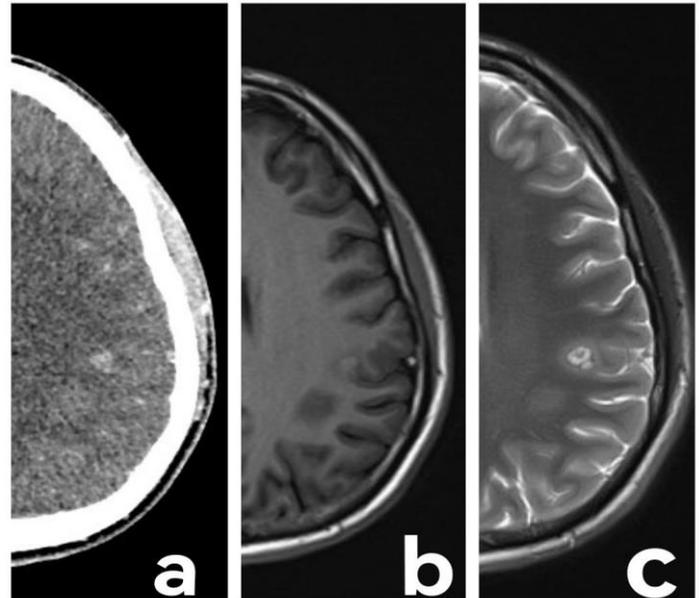


Figure 2: Brain imaging highlighting left parietal cortical venous thrombosis.

(a) **Injected brain scan** (b) **Cerebral MRI in T1** (c) **Cerebral MRI in T2**

Investigations of thrombophilia and systemic disease were normal. Curative anti-coagulation was applied.

Evolution was characterized by improvement of headache and no neurological deficits were previously described.

Patient was satisfied with good evolution: decrease in cervical mass and disappearance of headaches.

Discussion

It is evident that lymphoma represent a risk factor for venous thrombosis development. Several scores have been developed to stratify patients and propose primary prophylaxis regimens (2).

Prevalence of thrombosis is highly variable: 4.7% of Hodgkin lymphomas rising to 6.5% in non-Hodgkin lymphoma. Cerebral venous thrombosis represents 0.5 to 1% of unplanned admissions to neurology, and is more common in young subjects with median age at 33 years, particularly women, most probably due to



hormonal variations (pregnancy and use of estrogen-progesterone contraceptives) (3).

This isolated localization is very rarely associated with lymphoma. It is most often asymptomatic, sometimes leads to focal deficit signs depending on the territory and rarely to convulsions (4).

In the group of patients with NHL, several situations have been identified as high risk with a prevalence exceeding 50 %: aggressive histological forms (in particular diffuse large B-cell lymphoma), bulky involvement (more than 10 cm) and initial localizations in central nervous system and mediastinum (5).

Other known risk factors for solid cancers may increase morbidity and mortality: advanced age, female gender, immobility or prolonged confinement to bed, and association with other comorbidities (such as liver failure, renal disease and history of thrombosis) (2).

Biologically, elevated LDH, hypoalbuminemia, presence of paroxysmal nocturnal hemoglobinuria (HPN) clone and very recently white blood cell count above 11,000 are considered as risk factors for thrombosis. Thrombophilia testing should be encouraged because the risk increases from 5 to 12 in cancer patients. Detection of JAK2 V617F mutation has been reported in several studies (6).

Treatment of venous thrombosis is imperative even if asymptomatic and affecting small veins. This treatment must be started as soon as the diagnosis is made and it is based on an effective anticoagulation associated with control of patient's context (sepsis; usage of pro-thrombotic drugs etc...). LMWH is the gold standard treatment for CVT, generally administered in fractionated doses (two doses over 24 hours), which helps to avoid hemorrhagic transformation. Post-chemotherapy thrombocytopenia generally requires dosage adjustment, change or sometimes temporary discontinuation of anticoagulant therapy. When signs of intracranial tension are present, associated treatment may be proposed depending on the patient's context: Mannitol, hyperventilation, very rarely therapeutic lumbar punctures (7).

Regarding the treatment of lymphoma, the use of granulocyte growth factor and protocols containing Doxorubicin may increase the risk of thrombosis (8).

Currently, there are no specific recommendations for primary prophylaxis in lymphoma setting, and decision remains with clinician after appropriate assessment of risk and feasibility of such prophylaxis.

Conclusion

Risk of thromboembolic complications in lymphomatous pathology is very heterogeneous, which makes it difficult to set up systematic recommendations for prophylaxis and therapeutic management.

Competing interests

The author declares that he had no competing interests.

Authors' contributions

MS was responsible for the diagnosis and treatment. He analyzed and interpreted the patient data. MS approved the final manuscript.

Consent for publication

Written informed consent was obtained from the patient for publication of this case report and any accompanying images.

References

1. Xian Z, Chen Y, Chen L, Lu Q, Huang G, Qin Q, *et al.* A clinical research on the potential pathogenesis of somatic cancer related cerebral venous sinus thrombosis. *Medicine* (Baltimore). 2019 May;**98** (19):e15134.
2. Hohaus S, Bartolomei F, Cuccaro A, Maiolo E, Alma E, D'Alò F, *et al.* Venous Thromboembolism in Lymphoma: Risk Stratification and Antithrombotic Prophylaxis. *Cancers* (Basel). 2020 May 20;**12** (5):1291.
3. Ulivi L, Squitieri M, Cohen H, Cowley P, Werring D. Cerebral venous



thrombosis: a practical guide. *Pract Neurol.* 2020 Oct;**20** (5):356-367.

4. Gagneja A, Birinder S, Kumar V, Saxena A, Paul G. Neurological Predictors of Functional Outcome in Cortical Venous Sinus Thrombosis. *J Neurosci Rural Pract.* 2022 Mar 10;**13** (2):290-294.
5. Sanfilippo KM, Wang TF, Gage BF, Luo S, Riedell P, Carson KR. Incidence of venous thromboembolism in patients with non-Hodgkin lymphoma. *Thromb. Res.* 2016; **143**:86–90.
6. Dharmavaram G, Cao S, Sundaram S. Aggressive lymphoma subtype is a risk factor for venous thrombosis. Development of lymphoma - specific venous thrombosis prediction models. *Am J Hematol.* 2020; **95**: 918–926.
7. Einhaupl KM, Villringer A, Meister W. Heparin treatment in sinus venous thrombosis. *Lancet* 1991; **338**:597–600.
8. Hohaus S, Tisi MC, Bartolomei F, Cuccaro A, Maiolo E, Alma E, *et al.* Risk factors for venous thromboembolism in patients with lymphoma requiring hospitalization. *Blood Cancer J.* 2018 Jun 7;**8** (6):54.

Cite this paper as: Siboub M. Diagnosed cerebral venous cortical thrombosis after initiation of chemotherapy for Burkitt's lymphoma: a case report. *Ann Afr Med* 2023; **16** (2): e5132-e5137. <https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v16i2.15>