

# De nouvelles techniques dans l'approche vidéo-assistée des malformations génitales des enfants

## New Video-Assisted Techniques in Treatment of Children Genital Malformations

I Drăghici [1], M Popescu [2], C Esposito [3], L Drăghici [1]

1. Université de Médecine et Pharmacie « Carol Davila » Bucarest, Roumanie.

2. Hôpital d'Urgence pour les Enfants « M.S. Curie » Bucarest, Roumanie.

3. École de Médecine de l'Université « Federico II » Naples, Italie.

### Mots clés

- ◆ Cœlioscopie
- ◆ Génétique
- ◆ Histopathologie
- ◆ Cryptorchidie
- ◆ Hermaphrodisme
- ◆ Fistule utérovaginale

### Résumé

**Objectifs :** Reconnaître l'approche laparoscopique comme une solution privilégiée dans le traitement chirurgical des enfants porteurs de malformations génitales. Puisqu'il ne s'agit pas d'interventions standardisées, il est important pour le chirurgien d'évaluer les risques et les bénéfices de la technique vidéo-assistée dans chaque cas. Les chirurgiens gynécologues hésitent à intervenir, déclinant leurs compétences en matière de patients pédiatriques, et préfèrent opérer les patients adolescents et adultes.

**Matériel et méthode :** Nous présenterons deux cas de malformations génitales rares chez des patients pédiatriques, les premiers de ce type résolus dans notre pays par la chirurgie vidéo-assistée. Nous avons entrepris la première hystérectomie laparoscopique, doublée d'une orchidopexie bilatérale pour un garçon de six ans, dont le diagnostic était une cryptorchidie bilatérale et un équivalent rudimentaire du col utérin. Dans le deuxième cas, celui d'une fille de onze ans porteuse d'agénésie du col de l'utérus et d'utérus bicorne, on a réalisé une néoplastie cervicale utérine vidéo-assistée, laparoscopique, réalisée par abord bipolaire abdomino-vaginal.

**Résultats :** La difficulté des interventions vidéo-assistées consiste dans l'accomplissement de façon mini-invasive des techniques de chirurgie gynécologique, en conservant entièrement l'intégrité et la fonctionnalité des différentes parties de l'appareil génital chez l'enfant.

**Conclusions :** La méthode mini-invasive vidéo-assistée représente, indubitablement, la variante appropriée d'approche chirurgicale pour les patients pédiatriques à malformations génitales rares, sans tenir compte du type d'opération gynécologique que le chirurgien doit effectuer.

### Keywords

- ◆ Laparoscopy
- ◆ Genetics
- ◆ Histopathology
- ◆ Cryptorchidism
- ◆ Hermaphroditism
- ◆ Utero-vaginal fistula

### Abstract

**Objectives:** Acknowledging that the laparoscopic approach is a privileged solution for the treatment of pediatric patients afflicted by genital malformations. Because we do not benefit from standardized interventions it is very important that the surgeon evaluates the risks and the benefits of the video-assisted technique for each clinical case. Gynecologists are reluctant to intervene, declining their skills in pediatric patients and prefer rather adolescents and adult patients.

**Materials and Methods:** We present two cases of rare birth defects in pediatric patients, the first of its kind in our country solved by video-assisted surgery. We performed the first laparoscopic hysterectomy, completed by bilateral orchidopexy for a boy of six, whose diagnosis was bilateral cryptorchidism and a rough equivalent of the cervix. In the second case, an eleven year old girl that presented with agenesis of the cervix and bicornuate uterus, we performed a video-assisted uterine cervicoplasty, using both an open vaginal procedure and laparoscopy.

**Results:** The difficulty of video-assisted interventions is to perform minimally invasive gynecological surgical procedures, fully preserving the integrity and functionality of the different sections of the genital tract in children.

**Conclusions:** The video-assisted minimally invasive method is undoubtedly the chosen surgical approach for pediatric patients with rare genital birth defects, regardless of the type of gynecological operation the surgeon must perform.

Les anomalies du développement sexuel (ADS) sont des anomalies rares dans la population générale, cependant elles comprennent une grande variété de formes cliniques, anatomiques et génétiques. La majorité de ces patients sont diagnostiqués à la naissance, mais parfois le diagnostic est posé plus tardivement chez l'enfant ou l'adolescent et très rare-

ment chez l'adulte. Méconnaître ces anomalies génitales rares peut entraîner des conséquences graves dès la période néonatale sur la santé de l'enfant et de l'adolescent. Les anomalies du développement du sexe (ADS), nommées jusque récemment intersexualité, sont inhabituelles et diagnostiquées souvent à la naissance. Il faut néanmoins tenir compte de

### Correspondance :

Isabela Draghici - Lecturer of Pediatric Surgery

« Carol Davila » University of Medicine and Pharmacy - Bulevardul Eroii Sanitari 8- 050474 - Bucharest, Romania.

Tel : +40 021 318 0762, +40 074 436 4856 / E-mail : isabelamagdalen@yahoo.com

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000

problèmes liés au choix du sexe, au développement psychosexuel et au potentiel de transformation maligne des gonades dysgénétiques.

Un consensus international sur ces anomalies et sur leur prise en charge, propose que la désignation : anomalies du développement sexuel décrive les malformations congénitales avec développement atypique du sexe chromosomique, gonadique et anatomique. Il est également décidé que les terminologies précédemment utilisées, telles que l'hermaphrodisme, soient dorénavant controversées, considérées comme péjoratives et sujettes à confusion (1). Les ADS représentent un groupe hétérogène de malformations qui interfèrent avec la différenciation normale sexuelle de l'embryon et du fœtus. L'incidence des ADS dans la population est estimée à 1 : 5500 (2). Cliniquement nous avons à faire face à une pathologie d'approche multidisciplinaire - chirurgie pédiatrique, anesthésiologie, gynécologie, endocrinologie, embryologie, histopathologie, génétique, radiologie et imagerie, urologie.

## Observations

Nous présenterons deux cas de malformations génitales rares chez des patients pédiatriques, les premiers de ce type résolus en Roumanie par la chirurgie vidéo-assistée.

### Le cas n° 1

Le premier cas est celui d'un garçon de 6 ans avec pseudohermaphrodisme et persistance des canaux Mulleriens, diagnostiqué et traité par abord laparoscopique. Le patient avec antécédents de cryptorchidie bilatérale, sans d'autre ADS connue, a été initialement opéré dans un autre centre par chirurgie ouverte (inguinotomie bilatérale) et ce sans succès, étant par la suite dirigé vers notre service pour réaliser une intervention laparoscopique. A l'examen clinique le patient présentait un pénis d'aspect normal et une absence de testicules dans le scrotum (Fig 1).



Figure 1. L'absence des testicules dans le scrotum.

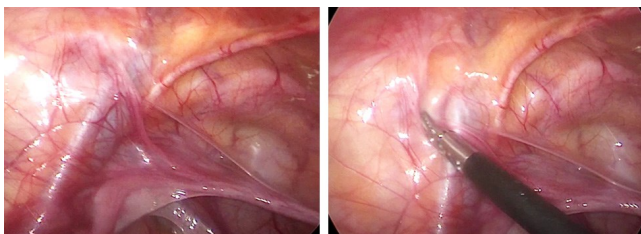


Figure 2. L'orifice inguinal profond gauche et les vaisseaux iliaques gauches.

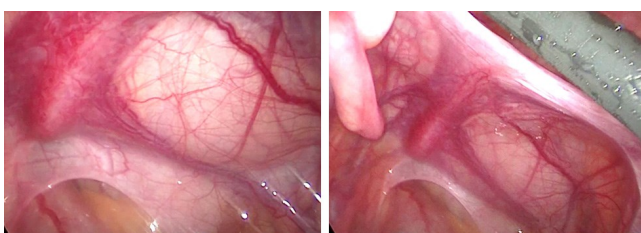


Figure 3. La vessie et le corps utérin avec deux cornes.

Le caryotype préopératoire était 46, XY sur 200 Giemsa Trypsin Leishman (GTL)-banded metaphases dans les lymphocytes périphériques et cultures de fibroblastes cutanées. L'échographie abdomino-inguinale n'a pas été concluante, et le scanner a mis en évidence la présence du testicule gauche au niveau intra abdominal en para vésical, et du testicule droit dans le canal inguinal ipsilatéral. La réalisation d'une intervention laparoscopique à visée diagnostique et thérapeutique a été retenue. Le consentement éclairé de la mère a été sollicité, et obtenu.

### Compte-rendu opératoire

On constate la présence d'un vestige mullerrien (canaux mulleriens) qui englobe la gonade dans le paramètre gauche. On explore l'orifice inguinal profond gauche. On visualise les vaisseaux iliaques gauches (Fig 2). On note un corps utérin fin, long (4 cm), couvert par les feuillets péritonéaux, avec deux cornes d'un côté et de l'autre, ainsi que par la paroi postérieure de la vessie (Fig 3).

On réalise l'incision du péritoine antérieur du paramètre gauche en essayant de disséquer la gonade de l'appareil ligamentaire. Avec le crochet monopolaire on intercepte et on sectionne le ligament rond de la partie gauche de l'utérus en obtenant une mobilité satisfaisante de la gonade (Fig 4).

On pratique la biopsie de la gonade gauche intra abdominale à l'aide de ciseaux, et on réalise un examen histopathologique qui confirme la présence du tissu testiculaire (Fig 5). Par la suite, on descend le testicule du canal inguinal droit dans le scrotum par la méthode classique.

Nous décidons de réaliser l'hystérectomie laparoscopique en association avec l'orchidopexie gauche. Pour ce faire nous incisons le péritoine de l'espace inter vésico-utérin et continuons avec la dissection de l'espace retro-vésical dans un plan exsanguine afin de protéger la paroi postérieure de la vessie d'éventuels incidents perforatifs (Fig 6). Nous incisons le péritoine retro utérin (Fig 7) sans pouvoir individualiser les ligaments utérosacrés.

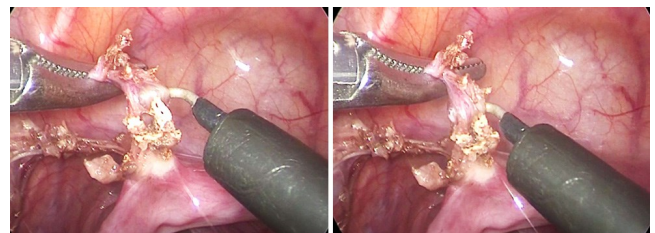


Figure 4. La section du ligament rond de la partie gauche de l'utérus.

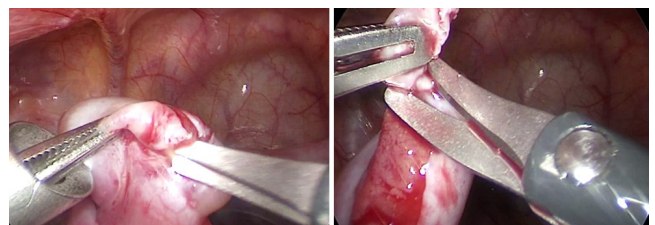


Figure 5. La biopsie de la gonade gauche intra abdominale à l'aide de ciseaux.

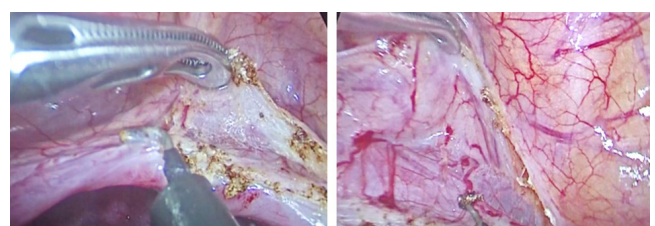


Figure 6. La dissection de l'espace retro-vésical.



Le ligament rond est disséqué de la partie droite, cette dissection émoussée complétée par le tampon monté. Le ligament rond utérin droit est traité avec la pince LigaSure (Fig 8), et le paramètre utérin de chaque côté est sectionné afin de libérer en totalité le testicule gauche du vestige utérin (Fig 9).

On continue la dissection vers le cervix en exerçant une traction ferme du corps utérin, la dissection émoussée de celui-ci s'effectue avec une pince fermée. On sectionne par la suite les vaisseaux cervicaux bilatéraux, avec l'isolement complet de l'utérus (Fig 10). On finalise l'hystérectomie par cervicotomie à l'aide de la pince LigaSure (Fig 11).

On contrôle de manière rigoureuse l'hémostase, et on passe au dernier temps opératoire, l'orchidopexie gauche (Fig 12). On réalise la dissection des vaisseaux spermatiques sur une longueur convenable et on pénètre dans le canal inguinal gauche avec la pince laparoscopique jusqu'à la bourse scrotale. On descend le testicule dans l'hémi scrotum et on le fixe dans la bourse scrotale. Enfin, on récupère la pièce utérine à l'aide d'un trocart de 11 mm (Fig 13).

### Diagnostic histopathologique

- Fragments de parenchyme testiculaire immature avec des cordons séminifères sans lumière, et des tubes revêtus par des gonocytes et cellules Sertoli ; au niveau intraluminal, de petits corps psammomateux par endroit ; au niveau interstitiel, du tissu fibro-conjonctif avec extravasations hématisques et absence de cellules Leydig ; pas de malignité sur

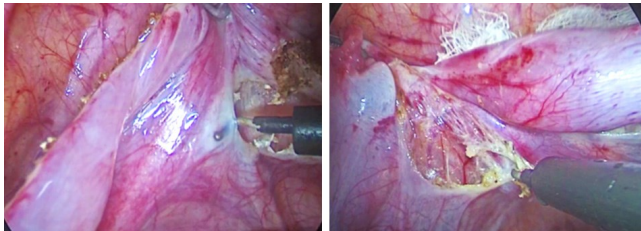


Figure 7. L'incision du péritoine retro utérin.

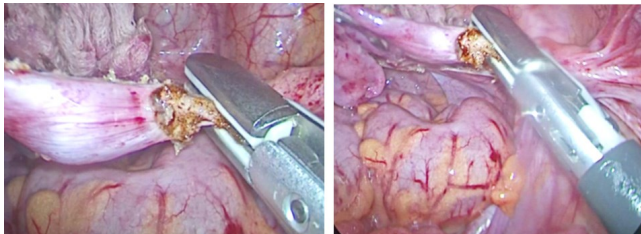


Figure 8. Le traitement du ligament rond utérin droit avec la pince LigaSure.

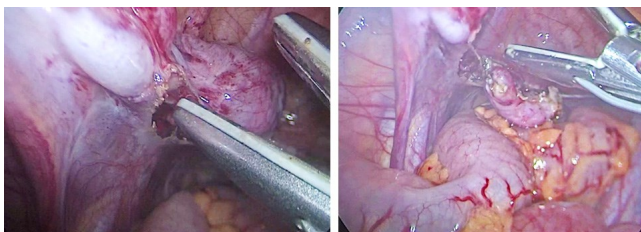


Figure 9. La libération en totalité du testicule gauche du vestige utérin.

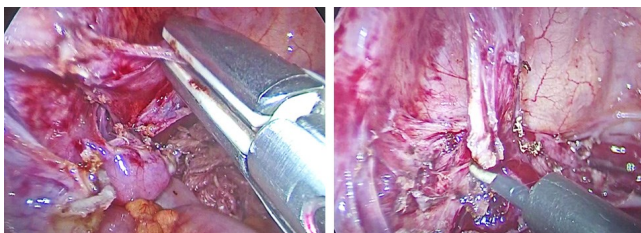


Figure 10. La section des vaisseaux cervicaux bilatéraux.

les sections examinées. L'aspect microscopique est en faveur d'un testicule immature (pre-pubère).

- Fragment de paroi utérine hypoplasique avec hyperémie importante au niveau de la séreuse et du myomètre ; cavité utérine avec endomètre hypoplasique.

Conclusion : vestige utérin (Fig 14 à Fig 16).

### Le cas n° 2

Le deuxième cas est celui d'une fillette de 11 ans avec antécédents chirurgicaux de fente palatine et de luxation congénitale de la hanche, qui se présente dans notre centre pour des douleurs intermittentes intenses dans l'abdomen inférieur avec fièvre et aménorrhée primaire. A l'examen clinique on note une formation tumorale hypogastrique sensible à la palpation. Le toucher vaginal effectué par le gynécologue constate l'absence du col utérin et une formation tumorale pelvienne proéminente au niveau du cul-de-sac vaginal. Le diagnostic d'agénésie du col utérin est retenu.

L'IRM abdomino-pelvienne met en évidence une formation de 16 cm de diamètre au contenu inhomogène, interprétée comme la trompe utérine gauche avec la présence d'un utérus bicorne aux dimensions normales pour l'âge.

Le consentement éclairé de la mère a été obtenu pour l'intervention chirurgicale par abord laparoscopique avec la possibilité d'effectuer une conversion vers la technique classique et d'éventuelles exérèses de divers segments de l'appareil génital interne de la patiente.

### Compte rendu opératoire

Le placement des trocarts est celui standardisé pour l'exploration de l'étage abdominal inférieur (le trocart optique ombilicale de 10 mm et les deux trocarts operateurs de 10 mm

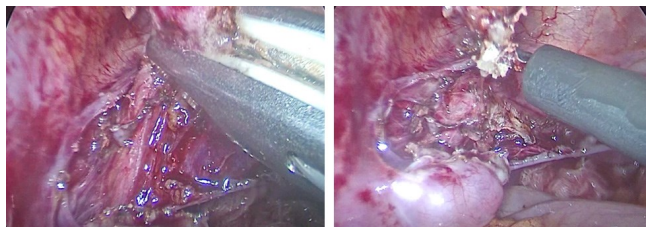


Figure 11. Cervicotomie avec la pince LigaSure.

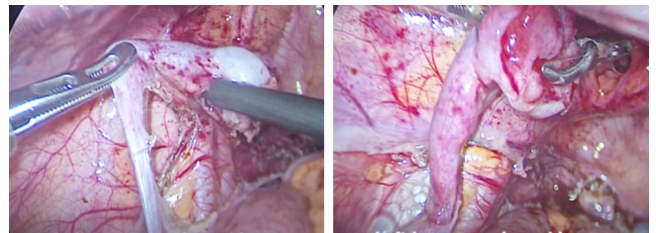


Figure 12. L'orchidopexie gauche.

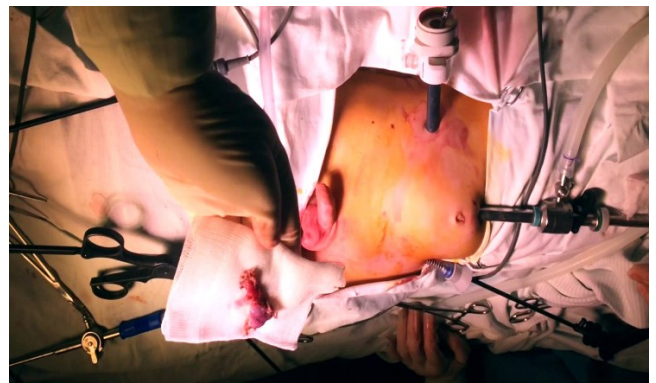


Figure 13. La pièce utérine.



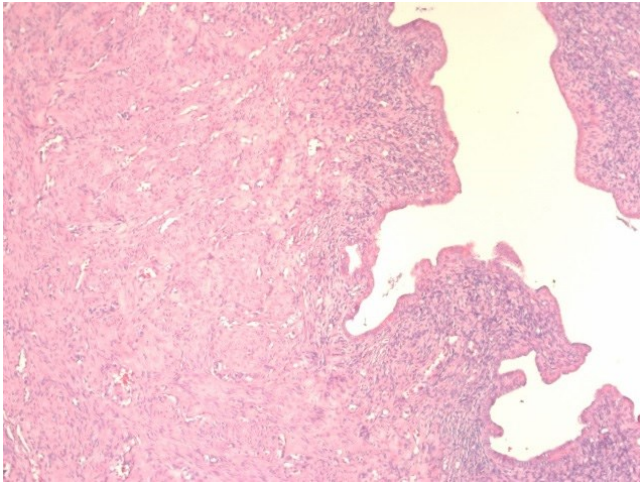


Figure 14. Section au niveau de la paroi du vestige utérin ; col. HE, Ob. 10X.

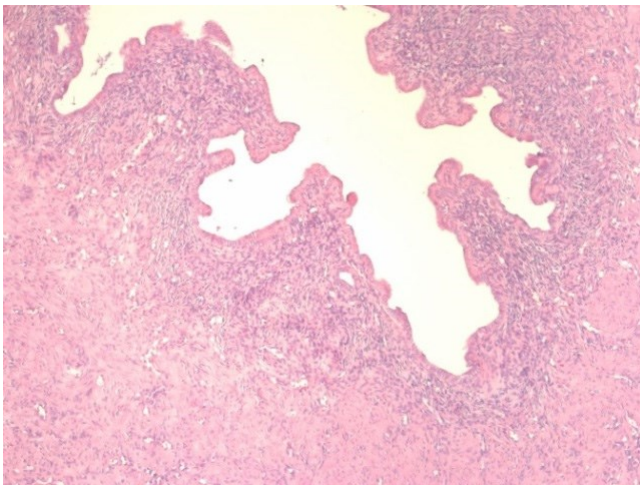


Figure 15. Myomètre avec des vaisseaux sanguins hyperémiés ; col. HE, Ob. 10X.

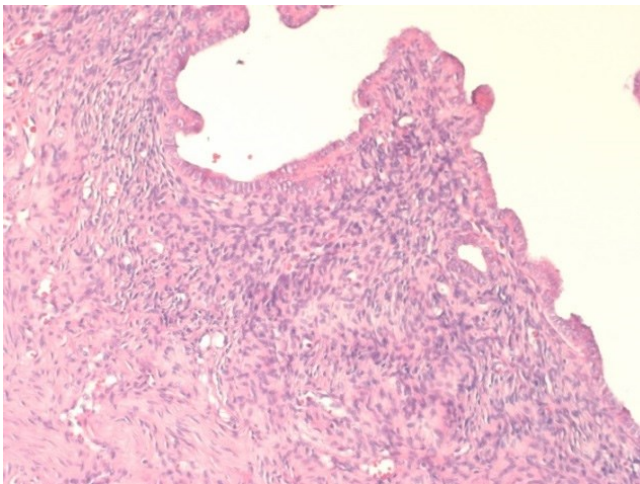


Figure 16. Détail : endomètre hypoplasique ; col. HE, Ob. 20X.

dans les deux flancs). L'exploration laparoscopique du pelvis a mis en évidence un utérus bicorne très distendu, de consistance élastique et empâté au niveau de la corne gauche (Fig 17). La trompe de ce côté était très distendue, en tension, congestive (Fig 18). L'annexe droite était d'aspect normal. La trompe gauche présentant des signes évidents de stase, suggérait une rétention menstruelle dans la corne utérine gauche, dans le contexte d'une agénésie cervico-utérine.

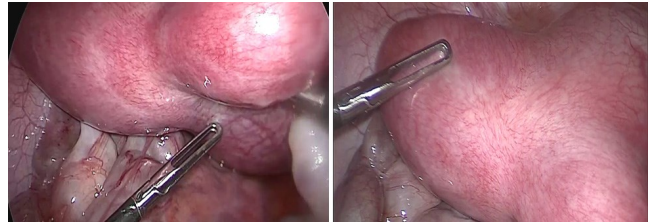


Figure 17. L'utérus bicorne.

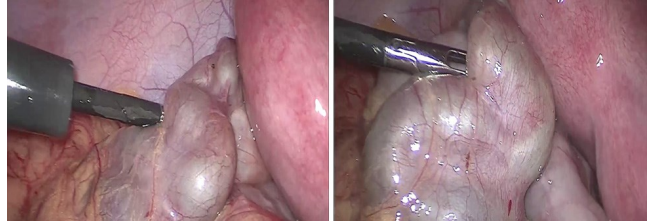


Figure 18. Hématosalpinx gauche.

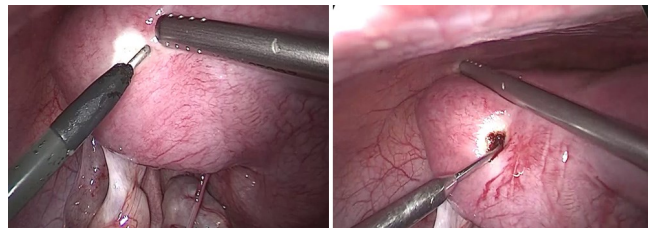


Figure 19. Incision au niveau du fundus de la corne utérine gauche.

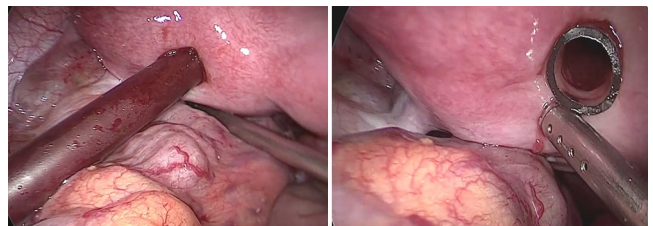


Figure 20. Tube de silicone introduit dans la cavité utérine sur un fil-guide métallique atraumatique.



Figure 21. Plastie du col utérin avec des fils résorbables séparés.

La méthode de vidange de l'utérus a été de réaliser une plastie laparoscopique du col utérin videoassistée effectuée par un abord bipolaire abdomino-vaginal, en utilisant un tube de silicone de 24 Fr. A l'aide du crochet monopolaire, on a réalisé une incision de 0.5 cm de diamètre au niveau du fundus de la corne utérine gauche (Fig 19), qui a traversé toute l'épaisseur du myomètre jusqu'à la cavité utérine remplie du sang menstruel.



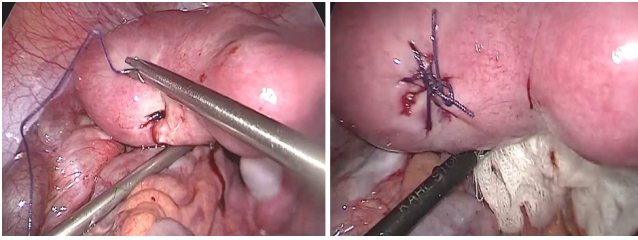


Figure 22. Suture de la brèche de la corne utérine gauche.

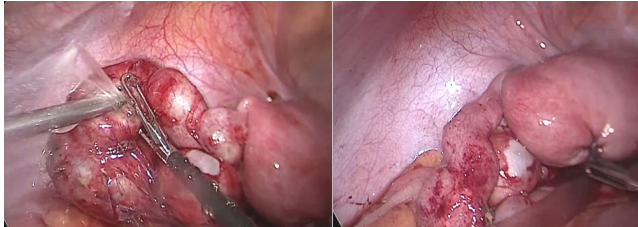


Figure 23. Lavage de la trompe gauche et le drainage du cul-de-sac Douglas.

On a aspiré une partie du contenu utérin à l'aide d'une canule d'aspiration. On a introduit par la suite le tube de silicone dans la cavité utérine sur un fil-guide métallique atraumatique descendu jusqu'à la paroi postérieure vaginale (Fig 20). Ensuite, on a effectué par voie vaginale une culdotomie à minima guidée sur la canule descendue en transutérin et par cette brèche on a tiré le tube de silicone placé sur toute la longueur de la cavité intra utérine. Nous avons réalisé une plastie du col utérin avec des fils résorbables séparés 4-0 Dexon (Fig 21), placés sur toute la circonférence du tube fixé à la paroi vaginale, puis sectionnés et placés à l'intérieur du vagin.

Ultérieurement, on a suturé la brèche de la corne utérine gauche afin de fermer complètement le trajet vaginopéritonéal et de prévenir la contamination microbienne de la cavité péritonéale (Fig 22).

On a traité l'hématosalpinx gauche de manière conservatrice en réalisant une salpingostomie avec le crochet monopolaire. A travers la brèche ainsi créée, on a aspiré à l'aide de la canule une quantité importante du sang menstruel et réalisé également le lavage de la trompe gauche finalisant l'intervention avec le lavage rigoureux de l'ensemble de la cavité abdominale et le drainage du cul-de-sac Douglas (Fig 23).

L'aspect final concernant la physiologie féminine de notre petite patiente. L'évolution de la patiente a été favorable et sans complication. La symptomatologie abdominale a été rapidement résolutive en postopératoire. Le tube de silicone utilisé pour la plastie du col utérin s'est détaché spontanément au moment de la résorption des fils de suture, quatre semaines après l'opération. La patiente a présenté dans les quatre premiers mois des menstruations régulières. Elle est restée sous surveillance six mois postopératoires pour prévenir l'apparition d'une cicatrice cervicale fibreuse, sténosante, qui aurait pu nécessiter une nouvelle intervention.

## Discussion

Le cas où un utérus ou un dérivé mullerien doit être retiré chez un enfant développé comme un garçon est très rare. D'après nous, il n'y a pas d'autre citation dans la littérature sur l'hystérectomie laparoscopique chez le patient pédiatrique masculin.

Les patients avec ADS peuvent présenter à la naissance des organes génitaux d'aspect ambigu d'apparence féminine ou masculine. Les patients avec organes génitaux d'aspect féminin peuvent avoir un clitoris hypertrophié, la fusion postérieure des lèvres, ou une formation inguinale ou labiale.

Les patients avec organes génitaux d'aspect masculin peuvent avoir des testicules non palpables, un micro pénis, un hypospadias périnéal isolé ou associé aux testicules non descendus. La naissance d'un enfant avec des organes génitaux ambigus conduit à une stratégie d'investigations cliniques, hormonales, génétiques, moléculaires et radiologiques afin d'établir l'étiologie et la planification de la conduite thérapeutique (3-6). Des protocoles d'évaluation clinique et diagnostique ont été conçus à cet égard (2).

Les découvertes récentes en génétique moléculaire ont conduit à une meilleure compréhension du processus de développement sexuel (normal ou anormal). La gonade bi potentielle se développe sur la crête urogénitale dans les semaines 5-6 de la grossesse. A ce stade du développement plusieurs gènes impliqués dans la différenciation testiculaire sont exprimés (7). La première trace histologique de la formation des testicules peut être retrouvée dès la septième semaine de grossesse. La synthèse de testostérone par les cellules Leydig conduit au développement du canal déférent, de l'épididyme et des vésicules séminales. Le dihydrotestostérone est responsable de la masculinisation des organes génitaux externes avec la formation du pénis et du scrotum. L'hormone antimüllérienne produite par les cellules Sertoli inhibe la transformation des canaux Mulleriens en utérus et trompes (7,8). Le développement des organes génitaux internes est contrôlé par la gonade ipsilatérale et le développement prénatal du sexe masculin est complété finalement par la descente des testicules dans le scrotum (7).

Le risque de transformation maligne des gonades dysgénétiques est significativement élevé chez certains patients avec ADS (8-10). Les cliniciens en charge des nouveau-nés qui présentent une cryptorchidie ou un hypospadias proximal doivent soupçonner la présence d'une ADS (11). Une fois l'ADS identifiée, une série d'investigations doivent être initiées afin d'établir un diagnostic positif (7,12,13). L'examen clinique et d'imagerie visent la détection des gonades au niveau inguinal ou abdominal.

Des cas d'hystérectomies effectuées pour ADS diagnostiquées à l'âge adulte et plus rarement chez les patients pédiatriques ont été rapportés dans la littérature. Interventions alors réalisées plutôt par laparotomie que par laparoscopie (14).

Les malformations utérines congénitales sont relativement rares et souvent asymptomatiques. Leur incidence exacte reste difficile à évaluer. Elles peuvent se manifester sous la forme de troubles gynécologiques ou avoir un impact sur la reproduction (15).

L'agénésie congénitale du col de l'utérus est une maladie très rare et la gestion des agénésies du col de l'utérus est controversée (16). L'utérus bicorne unicervical est une malformation caractérisée par la présence d'un utérus avec un col et deux cornes. En chirurgie gynécologique, traditionnellement, l'hystérectomie a été le mode préféré de traitement en raison du taux élevé d'obstruction cervicale récurrente et du risque d'infection ascendante de par les tentatives pour effectuer une anastomose utérovaginale (17-19).

La reconstruction du col de l'utérus est un problème complexe. Les premières tentatives de création d'une anastomose utérovaginale ont été marquées par des taux élevés de récurrence et des complications (20,21). La création assistée par laparoscopie d'une fistule utérovaginale suivie par le placement d'un greffon de polytétrafluoroéthylène bordé de muqueuse vaginale pour créer le neocervix a été fait seulement chez les femmes adultes et non des enfants. La reconstruction prothétique du col à l'aide d'un tube bordé de muqueuse vaginale est facile à réaliser et efficace. Elle offre une option alternative de traitement pour les patients atteints d'agénésie du col afin de préserver leur potentiel de reproduction (22).

Notre technique prothétique du col utérin est une approche nouvelle et facile obtenue par un tube de silicone attiré en trans-utérin. Nous avons appliqué avec succès cette reconstruction novatrice chez une fillette de 11 ans. La famille a

décidé de tout faire pour préserver son potentiel de reproduction et a souhaité accéder à la reconstruction du col utérin. La recommandation d'un comité d'évaluation technique institutionnel n'était pas applicable dans ce cas et l'utilisation d'implants de polytétrafluoroéthylène dans des conditions génito a été documentée dans la littérature (23-27). La première étape de l'opération consistait à créer un canal cervical. Dans la deuxième étape de l'opération, l'équipe de chirurgie pédiatrique a procédé à la confection d'un néo col utérin utilisant un tube de silicone garni d'une greffe de muqueuse vaginale. Le principal inconvénient de ce procédé est le risque accru d'infection par l'utilisation d'une implantation synthétique, avec une incidence générale déclarée de 0,7 % à 7,0 % (28). L'observance du patient et le suivi post-opératoire sont essentiels pour garantir le succès à long terme de cette opération.

## Conclusion

La difficulté des interventions vidéo-assistées réside dans la réalisation par une approche mini invasive des artifices de technique chirurgicale gynécologique, afin de pouvoir préserver l'intégralité et la fonction des divers segments d'appareil génital chez l'enfant. La méthode mini-invasive vidéo-assistée représente indubitablement une variante intéressante d'approche chirurgicale pour les patients pédiatriques à malformations génitales rares.

## Références

- Houk CP, Hughes IA, Ahmed SF, Lee PA. Summary of consensus statement on intersex disorders and their management. *Pediatrics*. 2006 ;118 :753-7.
- Nabhan ZM, Lee PA. Disorders of sex development. *Curr Opin Obstet Gynecol*. 2007 ;19 :440-5.
- Sultan C, Paris F, Jeandel C, et al. Ambiguous genitalia in the newborn. *Semin Reprod Med*. 2002 ;20 :181-8.
- Kurita M, Aiba E, Matsumoto D, et al. Feminizing genitoplasty for treatment of XX male with masculine genitalia. *Plastic Reconstr Surg*. 2006 ;117 :107-11.
- Bostwick JM, Martin KA. A man's brain in an ambiguous body : a case of mistaken gender identity. *Am J Psychiatry*. 2007 ;164 :1499-505.
- Lim AC, Stiel JN, Blome SA, Yip MY. A case of mistaken identity. A rare presentation of gonadal dysgenesis. *Aust Fam Physician*. 2000 ;29 :945-7.
- Ahmed SF, Hughes IA. The genetics of male undermasculinization. *Clin Endocrinol (Oxf)*. 2002 ;56 :1-18.
- Siowikowska-Hilczner J, Romer TE, Kula K. Neoplastic potential of germ cells in relation to disturbances of gonadal organogenesis and changes in karyotype. *J Androl*. 2003 ;24 :270-8.
- Looijenga LH, Hersmus R, Oosterhuis JW, et al. Tumour risk in disorders of sex development (DSD). *Best Pract Res Clin Endocrinol Metab*. 2007 ;21 :480-95.
- Stewart CJR, Baker E, Beaton C, et al. Detection of Y-chromosome in gonadal tumours using fluorescence in situ hybridization : diagnostic value in intersex conditions including older patients with clinically unsuspected androgen insensitivity syndrome. *Histopathology*. 2008 ;52 :175-82.
- Marrocco G, Poscente M, Majore S, et al. Clinical management and molecular Cytogenetic characterization in a 45,X/46,X,idic(Yp) patient with severe hypospadias. *J Pediatr Surg*. 2003 ;38 :1258-62.
- Robboy SJ, Jaubert F. Neoplasms and pathology of sexual developmental disorders (intersex). *Pathology*. 2007 ;39 :147-63.
- Parker JL, Ekman DL, Hayden LJ. Hysterectomy in a phenotypic male with advanced gonadal malignancy and intersex. *Med J Aust*. 2009 Jun 1 ;190(11) :644-6.
- Colacurci N, Cardone A, De Franciscis P, Landolfi E, Venditto T, Sinisi AA. Laparoscopic hysterectomy in a case of male pseudohermaphroditism with persistent Mullerian duct derivatives. *Human Reproduction*. 1997 ;12 :272-4.
- Rossier MC, Bays V, Vial Y, Ahtari C. Les malformations utérines : diagnostic, pronostic et prise en charge en 2008. *Rev Med Suisse*. 2008 ;2253-63.
- Rock JA, Roberts CP, Jones HW Jr. Congenital anomalies of the uterine cervix : lessons from 30 cases managed clinically by a common protocol. *Fertil Steril*. 2010 ;94 :1858-63.
- Lee CL, Wang CJ, Liu YH, Yen CF, Lai YL, Soong YK. Laparoscopically assisted full thickness skin graft for reconstruction in congenital agenesis of vagina and uterine cervix. *Hum Reprod*. 1999 ;14 :928-30.
- Maciulla G.J, Heine M.W, Christian C.D. Functional endometrial tissue with vaginal agenesis. *J Reprod Med*. 1978 ;21 :373-6.
- Niver DH, Barrette G, Jewelewicz R. Congenital atresia of the uterine cervix and vagina : three cases. *Fertil Steril*. 1980 ;33 :25-9.
- Edmonds DK. Diagnosis, clinical presentation and management of cervical agenesis. in : G.T. Falcone (Ed.) *Congenital malformations of the female genital tract : diagnosis and management*. Lippincott Williams & Wilkins, Philadelphia ; 1999 :169-76.
- Bedner R, Rzepka-Gorska I, Blogowska A, Malecha J, Kosmider M. Effects of a surgical treatment of congenital cervicovaginal agenesis. *J Pediatr Adolesc Gynecol*. 2004 ;17 :327-30.
- Nguyen DH, Lee CL, Wu KY, Cheng MH. A novel approach to cervical reconstruction using vaginal mucosa-lined polytetrafluoroethylene graft in congenital agenesis of the cervix. *Fertil Steril*. 2011 ;95 :2433.e5-8.
- Hurst BS. Permanent implantation of expanded polytetrafluoroethylene is safe for pelvic surgery. *United States Expanded Polytetrafluoroethylene Reproductive Surgery Study Group*. *Hum Reprod*. 1999 ;14 :925-7.
- Choe JM, Staskin DR. Gore-Tex patch sling : 7 years later. *Urology*. 1999 ;54 :641-6.
- Staskin DR, Choe JM, Breslin DS. The Gore-tex sling procedure for female sphincteric incontinence : indications, technique, and results. *World J Urol*. 1997 ;15 :295-9.
- Barbalias GA, Liatsikos EN, Athanasopoulos A. Gore-Tex sling urethral suspension in type III female urinary incontinence : clinical results and urodynamic changes. *Int Urogynecol J Pelvic Floor Dysfunct*. 1997 ;8 :344-50.
- van Lindert AC, Groenendijk AG, Scholten PC, Heintz AP. Surgical support and suspension of genital prolapse, including preservation of the uterus, using the Gore-Tex soft tissue patch (a preliminary report). *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol*. 1993 ;50 :133-9.
- Herrera FA, Kohanzadeh S, Nasseri Y, Kansal N, Owens EL, Bodor R. Management of vascular graft infections with soft tissue flap coverage : improving limb salvage rates-a veterans affairs experience. *Am Surg*. 2009 ;75 :877-81.

# Prise en charge des traumatismes des membres de l'enfant dans les structures chirurgicales de l'avant

## Management of Pediatric Extremity Trauma in Forward Surgical Facilities

L Mathieu [1], A Bertani [2], O Barbier [3], D Ollat [3,4], F Rongi ras [2,4], S Rigal [1,4], F Pons [4]

1. H pital d'Instruction des Arm es Percy - Clamart, France.
2. H pital d'Instruction des Arm es Desgenettes - Lyon, France.
3. H pital d'Instruction des Arm es B gin - Saint-Mand , France.
4. Ecole du Val-de-Gr ce - Paris, France.

### Mots cl s

- ◆ Afghanistan
- ◆ Aide humanitaire
- ◆ Enfants
- ◆ Membres
- ◆ Plaies de guerre
- ◆ Tchad
- ◆ Traumatismes

### R sum 

**Introduction** : durant la derni re d cennie, nombre d'enfants ont  t  trait s dans les structures chirurgicales de l'avant, en tant que victimes collat rales de la guerre contre le terrorisme ou dans le cadre de l'Aide M dicale aux Populations (AMP). L'objectif de ce travail  tait de d terminer la fr quence et les sp cificit s de la prise en charge des traumatismes des membres de l'enfant dans les formations de l'avant fran aises.

**M thodes** : des  tudes r trospectives ont  t  men es sur deux th  tres d'op rations : dans un h pital militaire de campagne en Afghanistan sur une p riode de 3,5 ans, et dans un groupe m dico-chirurgical au Tchad sur une p riode de 1 an.

**R sultats** : la chirurgie p diatrique repr sentait plus de 18 % de l'activit  globale de traumatologie dans ces deux structures. En Afghanistan, la moiti  des patients  taient des traumatis s de guerre. Leur traitement  tait celui des adultes, avec des sp cificit s li es au potentiel de consolidation  lev  et   l'atteinte des cartilages de croissance. L'autre moiti  des enfants afghans et la totalit  des enfants tchadiens ont  t  trait es pour des traumatismes de pratique civile dans le cadre de l'AMP. A l'exception des br l s graves, les ressources disponibles  taient adapt es   leur prise en charge.

**Discussion** : les particularit s et probl mes pos s par le traitement des enfants dans les structures chirurgicales de l'avant sont discut s en insistant notamment sur la formation des chirurgiens d ploy s, l'int r t de la t l m decine, et la n cessit  d'une coordination avec les formations sanitaires locales.

### Keywords

- ◆ Afghanistan
- ◆ Chad
- ◆ Children
- ◆ Extremity
- ◆ Humanitarian care
- ◆ Trauma
- ◆ War wound

### Abstract

**Introduction:** In the past decade, many children were treated in forward medical treatment facilities as collateral victims of war against terrorism or in the context of the Medical Support to the Population (MSP). The objective of this survey was to determine the workload and specificities related to management of pediatric extremity injuries in French forward surgical facilities.

**Methods:** Retrospective studies were conducted in two theatres of operations: in a combat support hospital in Afghanistan over a 3.5 year period, and in a forward surgical team in Chad over a 1 year period.

**Results:** Pediatric surgery represented more than 18% of the global trauma activity in these both facilities. In Afghanistan, half of the pediatric patients were war casualties. Their surgical treatment was similar to that used in adults with specific features due to a better potential for bone healing and to growth plate trauma. Other Afghan patients and all Chadian patients were treated for non-combat related injuries as a part of the MSP. Except for severe burns, available resources permitted an appropriate management.

**Discussion:** Specific features and issues related to treatment of pediatric patients in forward surgical facilities are discussed emphasizing the need for a specific surgeons training, the use of telemedicine, and the coordination with local medical communities.

Dans les conflits asym triques modernes, nombres d'enfants ont  t  trait s dans les structures chirurgicales de l'avant en tant que victimes collat rales de la guerre, mais aussi pour des traumatismes de pratique civile en raison de la d structuration des syst mes de sant  locaux. Les enfants repr sentaient ainsi 5,8   7,1 % de l'ensemble des bless s trait s dans les formations chirurgicales am ricaines en Irak et Afghanistan (1-6). Des  tudes r centes rapportent des taux encore

plus  lev s de bless s p diatriques en Afghanistan : 10 % dans l'h pital anglais de Camp-Bastion et 12 % dans l'h pital am ricain de Kandahar (7,8). Comme pour les adultes, les traumatismes des membres  taient pr dominants et repr sentaient 30   40 % des motifs d'admission (1,3). En l'absence de chirurgiens p diatres d ploy s, la prise en charge  tait effectu e par des chirurgiens g n ralistes ou orthop distes form s   la traumatologie p diatrique, avec des moyens techniques limi-

### Correspondance :

Laurent Mathieu  
HIA Percy - 101, avenue Henri Barbusse - 92140 Clamart.  
E-mail : laurent\_tom2@yahoo.fr



tés, notamment en termes de matériel dédié, de capacité d'hospitalisation et de possibilité de suivi (9).

Le Service de Santé des Armées (SSA) français a également participé au soutien des forces de l'OTAN (Organisation du Traité de l'Atlantique Nord) et des populations locales en Afghanistan, et à ce titre, a été amené à traiter de nombreux enfants (10,11). Si cette pratique de la traumatologie pédiatrique de guerre est relativement récente pour les chirurgiens militaires français, ceux-ci ont une longue expérience de la traumatologie pédiatrique en situation précaire. Le SSA est en effet investi depuis de nombreuses années dans l'Aide Médicale aux Populations (AMP) dans les pays africains où ses structures chirurgicales sont déployées, en particulier au Tchad et à Djibouti. Les chirurgiens en formation reçoivent pour cela un enseignement spécifique, notamment dans le domaine de la chirurgie pédiatrique, qu'ils mettent à profit dès leurs premières opérations extérieures (12).

L'objectif principal de ce travail était d'analyser la part de l'activité chirurgicale consacrée à la prise en charge des traumatismes des membres de l'enfant dans les structures de chirurgicales de l'avant du SSA. Les objectifs secondaires étaient de mettre en évidence les spécificités pédiatriques du traitement des lésions de guerre et de pratique civile en situation précaire.

## Patients et méthodes

### Structures de soins

L'activité de traumatologie pédiatrique a été analysée sur deux théâtres d'opérations extérieures où elle était considérée comme importante.

Une première étude a été menée en Afghanistan, au sein de l'Hôpital Militaire de Campagne (HMC) du Kabul International Airport (KaIA) ouvert depuis 2009. Il s'agit d'un hôpital de l'OTAN dédié à la traumatologie de guerre, doté d'un déchoquage, d'un scanner, de trois salles opératoires, d'une réanimation, d'un secteur d'hospitalisation de 20 lits et d'une équipe chirurgicale multidisciplinaire. Sa vocation première est la prise en charge initiale des blessés de la coalition avant leur évacuation, mais l'AMP est aussi effectuée lors des périodes de faible activité opérationnelle (10).

Une seconde étude a été menée au Tchad, au sein du Groupe Médico-Chirurgical (GMC) Epervier déployé à N'Djamena depuis 1986. Cette structure, qui s'est développée avec le temps, est actuellement dotée d'un scanner, de deux salles d'intervention, d'une réanimation, et d'un secteur d'hospitalisation de 30 lits. L'équipe chirurgicale se limite à un chirurgien généraliste et un orthopédiste. Si le soutien des forces françaises reste la priorité, l'AMP représente 95 % de son activité (13).

	Nombre (%)
<b>Traumatismes de guerre</b>	<b>77 (49,7)</b>
Balles	15 (9,7)
Eclats	32 (20,7)
Mines (blast)	8 (5,1)
EEL (blast)	22 (14,2)
<b>Traumatismes de pratique civile</b>	<b>78 (50,3)</b>
AVP	31 (20)
Chutes	29 (18,7)
Accidents du travail	1 (0,6)
Brûlures	17 (11)
<b>Total</b>	<b>155 (100%)</b>

Tableau I. Mécanismes lésionnels à l'HMC KaIA (10).

EEL : Engins Explosifs Improvisés  
AVP : Accidents de la Voie Publique

## Méthodes

Il s'agissait des deux études rétrospectives menées à partir de la base de données OPEX (SSA) colligeant l'ensemble des patients opérés sur tous les théâtres d'opérations extérieures. La période d'étude était d'environ 3,5 ans au sein de l'HMC KaIA (de juin 2009 à janvier 2013) et de seulement un an (de novembre 2010 à octobre 2011) au sein du GMC Epervier.

Les patients inclus dans les deux séries étaient les enfants âgés de moins de 16 ans opérés pour un traumatisme des membres, récent ou ancien, ou pris en charge pour une brûlure.

Les paramètres étudiés concernaient les données démographiques (âge, sexe), le mécanisme lésionnel (traumatisme de guerre ou de pratique civile), le type des lésions (plaie, fracture ouverte, amputation, fracture fermée, brûlure) ou des séquelles (pseudarthrose, ostéomyélite, brides cutanées) ainsi que leur topographie. Toutes les procédures chirurgicales ont été analysées, en incluant les reprises pour cause de complications ou de reconstruction. Le taux de mortalité a été calculé dans les sous-groupes de la série afghane. En revanche, l'obtention de la consolidation osseuse et le résultat fonctionnel n'ont pas été évalués en raison des difficultés du suivi en contexte de guerre ou situation précaire.

Les données ont été collectées à l'aide du logiciel Excel (Microsoft, Redmond, Washington, USA). L'analyse statistique a utilisé le test exact de Fischer pour comparer les variables qualitatives et le test de Student pour les variables quantitatives. Une valeur de  $p \leq 0,05$  était considérée comme significative.

## Résultats

### HMC KaIA - Afghanistan

Au total, 155 enfants opérés pour un traumatisme des membres ont été inclus. Cette série représentait 18 % de l'ensemble des blessés opérés ( $n=1220$ ) durant la période d'étude, et 70 % des patients pédiatriques ( $n=220$ ). L'âge moyen était de 9,1 ans (extrêmes : 1-15 ans) et le sexe ratio de 3/1 en faveur des patients masculins. Le mécanisme lésionnel permettait de distinguer deux groupes d'égale importance, puisqu'il y avait 77 traumatismes de guerre et 78 traumatismes de pratique civile.

### Traumatismes de guerre

Les engins explosifs étaient le mécanisme prédominant (Tableau I). Un seul membre était atteint dans 53 cas (dont 8 cas de lésions étagées) mais 24 enfants présentaient un traumatisme sur plusieurs membres. Ainsi, 120 lésions ont été analysées dans ce groupe. Il s'agissait uniquement de lésions ouvertes avec une majorité de plaies des parties molles correspondant à des polycrâblages par éclats (Tableau II). Les fractures ouvertes prédominaient au niveau du fémur et de la main (Fig 1). De même, 10 des 16 amputations traumatiques étaient localisées au niveau de la main ou du poignet. Qua-

	Lésions de guerre (%)	Lésions de pratique civile (%)	Valeur de p
Plaies des parties molles	71 (59)	10 (11)	<0,001
Fractures ouvertes	33 (28)	20 (22)	0,5
Amputations traumatiques	16 (13)	3 (3)	0,02
Fractures fermées	0 (0)	36 (39)	<0,001
Brûlures	0 (0)	23 (25)	<0,001
<b>Total</b>	<b>120 (100)</b>	<b>92 (100)</b>	

Tableau II. Types lésionnels selon le mécanisme à l'HMC KaIA (10).



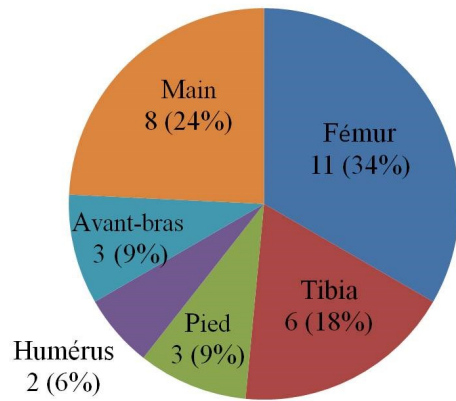


Figure 1. Localisation des fractures ouvertes de guerre à l'HMC Kala (10).

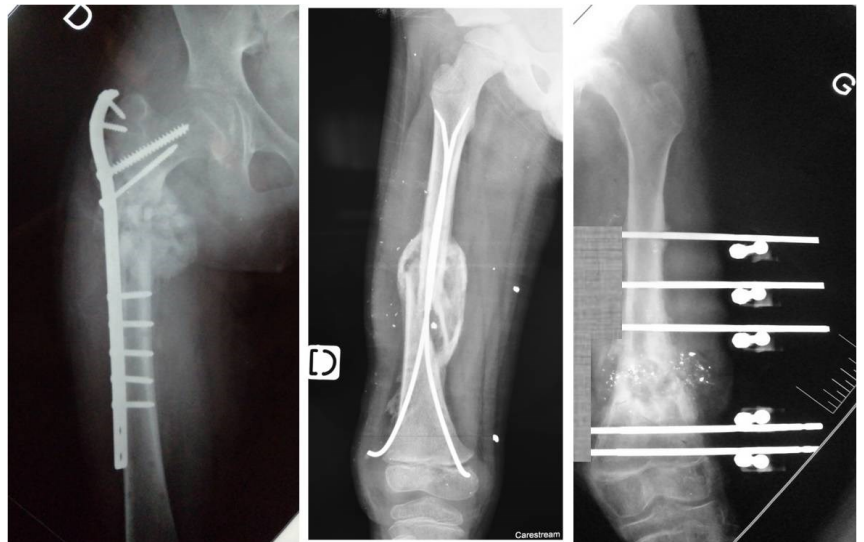


Figure 2. Différents modes de fixation de fractures du fémur par agents vulnérants de guerre.



Figure 3. Reconstruction d'une perte de substance diaphysaire du radius par éclats chez une enfant de 5 ans.

rante enfants présentaient des lésions associées (thoracique, abdominale, rachidienne ou cranio-faciale) avec un Injury Severity Score (ISS) médian de 9 [quartiles : 4-19]. L'ISS était significativement plus élevé chez les enfants de moins de 8 ans. En excluant les ablations de matériel, le nombre moyen d'intervention par patient était de 2,3 [extrêmes : 1-12]. Les gestes effectués étaient logiquement dominés par les parages de plaies et les couvertures secondaires. La stabilisation des fractures a été effectuée par plâtre dans 15 cas, par fixation interne dans 10 cas et par fixateur externe dans 10 cas (Fig 2, Tableau II). Seuls quatre gestes de reconstruction secondaire ont été effectués : une épiphysiodèse fémorale bilatérale en prévention d'une inégalité de longueur, deux greffes osseuses pour des pertes de substances (Fig 3) et une intervention de Krukenberg après une amputation bilatérale des mains. Le taux de mortalité dans ce groupe était de 3,9 % : trois décès sont survenus à la suite d'une lésion vasculaire, d'un traumatisme crânien grave et d'une plaie vertébro-médullaire.

### Traumatismes de pratique civile

Les mécanismes des traumatismes de pratique civile n'avaient rien de spécifique (Tableau I). Seuls huit enfants présentaient

des lésions multiples survenues dans le cadre d'accidents de la voie publique ou de brûlures. Un total de 92 lésions a été analysé dans ce groupe. Les fractures fermées et les brûlures étaient prédominantes, mais les fractures ouvertes étaient particulièrement fréquentes (Tableau II). Les fractures fermées touchaient principalement le fémur, alors que les fractures ouvertes intéressaient surtout la main et le segment jambier (Fig 4). Dix-huit enfants présentaient des lésions associées, avec un ISS médian de 4 [extrêmes : 1-9] significativement inférieur à celui du groupe des traumatisés de guerre. En excluant les brûlures et les ablations de matériel, le nombre d'intervention par patient était de 1,9 [extrêmes : 1-10]. Les procédures prédominantes étaient les parages de plaies et les ostéosynthèses internes. La part des immobilisations plâtrées et des exofixations était comparable celle aux traumatismes de guerre. Aucun geste de reconstruction secondaire n'a été effectué dans ce groupe (Tableau III). Parmi les 17 enfants brûlés, 13 présentaient des brûlures intéressant moins de 20 % de la Surface Corporelle Totale (SCT) mais quatre présentaient des brûlures plus étendues ayant nécessité un séjour prolongé en réanimation. Des excisions d'escarre ont été effectuées en urgence dans 4 cas de brûlures pro-

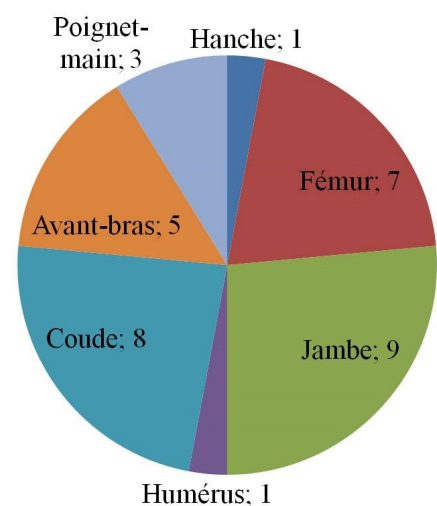
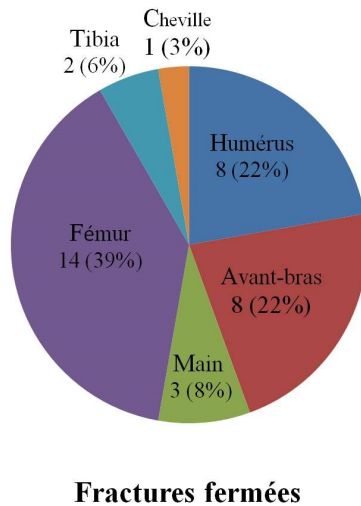
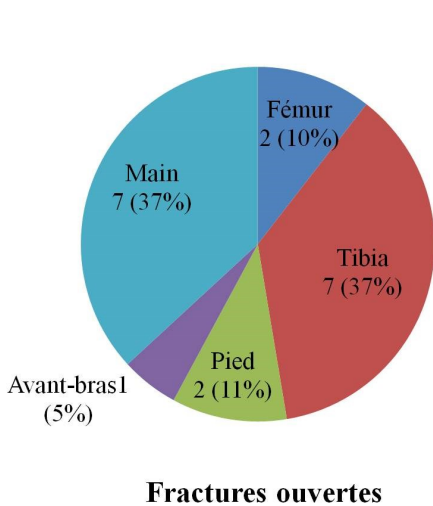


Figure 4. Localisation des fractures de pratique civile à l'HMC Kaia (10).

Figure 5. Localisation des lésions osseuses au GMC Epervier.

fondes circulaires (Tableau III). La plupart de ces enfants ont bénéficié de pansements sous anesthésie générale répétés et de greffes de peau avec un nombre moyen d'intervention par patient de 4,8 [extrêmes : 1-12]. Le taux de mortalité était de 1,3 % : il s'agissait d'un enfant brûlé grave arrivé en état de choc plusieurs jours après la brûlure.

### GMC Epervier - Tchad

Durant la période étudiée 45 enfants ont été inclus. Cette série représentait 62 % de l'activité d'orthopédie pédiatrique (n=73) représentant elle-même 18,5 % de l'activité globale d'orthopédie-traumatologie (n= 394). Les enfants exclus avaient été opérés pour des infections, malformations ou tumeurs. L'âge moyen de la série était de 8,6 ans (extrêmes : 0,5-15 ans) et le sexe ratio de 2,75/1 en faveur des patients masculins. Il s'agissait exclusivement de traumatismes de pratique civile qui pouvaient se décomposer en traumatismes récents et séquelles (Tableau IV). Les lésions osseuses (récentes et anciennes) prédominaient à la jambe et au fémur pour le membre inférieur, et au coude et à l'avant-bras pour le membre supérieur (Fig 5).

### Traumatismes récents

Ils étaient dominés par les fractures fermées qui ont été traitées de façon orthopédique (réduction et immobilisation plâ-

trée) ou par fixation interne. Les quatre fractures ouvertes étaient des fractures de jambe. Deux ont été pris en charge de façon différée et étaient compliquées d'infection. Toutes ont nécessité un parage et une exofixation, avec réalisation d'un lambeau de couverture dans deux cas (Tableau V). Un seul cas de brûlure grave a été inclus. Il s'agissait d'une fillette de 1,5 an brûlée sur 20 % de la SCT par de l'eau bouillante. Elle présentait des brûlures du 2ème et 3ème degré sur les quatre membres, le tronc et la face. Son traitement a consisté en des excisions-greffes, de multiples pansements sous anesthésie générale et un séjour prolongé en réanimation. En excluant ce dernier cas et les ablations de matériel, le nombre moyen d'intervention par patient était de 1,3 dans ce groupe.

### Séquelles traumatiques

Elles étaient dominées par les séquelles de fractures supra-condyliennes de l'humérus qui représentaient trois des quatre cals vicieux, cinq des six ostéomyélites chroniques et un cas de gangrène de l'avant-bras. Les pseudarthroses aseptiques étaient une pseudarthrose du col fémoral chez une fillette de 11 ans, et une pseudarthrose de la diaphyse fémorale chez un enfant de trois ans. A l'exception des ostéomyélites chroniques qui ont nécessité souvent plusieurs temps opératoires, les séquelles ostéo-articulaires ont été traitées en une seule fois. Les séquelles de brûlures ont relevé de différents gestes

	Lésions de guerre (n=120)	Lésions de pratique civile (n=92)	Valeur de p
Amputation primaire	7	2	0,3
Parage - lavage	144	49	<0,001
TPN *	17	7	0,2
Dermo-fasciotomies	3	2	1
Couverture secondaire	57	42	0,9
Immobilisation plâtrée	15	12	1
Ostéosynthèse interne	10	34	<0,001
Exofixation	10	10	0,64
Escarrotomies (brûlures)	0	4	0,03
Réparation éléments nobles**	17	5	0,07
Reconstruction	4	0	0,14
<b>Total</b>	<b>284</b>	<b>167</b>	<b>0,12</b>

\* TPN : Thérapie à Pression Négative  
 \*\* Eléments nobles : tendons, nerfs, vaisseaux

Tableau III. Gestes effectués selon le mécanisme à l'HMC Kaia (10).

	Nb
<b>Traumatismes récents</b>	<b>25</b>
Fractures fermées	16
Fractures ouvertes	4
Plaies des parties molles	4
Brûlure grave	1
<b>Séquelles traumatiques</b>	<b>20</b>
Ostéomyélites chroniques	6
Pseudarthroses aseptiques	2
Cals vicieux	4
Brides cutanées	5
Autres	3
<b>Total</b>	<b>45</b>

Tableau IV. Types lésionnels au GMC Epervier.

	Nb
Immobilisation plâtrée	4
Fixation interne	16
Parage et exofixation	7
Séquestrectomie	8
Corrections de cal vicieux	4
Lambeaux	3
Greffes osseuses	5
Autres	2
<b>Total</b>	<b>49</b>

Tableau V. Gestes effectués pour le traitement des lésions osseuses récentes ou anciennes (n=34) au GMC Epervier.



de plastie cutanée ou d'excision-greffe de peau totale en un ou deux temps. Au total, le nombre moyen d'intervention par patient était de 1,4.

## Discussion

Ce travail montre que la pratique de la chirurgie pédiatrique dans les structures chirurgicales de l'avant françaises est loin d'être marginale, puisqu'elle représente plus de 18 % de l'activité chirurgicale globale. Il semble que ce chiffre soit supérieur à celui rapporté par les structures anglo-saxonnes en Irak ou Afghanistan où les enfants représentaient de 3 à 18 % de la totalité des admissions (la part des enfants opérés étant inférieure) (1,3,4,14). En Afghanistan, cela tenait en partie au mode de recrutement particulier de l'HMC Kala lié à sa localisation au centre de la capitale, avec un nombre important d'enfants adressés pour des traumatismes de pratique civile rentrant dans le cadre de l'AMP (50 %) (10). Si la prise en charge des enfants victimes collatérales de la guerre est une obligation morale (garantie par la convention de Genève) la part d'AMP réalisable dans les structures chirurgicales de l'avant est fonction du contexte opérationnel, c'est-à-dire de l'intensité des combats. Ainsi dans les formations américaines, la part des traumatismes pédiatriques de pratique civile variaient globalement de 20 à 30 % en Irak et de 40 à 50 % en Afghanistan (2,3,14). Au Tchad, où la situation politique est stabilisée depuis de nombreuses années, l'AMP est le contexte de soin quasi-exclusif de la chirurgie pédiatrique. Bien que l'effectif de notre série tchadienne soit faible, celle-ci s'avère très intéressante dans la mesure où ce type d'activité chirurgicale est relativement spécifique du SSA français et n'a fait l'objet que de peu de publications (15).

### Traumatologie pédiatrique de guerre

Comme dans les études anglo-saxonnes, les explosions sont ici le mécanisme lésionnel prédominant avec une atteinte préférentielle des membres (2,16). Cela est habituel dans les conflits asymétriques modernes, et il ne semble pas exister de différence de localisation lésionnelle entre les adultes et les enfants (17). Cependant, le taux de mortalité des séries pédiatriques est souvent élevé, entre 2 et 9 %, et semble supérieur à celui adultes (4,6,7,14,18). Cela témoigne de la fréquence des lésions associées corrélée avec l'ISS élevé des patients (les enfants ne portant aucun effet de protection balistique) mais aussi de la gravité des lésions des membres (9-11). En plus de lésions ostéo-articulaires sévères, les agents vulnérants de guerre occasionnent en effet des lésions vasculo-nerveuses fréquentes compromettant la vie (par hémorragie) le membre (par ischémie) et sa fonction. Les sept cas de réparations vasculaires et le décès d'un enfant par choc hémor-

ragique à la suite d'une plaie vasculaire au Scarpa en témoignent dans cette série (10). Une des explications à la plus forte mortalité des blessés pédiatriques pourrait aussi être un retard à la prise en charge initiale, avec des temps d'évacuation plus longs vers les structures chirurgicales de l'avant (7). La prise en charge des traumatismes de guerre des membres de l'enfant n'est pas très différente de celle de l'adulte basée sur des procédures séquentielles selon les principes du *Trauma Damage Control Orthopaedic* (TDCO) (9-11,19). Certaines particularités pédiatriques méritent cependant d'être soulignées. Le parage des plaies suit les règles habituelles, mais il peut être plus économique car le potentiel de cicatrisation est élevé. Le périoste épais et solide de l'enfant maintient souvent la cohésion des fragments osseux libres et favorise la consolidation. En cas de perte de substance osseuse, un raccourcissement modéré peut être toléré (jusqu'à 2 cm) pour faciliter la reconstruction. Il sera en effet compensé par la stimulation post-traumatique de la croissance. Le risque de syndrome compartimental semble en revanche plus élevé chez l'enfant (20). De même, il faut prendre en compte les atteintes du cartilage de conjugaison au niveau des épiphyses et leur possible retentissement sur la croissance. Ces lésions peuvent dans certaines circonstances nécessiter une chirurgie d'anticipation (épiphysiodèse) pour éviter d'aboutir à des déformations ou inégalités de longueur (10,11). Sur le plan pratique, le matériel chirurgical disponible dans les formations de l'avant françaises est relativement bien adapté à la prise en charge de ces patients. Les moyens d'ostéosynthèse interne (broches, clou de Métaizeau, plaques) et le fixateur externe en dotation (Percy-Fx® - Biomet) permettent de faire face à tous les types de fractures, y compris chez les enfants les plus jeunes (Fig 2 et 3) (21).

### Traumatologie pédiatrique de pratique civile

Ce type d'activité est particulièrement bien adapté à l'AMP (15). En effet, les fractures fermées récentes relèvent souvent du traitement orthopédique ou d'une ostéosynthèse percutanée, qui rentrent dans le cadre des « interventions gagnantes » permettant d'optimiser les moyens disponibles. Il s'agit d'interventions qui ont une faible morbidité, ne comportent qu'un temps opératoire, et nécessitent une durée d'hospitalisation courte pour un bon résultat fonctionnel attendu. A l'inverse, le traitement des fractures ouvertes est plus délicat car pouvant requérir des procédures itératives ou une antibiothérapie prolongée lorsqu'elles sont prises en charge au stade de l'infection. Il faut aussi souligner que la notion de lésion récente est à prendre avec précaution dans ce contexte. Du fait des difficultés d'accès aux soins, le traitement chirurgical est souvent différé, voire tardif. Nous n'avons pas analysé les délais de prise en charge car ils sont difficiles à déterminer précisément, en raison de la barrière



Figure 6. Séquelles de fractures autour du coude traitées de façon traditionnelle.



Figure 7. Traitement d'une séquelle de brûlure chez un enfant de 3 ans illustrant la notion « d'intervention gagnante ».

de la langue ou de la crainte des patients de ne pas être opérés en avouant une lésion chronique. Les lésions récentes correspondent ici aux plaies ou fractures traitées avant le délai habituel de consolidation.

Le traitement des séquelles traumatiques ostéo-articulaires est une particularité de la série tchadienne. Ces séquelles étaient liées à l'absence de traitement et parfois au traitement dispensé par les tradi-praticiens. Les complications des fractures du coude et de l'avant-bras étaient les plus fréquentes et se répartissaient en deux catégories : les cals vicieux limitant les secteurs de mobilité, et les syndromes de Volkmann compliqués d'ostéomyélite (voire de gangrène) consécutifs aux bandages serrés traditionnels (Fig 6). Le traitement de telles lésions est particulièrement délicat en situation isolée et précaire. D'une façon générale, il faut avoir des ambitions chirurgicales modestes et éviter dans la mesure du possible les gestes itératifs. Le plus grand *challenge* est celui du traitement des ostéomyélites chroniques qui nécessite souvent plusieurs temps opératoires et une antibiothérapie ciblée prolongée (difficile en mettre en œuvre dans ce contexte) (13).

Les brûlés représentent toujours une part importante des enfants traités dans les formations chirurgicales de l'avant (2,3,14,18). Cela s'explique par les difficultés de leur traitement dans les hôpitaux locaux souvent débordés et aux moyens limités. A la phase aiguë il s'agit surtout d'enfants présentant des brûlures peu étendues, car les structures de l'avant n'ont pas les ressources (matérielles et humaines) nécessaires à la gestion des grands brûlés. Il existe donc une sélection obligatoire des patients à leur admission qui soulève des problèmes éthiques certains (10,18). A l'opposé, cette

étude montre que le traitement des séquelles de brûlures est facilement envisageable. Il s'agit généralement de brides cutanées accessibles à des interventions de chirurgie plastiques simples et « gagnantes » procurant un gain fonctionnel parfois spectaculaire (Fig 7).

### Pré-requis à l'exercice de la traumatologie pédiatrique en opérations extérieures

#### Formation des chirurgiens déployés

Toutes les études s'accordent à dire que la traumatologie pédiatrique peut être effectuée dans les structures chirurgicales de l'avant par des praticiens non spécialisés, à condition qu'ils aient été formés et préparés à cette éventualité (3,4,9-11,14). Les chirurgiens orthopédistes militaires français, à l'instar de leurs confrères civils, réalisent au cours de leur cursus universitaire un semestre de chirurgie orthopédique pédiatrique. En complément ils reçoivent une formation spécifique à la chirurgie de guerre lors du Cours Avancé de Chirurgie en Missions Extérieures (CACHIRMEX) dispensé à l'Ecole du Val-de-Grâce de Paris. Ce cours comporte un module dédié à l'AMP durant lequel les principes de la chirurgie pédiatrique en situation précaire sont présentés par des spécialistes civils effectuant régulièrement des missions humanitaires. Les spécificités de la traumatologie pédiatrique de guerre sont également évoquées, et les stagiaires préparés à faire face aux cas les plus graves qui ont toujours un fort impact émotionnel sur les équipes soignantes (8).



## Recours à la télé-médecine

Si la traumatologie pédiatrique récente peut être aisément prise en charge par un chirurgien orthopédiste adulte formé, le traitement des séquelles traumatiques est beaucoup plus délicat en situation précaire. Les compétences d'un spécialiste sont le plus souvent nécessaires pour décider de la meilleure option thérapeutique en fonction du contexte (1,14,22). Pour cela il est important de connaître des experts facilement joignables, qui pourront donner leur avis sur la base d'une observation clinique et de clichés radiographiques transmis par internet. Selon Bertani et al. (22), ce concept de télé-médecine est une aide validée pour obtenir l'expertise nécessaire à la planification d'un projet thérapeutique. Il s'agit d'une méthode simple d'utilisation, mais qui nécessite souvent une connaissance réciproque, voire un lien d'amitiés, entre le médecin demandeur et l'expert.

## Collaboration avec les structures de soins locales

Les deux principales limites à l'AMP dans les structures chirurgicales de l'avant sont la faible capacité d'hospitalisation et les difficultés du suivi post-opératoire. Pour éviter l'engorgement du secteur d'hospitalisation et faire bénéficier des soins au plus grand nombre, un turn over rapide des patients est souvent nécessaire faisant privilégier dans la mesure du possible les « interventions gagnantes ». Arul et al. (18) rapportent ainsi une durée d'hospitalisation moyenne de deux jours pour les enfants pris en charge à l'hôpital de Camp Bastion. Les difficultés du suivi post-opératoire sont multifactorielles dans ce contexte : conditions de sécurité, éloignement des patients, barrière culturelle ou linguistique, etc... Il s'agit là d'un frein majeur aux traitements chirurgicaux séquentiels s'étalant sur plusieurs mois (souvent nécessaires à la reconstruction des membres) et à l'évaluation des résultats. Pour pallier ces limitations, il est primordial d'avoir des correspondants au sein des hôpitaux locaux ou des organisations humanitaires présentes, car ils auront la charge d'effectuer les derniers soins et d'assurer le suivi. Ce sont parfois eux qui adressent les patients pour un geste chirurgical difficilement réalisable dans leur structure. Cela est particulièrement nécessaire pour l'appareillage des enfants amputés (généralement effectué dans les centres du Comité International de la Croix Rouge) et pour les brûlés nécessitant des soins locaux prolongés et de la rééducation. Le transfert précoce d'enfants brûlés ou traumatisés graves est délicat, et parfois discutable sur le plan éthique, mais l'un des principes de base de l'AMP est aussi de ne pas substituer aux structures de soins locales (9,11,15,18).

## Conclusion

La traumatologie pédiatrique représente une part importante de l'activité dans les formations chirurgicales de l'avant françaises. Elle est effectuée par des chirurgiens non spécialistes ayant reçus une formation spécifique. Des ambitions chirurgicales modestes, le recours à la télé-expertise, et l'intégration aux réseaux de soins locaux sont souvent les clés d'une prise en charge réussie. Cette activité particulièrement gratifiante est aussi source de contraintes techniques, logistiques et émotionnelles certaines. Elle doit toujours être encouragée car elle améliore les relations avec les populations locales et facilite l'intégration des forces déployées.

## Remerciements

Nous remercions Julien Danis et Martin Frank pour leur contribution à cette étude. Nous remercions également toutes les équipes ayant participé à la prise en charge des enfants au sein de l'HMC KaIA et du GMC Epervier.

## Lien d'intérêt

Aucun.

## Références

1. Burnett MW, Spinella PC, Azarow KS, Callahan CW. Pediatric care as part of the US Army medical mission in the global war on terrorism in Afghanistan and Iraq, december 2001 to December 2004. *Pediatrics*. 2008;121:261-5.
2. McGuigan R, Spinella PC, Beeckley A, Sebesta J, Perkins J, Grathwohl K, et al. Pediatric trauma: experience of a combat support hospital in Iraq. *J Ped Surg* 2007;42:207-10.
3. Creamer KM, Edwards MJ, Shields CH, Thompson MW, Yu CE, Adelman W. Pediatric wartime admissions to US military combat support hospitals in Afghanistan and Iraq: learning from the first 2000 admissions. *J Trauma*. 2009;67:762-8.
4. Spinella PC, Borgman MA, Azarow KS. Pediatric trauma in an austere combat environment. *Crit Care Med*. 2008;36(Suppl 7):S293-9.
5. Matos RI, Holcomb JB, Callahan C, Spinella PC. Increased mortality rates of young children with traumatic injuries at a US Army combat support hospital in Baghdad, Iraq, 2004. *Pediatrics*. 2008;122:e959-66.
6. Edwards MJ, Lustik M, Burnett MW, Eichelberger M. Pediatric inpatient humanitarian care in combat: Iraq and Afghanistan 2002 to 2012. *J Am Coll Surg*. 2014;218:1018-23.
7. Pannell D, Poynter J, Wales P, Tien H, Nathens A, Shellington D. Factors affecting mortality of pediatric trauma patients encountered in Kandahar, Afghanistan. *Can J Surg*. 2015; 58 (3) Suppl 3:141-5.
8. Inwald D, Arul G, Montgomery M, Henning J, McNicholas J, Bree S. Management of children in the deployed intensive care unit at camp Bastion, Afghanistan. *J R Army Med Corps*. 2014;160:236-40.
9. Barbier O, Mathieu L, Bertani A, Pons F, Ollat D. Pediatrics activity in military theatre. *Med Sante Trop*. 2015;25(2):122-4.
10. Mathieu L, Bertani A, Rongieras F, Chaudier P, Mary P, Versier G. Wartime paediatric extremity injuries: experience from the Kabul International Airport Combat Support Hospital. *J Pediatr Orthop B*. 2015; 24(3):238-45.
11. Bertani A, Mathieu L, Daban JL, Launay F, Rongieras F, Rigal S. War-related extremity injuries in children: 89 cases managed in a combat support hospital in Afghanistan. *Orthop Traumatol Surg Res*. 2015; 101(3):365-8.
12. Mathieu L, Joly B, Bertani A, Rongieras F, Bonnet S, Pons F, Rigal S. Modern teaching of military surgery: why and how to prepare the orthopedic surgeons before deployment? The French experience. *Inter Orthop*. 2015; 39(10):1887-93.
13. Mathieu L, Bertani A, Chaudier P, Charpail C, Rongieras F, Chauvin F. Management of the complications of traditional bone setting for upper extremity fractures: The experiences of a French Forward Surgical Team in Chad. *Chir Main*. 2014;33:137-43.
14. Borgman M, Matos RI, Blackburne LH, Spinella PC. Ten years of military pediatric care in Afghanistan and Iraq. *J Trauma Acute Care Surg* 2012;73 (Suppl 5):S509-13.
15. Bonnet S, Gonzalez F, Savoie PH, Bertani A, Hornez E, Mocellin N, Mathieu L, Poichotte A, Rigal S, Pons F. Dix ans d'activité des antennes chirurgicales françaises en Côte-d'Ivoire (Opération LICORNE) : bilan de l'activité chirurgicale et réflexions sur l'aide médicale à la population. *E-Mem Acad Natl Chir*. 2015;14(1):025-32.
16. Barbier O, Malgras B, Versier G, Pons F, Rigal S, Ollat D. French surgical experience in the Role 3 Medical Treatment Facility of KaIA (Kabul International Airport-Afghanistan): the place of the orthopaedic surgery. *Orthop Traumatol Surg Res*. 2014;100:681-5.
17. Belmont JP Jr, McCriskin BJ, Hsiao MS, Burks R, Nelson KJ, Schoenfeld AJ. The nature and incidence of musculoskeletal combat wounds in Iraq and Afghanistan (2005-2009). *J Orthop Trauma*. 2013;27:107-13.
18. Arul GS, Reynolds J, DiRusso S, Scott A, Bree S, Templeton P, Midwinter MJ. Paediatric admissions to the British military hospital at Camp Bastion, Afghanistan. *Ann R Coll Surg Engl*. 2012;94:52-7.
19. Rigal S, Barthélémy R, Mathieu L, Barbier O. Indications du concept de Damage Control en orthopédie. *E-Mem Acad Natl Chir*. 2013;12 (2):45-9.
20. Stewart DG Jr, Kay RM, Skaggs DL. Open fractures in children. Principles of evaluation and management. *J Bone Joint Surg Am*.

- 2005;87:2784-98.
21. Mathieu L, Ouattara N, Poichotte A, Saint-Macari E, Barbier O, Rongi ras F, Rigal S. Temporary and definitive external fixation of war injuries: use of a dedicated French fixator. *Int Orthop*. 2014; 38(8):1569-76.
  22. Bertani A, Launay F, Candoni P, Mathieu L, Rongi ras F, Chauvin F. Teleconsultation in paediatric orthopaedics in Djibouti: Evaluation of response performance. *Orthop Traumatol Surg Res*. 2012;98: 803-7.



# L'action de groupe en santé : analyse des nouvelles dispositions légales et de leur impact pour les acteurs du système de santé

## The Health Class Action: Analysis of the New Legislation Adopted and her Impact on Health System Actors

Sabine Gibert

Avocat au Barreau de Paris - Docteur en droit

### Mots clés

- ◆ Action de groupe
- ◆ Procédure contentieuse
- ◆ Accidents médicaux collectifs

### Résumé

L'article 184 de la loi du 26 janvier 2016 de modernisation de notre système de santé introduit un nouveau chapitre au Code de la santé publique consacré à l'action de groupe en santé, autrement dénommée « class action à la française ».

Loin de garantir que les objectifs annoncés pourront être atteints, ce dispositif replace la réparation de certains accidents médicaux, les accidents sériels, sur le plan juridictionnel alors que la tendance depuis 2002, saluée par le plus grand nombre, avait été de privilégier la voie amiable.

Au surplus, le texte limite son champ d'application à certains accidents médicaux, ceux imputables à des produits de santé.

Le présent article propose une lecture de ces dispositions à la lumière des précédents existants en matière d'accidents médicaux sériels.

### Keywords

- ◆ Class action
- ◆ Litigation
- ◆ Collective medical accidents

### Abstract

Section 184 of the 2016, 26th January Act for modernizing our health system introduces a new chapter to the Public Health Code dedicated to the health class action.

Far from ensuring that the announced objectives can be achieved, this device replaces the repair of certain medical accidents, serial accidents, in the courts while the trend since 2002, welcomed by the majority, was to favor amicable.

Moreover, the text limits its scope to certain medical accidents, those attributable to health products.

This article proposes a reading of this law in the light of existing precedents for serial medical accidents.

## Les fondamentaux de l'action de groupe en santé

Le dispositif d'action de groupe en santé a été adopté dans la version définitive, par l'Assemblée Nationale, le 17 décembre 2015 (1). Le Conseil Constitutionnel a validé ces dispositions par décision du 21 janvier 2016 (2). Le texte de loi a été promulgué (3) et publié au Journal Officiel le 27 janvier 2016.

Alors que la loi Hamon du 17 mars 2014 (4), créant l'action de groupe en matière de consommation, prévoyait un délai de 30 mois avant d'envisager une extension possible du champ d'application de l'action de groupe aux domaines de la santé et de l'environnement, le Gouvernement s'est hâté de présenter son projet d'action de groupe en santé dès le 15 octobre 2014, autrement dit 15 jours après l'entrée en vigueur de l'action de groupe en matière de consommation.

Un décret d'application devra définir les modalités de mise en œuvre de cette nouvelle procédure et fixer la date d'entrée en vigueur de ces dispositions qui est fixée, par la loi, au plus tard au 1er juillet 2016.

Le texte de loi étant peu détaillé sur un certain nombre de points, les éléments attendus dans les dispositions réglementaires apparaîtront d'une grande importance, d'autant que le pouvoir réglementaire a, pour chacun des dispositifs mis en place en matière d'accidents médicaux sériels, habitué le lecteur à un certain niveau de détails procéduraux. Ces « détails » procéduraux sont, au surplus, ceux qui permettent au justiciable de mesurer l'attractivité de telle ou telle procédure dans une matière où les voies procédurales se sédimentent au fil des législations successives.

Le texte de la loi du 26 janvier 2016 prévoit, à son tour, la réalisation d'un rapport remis au Parlement par le Gouvernement, 30 mois au plus tard après la promulgation de la loi afin d'évaluer les conditions de mise en œuvre de la procédure d'action de groupe et de proposer les adaptations nécessaires.

Le texte de loi prend la précaution de préciser qu'aucune convention ne peut avoir pour objet ou pour effet d'interdire la participation à une action de groupe.

Pour une part, l'action de groupe en santé s'inscrit dans la continuité des dispositions législatives adoptées depuis la loi

### Correspondance :

Sabine Gibert

Avocat au Barreau de Paris - Docteur en droit

E-mail : [sabine.gibert75@gmail.com](mailto:sabine.gibert75@gmail.com)

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000

Kouchner de 2002 (5) en faveur des victimes d'accidents médicaux.

En effet, après la mise en place de sa mission principale d'indemnisation des victimes de certains accidents médicaux non fautifs en 2002, l'ONIAM (office national d'indemnisation des accidents médicaux) s'est vu successivement confier de multiples missions entre 2005 et 2012, d'abord concernant les victimes de la contamination par la maladie de Creutzfeldt Jacob à la suite d'un traitement par hormone de croissance extractive à compter de 2003, de dommages imputables à des vaccinations obligatoires ou de mesures sanitaires d'urgence (vaccination contre la grippe A H1N1<sub>09</sub>) à compter de 2006, de contaminations sanguines par les virus d'immunodéficience humaine, de l'hépatite C ou B ou par le virus T-lymphotropique humain (dispositions successivement entrées en vigueur entre 2006 et 2013), de dommages imputables à l'accident de radiothérapie d'Epinal en 2007, ou encore de dommages imputables à un traitement par le benfluorex (Mediator®) à compter de septembre 2011. Ces différentes missions confiées à l'établissement public à la demande des associations de victimes attestaient de la reconnaissance accordée à la mission de cet établissement dans les années qui ont suivi sa création. Notons que, depuis 2012, l'ONIAM n'a en revanche été amené à absorber aucune nouvelle mission, ce qui peut conduire à s'interroger sur un certain déficit de notoriété. À ce titre, on observera que le législateur de 2015 n'a pas retenu l'option qui aurait pu consister à favoriser un traitement amiable des accidents sériels imputables à des produits de santé par le biais d'un dispositif qui aurait pu, en d'autres temps, être confié à l'ONIAM.

A ce titre, l'action de groupe en santé s'inscrit dans une certaine rupture par rapports aux dispositifs successivement mis en place depuis 2002. En effet, la voie juridictionnelle est privilégiée par rapport aux dispositifs amiables jusqu'alors instaurés. Au surplus, si la représentation par un avocat n'était pas obligatoire dans le cadre du dispositif amiable confié aux commissions de conciliation et d'indemnisation des accidents médicaux (CCI) et à l'ONIAM, l'assistance par un avocat est soumise à l'autorisation de la juridiction saisie dans le cadre de l'action de groupe (6). Enfin, la procédure d'action de groupe concerne uniquement la responsabilité des acteurs de santé en matière de production, fourniture ou utilisation de produits de santé alors que la procédure amiable mise en place en 2002 concerne l'ensemble des accidents médicaux, fautifs ou non, qu'elle qu'en soit l'origine. Ainsi, une infection nosocomiale sérielle ou une faute médicale quelconque occasionnant un grand nombre de victimes ne pourra pas faire l'objet d'une action de groupe si la cause du dommage ne peut être mise en rapport avec l'usage d'un produit de santé. Néanmoins, la procédure amiable de 2002 vise les dommages corporels les plus graves, dépassant certains seuils de gravité (7), alors que l'action de groupe vise l'ensemble des dommages corporels sans condition de gravité. L'objectif gouvernemental multiple affiché pour ce dispositif d'action de groupe est de mobiliser les usagers, de réduire le temps d'indemnisation et de garantir une défense homogène des usagers. Nous verrons dans les développements qui vont suivre que ces résultats pourraient ne pas être atteints en l'état du texte adopté, la procédure proposée ne présentant pas l'attractivité attendue, à l'exception des situations de très faibles dommages.

## La procédure d'action de groupe en quatre phases

Qui peut agir ?

L'action de groupe en santé s'adresse aux usagers du système de santé victimes d'un dommage causé par un produit de santé. L'action contentieuse n'est cependant pas initiée par la victime du dommage mais par l'une des associations de

patients agréées au niveau national et régional (près de 500 associations agréées à ce jour). A titre de comparaison, seules une quinzaine d'associations sont compétentes pour initier une action de groupe en matière de consommation.

Le texte précise que l'action n'est « pas ouverte aux associations ayant pour activité annexe la commercialisation d'un produit de santé », même, nous semble-t-il, si le produit qu'elle commercialise n'est pas le produit concerné par l'action.

La première question posée est celle du risque de défaut d'accès à l'action de groupe pour les usagers du système de santé dont aucune association ne voudrait porter la cause. Ces patients se verront privés d'une voie procédurale sans que le texte ne prévoit que les associations puissent être jointes à initier une telle action ou que l'action puisse, dans ce cas, être portée par un avocat sans le concours d'une telle association. L'article L.114319 du Code de la santé publique prévoit néanmoins la faculté pour toute association agréée de demander au juge, à compter de sa saisine et à tout moment au cours de l'accomplissement des missions prévues dans le cadre de l'action de groupe, sa substitution dans les droits de l'association requérante en cas de défaillance de cette dernière. Néanmoins, le risque d'échec de la procédure pouvant nuire à l'image de l'association requérante, la tendance pourrait être d'opérer, en amont, une forte sélection des dossiers et de laisser certains usagers du système de santé sans association représentative.

Inversement, pour les dossiers impliquant plusieurs associations, la saisine par plusieurs associations pour une même action sera telle autorisée ? Si le singulier est utilisé dans le texte de loi, doit-on exclure que plusieurs associations fassent le choix d'être co-défenderesses à une même action de groupe ?

La procédure est souvent présentée comme comprenant trois phases (jugement en responsabilité, médiation, réparation individuelle des préjudices) dont la deuxième n'est que facultative. Elle en comprend selon notre analyse une quatrième, essentielle et redoutable, qui fait toute la particularité de cette procédure : la phase de médiatisation et d'adhésion au groupe.

### Phase 1 : le jugement de responsabilité

Les dispositions du texte portant sur le jugement de responsabilité renvoient à un certain nombre de conditions qui méritent, chacune, d'être définies et précisées et posent nombre d'interrogations qui ne pourront être résolues qu'à la lumière du décret d'application et de l'interprétation qui sera donnée par les juridictions qui seront saisies dans le cadre de cette action.

#### En faveur de qui l'action de groupe est-elle menée ?

L'action sera exercée par l'association agréée en représentation de plusieurs victimes (au moins 2) placées « dans une situation similaire ou identique et ayant pour cause commune un manquement d'un producteur, d'un fournisseur de produits de santé ou d'un prestataire utilisateur de ces produits à leurs obligations légales ou contractuelles » (8).

Le texte précise que le juge « statue sur la responsabilité du défendeur au vu des cas individuels présentés par l'association requérante ». Dans la même décision, le juge définira « le groupe des usagers du système de santé à l'égard desquels la responsabilité du défendeur est engagée et fixe les critères de rattachement au groupe » (9). La responsabilité de l'association dans le choix des premiers cas individuels présentés sera dès lors essentielle. Si ces cas ne sont pas suffisamment illustratifs pour conduire à retenir la responsabilité des acteurs de santé poursuivis, la décision devrait conclure au débouté. Or, le dispositif prévoit que « n'est pas recevable l'action de groupe lorsqu'elle se fonde sur les mêmes faits, les mêmes manquements et la réparation des mêmes préju-

dices que ceux ayant déjà fait l'objet du jugement [de responsabilité de la procédure d'action de groupe] » (10). A titre d'illustration, imagine-t-on, dans l'affaire dite « du Mediator® », que, si la procédure d'action de groupe avait existé, l'association se serait présentée devant la juridiction avec des cas individuels de valvulopathies de grade 1 plutôt qu'avec des HTAP précapillaires (11) ? En effet, selon les conclusions du collège d'experts (12) compétent en matière de dommages imputables au benfluorex (13), si l'HTAP précapillaire peut être imputée de manière directe et certaine au traitement par Mediator®, en revanche, les valvulopathies de grade 1, en raison de leur fréquence dans la population générale, sont loin d'être pathognomoniques d'une exposition au benfluorex et ne permettent donc pas de conclure de manière certaine à l'existence d'un lien causal.

Néanmoins, la juridiction sera telle tenue par la composition des cas individuels qui lui sont présentés pour définir les critères de rattachement au groupe ? Nous pensons que la réponse doit être affirmative dans la mesure où seuls ces cas individuels auront fait l'objet de l'expertise prévue par la procédure. En effet, si, dans notre hypothèse précédente, l'association ne présente que des cas d'HTAP précapillaire afin de faciliter la démonstration du lien causal, il nous semble que le juge ne disposera aucunement des éléments d'expertise lui permettant de conclure sur la question de savoir si des cas de valvulopathies, quel qu'en soit le grade, entrent dans les critères de rattachement au groupe. Il sera, de ce point de vue, tenu par les termes et les limites du litige. D'ailleurs, quiconque s'est intéressé de près à l'affaire dite « du Mediator® » sait qu'on ne peut considérer qu'un patient victime d'une valvulopathie de grade 1 se trouve dans une « situation similaire ou identique » avec un patient victime d'une HTAP précapillaire au regard de l'appréciation des dommages corporels. Mais dans ce cas, faudra-t-il autant d'action de groupe que de situation pathologique occasionnée par le produit de santé ? Ou suffira-t-il de présenter un cas individuel pour chaque pathologie (ou niveau de gravité des pathologies) pour permettre au juge d'apprécier les critères de rattachement au groupe ? La question sera tranchée par les premières procédures d'action de groupe.

### Quelle situation est visée par l'action de groupe en santé ?

Le texte exige que le dommage des différentes victimes ait une « cause commune ». L'identification d'une cause commune, en matière médicale, plus encore qu'en matière de consommation, pose une véritable difficulté. Partons de l'accident de radiothérapie d'Epinal. On observera que cet accident collectif qui a concerné de nombreux patients sur plusieurs années a trouvé sa « cause » dans au moins deux erreurs techniques (une erreur de paramétrage et la non prise en compte des doses de radiations reçues à l'occasion des contrôles radiologiques - « matchings » -) occasionnant des surdosages variables, sur des périodes variables, un même patient pouvant être concerné par une seule ou par les deux causes techniques. Comment apprécierait-on, avec la procédure d'action de groupe, ces situations très différentes ? Notons que le comité de suivi et d'indemnisation mis en place en faveur des victimes de l'accident de radiothérapie d'Epinal a fonctionné d'une manière assez proche de la procédure de médiation prévue dans le cadre de la procédure d'action de groupe. Il a ainsi été possible de déterminer, pour cet accident, des critères d'inclusion en faveur de victimes pour lesquelles les séquelles radiques ont pu être présumées imputables aux surdoses de radiothérapie (à partir de 7 % de surirradiation). Dans ces hypothèses, les séquelles radiques n'étaient plus considérées comme des conséquences attendues et prévisibles du traitement par radiothérapie. Mais cette illustration nous conduit à penser que l'action de groupe, telle que prévue par le texte de loi, sera plus restrictive que la procédure ainsi mise en place puisque les victimes

relevant de causes techniques différentes ne devraient pouvoir porter leur dossier devant la juridiction au titre d'une seule et même action de groupe.

La considération d'une cause commune renvoie également à la question des **plafonds de garantie assurantiers**. En effet, l'article L.2512 du Code des assurances dispose que constitue un seul et même sinistre « *tout dommage ou ensemble de dommages causés à des tiers, engageant la responsabilité de l'assuré, résultant d'un fait dommageable ou d'un ensemble de faits dommageables ayant la même cause technique, imputable aux activités de l'assuré garanties par le contrat, et ayant donné lieu à une ou plusieurs réclamations* ».

En matière de responsabilité médicale et hospitalière, l'engagement assurantiel étant plafonné par sinistre, il est possible d'en déduire qu'un seul plafond de garantie pourrait s'appliquer à une action de groupe quel que soit le nombre des patients qui pourraient entrer dans les critères de rattachement au groupe et quels que soient les dommages corporels qui seront déterminés par le jugement. Si les médecins libéraux bénéficient de l'intervention d'un fonds de garantie (14) au-delà de ces plafonds de garantie fixés réglementairement (15), tel n'est pas le cas des établissements de santé et des producteurs et fournisseurs de produits de santé qui pourraient être responsables, sur leurs propres deniers, de la réparation des préjudices excédant de tels plafonds. Cette hypothèse pourrait, à l'extrême, conduire à une insolvabilité du responsable à l'égard des victimes, comme l'illustre le précédent en matière de prothèses PIP. Il n'est pas inutile de préciser qu'en l'état de la rédaction des textes, l'ONIAM n'aurait alors pas compétence pour intervenir au-delà de ces plafonds de garantie dans le cadre d'une action de groupe (16).

### La définition des critères de rattachement au groupe

Le texte de loi est insuffisamment précis sur le rôle des experts à ce stade de la procédure, bien au-delà de la détermination des responsabilités encourues et des dommages corporels réparables, dans l'appréciation du caractère commun de la cause du dommage, de la similitude des cas individuels présentés ainsi que dans la définition des critères de rattachement. Une expertise collégiale sera souvent nécessaire, et pourrait rendre nécessaire la réunion de compétences à la fois médicales et scientifiques (notamment pour certaines causes techniques comme la radiothérapie ou certaines thérapeutiques innovantes). Les précédents de l'accident de radiothérapie d'Epinal ou du Mediator® ont démontré tout l'intérêt d'une collégialité de l'expertise et du respect du principe de la contradiction, conduisant même à la mise en place de collèges d'experts au sein desquels les parties sont représentées ou dont les membres sont désignés sur proposition des parties. On peut par ailleurs regretter que le texte de loi n'ait pas soumis l'expertise de l'action de groupe en santé aux garanties relatives à l'absence de conflits d'intérêts visées aux articles L.14521 à L.14523 du Code de la santé publique étant donné les enjeux en cause (17).

Cette cause commune doit être en lien avec un ou des « produits de santé » au sens de l'article L.53111 du Code de la santé publique, article qui comprend une définition relativement large (18), liée au processus d'autorisation et d'évaluation confié à l'ANSM (19). L'importance du rôle de l'ANSM dans le processus de mise en circulation des produits de santé peut faire regretter que cette agence ne puisse être impliquée dans la recherche des responsabilités à l'occasion de l'action de groupe, obligeant à opérer par des voies procédurales multiples si de telles responsabilités venaient à être recherchées, soit en première intention par les victimes, soit à l'occasion d'une action récursoire des acteurs de santé dont la responsabilité pourrait être retenue dans le cadre de l'action de groupe.

Il convient par ailleurs de se demander si les dommages imputables à des produits de santé à l'étape des essais cliniques entreraient dans la procédure de l'action de groupe pour l'en-



gagement de la responsabilité du promoteur de la recherche biomédicale sur le fondement de l'article L.112110 du Code de la santé publique.

### Contre qui l'action de groupe peut-elle être dirigée ?

L'action de groupe conduira à engager la responsabilité d'un **producteur** (titulaire ou non de l'autorisation de mise sur le marché), d'un **fournisseur** (pharmacien notamment) ou d'un **utilisateur** de produits de santé (professionnel de santé, notamment les chirurgiens, les dentistes, et plus globalement les établissements de santé). Le périmètre des acteurs de santé concernés est donc vaste.

Notons que si l'action de groupe en matière de consommation vise les poursuites engagées contre « *des mêmes professionnels* », le texte de loi relatif à l'action de groupe en santé utilise le singulier à toutes les étapes, semblant ne pas envisager l'hypothèse d'une action contre un ensemble d'acteurs de santé ayant pu contribuer, dans la chaîne causale, à la survenue du dommage. Observons néanmoins que, dans le cadre de la médiation, l'article L.11439 du Code de la santé publique dispose que la convention d'indemnisation amiable doit être acceptée par « *l'une au moins des personnes mises en cause dans l'action engagée en application de l'article L.11431* ». L'hypothèse d'une action contre plusieurs défendeurs ne semble ainsi pas exclue et une latitude est laissée aux juridictions pour apprécier la recevabilité d'une telle pluralité de mises en cause. Il nous semble indispensable que tel puisse être le cas notamment dans les situations où les patients seront victimes d'une même molécule commercialisée par plusieurs laboratoires sans que le dommage ne puisse être imputé à l'un ou l'autre des traitements, notamment lorsque le patient se sera vu indifféremment administré le médicament princeps et le générique (comme dans l'affaire dite « du Mediator<sup>®</sup> » dont le générique était commercialisé par un second laboratoire).

### Devant quelle instance l'action de groupe peut-elle être conduite ?

Les **juridictions compétentes** pour connaître de l'action de groupe sont les juridictions de droit commun, déterminées en fonction de la nature du fait générateur du dommage et du lieu de réalisation du dommage.

Il s'agit des juridictions judiciaires si le lieu de réalisation du dommage relève du secteur privé et des juridictions administratives lorsque le lieu de réalisation du dommage relève du secteur hospitalier public.

Ainsi, si la pluralité de défendeurs à une même action de groupe est admise, une dualité de compétence juridictionnelle pourra être rencontrée lorsque, pour une même action de groupe, pourraient être mis en cause à la fois un laboratoire producteur, relevant du secteur privé, et un ou des médecins utilisateurs du produit relevant du secteur hospitalier. De même, en cas de compétences territoriales différentes en raison de lieux différents de réalisation du dommage (pluralité de défendeurs et pluralités de lieux de réalisation du dommage), la connexité pourrait-elle être prononcée si plusieurs juridictions sont saisies d'une action de groupe similaire ?

### À quel titre l'action de groupe est-elle engagée ?

L'action de groupe est une **action en responsabilité**. L'article L.11431 dispose ainsi que la cause commune doit résider dans un **manquement** du défendeur à ses **obligations légales ou contractuelles**. La responsabilité sans faute est donc exclue de la procédure d'action de groupe de même que l'hypothèse d'affections iatrogènes non fautives relevant d'une indemnisation à la charge de l'ONIAM.

Mais l'utilisation du vocable de « manquement » fait-elle de ce texte un simple texte de procédure ne changeant rien aux

régimes d'engagement de la responsabilité des acteurs en cause ou l'appréciation du régime de responsabilité sera t-elle propre à la procédure d'action de groupe ?

L'article L.11421 I du Code de la santé publique dispose qu'« *hors le cas où leur responsabilité est encourue en raison d'un défaut d'un produit de santé, les professionnels de santé mentionnés à la quatrième partie du présent code, ainsi que tout établissement, service ou organisme dans lesquels sont réalisés des actes individuels de prévention, de diagnostic ou de soins ne sont responsables des conséquences dommageables d'actes de prévention, de diagnostic ou de soins qu'en cas de faute* ».

L'article 13861 du Code civil mentionne que « *le producteur est responsable du dommage causé par un défaut de son produit, qu'il soit ou non lié par un contrat avec la victime* ».

On veut bien considérer que tout manquement à une obligation légale ou contractuelle peut s'interpréter comme fautif. On sait également, notamment depuis l'arrêt Mercier de 1936 (20), que le médecin prend l'engagement contractuel de donner à son patient « *des soins, non pas quelconques (...), mais consciencieux, attentifs et, réserve faite de circonstances exceptionnelles, conformes aux données acquises de la science* ».

Néanmoins, toute faute est-elle nécessairement constitutive d'un manquement à une obligation légale ou contractuelle ? De plus, il n'est rien dit, dans le texte de loi, des manquements à une obligation qui serait de niveau réglementaire et non légal.

De même, la responsabilité du producteur en matière de produits défectueux est une responsabilité de plein droit qui, si elle repose sur l'obligation légale de fournir un produit exempt de vice, ne réside pas nécessairement dans un lien contractuel entre le producteur et le patient victime. Ce régime de responsabilité est-il ainsi visé par l'action de groupe ?

### Quels dommages l'action de groupe vise-t-elle à réparer ?

L'action de groupe est limitée à « *la réparation des préjudices résultants de dommage corporel* » (21). Dans le jugement de responsabilité, le juge déterminera ainsi « *les dommages corporels susceptibles d'être réparés pour les usagers constituant le groupe qu'il définit* » (22).

Le dommage réparable dans le cadre de l'action de groupe est donc doublement circonscrit : aux seuls dommages corporels, et pour chaque action de groupe, aux dommages qui seront déterminés dans le jugement de responsabilité avant toute appréciation de la situation individuelle des personnes qui souhaiteront adhérer au groupe. En la matière aussi, la responsabilité de l'association dans le choix des premiers cas individuels présentés sera essentielle car ces cas individuels serviront à déterminer le périmètre des dommages corporels susceptibles d'être réparés. Mais les patients victimes qui ne représenteront pas des « cas individuels » suffisamment illustratifs ne risqueront-ils pas de se voir refuser l'accès à la première phase de la procédure d'action de groupe ? Cette procédure ne place-t-elle pas, de ce point de vue, les patients victimes dans une certaine inégalité de traitement ?

Enfin, nous pouvons nous interroger, à la lumière de la récente jurisprudence, sur la question de la recevabilité de l'action de groupe pour les victimes qui se prévaudraient d'une simple exposition au risque ou d'un simple défaut d'information n'ayant pas occasionné, à ce stade, de dommage corporel. Le **préjudice d'anxiété** corrélatif (comme celui récemment retenu dans l'affaire dite « du Mediator<sup>®</sup> ») (23), le **préjudice moral autonome** (24) ou le **préjudice d'impréparation** (25), qui peut être essentiellement matériel, reconnus par la jurisprudence, entreront-ils dans les dommages qui pourront être retenus dans le cadre de l'action de groupe en santé ?

### La grande absente du texte relatif à l'action de groupe en santé : la notion d'imputabilité

Notons enfin que le texte de loi relatif à l'action de groupe en santé ne mentionne aucunement la notion d'imputabilité, encore moins pour la qualifier de certaine. C'est pourtant dans cette notion que résidera toute la difficulté d'appréciation des cas qui seront soumis à l'appréciation des juridictions, comme dans l'ensemble des accidents médicaux.

A la différence du texte de loi relatif à l'action de groupe en consommation qui pouvait peut-être se dispenser de cette mention tant il est évident que le préjudice matériel qui sera invoqué devra être rapporté au comportement du professionnel mis en cause, le rédacteur de l'article 184 de la loi n° 201641 semble avoir parfaitement négligé combien l'appréciation de cette imputabilité est au cœur de la discussion pour les accidents médicaux.

En effet, la maladie qu'il s'agissait de traiter au moyen du produit de santé incriminé peut avoir concouru à la survenue du dommage, soit de manière générale, soit dans certains cas individuels (26). En ce sens, les statistiques de fonctionnement des CCI (27) révèlent que, pour 4577 dossiers instruits par les commissions en 2013, 4 % des demandes étaient rejetées avant toute expertise au fond en raison de l'absence évidente de lien de causalité entre l'acte en cause et le dommage et 13 % des demandes aboutissaient à un débouté après expertise pour le même motif. Ainsi, tous dommages médicaux confondus, 17 % des demandes amiables sont rejetées pour défaut d'imputabilité. Le législateur ne pouvait ignorer ces chiffres issus d'un rapport annuel au Parlement et au Gouvernement, et, de ce point de vue, on s'explique difficilement ce « copier-coller » malheureux du texte de la loi consommation. Le délai de réflexion de 30 mois proposé par la loi consommation avant une extension au domaine de la santé aurait pu être mis à profit en particulier sur ce terrain.

Le rôle des experts en la matière sera d'autant plus essentiel, à toutes les étapes de la procédure.

Les précédents en matière sanitaire ont démontré tout l'enjeu de la discussion relative à l'imputabilité. Ainsi, lors d'accidents collectifs de radiothérapie, les expertises individuelles ont été nécessaires à Épinal, en amont de la procédure, pour déterminer pour chaque patient le taux de sur irradiation, et à Toulouse pour déterminer si les séquelles radiques étaient caractéristiques d'une sur irradiation ou de même nature que les séquelles radiques attendues de tout traitement par radiothérapie, et surtout si les troubles invoqués étaient en rapport avec l'accident de radiothérapie ou en lien avec la tumeur qu'il s'agissait de traiter, notamment en raison de la localisation anatomique de cette tumeur. On sait également combien, dans l'affaire dite « du Mediator® », la discussion de l'imputabilité a été difficile concernant l'imputabilité au traitement par benfluorex des valvulopathies de faible grade au regard des autres étiologies possibles de ces valvulopathies et de l'occurrence de ce type de valvulopathie dans la population générale, faisant douter du caractère certain du lien entre ces pathologies et le traitement incriminé. C'est la raison majeure pour laquelle une transposition quasiment à l'identique du dispositif du droit de la consommation au dispositif santé semble pour le moins hasardeux, l'appréciation collective du lien causal entre un produit de santé et un dommage invoqué semblant particulièrement délicat. Des précisions sur ce point mériteraient d'être apportées par le décret prévu pour l'application de cette mesure législative.

L'objet du jugement de responsabilité est vaste, et va jusqu'à la détermination du dommage corporel réparable. Cette détermination devra être aussi précise que possible afin que le défendeur connaisse le périmètre de la réparation à réaliser mais surtout afin que les personnes s'estimant victime du produit incriminé trouvent un intérêt à adhérer au groupe (28).

### Quelles sont les voies de recours contre ce jugement ?

Le jugement de responsabilité est susceptible des mêmes voies de recours que celles applicables en application du droit commun (appel - cassation). Seules les décisions de mise en œuvre d'une mesure de médiation et la désignation du médiateur sont insusceptibles de recours.

Les mesures de publicité destinées à informer de la décision les personnes susceptibles d'adhérer au groupe ne pourront être mise en œuvre qu'au terme des recours ordinaires et en cassation susceptibles d'être engagés. Cette disposition suffit à démontrer l'allongement prévisible des délais de la procédure dans le cadre de l'action de groupe en santé. En effet, l'un seul des éléments du jugement pourrait conduire les parties à faire appel de la décision et à retarder, de facto, la mise en œuvre de l'étape d'adhésion collective à la procédure permettant la détermination du nombre de victimes concernées et de franchir l'étape essentielle, et qui devrait rester le seul but de la procédure, de réparation individuelle des préjudices des victimes.

Les éléments soumis à l'appréciation du juge peuvent également faire l'objet d'une médiation, sur décision de la juridiction saisie.

### Phase 2 : la médiation

Observons en premier lieu que la médiation prévue dans le cadre de l'action de groupe en santé (29) semble s'inspirer des modèles issus des comités de suivi et d'indemnisation mis en place en 2007 dans les suites des accidents de radiothérapie d'Épinal et de Toulouse.

Cependant, la mesure de médiation est prononcée par la juridiction saisie, et non initiée par les parties avant toute saisine juridictionnelle. Le législateur a choisi de mentionner que la mise en place de la médiation était prononcée par le juge « avec l'accord des parties » et non, comme le texte initial le prévoyait, « à la demande des parties ». Le juge semble donc pouvoir, d'office, proposer une telle mesure plaçant de fait en difficulté celle des parties qui entendrait s'y opposer, même si la médiation ne peut être prononcée sans l'accord de l'ensemble des parties. En effet, chaque partie n'aura-t-elle pas à craindre un résultat défavorable lors du prononcé du jugement de responsabilité si elle s'est opposée à la médiation proposée par le juge ?

Le texte de loi n'indique pas si la mesure de médiation pourra être demandée et prononcée pour la première fois en cause d'appel.

Le texte précise en revanche que la décision du juge de mettre en place une médiation comme le choix du médiateur sont insusceptibles de recours. Sur ce dernier point, l'absence de recours contre le choix du médiateur est discutable, notamment, comme nous l'avons vu plus tôt, si l'on considère que le texte de loi n'offre aucune garantie quant à l'absence de conflit d'intérêt entre le médiateur, et les membres de la commission de médiation, et chacune des parties en présence.

Le projet de texte prévoyait initialement que la convention de médiation était, elle-même, insusceptible de recours. Cette mention a été supprimée et, si on peut imaginer que les parties à la convention n'auront pas qualité à en discuter les termes, on peut imaginer que des tiers puissent trouver qualité à agir contre cette convention.

La médiation correspond à la médiation judiciaire de la loi n° 95125 du 8 février 1995. Le juge fixe la durée de la mission du médiateur dans la limite de 3 mois renouvelables une fois pour la même durée. Les précédents des comités de suivi et d'indemnisation des accidents de radiothérapie d'Épinal et de Toulouse démontrent que ce délai peut apparaître trop limité et il serait regrettable que le processus de médiation échoue pour une simple question de délai. On peut d'ailleurs s'inter-

roger sur la question de savoir si la détermination d'un tel délai était du niveau législatif.

Le juge peut décider que le médiateur sera assisté d'une commission de médiation composée dans des conditions qui seront déterminées par le décret.

Le médiateur et les membres de la commission sont tenus au secret professionnel. On peut s'étonner, au regard du caractère sensible des informations qui seront communiquées dans le cadre de l'action de groupe en santé, que le texte de loi ne dispose pas expressément que les associations sont soumises à un tel secret tant à l'égard des usagers qu'elles représentent qu'à l'égard des défendeurs à l'action.

La convention d'indemnisation amiable peut déterminer ou non les responsabilités.

La difficulté majeure de cette médiation, du point de vue des défendeurs et de leurs assureurs, à la différence des comités de suivi et d'indemnisation des accidents de radiothérapie d'Épinal et de Toulouse, tient dans l'incertitude quant au nombre des patients qui entendront adhérer au groupe. En effet, la procédure de médiation ne place pas le défendeur en situation d'éviter les mesures de publicité qui assortissent la procédure d'action de groupe. Ce n'est qu'au terme du délai de mise en œuvre des mesures de publicité et du délai d'adhésion que l'assureur du défendeur connaîtra le périmètre des victimes concernées. Or, il lui est demandé de consentir à une convention d'indemnisation fixant les conditions dans lesquelles les offres transactionnelles individuelles seront présentées sans avoir préalablement été en mesure de déterminer le nombre de patients concernés.

Au total, le texte de loi prévoit que la convention d'indemnisation fixe les conditions de réparation du préjudice, en particulier le type de dommages corporels susceptibles de résulter des faits reprochés au défendeur, les modalités d'expertise individuelle contradictoire (30), les conditions de prise en charge des frais d'expertise par le défendeur, les conditions de réalisation des offres transactionnelles aux victimes comme aux tiers payeurs, les délais pour adhérer au groupe, les modalités de suivi du dispositif et les mesures de publicité mises en œuvre par et à la charge du défendeur. A cet égard, nous constatons que la convention d'indemnisation amiable n'a pas pour objet de déterminer, comme le jugement, les critères de rattachement au groupe.

Étant donné le périmètre de compétence du médiateur, on ne peut que regretter qu'aucune mesure d'expertise n'ait été prévue à ce stade de la procédure.

Proposée par le médiateur, la convention d'indemnisation doit être acceptée par l'association requérante et l'un au moins des défendeurs avant d'être homologuée par le juge saisi de cette action.

L'acceptation de la convention d'indemnisation par l'association ne préjuge pas de l'acquiescement de chaque victime à l'offre transactionnelle qui en résultera.

Si la mesure de médiation n'est pas couverte par la confidentialité, les transactions individuelles qui s'ensuivront revêtent, quant à elles, un caractère confidentiel.

L'homologation ne met fin à l'action qu'entre les parties signataires de la convention. Ainsi, la convention de médiation ne place pas l'assureur du défendeur en situation de clôturer le sinistre dans la mesure où d'autres requérants seront recevables à initier une nouvelle procédure par l'ensemble des voies procédurales existantes avant le terme du délai de prescription. Si elle n'est pas opposable aux tiers, la convention d'indemnisation amiable revêt néanmoins, d'une certaine manière, les caractères d'une forme de « droit créance » qui pourra être revendiqué contre le défendeur par d'autres victimes-tiers à la convention.

On peut inversement s'interroger sur la force opposable de cette convention à l'égard de nouvelles victimes qui initieraient une procédure juridictionnelle. Celle-ci relèverait en effet de la même compétence juridictionnelle et le défendeur aurait alors tout loisir de présenter au même juge comme

satisfaisantes les conditions d'indemnisation que la juridiction saisie aura précédemment homologuées. Aussi semble-t-il possible de considérer que les personnes s'estimant victimes d'un tel dommage n'auront guère intérêt à refuser la convention amiable, sauf à devoir attendre les voies de recours contre la décision qui sera prononcée par la juridiction de première instance. En revanche, la convention d'indemnisation ne sera pas, *ipso facto*, opposable aux tiers coresponsables contre lesquels le défendeur ayant accepté de signer la convention envisagerait d'initier une action récursoire.

En cas d'échec de la médiation, la juridiction saisie initialement est amenée à prononcer le jugement de responsabilité dans sa totalité.

### Phase 3 : l'opt-in et la mise en œuvre de mesures de publicité

Dans le jugement de responsabilité, le juge devra, au besoin (et sans nul doute) après diverses mesures d'instruction, apprécier si les conditions d'application de l'action de groupe sont réunies (situation similaire ou identique ayant une cause commune), statuer sur la responsabilité du défendeur au vu des cas individuels présentés par l'association requérante, définir les critères de rattachement au groupe et déterminer les dommages corporels susceptibles d'être réparés ; il pourra condamner le défendeur au paiement d'une **provision** à valoir sur les frais non compris dans les dépens exposés par l'association, y compris les frais d'avocat, et ordonner si nécessaire la **consignation** d'une provision auprès de la Caisse des dépôts et consignations ; mais, et c'est toute l'originalité de cette procédure, il devra également définir les délais d'adhésion au groupe et ordonner les « *mesures de publicité adaptées pour informer de cette décision les personnes susceptibles d'avoir subi un dommage du fait du manquement constaté* » (31).

La phase de médiatisation de l'action est à la fois indispensable au regard de l'option retenue par le législateur : celle de l'Opt-In. Elle est aussi la phase la plus redoutable qui, à l'origine d'insécurité juridique pour les acteurs de santé et leurs assureurs quant aux périmètres des patients demandeurs, est au surplus à l'origine d'un allongement important des délais de procédure et susceptible de faire de tous dommages médicaux un drame sanitaire, avec le retentissement anxiogène que l'on sait sur les personnes traitées avec le produit de santé pendant la période dite « à risque ».

### Le système d'Opt-In se distingue du système anglo-saxon d'Opt-Out

Dans ce second système d'Opt out, le groupe des personnes susceptibles d'être concernées par l'action de groupe est déterminé à l'avance en considération du volume de produits mis sur le marché et le défendeur est tenu de provisionner le montant indemnitaire correspondant, souvent forfaitaire, indépendamment du nombre de victimes qui demanderont effectivement réparation de leur préjudice.

Dans le premier système d'Opt-In, adopté par la loi française, le nombre des bénéficiaires de l'indemnisation ne sera connu qu'ultérieurement, après le terme des mesures de publicité et du délai pour adhérer au groupe fixé soit par le jugement de responsabilité, soit par la convention d'indemnisation amiable.

### Délai pour adhérer au groupe

Le **délai pour adhérer au groupe** sera ainsi fixé par la juridiction pour une période pouvant se situer entre 6 mois et 5 ans. Si la longueur de ce délai peut s'expliquer par les délais parfois longs d'apparition des symptômes des effets iatrogènes de certains traitements, on notera, à titre illustratif, que ce délai est fixé à 2 à 6 mois en matière de consommation et de



1 à 6 mois au Québec pour les recours collectifs en matière de santé (32).

Ce délai commence à courir à compter de l'achèvement des mesures de publicité ordonnées, étant rappelé que celles-ci ne débutent qu'après l'épuisement des voies de recours contre le jugement de responsabilité. On comprend ainsi que le délai de procédure d'une action de groupe peut être particulièrement long, dépendant de l'initiative d'une association pour porter l'action devant une juridiction qui devra apprécier si les conditions de l'action de groupe sont réunies, qui pourra désigner un médiateur pour une durée de 3 mois renouvelable une fois pour la même durée, avant qu'une convention d'indemnisation amiable, ou à défaut un jugement de responsabilité soit prononcé au terme duquel, sauf recours, des mesures de publicité auront lieu afin de permettre, dans un délai de 6 mois à 5 ans, à des usagers de présenter leur demande pour obtenir, par voie transactionnelle ou, à défaut, par la voie d'une nouvelle procédure contentieuse devant la même juridiction, elle-même susceptible de recours, une réparation individuelle de leurs préjudices. L'objectif affiché par le Gouvernement de réduction des délais d'indemnisation est bien loin d'être atteint.

### Délais de prescription

Ces délais de la procédure d'action de groupe sont à mettre en parallèle avec les **délais de prescription** applicables en la matière.

En effet, si l'article L.114316 du Code de la santé publique dispose que l'action de groupe suspend la prescription des actions individuelles en réparation des préjudices résultant des manquements constatés par le jugement ou des faits retenus par la convention homologuée, il est possible de s'interroger sur la compatibilité de cette mesure avec les régimes de prescription applicables en la matière mais également avec les périodes de garantie assurantielles des acteurs de santé concernés.

Cette mesure semble compatible avec les dispositions de l'article L.114228 du Code de la santé publique qui mentionne que « *les actions tendant à mettre en cause la responsabilité des professionnels de santé ou des établissements de santé publics ou privés à l'occasion d'actes de prévention, de diagnostic ou de soins et les demandes d'indemnisation formées devant l'Office national d'indemnisation des accidents médicaux, des affections iatrogènes et des infections nosocomiales en application du II de l'article L. 11421 et des articles L. 122114, L. 31119, L. 31221 et L. 31314 se prescrivent par dix ans à compter de la consolidation du dommage* ».

Elle conduit néanmoins à considérablement allonger les délais de prescription des poursuites contre les professionnels et établissement de santé dont le délai de couverture assurantielle ne semble pas compatible avec de telle prolongation des délais de prescription.

En effet, l'article L.2512 du code des assurances prévoit, au-delà de la période de validité du contrat d'assurance, une période de subséquente d'une durée minimale fixée légalement à 5 ans suivant la date d'expiration ou de résiliation de tout ou partie des garanties, dès lors que le fait dommageable est survenu pendant la période de validité du contrat et dans le cadre des activités garanties par le contrat, et 10 ans à compter de l'expiration du dernier contrat conclu, avant sa cessation d'activité professionnelle ou son décès, par un professionnel de santé libéral.

Si l'article L.4261 du Code des assurances prévoit, à la faveur des professionnels de santé libéraux, qu'un fonds de garantie « *prend également en charge l'intégralité des indemnités en cas d'expiration du délai de validité de la couverture d'assurance mentionné à l'article L. 2512 du présent code* », aucune garantie de ce type n'existe à la faveur des établissements de santé et des producteurs et fournisseurs de produits de santé, qui peuvent être amenés à devoir garantir sur leurs fonds propres un sinistre dont la réclamation surviendrait

tardivement en application des délais propres à l'action de groupe. Ceci implique, du point de vue du patient victime, un risque d'insolvabilité du responsable. Au surplus, l'intervention de l'ONIAM en cas d'expiration des délais de garantie assurantielle, prévue à l'article L.114215 du Code de la santé publique, sera en l'occurrence exclue, cette disposition ne trouvant, de jurisprudence constante (33), à s'appliquer que dans le cadre de la procédure amiable confiée aux CCI.

Au surplus, s'agissant des producteurs de produits de santé et de la responsabilité de plein droit qu'ils encourent du fait du défaut d'un produit, l'article 138617 du Code civil précise que « *l'action en réparation se prescrit dans un délai de trois ans à compter de la date à laquelle le demandeur a eu ou aurait dû avoir connaissance du dommage, du défaut et de l'identité du producteur* » et cette mesure est renforcée par les dispositions de l'article 138616 du même code qui ajoutent que « *sauf faute du producteur, la responsabilité de celui-ci, fondée sur les dispositions du présent titre, est éteinte dix ans après la mise en circulation du produit même qui a causé le dommage à moins que, durant cette période, la victime n'ait engagé une action en justice* ». Ces dispositions sont de niveau communautaire et la loi française ne peut donc y déroger.

Ces dispositions ne sont pas incompatibles avec les dispositions prévues pour l'action de groupe en santé, mais, au-delà des délais susvisés, ce n'est bien qu'en cas de faute, ou en cas de saisine d'une juridiction avant un délai de 10 ans suivant la mise en circulation du produit, que la responsabilité du producteur pour être poursuivie.

Reste une question à résoudre : à l'égard de qui le délai de prescription est-il suspendu ? Le délai de prescription sera sans conteste suspendu en faveur des cas individuels visés à l'article L.11432 du Code de la santé publique, des usagers du système de santé ayant adhéré au groupe visé au même article, et des tiers payeurs subrogés dans les droits de ces deux catégories de personnes. Cette suspension du délai de prescription nous semble également profiter au défendeur à l'action de groupe, subrogé dans les droits des victimes qu'il aura indemnisées, pour l'action récursoire qu'il pourrait entendre diriger contre d'éventuels co-responsables.

En revanche, le délai de prescription de l'action sera-t-il réputé suspendu à la faveur des personnes s'estimant victimes du même dommage mais n'ayant pas fait le choix d'adhérer au groupe dans le délai prévu au jugement de responsabilité ou à la convention d'indemnisation amiable homologuée ? Ces personnes pourront-elles se prévaloir de la suspension du délai de prescription ? La réponse nous semble très incertaine. La réponse à cette question est pourtant essentielle pour les personnes qui hésiteraient à opter pour telle ou telle voie procédurale.

Cette suspension des délais existe également dans la procédure confiée aux CCI en application de l'article L.11427 du Code de la santé publique. Le texte relatif à la procédure d'action de groupe précise cependant, à la différence de la procédure confiée aux CCI, que le délai de prescription recommence à courir pour une durée qui ne peut être inférieure à six mois à compter de la date d'homologation de la convention ou de la date à laquelle le jugement de responsabilité n'est plus susceptible de recours.

Même si, à la différence de la pratique Outre-Atlantique, aucun dommage punitif n'est prononcé dans le cadre de l'action de groupe en santé « à la française », les **mesures de publicité** qui seront prononcées dans le jugement de responsabilité ou dans la convention d'indemnisation amiable homologuée peuvent être perçues comme revêtant un caractère punitif au regard de l'atteinte à l'image et à la notoriété du défendeur à laquelle elles conduiront, atteintes qui peuvent, en elles-mêmes, participer à l'insolvabilité de celui-ci, ce qui n'est pas sans conséquence au regard de nos précédents développements relatifs aux limites tenant aux plafonds de garanties assurantielles existants.

L'article L.11433 du Code de la santé publique prévoit que ces mesures de publicité seront laissées à la charge du défendeur, ce qui peut, en soi, représenter un coût d'envergure. Les mesures de publicité seront précisées aussi bien quant à leur support que s'agissant de leur fréquence et de leur durée.

La discussion entre les parties sur ce point promet d'être difficile et un jugement de responsabilité trop sévère ou trop clément à cet égard (comme sur le délai d'adhésion au groupe) pourrait, à lui seul, conduire à l'exercice de voies de recours. Dans le cadre de la médiation, cette discussion sera également de nature à faire échouer la tentative d'obtenir un accord entre les parties.

Il peut sembler souhaitable de préférer à des mesures de publicité « grand public » des modalités de publicité moins doloisives et plus innovantes, ciblant les personnes ayant été en contact avec le produit, comme le recours au « mailing » sur la base du fichier client du responsable ou des données de l'assurance maladie, avec des formulaires de saisine adaptés et permettant, par des explications élaborées en lien avec les associations de patients, de limiter l'effet anxiogène de l'information pour le patient. Telle pourrait être le succès d'une médiation constructive et responsable.

On peut à ce titre regretter que l'option d'Opt Out (ou option d'inclusion) n'ait pas été prévue aux côtés de l'Opt In afin d'éviter les mesures de publicité toutes les fois où le nombre de personnes concernées pouvait être déterminé, comme pour l'accident de radiothérapie de Toulouse.

On ne saurait en effet ignorer l'impact, notamment sur l'organisation sanitaire et sur les coûts pour le système de santé, d'une généralisation d'exams diagnostics sur toute une population de patients traités par tel ou tel produit, comme dans l'affaire dite « du Mediator® » pour laquelle un nombre considérable de patients a été invité à réaliser de manière systématique des échographies cardiaques.

On peut également imaginer, comme mode de diffusion, la création d'un registre des actions collectives accessible sur un site grand public du type de Légifrance ou de service-public.fr.

Les discussions sur ce point seront certainement essentielles et au cœur du litige.

#### Phase 4 : la réparation individuelle des préjudices

Après la mise en œuvre des mesures de publicité, les usagers qui souhaitent adhérer au groupe adressent leur demande à l'acteur de santé reconnu responsable par le jugement de responsabilité, ou ayant accepté la convention d'indemnisation amiable, ou à l'assureur de cet acteur, soit directement soit par l'intermédiaire de l'association requérante à laquelle il donne mandat aux fins d'indemnisation. L'article L.114313 du Code de la santé publique précise que le mandat donné à l'association pour le jugement de responsabilité vaut mandat pour l'ensemble des étapes de la procédure. Le texte de loi précise que ce mandat ne vaut ni n'implique adhésion à cette association.

L'usager, ou l'association ayant reçu mandat à cet effet, informe les tiers payeurs concernés afin qu'ils puissent exercer contre le défendeur leur action subrogatoire au titre des prestations reçues ou à recevoir par l'usager du chef du dommage (34).

Le texte précise que la demande devra émaner des « personnes remplissant les critères de rattachement au groupe », laissant ce point à la seule appréciation du défendeur et de son assureur, sauf le recours prévu à l'article L.114312 devant le juge ayant statué sur la responsabilité. Les critères de rattachement au groupe seront-ils à cet égard toujours aisés à appréhender par les usagers du système de santé ? A titre d'illustration, l'affaire dite « du Mediator® » a démontré qu'après le vote des dispositions légales prévoyant l'indemnisation des personnes victimes d'un « déficit fon-

tionnel imputable au benfluorex » (35), certaines personnes ont saisi le dispositif spécifique d'indemnisation au titre du simple regret de ne pas avoir obtenu d'amaigrissement dans les suites de l'administration de ce traitement.

Comme l'action en responsabilité elle-même, l'action en réparation individuelle du préjudice peut être exercée directement contre l'assureur du responsable.

Sur la base de cette saisine, le responsable, et plus souvent son assureur, procède à l'indemnisation individuelle des préjudices subis.

On regrettera que le texte de loi n'évoque pas, à ce stade de la procédure, la question des expertises individuelles qui, le plus souvent, seront indispensables pour déterminer l'étendue des préjudices individuels réparables.

Le texte ne précise pas comment s'organise la demande en cas de pluralité de responsables, la victime se trouvant alors confrontée à l'obligation d'initier la demande de réparation à l'égard de chacun d'eux, au risque de recevoir un chiffrage différent de son préjudice par chacun des responsables concernés, comme l'illustrent de nombreux cas de transactions dans les suites des avis des CCI.

En cas de saisine par une association aux fins de réparation individuelle des préjudices, les sommes reçues par l'association seront versées en compte de dépôt à la Caisse des dépôts et consignations, étant précisé que ce compte ne pourra faire l'objet de mouvements en débit que pour le versement des sommes dues aux intéressés. Nous constatons que les sommes versées au titre de la réparation individuelle des préjudices ne pourront transiter sur le compte CARPA des avocats éventuellement autorisés à intervenir à la procédure en application de l'article L.114314 du Code de la santé publique. La défiance affichée par le Législateur à l'égard du système habituel de circulation des fonds dans le cadre des indemnisations démontre certainement l'importance des sommes en cause dans le cadre de telles affaires, et interroge une fois encore sur les risques tenant à la limitation des plafonds de garantie assurantielle des acteurs concernés.

En cas d'échec de la transaction, le texte restant vague et évoquant la situation des « usagers dont la demande n'a pas été satisfaite par les personnes déclarées responsables », le demandeur pourra saisir le juge « ayant statué sur la responsabilité » afin d'obtenir la réparation de ses préjudices. Le texte semble ici encore imprécis : le demandeur devra-t-il saisir directement la juridiction d'appel si le jugement de responsabilité à caractère définitif a été prononcé par une juridiction d'appel ? Dans l'affirmative, les parties ne se trouveront-elles pas privées du double degré de juridiction dont le principe est rappelé par l'article 543 du Code de procédure civile et qui constitue un « principe général de procédure qui consacre une garantie essentielle aux intérêts des plaideurs et à l'intérêt supérieur de la justice » (36) ?

La réparation individuelle prononcée par voie amiable ou juridictionnelle dans le cadre de la procédure d'action de groupe est soumise au recours des tiers payeurs contre les responsables et à la possibilité de capitalisation des arrérages à échoir au titre des rentes éventuellement allouées, selon une table de conversion fixée par décret.

Une fois tous ces éléments décrits, nous allons voir que les effets de la procédure d'action de groupe en santé sont d'envergure, et que de nombreuses questions restent en suspens.

#### Les effets de la procédure d'action de groupe

Nous avons vu que l'un des importants effets de l'action de groupe est de suspendre les délais de prescription de l'action contre le responsable.

Nous observerons également que le texte de loi instaure cette procédure sans la mettre en parallèle avec les autres voies de recours existantes en la matière. Ainsi, si l'article L.114224

du Code de la santé publique prévoit le non cumul des indemnités versées au titre de divers dispositifs d'indemnisation, de même que l'article L.114224-8 du même Code exclu le cumul des indemnités versées dans le cadre de la procédure d'indemnisation des dommages imputables au benfluorex avec les indemnités reçues au terme de la procédure amiable confiée aux CCI ou avec « *les indemnités de toute nature reçues ou à recevoir d'autres débiteurs du chef des mêmes préjudices* », le dispositif législatif d'action de groupe en santé ne prévoit aucune disposition analogue.

Le texte de loi (37) prévoit néanmoins que le jugement de responsabilité n'a **autorité de la chose jugée** qu'à l'égard des membres du groupe dont le préjudice a été réparé (dans le cadre de la réparation individuelle des préjudices), étant précisé qu'une nouvelle action de groupe ne sera pas recevable si elle se fonde sur les mêmes faits, les mêmes manquements et la réparation des mêmes préjudices que ceux ayant fait l'objet du jugement de responsabilité ou de la convention d'indemnisation amiable homologuée.

Pour autant, le texte encourage, d'une certaine manière, le « shopping procédural » puisqu'il précise que « *l'adhésion au groupe ne fait pas obstacle au droit d'agir selon les voies de droit commun pour obtenir la réparation des dommages n'entrant pas dans le champ défini* [par le jugement de responsabilité ou la convention d'indemnisation amiable homologuée] ». Le défendeur ne pourra donc même pas considérer comme clos le litige avec les usagers parties à la transaction éventuellement issue de la procédure d'action de groupe, ce qui dénie toute autorité de la chose jugée aux transactions à intervenir, alors même qu'il est communément admis que les transactions doivent comporter des concessions réciproques et que la renonciation au droit d'agir au titre des mêmes faits est le plus souvent la seule concession consentie par la victime. A cet égard, on distingue difficilement quel va rester l'intérêt pour le défendeur de transiger au terme de cette procédure, sauf la maîtrise du niveau d'indemnisation des préjudices visés par l'action de groupe.

L'action de groupe en santé constitue ainsi une voie procédurale en plus, qui n'empêche nullement les recours individuels parallèles amiables ou contentieux, avec un risque de conflits de procédures si un même patient initie plusieurs voies de recours parallèles, comme cela a pu être observé dans le cadre des procédures contentieuses initiées parallèlement aux procédures amiables confiées aux CCI. Le défendeur pourra également être confronté à un risque de cumul de procédures parallèles au titre des mêmes faits, multipliant, *de facto*, les coûts de procédure qui eux-mêmes entrent dans les plafonds de garantie assurantielle limitant l'engagement des compagnies d'assurance.

Ce concours des voies procédurales parallèles sera nécessairement à la défaveur des victimes qui auront emprunté la voie procédurale la plus longue, ce qui ne plaide pas à l'avantage de la procédure d'action de groupe en santé.

## Les questions en suspens

La première des questions est celle de l'attractivité de la procédure d'action de groupe, notamment au regard de la durée et de la complexité de cette procédure. Pour les victimes dont le dommage atteindra le seuil de gravité fixant la compétence des CCI, quel sera l'intérêt d'attendre l'issue longue et incertaine de l'action de groupe, au risque de ne voir aucune responsabilité retenue et de se priver de la possible discussion de l'existence d'un accident iatrogène non fautif pouvant conduire à l'intervention de l'ONIAM ?

Restent également peu définies les modalités qui permettront de déterminer si chaque personne entre ou non dans les critères de rattachement (expertise indépendante à caractère scientifique, mesure contraignante d'analyse des dossiers des patients, analyse de fichiers de patients ou des données de

l'assurance maladie), en particulier dans le cadre de la médiation dont l'objet n'est semble-t-il pas de déterminer ces critères. Les patients dont la situation ne permettra pas un rattachement au groupe auront-ils par ailleurs le droit d'agir, notamment par la voie d'une tierce opposition, contre le jugement de responsabilité intervenu ?

Demeure au cœur de la problématique la question de l'appréciation d'ensemble, dans le jugement de responsabilité, de l'imputabilité à un même produit et à un même manquement de dommages d'intensité et d'expression très variables qui ne permettront le plus souvent pas de présumer cette même imputabilité dans chacun des cas individuels qui se présenteront. C'est là toute la différence avec l'action de groupe en matière de consommation.

Reste encore en suspens l'articulation entre cette nouvelle voie de recours et les voies de recours existantes en matière d'accidents médicaux. Comment, par exemple, devra s'apprécier la responsabilité dans le cadre de l'action de groupe si, parallèlement, l'affection iatrogène a été reconnue comme non fautive et relevant de l'intervention de l'ONIAM au titre de la solidarité nationale dans un cas analogue devant une CCI ?

L'organisation des actions récursoires éventuelles du (ou des) responsable(s) contre d'éventuels co-responsables reste également en question.

Les interrogations qui persistent à la lecture attentive du texte de loi promettent, à n'en pas douter, des débats procéduraux denses dans le cadre de l'action de groupe, débats qui, parce qu'ils devront le plus souvent être portés jusqu'au plus haut niveau juridictionnel, pourraient éloigner encore cette procédure de son objectif de réduction du temps de l'indemnisation.

Le flou rédactionnel de cette loi, sauf à être rectifié par les dispositions du décret à paraître, expose à une interprétation des termes de la loi par les juridictions appelées à en faire application, au risque de conduire à des divergences d'interprétation qu'il faudra, elles aussi, résoudre au plus haut niveau de juridiction avant de pouvoir conclure les premières réparations individuelles de préjudices.

## Conclusion

La transposition quasi « à l'identique » de l'action de groupe consommation en matière de santé, assortie de mesures encore plus contraignantes pour les acteurs de santé concernés, si elle s'explique par le souhait non discutable de protéger les usagers du système de santé, apparaît prématurée et risque, au contraire de cet objectif, d'en faire un outil procédural peu attractif et peu concurrentiel au regard des autres dispositifs d'indemnisation existants.

Cette nouvelle procédure semble présenter un avantage essentiellement pour les victimes de dommages d'une faible gravité, les victimes présentant un dommage entrant dans les seuils de compétence des CCI conservant un avantage (en termes de coûts et de délais) à préférer cette dernière voie ou à agir par la voie d'un contentieux de droit commun dont les délais seront nécessairement plus circonscrits que ceux de la procédure d'action de groupe.

Pour autant, si la procédure d'action de groupe venait à se limiter aux victimes qui, en raison de la faible gravité de leur dommage, ne seraient pas en mesure de saisir les CCI et ne pourraient prendre le risque d'initier seules un contentieux individuel, la discussion de l'imputabilité des dommages aux produits de santé s'en trouverait sérieusement compliquée. En effet, les précédents en matière d'accidents médicaux sériels démontrent que c'est dans le cas des dommages de faible gravité, en lien avec des pathologies moins graves, que la discussion de l'imputabilité semble la plus ardue (comme démontré ci-dessus dans l'affaire dite « du Mediator<sup>®</sup> »).



A cet égard, on peut se demander si ce nouveau dispositif contentieux n'a pas, en définitive, manqué sa cible, sauf si l'effet recherché d'une telle procédure était le caractère punitif lié à la médiatisation dont est assortie cette procédure.

ce stade, le texte de loi semble surtout présenter un avantage non négligeable pour le Gouvernement en place et ceux qui lui succéderont : alors que les Gouvernements précédents ont été confrontés à la nécessité d'apporter une réponse indemnitaire chaque fois que survenait une nouvelle crise sanitaire, le Gouvernement en place et les Gouvernements futurs pourront à présent tenter de résister à cette pression des victimes confrontées à des drames sanitaires sériels en invitant les associations à agir selon la procédure d'action de groupe ainsi instaurée. Mais cette procédure est-elle de nature à apporter la réponse attendue par les victimes et les associations qui les représentent ? La réponse est bien incertaine.

Les dispositions réglementaires à paraître et les premiers cas d'action de groupe en santé devraient nous éclairer sur ce point. La responsabilité des associations de patients qui les porteront sera grande et le choix de faire opter les usagers du système de santé vers telle ou telle option procédurale s'accroît encore pour les avocats chargés de les conseiller.

Parmi les effets redoutés de la loi relative à l'action de groupe en santé, on peut craindre une réaction hostile des compagnies d'assurance telle que celle constatée suite au vote de la loi n°2002303 du 4 mars 2002 mettant en place les CCI.

Néanmoins, grâce à la médiation qu'elle instaure, la procédure d'action de groupe en santé offre la possibilité pour l'industrie pharmaceutique de tenir un rôle responsable, dans une appréciation de la responsabilité fondée plus sur la théorie du risque-profit que sur la responsabilité pour faute. Ce comportement responsable serait de nature à restaurer la confiance du malade dans les produits de santé pour que le médicament redevienne, du point de vue de l'opinion publique, un produit qui soigne et non un produit qui nuit.

## Discussion en séance

### Question de P Bonnichon

Que pensez d'une association qui ferait une « Class Action » à propos de fistules digestives ?

### Réponse

Nous renvoyons sur ce point à l'intervention très complète, et en partie ciblée sur cette question, du Dr Clotteau.

## Références

- Assemblée Nationale, Projet de loi de modernisation de notre système de santé, texte adopté n°650, 17 décembre 2015.
- Conseil Constitutionnel, décision n°2015-727 DC du 21 janvier 2016.
- Article 184 de la loi n°2016-41 du 26 janvier 2016 de modernisation de notre système de santé (JO du 27 janvier 2016).
- Loi 2002-303 du 4 mars 2002 relative aux droits des malades et à la qualité du système de santé.
- Articles 1 et 2 de la loi n°2014-344 du 17 mars 2014 relative à la consommation, articles L.423-1 et suivants du Code de la consommation.
- Article L.1143-14 nouveau du Code de la santé publique.
- Articles L.1142-1 et D.1142-1 du Code de la santé publique.
- Article L.1143-1 nouveau du Code de la santé publique.
- Article L.1143-2 nouveau du Code de la santé publique.
- Article L.1143-18 nouveau du Code de la santé publique.
- Hypertension artérielle pulmonaire.
- Article L.1142-24-4 du Code de la santé publique.
- 1Principe actif du Mediator®.
- Article L.426-1 du Code des assurances.
- Article R.1142-4 du Code de la santé publique.
- Article L.1142-15 du Code de la santé publique.
- Notons à cet égard que les membres du collège d'experts compétent en matière de dommages imputables au benfluorex sont soumis à l'obligation de déclaration des liens d'intérêts visée à l'article L.1451-1 du Code de la santé publique.
- Les compléments alimentaires en sont néanmoins exclus.
- Agence nationale de sécurité du médicament et des produits de santé.
- Civ. 1ère, 20 mai 1936, DP 1936, 1, p. 88.
- Article L.1143-1 al. 3 nouveau du Code de la santé publique.
- Article L.1143-2 al. 2 nouveau du Code de la santé publique.
- TGI de Nanterre, 28 janvier 2016.
- Civ. 1ère, 3 juin 2010, pourvoi n° 09-13.951.
- Conseil d'Etat, 10 octobre 2012, n° 350426.
- Pour des développements sur les difficultés tenant à la notion d'imputabilité en matière d'accidents médicaux, voir notre ouvrage : Sabine GBERT, Guide de responsabilité médicale et hospitalière : Quelle indemnisation du risque médical aujourd'hui, Ed. Berger-Levrault, juin 2011, p.350.
- Commission nationale des accidents médicaux, Rapport au Parlement et au Gouvernement, année 2013, pages 19, 21 et 25.
- Ainsi, le bilan de l'action de groupe en consommation démontre que seuls 10 % des consommateurs rejoignent une telle procédure (M-J AZAR-BAUD et S. CARVAL, L'action de groupe et la réparation des dommages de consommation : Bilan d'étape et préconisations, Dalloz 29 octobre 2015, numéro 37).
- Articles L.1143-6 à L.1143-10 nouveaux du Code de la santé publique.
- Notons ainsi que pour l'accident de radiothérapie d'Epinal comme dans le dispositif d'indemnisation des victimes du benfluorex, les expertises individuelles sont réalisées sur dossier par le comité de suivi et d'indemnisation dans le premier cas et par le collège d'experts dans le second, alors que s'agissant de l'accident de radiothérapie de Toulouse, les expertises individuelles ont été confiées à des experts indépendants désignés par le comité de suivi et d'indemnisation, celui-ci considérant que celles-ci étaient indispensables afin de déterminer si les troubles allégués étaient en lien avec l'accident de surirradiation ou avec la tumeur que le traitement par radiothérapie était destiné à traiter.
- Article L.1143-3 nouveau du Code de la santé publique.
- 480 recours collectifs sont en cours au Québec pour une population de 8 millions d'habitants.
- Voir notamment TA Strasbourg, 3 février 2009, n°0804340.
- Article L.1143-4 nouveau du Code de la santé publique.
- Article L.1142-24-2 du Code de la santé publique.
- CE, 4 février 1944, Vernon, RD publ. 1944, p. 171, concl. B. Che-not.
- Articles L.1143-17 et L.1143-18 nouveaux du Code de la santé publique.

# Les actions de groupe dans le domaine de la consommation

## The Class Actions in the Consumer Field

**Benoît Javaux**

*Cabinet August & Debouzy - 6-8, avenue de Messine - 75008 Paris*

### Mots clés

- ◆ Action de groupe
- ◆ Droit
- ◆ Association

### Résumé

Le 1er octobre 2014, la procédure d'action de groupe créée par la loi n° 2014-344 du 17 mars 2014 relative à la consommation entrait en vigueur en droit français après plusieurs décennies de débats.

**Qualité à agir** : La logique finalement retenue par les pouvoirs publics a été de conférer un monopole aux associations de consommateurs agréées et représentatives au niveau national pour introduire des actions de groupe.

**Procédure** : La procédure d'action de groupe s'articule autour de deux phases principales. La première phase se conclut par un jugement statuant sur la responsabilité du professionnel qui, le cas échéant, définira le groupe de victimes ainsi que les mesures de publicité qui devront être mises en œuvre pour informer les consommateurs. La seconde phase est une phase d'indemnisation des consommateurs par le professionnel, après l'épuisement des voies de recours et la mise en œuvre des mesures de publicité définies par le jugement. Les consommateurs ne rejoignent la procédure qu'au cours de cette seconde phase.

**Conclusion** : L'analyse des actions de groupe initiées depuis le 1er octobre 2014 dans le domaine de la consommation est source d'enseignements, qui s'avèrent utiles pour anticiper les futures actions de groupe en matière de produits de santé :

- 1- Lors de l'introduction de leurs actions, plusieurs associations de consommateurs ont ainsi mis en œuvre un plan média très efficace afin de bénéficier d'une large couverture médiatique.
- 2- Afin d'accroître la répercussion médiatique de leurs actions, elles ont également fait référence dans leurs communiqués de presse à des montants agrégés de dommages et intérêts très élevés, en recourant à des méthodes de calcul simplificatrices. La couverture médiatique de ces actions a porté préjudice à l'image des professionnels concernés.
- 3- Les associations ont par ailleurs utilisé, comme fondement à leurs actions de groupe, des décisions de justice déjà rendues dans des litiges individuels dans le but de limiter les débats sur la responsabilité du professionnel.

### Keywords

- ◆ Class action
- ◆ Law
- ◆ Association

### Abstract

The Consumer Act of March 17, 2014 introduced class actions into the French legal system, after several decades of debates. The class-action procedure entered into force on October 1, 2014 in the consumer and anti-competitive practices fields. On January 27, 2016 was promulgated the Act on the modernization of the French health system, which provides for the introduction of a class action regarding health products. Several lessons can be drawn from the first class actions initiated in the consumer field.

**Standing to act**: A monopoly was given to the approved consumer associations, which are representative at a national level.

**Scope**: It is limited to material damages suffered by consumers put in a similar or identical situation as a result of the breach by one or more professionals to comply with their contractual or legal obligations (including anti-competitive practices).

**Procedure**: The consumer association shall base its writ of summons on "individual cases". At the end of the first phase, the judge rules on the admissibility of the action together with the liability of the professional (there is therefore no certification phase as is the case in the United States). If required, in the same judgment the judge defines the relevant group of consumers (the class) along with both the terms and conditions for calculating the damages and the publicity measures regarding the judgment. Said publicity measures can only be implemented once all appeals have been exhausted.

Once informed of the judge's decision, the injured consumers can choose to join the group (it is a late opt-in system). Joining the group is equivalent to granting power of attorney to the association for it to seek compensation on behalf of the consumers. Any potential issues are ruled on by the same court.

Lessons drawn from the first class actions:

- 1- Consumer associations have carried out an effective media strategy when they introduced their respective class actions. This led to important media coverage, with an immediate impact on the image of the professionals concerned.

### Correspondance :

*Benoît Javaux, Avocat of counsel du cabinet August & Debouzy - 6-8, avenue de Messine - 75008 Paris.*

*Tel : +33 1 45 61 51 80 / Fax : +33 1 45 61 51 99*

*E-mail : bjavaux@augdeb.com*

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000

2- In order to maximize the impact of their announcements, the consumer associations broadly assessed, in their press releases, the total amount of the alleged damages incurred by the future group of consumers.

3- The associations also base their class actions on a precedent, i.e. a previous judgment rendered in a dispute between an individual and the professional.

**Conclusion:** It is therefore likely that the approved associations of healthcare system users, which have a monopoly to initiate class actions regarding health products, will use the same means against pharmaceutical companies, medical device manufacturers, health professionals (doctors, hospitals, surgeons, etc.).

La loi n° 2014-344 du 17 mars 2014 relative à la consommation (dite « Loi Hamon ») a introduit l'action de groupe en droit français aux articles L. 423-1 et suivants du Code de la consommation, après des décennies de débats. La procédure d'action de groupe est entrée en vigueur le 1er octobre 2014. Le jour même de l'entrée en vigueur du dispositif, l'association de consommateurs UFC-Que Choisir a annoncé la toute première action de groupe en France, en s'appuyant sur les médias pour en maximiser le retentissement. D'autres actions de groupe ont depuis lors été introduites contre des professionnels intervenant dans différents secteurs d'activités. Cette nouvelle procédure a connu un engouement immédiat de la part des associations de consommateurs, qui ne s'est pourtant pas prolongé (1).

Des enseignements peuvent néanmoins être tirés de ces premières actions de groupe en matière de consommation, qui permettent d'anticiper quelle sera la pratique des associations d'usagers du système de santé à compter de l'entrée en vigueur de la loi n° 2016-41 du 26 janvier 2016 de modernisation de notre système de santé. Cette loi a en effet créé un système d'action de groupe en matière de produits de santé (2).

## Qualité à agir

Les associations de consommateurs agréées et représentatives au niveau national ont un monopole pour introduire des actions de groupe. Seules quinze associations disposent à ce jour de l'agrément leur permettant de mettre en œuvre des actions de groupe (3).

## Champ d'application

L'action de groupe a pour objet de réparer les préjudices patrimoniaux subis par des consommateurs placés dans une situation similaire ou identique et ayant pour cause commune un manquement d'un ou des mêmes professionnels à leurs obligations légales ou contractuelles à l'occasion d'une vente ou de la fourniture d'un service. L'action de groupe est égale-

ment possible lorsque ces préjudices résultent de pratiques anti-concurrentielles.

## Procédure d'action de groupe de droit commun

La procédure comprend 2 phases principales (Fig 1).

La première phase aboutit à un jugement rendu par un tribunal de grande instance sur la recevabilité et le principe de la responsabilité du professionnel et, le cas échéant, sur la définition du groupe les mesures de publicité qui devront être mises en œuvre pour informer les consommateurs. Le tribunal statue au vu des « cas individuels » présentée par l'association, c'est-à-dire au vu de la situation de quelques consommateurs supposément représentatifs (en pratique de 5 à 10).

La seconde phase est une phase d'indemnisation des consommateurs par le professionnel après la mise en œuvre des mesures de publicité du jugement et l'épuisement des voies de recours. Les consommateurs ne rejoignent la procédure au cours de cette seconde phase. Le professionnel pourra contester le rattachement de certains des consommateurs au groupe devant le même tribunal, qui statuera sur l'ensemble des difficultés dans un même jugement.

La procédure d'action de groupe créée par la loi Hamon a été faite pour limiter au maximum les contraintes susceptibles de peser sur les associations de consommateurs, qui n'ont ainsi pas à réaliser un fastidieux travail de collecte de données avant d'introduire l'action de groupe. Si le professionnel est reconnu responsable par le Tribunal, les mesures de publicité du jugement seront à charge et il devra, le plus souvent, verser une provision à l'association pour couvrir l'ensemble des frais à venir pour gérer le reste de la procédure d'action de groupe.

## Procédure d'action de groupe « dite simplifiée »

Cette option procédurale est ouverte lorsque les informations relatives à tous les consommateurs concernés par l'action

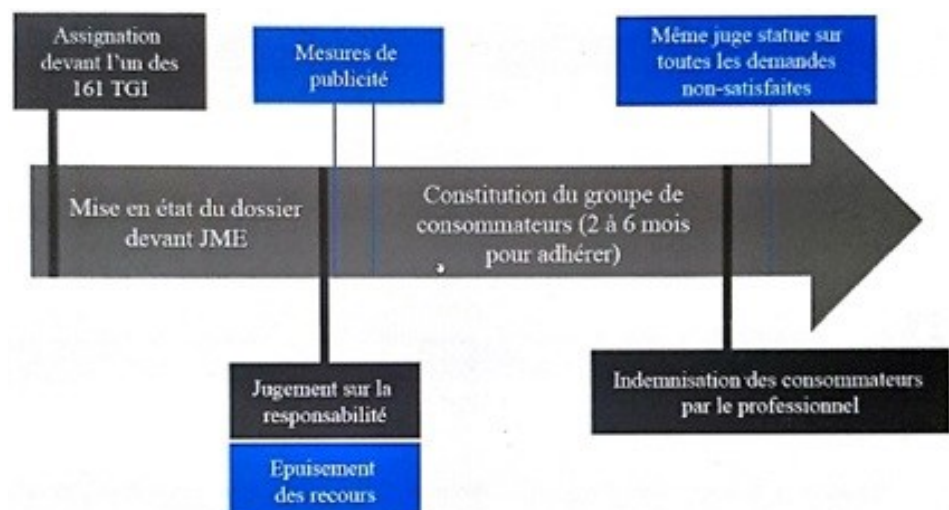


Figure 1. Présentation générale de la procédure d'action de groupe de droit commun



(identité des consommateurs, nombre, montant du préjudice) sont connues. Lorsque le professionnel est reconnu responsable, le tribunal le condamne alors à indemniser directement et individuellement les consommateurs. Dans ce cas, il n'y a pas de mesure de publicité mais des mesures d'information individuelle des consommateurs, lesquelles peuvent accepter ou non d'être indemnisées dans les termes du jugement.

## Les premiers enseignements de l'action de groupe en matière de consommation

### Enseignement n° 1 : l'instrumentalisation

Les premières actions de groupe se caractérisent, pour plusieurs d'entre elles, par leur forte médiatisation. Chacune de ces actions a ainsi été annoncée par un communiqué de presse et par un plan média préparé à l'avance par les associations de consommateurs, dans la position - par nature partielle - a été fortement relayée dans les médias (4). L'exemple le plus frappant est l'annonce de l'action de groupe de l'UFC-Que-choisir le 1er octobre 2014, qui a engendré 2.300 « retombées presse » le jour même.

Une telle médiatisation porte immédiatement et durablement atteinte à l'image des professionnels concernés. Cette instrumentalisation de la procédure d'action de groupe a déjà démontré son efficacité en conduisant l'un des professionnels à transiger quelques mois seulement après l'annonce d'une action à son encontre. Le 19 mai 2015, le bailleur social Paris Habitat et l'association de consommateurs SLC-CSF ont en effet annoncé la conclusion d'une transaction.

### Enseignement n° 2 : Une surévaluation des préjudices à des fins médiatiques

Les premières actions de groupes permettent également de constater une forme de surenchère dans le chiffrage du préjudice prétendument subi par l'ensemble des consommateurs, lequel est souvent et volontairement évalué de manière globale et simplifiée par les associations. Or, le groupe de consommateurs n'étant à ce stade pas défini par un jugement, le nombre des prétendus consommateurs victimes et le préjudice total subi par l'ensemble des consommateurs ne sont que des déclarations de l'association sujettes à caution. En procédant de la sorte, les associations de consommateurs assurent néanmoins un retentissement maximal à leur action.

### Enseignement n° 3 : L'utilisation de « précédents »

Les associations de consommateurs invoquent pour la plupart, au soutien de leurs actions de groupe, des décisions de justice rendues dans des litiges individuels qui, selon elles, caractériseraient la faute du professionnel. Dans cette logique, l'action de groupe ne ferait alors qu'appliquer sur une grande échelle une décision déjà rendue dans un litige individuel, rendant ainsi quasiment superfétatoire un nouveau débat sur la responsabilité du professionnel dans le cadre spécifique de l'action de groupe. Ces décisions de justice individuelles sont donc utilisées par les associations de consommateurs comme des « précédents » au sens anglo-saxon du terme. Une telle position est néanmoins contestable dès lors qu'un nouveau débat est nécessaire et qu'il ne peut pas y avoir de transposition automatique d'une solution déjà rendue.

## Conclusion

Les premières actions de groupe initiées en matière de consommation permettent de constater une certaine instrumentalisation de la procédure par les associations de consommateurs, qui étaient pourtant considérées par les pouvoirs publics comme des garde-fous contre les abus en la matière. Dans ce contexte, il est très probable que les associations d'utilisateurs du système de santé, qui disposent d'un monopole pour introduire des actions de groupe en matière de produits de santé, utiliseront les mêmes méthodes contre les laboratoires pharmaceutiques, les producteurs de dispositifs médicaux et les professionnels et établissements de santé. Il apparaît donc important que ces professionnels anticipent les risques qui en découlent, d'autant plus que la procédure d'action de groupe en matière de produits de santé entrera en vigueur au plus tard le 1er juillet 2016 et s'appliquera aux faits antérieurs à son entrée en vigueur.

## Discussion en séance

### Commentaire de JL Ribardière

Sur l'interaction entre secret professionnel et associations.

#### Réponse

Le système d'action de groupe instauré en France dans les domaines de la consommation (en 2014) et des produits de santé (en 2016) se caractérise par une première phase procédurale dans laquelle une association agit contre un professionnel sur la base de quelques cas individuels supposément représentatifs.

En matière de produits de santé, le professionnel se trouvera dans une position particulièrement déséquilibrée par rapport à celle de l'association en raison du secret médical qui lui est opposable (article L. 1110-4 du Code de la santé publique). Il lui sera ainsi en pratique impossible de contester la recevabilité et le bien-fondé des demandes de l'association en se fondant sur la situation individuelle d'utilisateurs autres que ceux sur lesquels se fonde l'association elle-même (sauf en cas d'accord de ces usagers, ce qui est peu probable dès lors que cela n'est pas dans leur intérêt). S'agissant des usagers sur lesquels se fonde l'association ou des usagers ayant rejoint le groupe lors de la seconde phase, les professionnels ne pourront utiliser que les informations strictement nécessaires à la défense de leurs droits, sous peine de sanction pénale (Cass. crim., 16 mai 2000, pourvoi n° 99-85304). La procédure d'action de groupe créée en France est donc nettement défavorable aux professionnels.

## Références

1. Les actions de groupe dans le domaine de la consommation : une première année mitigée, Revue Lamy Droit des Affaires, Kami Haeri et Benoît Javaux, octobre 2015, n° 108, p. 40 (dossier spécial sur « Un an d'application de la loi Hamon : quel bilan ? » préparé par August & Debouzy).
2. L'action de groupe en matière de produits de santé : une procédure complexe à l'efficacité incertaine, Recueil Dalloz, Kami Haeri et Benoît Javaux, 11 février 2016.
3. Chapitre France de la revue International Comparative Legal Guide, Class & Group Actions 2016, Global Legal Group Ltd London, Benoît Javaux et Kami Haeri, www.iclg.co.uk
4. L'action de groupe : entre incertitudes procédurales et instrumentalisation, Droit & Patrimoine, Kami Haeri et Benoît Javaux, janvier 2015.

# Les actions de groupe dans le domaine de la santé : le point de vue du magistrat

## The Health Class Actions: the Point of View of the Magistrate

F Kamara [1], C Le Corroller [2]

1. Conseiller à la 1<sup>ère</sup> chambre civile de la Cour de cassation - Président de la Commission des clauses abusives.
2. Secrétaire de la Commission des clauses abusives - Juriste Assurance/Santé à l'Institut National de la Consommation.

### Mots clés

- ◆ Action de groupe en santé
- ◆ Accidents médicaux collectifs
- ◆ Vision judiciaire

### Résumé

Quelques traits de la nouvelle loi (article 189-17 décembre 2015) sont brossés vu par un magistrat dans cette toute nouvelle action de groupe en matière de santé : sont précisés les effets du nouveau texte où l'on peut s'attendre principalement à 2 types d'actions en responsabilité, celles engagées contre les producteurs de produits de santé défectueux (laboratoires pharmaceutiques ou fabricants de dispositifs médicaux) et celles dirigées contre les professionnels de santé en matière d'utilisation de produits de santé. Quelques points particuliers sont abordés (obstacles à l'effectivité de l'action de groupe, dispositions favorisant l'action de groupe).

### Keywords

- ◆ Health Class action
- ◆ Collective medical accidents
- ◆ Judicial conception

### Abstract

Some features of the new law (article 189-17 December 2015) are brushed seen by a magistrate in this brand new group health action; are specified the new text effects which can be expected mainly 2 types of liability, those against defective health product producers defective (pharmaceutical companies or medical device manufacturers) and those against the professionals of health in the use of health products. A few specific points are addressed (barriers to the effectiveness of group action, provisions favouring the group action).

« Le droit est une matière vivante, côtoyée dès sa naissance par toute personne pour sa propre liberté. Le droit est un instrument au service de la société » (Portalis). Ainsi, le juge est confronté à un texte, comme le chirurgien à un corps humain. C'est dire si nous rencontrons souvent des difficultés : textes dépassés, nouveaux mais insuffisamment précis, incompatibles avec d'autres textes. De la même façon, le chirurgien rencontre la maladie, les accidents, les malformations, l'usure du temps, les complications. C'est le moment où l'on souhaiterait être un juge ou un médecin chinois. Ce dernier maintient l'équilibre harmonieux de la bonne santé, plus qu'il ne soigne les malades. De même, le juge chinois ne voit que peu de querelles : naguère, si des adversaires avaient échoué dans leur devoir d'apaisement amiable de leur différend, ils avaient le droit de se présenter devant le juge, mais ils étaient d'abord battus.

Il en va différemment en France : le tempérament national est belliqueux. Déjà, dans *De bello gallico* (La Guerre des Gaules), Jules César notait : « Les Gaulois sont querelleurs, batailleurs et jaloux ». Il faut donc toujours que le législateur veille pour pallier la carence de bonne volonté spontanée des parties.

C'est dans cet esprit que, pour simplifier la réparation des dommages corporels soufferts par les victimes de produits de santé, a été adoptée la loi du 17 décembre 2015, dite loi Touraine, qui instaure l'action de groupe en faveur des usagers du système de santé.

Le nouveau dispositif a été jugé nécessaire malgré les divers dispositifs d'indemnisation des victimes de dommages « collectifs » : amiante, hépatite C, hépatite B, virus de l'immuno-déficience humaine, virus T-lymphotropique humain, accidents dus à des mesures sanitaires obligatoires (sinistres confiés en grande partie à l'Office national). Car il reste de nombreuses autres victimes : prothèses PIP (20 à 30 000 victimes en Europe), virus H1N1, vache folle, hormone de croissance, patients traités par appareils de radiothérapie mal réglés, et bientôt peut-être, irradiation par scanner.

Quelle vision le magistrat peut-il avoir de la toute nouvelle action de groupe en matière de santé introduite par la loi de « modernisation de notre système de santé » ? L'on peut distinguer les effets généraux du nouveau texte (I) et certains aspects particuliers (II).

## Les effets du nouveau texte

### Présentation de la loi

L'article 189 de la loi du 17 décembre 2015 introduit la possibilité pour 469 associations sur tout le territoire français (138 au niveau national, 331 au niveau régional) de saisir le juge judiciaire ou administratif afin de pouvoir obtenir la réparation des préjudices individuels subis par des usagers du sys-

### Correspondance :

Françoise Kamara

Conseiller à la 1<sup>ère</sup> chambre civile de la Cour de cassation - Président de la Commission des clauses abusives.

E-mail : francoise.kamara@justice.fr

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000

tème de santé, placés dans une situation similaire ou identique, et ayant pour cause commune un manquement d'un producteur ou d'un fournisseur d'un produits de santé (médicaments, produits sanguins, lentilles oculaires...), ou d'un prestataire utilisant un de ses produits à leurs obligations légales ou contractuelles.

La première impression qui se dégage du texte est celle d'une loi raisonnable, éloignée des « dérives » des procédures américaines. Ainsi, cette loi ne modifie pas le principe du droit français de la responsabilité qui est celui de la réparation intégrale du préjudice (tout le préjudice, rien que le préjudice).

En particulier, elle n'instaure pas de dommages-intérêts punitifs (*punitive damages* définis comme les dommages mis à la charge d'une personne pour la punir de sa conduite outrageante et pour dissuader toute personne de se conduire de la sorte à l'avenir : *Second Restatement of Torts, § 908*). Il peut être noté, toutefois, qu'un arrêt de la première chambre civile a reconnu leur légalité par rapport à l'ordre public dans le cadre d'une procédure d'exequatur (Civ. 1<sup>re</sup>, 1<sup>er</sup> décembre 2010, n° 09-13.303).

Elle ne modifie pas non plus la règle selon laquelle la victime n'a pas l'obligation de minorer son préjudice en se soumettant à un traitement ou à une intervention, qu'elle peut donc refuser (Civ. 1<sup>re</sup>, 15 janvier 2015, n° 13-21.180 ; Civ. 2<sup>ème</sup>, 19 juin 2003, n° 01-13.289). Telle est la raison pour laquelle, à la différence de l'action de groupe en matière de consommation (L. 423-1 et suivants du code de la consommation), l'action de groupe en matière de santé ne prévoit pas de réparation en nature.

Il doit être noté que sont exclus du champ de l'action de groupe les dommages matériels et moraux ainsi que les actions des victimes par ricochet. Mais, bien entendu, des actions individuelles sont possibles sur ce chef.

La question s'est posée de l'application de la réforme dans le temps : le texte initial prévoyait de limiter son application aux manquements postérieurs à son entrée en vigueur ou, en cas de manquements « continus », à ceux n'ayant pas cessé à cette date. Cette restriction a été écartée par la Commission des affaires sociales de l'Assemblée nationale, car elle craignait de priver le texte de son effectivité dans de nombreux cas, notamment en matière de distilbène, de prothèses PIP (premières implantations au milieu des années 1990) ou de Mediator®.

A titre de comparaison, l'on peut rappeler que la loi, dite Kouchner, du 4 mars 2002 a vu son application limitée aux activités de prévention, de diagnostic ou de soins réalisés à compter du 5 septembre 2001. Il en est résulté plusieurs actions devant la Cour européenne des droits de l'homme pour atteinte au droit au respect des biens des patients laissés en dehors du champ d'application de cette loi, qui estimaient avoir été privés indûment d'une indemnisation.

L'action de groupe pourra s'appliquer à de multiples hypothèses : structures privées, structures publiques, médicaments, matériels, prothèses, robots opératoires, maladies nosocomiales, appareils de radiothérapies.

L'on peut s'attendre principalement à deux types d'actions en responsabilité : celles engagées contre les producteurs de produits de santé défectueux (laboratoires pharmaceutiques ou fabricants de dispositifs médicaux) et celles dirigées contre les professionnels de santé en matière d'utilisation de produits de santé.

### En matière de produits défectueux et de maladies nosocomiales

S'agissant de la responsabilité de produits défectueux, régie par les articles 1386-1 et suivants du code civil, la Cour de cassation a assoupli les conditions nécessaires pour établir la

défectuosité d'un produit de santé : la première chambre civile a, par deux arrêts en date du 26 septembre 2012 et du 10 juillet 2013 (Civ. 1<sup>re</sup>, 26 septembre 2012, n° 08-16.097 ; - 10 juillet 2013, n° 12-21.314), décidé que les juges du fond et eux seuls doivent, non pas apprécier le caractère défectueux d'un produit de santé « par une considération générale sur le rapport bénéfice/risque », mais en fonction de présomptions graves, précises et concordantes de nature à établir le caractère défectueux du produit. De même, elle a admis, depuis un arrêt dit « isoméride » en date du 24 janvier 2006 (Civ. 1<sup>re</sup>, 24 janvier 2006, n° 02-16.648), que des présomptions graves, précises et concordantes suffisent à établir le lien de causalité le lien de causalité entre le défaut et le dommage. Cette analyse a été reprise par la suite dans une série d'arrêts (Civ. 1<sup>re</sup>, 22 mai 2008, n° 06-10.967 ; - 9 juillet 2009, n° 08-11.073 ; - 24 septembre 2009, n° 08-16.097 ; - 25 novembre 2010, n° 09-16.556 ; - 26 septembre 2012, n° 11-17.738).

Ces assouplissements pourraient favoriser, en cas d'action de groupe, la preuve de la responsabilité du professionnel en matière de produits défectueux.

Toutefois, ce mécanisme de présomptions fait l'objet d'une récente question préjudicielle soumise par la Cour de cassation à la Cour de justice de l'Union européenne (Civ. 1<sup>re</sup>, 2 novembre 2015, e 14-18.118). Rappelons que la victime d'un produit défectueux est obligée de prouver le dommage, le défaut et le lien de causalité entre le défaut et le dommage (article 4 de la Directive 85/374/CEE du 25 juillet 1985, dite Directive des « produits défectueux »). En l'espèce, les ayants droit d'un individu décédé d'une sclérose en plaques recherchaient la responsabilité du producteur du vaccin contre l'hépatite B sur le fondement de présomptions, mais la cour d'appel a rejeté leur action au motif qu'il n'existait aucun consensus scientifique en faveur de l'existence d'un lien de causalité entre la vaccination contre l'hépatite B et la sclérose en plaques. La question posée au soutien du pourvoi en cassation, sur laquelle la CJUE est appelée à « dire pour droit », est la suivante

1° / L'article 4 de la Directive s'oppose-t-il, dans le domaine de la responsabilité des laboratoires pharmaceutiques du fait des vaccins qu'ils produisent, à un mode de preuve selon lequel le juge du fond, dans l'exercice de son pouvoir souverain d'appréciation, peut estimer que les éléments de fait invoqués par le demandeur constituent des présomptions graves, précises et concordantes, de nature à prouver le défaut du vaccin et l'existence d'un lien de causalité de celui-ci avec la maladie, nonobstant la constatation que la recherche médicale n'établit pas de lien entre la vaccination et la survenance de la maladie ?

2° / En cas de réponse négative à la question n° 1, cet article s'oppose-t-il à un système de présomptions selon lequel l'existence d'un lien de causalité entre le défaut attribué à un vaccin et le dommage subi par la victime serait toujours considérée comme établie lorsque certains indices de causalité sont réunis ?

3° / En cas de réponse affirmative à la question n° 1, cet article doit-il être interprété en ce sens que la preuve, à la charge de la victime, de l'existence d'un lien de causalité entre le défaut attribué à un vaccin et le dommage subi par elle ne peut être considérée comme rapportée que si ce lien est établi de manière scientifique ?

Par ailleurs, la CJUE, dans son rôle d'interprétation de la Directive de 1985 a apporté une importante précision dans un arrêt récent (CJUE, 05 mars 2015, C-503/13). Deux questions se présentaient :

- Un produit médical posé dans le corps humain (exemple : un stimulateur cardiaque ou une prothèse mammaire) peut-il être considéré comme défectueux, lorsque des produits appartenant au même groupe de produits présentent un risque de défaillance sensiblement supérieur ou qu'un nombre significatif de produits de la même série ont connu



un mauvais fonctionnement, alors même qu'il n'est pas constaté de défaut de celui-ci ?

- Si oui, les coûts de l'opération de retrait du produit et de pose d'un autre stimulateur cardiaque constituent-ils un dommage causé par lésion corporelle au sens de la directive ?

La CJUE a répondu « oui » aux deux questions. Par suite, dès lors qu'un consommateur possède dans son corps un produit appartenant à un groupe ou à une série de produits qui présente un risque de défaillance supérieure à la normale ou de nombreuses défaillances, celui-ci est considéré comme défectueux. Et les conséquences dommageables de l'opération d'extraction, si elle est nécessaire pour éliminer le défaut du produit considéré, ce qui sera déterminé par le juge, doivent être prises en charges par le fabricant du dit produit défectueux.

En ce qui concerne la responsabilité du professionnel qui a utilisé un produit de santé, il est important de rappeler que la Cour de cassation et le Conseil d'Etat diffèrent quant au régime applicable. La haute juridiction administrative estime qu'il s'agit d'un régime de responsabilité sans faute depuis un arrêt Marzouk (CE, 9 juillet 2003, n° 220437). En conséquence, le patient n'a pas à apporter la preuve d'une faute du médecin ou de l'établissement de soin quant à l'utilisation d'un produit de santé, mais simplement le lien de causalité entre le dommage et la prise du produit de santé. Ex : la responsabilité de l'établissement de soin est automatiquement engagée du fait du dommage survenu à un patient émanant d'un matelas chauffant défectueux (CE, 12 mars 2012, n° 327449). Il en est de même en cas que défaillance d'un appareil de mesure de saturation artérielle en oxygène (CE, 24 avril 2012, n° 331967).

La Cour de cassation a jugé, quant à elle, dans une hypothèse où la loi de mars 2002 ne s'appliquait pas encore, que le patient doit rapporter la faute de l'établissement de soins ou du médecin en cas de dommage issu d'un produit de santé défectueux. Ex : le patient, dont une prothèse testiculaire posée par un chirurgien éclate lors de la pratique d'un sport, doit démontrer la faute du médecin quant aux choses qu'il utilise dans la pratique de son art afin de pouvoir obtenir une indemnisation (Civ. Ire, 12 juillet 2012, n° 11-17.510).

A ce titre, il doit être noté qu'aujourd'hui même, l'article L. 1142-1, 1, du code de santé publique qui régit les régimes de responsabilité des médecins et des établissements de soins en matière d'infection nosocomiale, a fait l'objet d'une question prioritaire de constitutionnalité transmise au Conseil constitutionnel par la première chambre civile de la Cour de cassation : ce texte porte-t-il atteinte au principe d'égalité devant la loi, établi par l'article 6 de la Déclaration des droits de l'homme et du citoyen, en ce que son alinéa ter oblige le patient qui a contracté une infection nosocomiale à rapporter la preuve d'une faute du professionnel de santé exerçant à titre libéral, alors que l'alinéa 2 du texte prévoit, dans la même hypothèse, une responsabilité de plein droit de tout établissement, service ou organisme dans lesquels sont réalisés des actes individuels de prévention, de diagnostic ou de soins, sauf preuve d'une cause étrangère ? (Civ. 1-, 6 janvier 2016, n° 15-16.894).

En outre, dans la même affaire, est également posée la question de savoir si est contraire au principe d'égalité devant la loi le fait, que selon la jurisprudence de la Cour de cassation (Civ. 1-, 12 juillet 2012, Bull. n° 171), une société civile de moyens ne constitue pas une structure à laquelle s'applique une responsabilité de plein droit pour les infections nosocomiales qui y sont survenues, à la différence des établissements de soins.

## Quelques points particuliers

### Obstacles à l'effectivité de l'action de groupe

En premier lieu, la loi précise que les associations peuvent exercer leur recours directement contre l'assureur garantissant la responsabilité civile du responsable en application du principe de l'action directe régie à l'article L. 124-3 du code des assurances. Toutefois, lorsque le jugement sur la responsabilité aura été rendu, et le groupe de victimes constitué, il pourra être observé, comme en matière de sinistre sériel, une véritable course à l'indemnisation (Civ. 2ème, 11 décembre 2014, n° 13-19.262 et 13-26.653). Le juge du fond devra rechercher si, à la suite des versements déjà effectués par l'assureur dans le cadre du sinistre sériel, le solde disponible au titre de la garantie d'assurance ne constitue pas la limite de son éventuelle condamnation. A titre d'exemple, la couverture d'assurance de la société PIP n'est que de 3 millions d'euros par sinistre. Or, à ce jour, il a été jugé que la totalité des prothèses incriminées constituait un seul et même sinistre. L'on assiste donc, comme le précisait Monsieur le Professeur Kullmann, à un véritable « sprint des victimes », qui risque de laisser certaines d'entre elles insatisfaites.

En deuxième lieu, quelques contradictions sont à craindre.

Il existera un risque de contrariété sur la responsabilité du professionnel entre les décisions judiciaires individuelles et les décisions judiciaires liées à une action de groupe. Pour prévenir ce risque, la loi prévoit que la prescription des actions individuelles est suspendue jusqu'à l'issue de la décision sur l'action de groupe, ce qui permettra, en tant que de besoin, aux victimes d'engager une action individuelle, en cas d'échec de l'action collective (art. L. 1143-16 du CSP).

Pourront également se présenter quelques contrariétés entre la décision judiciaire sur les préjudices corporels à prendre en compte et la convention transactionnelle, prévue par la loi, appelée à les déterminer aussi.

En outre, quels seront ces préjudices : ceux issus de la nomenclature Dintilhac ou d'une nomenclature plus restrictive ? En troisième lieu, l'on peut redouter la longueur de la procédure, car l'indemnisation des victimes ne pourra intervenir qu'après que la décision afférente à la responsabilité du professionnel aura été définitivement rendue, après l'épuisement des voies de recours : première instance, appel, pourvoi en cassation, cour d'appel de renvoi, nouveau pourvoi...Cependant, compte tenu du nombre potentiel de victimes, il serait périlleux de prévoir une indemnisation au titre de l'exécution provisoire du jugement de première instance, qui oblige, en cas d'infirmité, à la restitution et à la réparation du préjudice causé par l'exécution. Certes, il peut être envisagé une procédure à jour fixe, rapide, mais avec les dangers au regard du principe de la contradiction, puisque cette procédure permet parfois des surprises.

Le secret professionnel s'impose au médiateur et aux membres de la commission de médiation (L. 1143-7, alinéa 2). Mais rien sur le secret auquel seraient tenues les associations ni sur le secret des affaires, que ni le droit français ni le droit de l'Union européenne ne définissent. Le projet Macron prévoyait de la définir, mais cet aspect a été supprimé pour faire l'objet (un jour ?) d'une loi spéciale. Or risque de découvrir des secrets d'affaires des laboratoires et fabricants.

### Dispositions favorisant l'action de groupe

D'une part, le législateur a prévu, comme c'est le cas en matière d'action de groupe en droit de la consommation (L. 423-25 du code de la consommation), de réputer non écrite toute clause ayant pour objet ou effet d'interdire à une personne de

participer à une action de groupe (art L. 1143-21 du code de la santé publique).

Le juge peut aussi décider de supprimer ce type de clauses pour les contrats identiques, en cours ou non.

D'autre part, pour améliorer la réparation du dommage corporel, un pôle été créé au tribunal de grande instance de Paris depuis le 31 août 2015 (7 magistrats, intranet spécifique depuis juin 2014 : trames de jugements, de missions d'experts, panorama de décisions rendues, fiches pédagogiques, liens vers les référentiels existants, liens vers sites spécialisés).

Les actions de groupe en matière de santé y seront spécifiquement traitées.

Enfin, l'effet utile de la loi nouvelle résidera également dans son effet préventif. Les professionnels de santé, en particulier les producteurs de produits de santé, sont exposés, par le biais de l'action collective à un important risque réputationnel : 72 % des usagers se déclarent prêts à se détourner des entreprises ou des professionnels visés par une action de groupe.

## Conclusion

Voici rapidement brossés quelques traits de la loi nouvelle, vus par un magistrat.

Montesquieu nous avait dit : « *Il ne faut toucher aux lois que d'une main tremblante* », avec prudence. La loi du 17 décembre 2015, applicable au plus tard le 1er juillet 2016, fera l'objet d'un rapport au gouvernement dans les trente mois de sa promulgation. Verra-t-elle certaines adaptations de ses conditions de mises en œuvre ?

Cela peut être raisonnablement envisagé car « *lorsqu'une loi est votée et promulguée, elle échappe à ses auteurs pour vivre sa propre vie insoupçonnée* » (Jean Carbonnier).

Tel est l'avenir de la loi Touraine.

# Association de la partition hépatique et ligature portale pour l'hépatectomie en deux temps (ALPPS) : présent et avenir

## Associating Liver Partition and Portal Vein Ligation for Staged Hepatectomy (ALPPS): Present Status and Future Perspectives

FA Alvarez, E de Santibañes

Service de Chirurgie Générale - Hospital Italiano de Buenos Aires - Juan D Perón 4190 - C1181ACH - Buenos Aires, Argentina.

### Mots clés

- ◆ Cancer du foie
- ◆ Chimiothérapie
- ◆ ALPPS
- ◆ Hépatectomie majeure
- ◆ Insuffisance hépatique posthépatectomie
- ◆ Ligature portale
- ◆ Embolisation portale
- ◆ Hépatectomie en deux temps
- ◆ Hypertrophie du foie
- ◆ Futur foie résiduel

### Résumé

La possibilité de réaliser une résection chez les patients atteints de tumeurs malignes du foie est limitée par le futur foie résiduel (FFR), l'insuffisance hépatique postopératoire (IHP) étant la complication la plus grave après les résections majeures. L'association de la partition hépatique et de la ligature portale pour l'hépatectomie en deux temps (ALPPS) a récemment été proposée comme une stratégie prometteuse pour induire une importante hypertrophie du FFR dans un court intervalle de temps. La technique consiste en la combinaison d'une ligature portale droite et d'une section du parenchyme hépatique dans la scissure principale pendant le premier temps, suivie 7 à 10 jours plus tard par une résection de l'hémi-foie malade. Cette nouvelle technique a démontré qu'il est possible d'atteindre des taux de résectabilité élevés chez les patients jugés initialement non résectables, permettant ainsi à presque tous les patients de bénéficier d'une résection. Malgré les taux de morbidité et de mortalité élevés rapportés dans la plupart des séries initiales, des études récentes indiquent que l'ALPPS peut être réalisée avec une morbidité et une mortalité acceptables. De plus, les résultats oncologiques disponibles à court terme sont similaires à ceux des approches conventionnelles. Il semble donc que l'ALPPS pourrait devenir une bonne option pour certains patients présentant des tumeurs bilobaires avec un risque élevé d'IHP. Étant donné que l'ALPPS est une innovation chirurgicale complexe et en cours de développement, elle ne devrait être effectuée que dans des centres spécialisés, chez des patients sélectionnés par une équipe multidisciplinaire et inscrits dans le registre international d'ALPPS.

### Keywords

- ◆ Liver cancer
- ◆ Chemotherapy
- ◆ ALPPS
- ◆ Major liver resection
- ◆ Posthepatectomy liver failure
- ◆ Portal vein ligation
- ◆ Portal vein embolization
- ◆ Staged hepatectomy
- ◆ Liver hypertrophy
- ◆ Future liver remnant

### Abstract

The objective to achieve a curative resection in patients with malignant liver tumors is limited by the future liver remnant (FLR), a posthepatectomy liver failure (PHLF) being the most severe complication after major liver resections. Associating liver partition and portal vein ligation for staged hepatectomy (ALPPS) has recently been introduced as a promising two-stage strategy to induce a major FLR hypertrophy within a brief time interval. The technique consists in - first stage- right PVL combined with *in situ* splitting of liver parenchyma, followed 7 to 10 days later by -second stage- resection of the diseased hemi-liver. This short-interval two-stage strategy has demonstrated to provide high resectability rates in patients with otherwise unresectable disease, where almost all patients eventually benefit from a curative resection. Despite the relatively high morbidity and mortality rates reported in most series during the learning curve, recent evidence indicates that ALPPS can be performed with acceptable morbidity and mortality. In terms of oncological outcomes, the short-term results reported so far are similar to that of conventional approaches. Therefore, it seems that ALPPS could become a good option in certain cases with bilateral disease and a high risk of PHLF. Given that ALPPS is a complex surgical innovation under development, it should be performed only at high-volume specialized centers, in patients selected by a multidisciplinary team and inside the ALPPS international registry.

La résection hépatique est le meilleur traitement pour prolonger la survie et offrir une chance de guérison chez les patients atteints de tumeurs malignes du foie (1). Au cours des deux dernières décennies, le paradigme de la résectabilité en chirurgie hépatique moderne a évolué et n'est plus défini par ce qui est réséqué mais par ce qui reste après la résection. Les chirurgiens pratiquant la chirurgie carcinologique du foie doivent concilier deux objectifs contradictoires :

- réaliser une résection complète de la tumeur à visée cura-

tive (marges négatives) ;

- préserver le plus possible le parenchyme hépatique non tumoral afin d'éviter une insuffisance hépatique.

Cependant, des hépatectomies majeures sont souvent nécessaires pour obtenir une résection R0 et celles-ci sont associées à des taux élevés de morbidité et de mortalité (2). L'insuffisance hépatique postopératoire (IHP) est la principale cause de décès après une hépatectomie majeure et elle est strictement liée au volume et à la qualité du futur foie restant (FFR)

### Correspondance :

Dr Fernando A. Alvarez

Service de Chirurgie Générale - Hospital Italiano de Buenos Aires - Juan D Perón 4190 - C1181ACH - Buenos Aires, Argentina.

E-mail : fernando.alvarez@hospitalitaliano.org.ar

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000



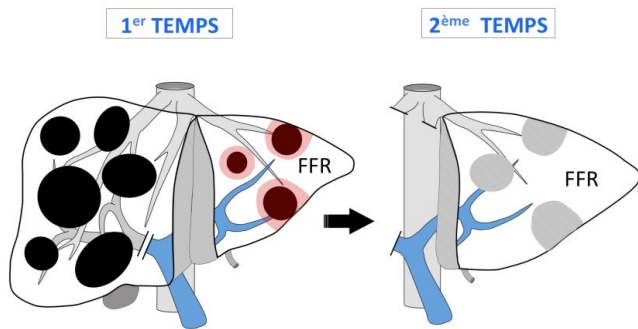


Figure 1. Schéma graphique concernant les deux temps de l'ALPPS.

(3). Plusieurs stratégies ont été développées afin de minimiser le risque d'IHP et d'augmenter le taux de résecabilité chez les patients ayant un FFR insuffisant. L'occlusion de la branche portale du lobe portant la tumeur est devenue le gold-standard pour induire une hypertrophie du parenchyme sain controlatéral (4). L'embolisation portale (EP) est utilisée avant la chirurgie lorsque le FFR ne contient pas de tumeur, tandis que la ligature portale (LP) est appliquée dans le cadre des procédures en deux temps pour les patients atteints de maladie bilobaire qui nécessitent un nettoyage initial du FFR. Pourtant, lorsqu'on utilise ce type de stratégie, jusqu'à 40 % des patients n'arrivent jamais à la résection soit à cause d'une hypertrophie insuffisante soit à cause d'une progression de la maladie pendant les longues périodes d'intervalle (6-12 semaines) habituellement nécessaires pour obtenir l'hypertrophie (4,5).

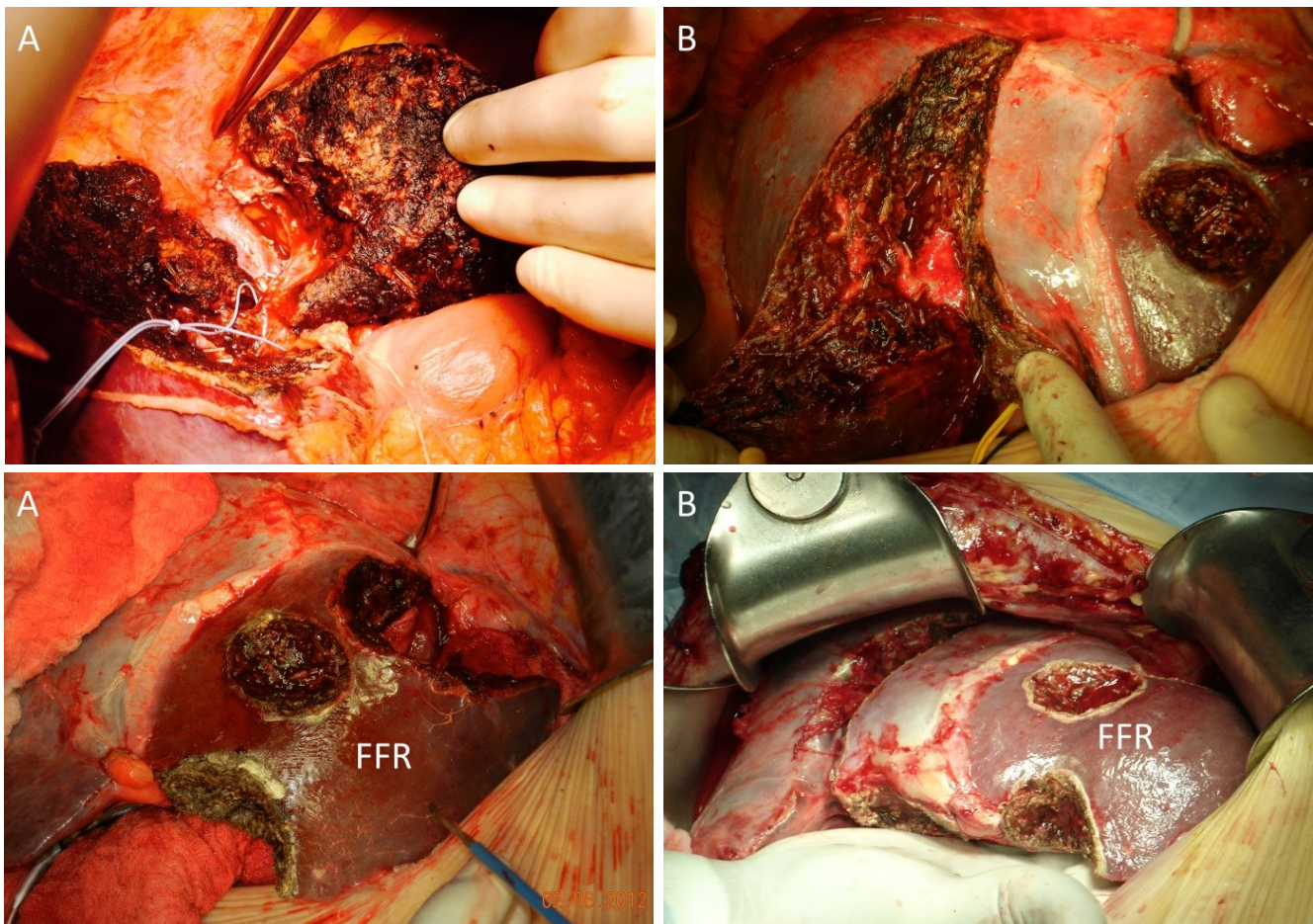
Douze ans après l'introduction de l'hépatectomie en deux temps par Adam et al (6) dans les années 2000, Schnitzbauer et al (7) ont rapporté une innovation technique à cet important concept qui représente sans doute une avancée majeure dans la chirurgie hépatobiliaire. Cette nouvelle stratégie, internationalement connu sous l'acronyme ALPPS (de l'angle : *Ass*ociating *L*iver *P*artition and *P*ortal vein ligation for *S*taged hepatectomy), accélère considérablement l'hypertrophie du FFR et réduit largement le période d'intervalle entre les temps, ce qui permet d'augmenter le taux de résecabilité. La technique consiste en la combinaison d'une ligature portale droite avec une section du parenchyme hépatique pendant le premier temps, suivie 7 à 10 jours plus tard par une résection de l'héli-foie malade.

La diffusion rapide de l'ALPPS a provoqué des réactions différentes dans la communauté chirurgicale, ce qui a rendu nécessaire le développement d'un Registre International de l'ALPPS ainsi que la « 1ère Réunion Internationale de Consensus du ALPPS » à Hambourg en Février 2015 (8). Malgré les taux de morbidité et de mortalité élevés rapportés dans la plupart des séries initiales, des études récentes indiquent que l'ALPPS peut être réalisé avec une sécurité acceptable, représentant une option prometteuse pouvant être incluse dans la prise en charge pluridisciplinaire des patients atteints d'un cancer du foie localement avancé (9,10).

### Indications de l'ALPPS

Les indications de l'ALPPS sont les tumeurs hépatiques primitives ou secondaires considérées comme non-résécables en raison d'un FFR insuffisant, c'est à dire moins de 30 % du volume hépatique total (VHT) dans le cas d'un foie sain ou

Figure 2. (A) Transection parenchymateuse totale, (B) transection parenchymateuse partielle.



moins de 40 % chez les patients atteints de cholestase, macrostéatose, fibrose ou ayant eu une chimiothérapie de longue durée (9). Malgré l'application initiale de l'ALPPS pour tout type de tumeur du foie, l'indication la plus fréquente, de nos jours, est la métastase du cancer colorectal (MCCR) (9-11). De plus, une analyse récente du Registre international chez 202 patients a indiqué que les patients avec des MCCR sont parmi ceux qui tirent le plus grand bénéfice de cette stratégie, surtout s'ils ont moins de 60 ans (11).

À l'Hôpital Italiano de Buenos Aires nous avons proposé récemment de restreindre les indications du ALPPS aux patients ayant un FFR insuffisant associé à au moins un des éléments suivants :

- maladie bilobaire avec une contre-indication à l'EP comme stratégie en un seul temps ;
- marge tumorale très proche du FFR ou de son pédicule vasculaire ;
- échec de l'embolisation ou ligature portale ; ou
- nécessité d'une hypertrophie majeure (> 65 %) chez les patients ayant un très petit FFR (9).

La présence de métastases hépatiques non-résécables dans le FFR ou de métastases extra-hépatiques non-résécables, une hypertension portale sévère, un risque anesthésique élevé, l'impossibilité de réaliser une résection complète de la tumeur ou la présence d'une tumeur primitive non-résécable constituent toujours des contre-indications à l'ALPPS. En cas de maladie extra-hépatique résécable, elle doit être traitée avant ou pendant le premier temps de l'ALPPS, afin d'éviter le risque de stimulation à distance de la tumeur par des facteurs de croissance circulants pendant la période d'intervalle.

## Aspects techniques

L'approche ALPPS est essentiellement une hépatectomie majeure en deux temps à intervalle court. En bref, la technique consiste en la combinaison d'une ligature portale droite avec une partition in situ du parenchyme hépatique pendant le premier temps (Fig 1). Le deuxième temps consistant en la résection de l'hémi-foie malade est réalisé une fois que le FFR est considéré suffisant, le plus souvent dans les 7 à 10 jours qui suivent le premier temps. Concernant la stratégie, le paradigme actuel consiste en un premier temps chirurgical prolongé et agressif suivi d'un deuxième temps plus court et moins agressif (7-10). Cette philosophie a été adoptée par la plupart des centres comme la technique de l'ALPPS « classique ». Certains aspects importants de la technique de l'ALPPS ainsi que les différentes variantes proposées seront résumés dans cette section.

## Technique classique

Après une exploration minutieuse de la cavité abdominale et une échographie peropératoire du foie, s'il y a des lésions bilatérales, une résection complète de(s) la tumeur(s) (nettoyage) dans le FFR est effectuée, afin d'induire l'hypertrophie dans un parenchyme non tumoral (12). Ensuite, la branche portale de l'hémi-foie malade est sectionnée et il est réalisé soit une transection parenchymateuse totale (jusqu'à la veine cave inférieure) soit partielle (jusqu'à la veine sus-hépatique médiane) (Fig 2a-b). Etant donné que la partition partielle du foie est associée à une induction d'hypertrophie comparable mais avec un taux significativement plus bas de complications par rapport à la transection totale (38,1 % vs 88,9 % ; P=0,049), la transection partielle est préférée, sauf chez les patients ayant une tumeur très proche du FFR avec un risque d'envahissement dans l'intervalle des deux procédures (9). À la fin de la procédure, il est conseillé d'effectuer un test hydraulique trans-cystique et une cholangiographie afin d'éviter les fuites biliaires postopératoires, qui ont été rapportées à des taux élevés dans les séries initiales (20-87 %)

et qui sont associées à une augmentation de la morbidité et la mortalité (7,11,13). L'identification des structures biliaires et vasculaires de l'hémi-foie malade et leur mise sur lacs est fortement recommandée afin de faciliter leur identification lors du deuxième temps (12). Finalement, dans le but de minimiser les adhérences, certains auteurs ont proposé de placer une lame de plastique ou d'un agent biologique entre les deux surfaces de coupe. Toutefois, de bons résultats ont aussi été rapportés sans l'utilisation de matériel sur le site de partition. Il est important de souligner que lorsqu'un patient présente une maladie synchrone, la résection simultanée de sa tumeur colorectale primitive au cours du premier temps est recommandée.

Le deuxième temps devrait être effectué que chez les patients en bon état général ayant un FFR suffisant tant en volume qu'en fonction. L'exploration abdominale est effectuée doucement après la libération des adhérences. Les structures biliaires et vasculaires de l'hémi-foie malade sont reconnues par l'identification des lacs laissés en place. La résection de l'hémi-foie malade est réalisée en utilisant des agrafeuses vasculaires (12). Enfin, il est fortement recommandé d'effectuer un test hydraulique et une cholangiographie peropératoire à travers le canal cystique, afin d'éviter les fuites biliaires postopératoires.

## Variations techniques

De nombreuses variantes techniques de l'approche ALPPS ont été proposées. Gauzolino et al (14) ont présenté différentes variations techniques de l'approche ALPPS, y compris le « ALPPS gauche », le « ALPPS droit » et le « ALPPS de sauvetage » chez les patients ayant un échec d'une EP ou LP. Une alternative supplémentaire a été introduite par de Santibañes et al (15), en conservant comme FFR exclusivement les segments 1 et 4 après avoir effectué une lobectomie gauche pour une maladie étendue. Toutefois, en ce qui concerne les variantes de l'ALPPS par rapport au FFR, la contribution la plus importante a peut-être été le fait de démontrer que les FFR mono-segmentaires peuvent être suffisants lors de l'ALPPS (16). Ceci constitue un changement de paradigme important dans la chirurgie hépatique, étant donné que la résécabilité a été traditionnellement définie comme la résection complète de la tumeur en préservant au moins 2 segments de Couinaud contigus avec un apport vasculaire intact mais aussi un drainage veineux et biliaire adéquat. Etant donné que l'ALPPS a été associée dans les séries préliminaires à une incidence augmentée de complications majeures et de mortalité (7,13), de nombreuses innovations techniques ont été introduites récemment dans le but d'améliorer les résultats à court et à long terme. En ce qui concerne les modifications de la partition du foie, Robles et al (17) ont décrit la modification « ALTPS » (Associating Liver Tourniquet and Portal ligation for Staged hepatectomy) qui comporte l'application d'un lac autour d'une petite rainure du parenchyme d'un cm maximum de profondeur. Malgré l'attrait de l'ALTPS, la morbidité à 64 % et mortalité à 9 % publiée chez 22 patients ne reflètent pas une réelle amélioration en termes de sécurité par rapport à la plupart des séries de l'ALPPS (17). Plus récemment, d'autres auteurs ont proposé de remplacer la transection parenchymateuse en utilisant la destruction locale par radiofréquence ou micro-ondes (RALPP, LAPS) pour créer une partition virtuelle du foie par un « groove nécrotique » entre les deux hémi-foies (18). Ces approches ont montré un profil d'hypertrophie similaire à l'approche ALPPS « classique », mais avec seulement des complications mineures, aucune mortalité et une bonne faisabilité par cœlioscopie. D'autre part, l'application de l'EP au lieu de la LP comme méthode d'occlusion de la veine porte, aussi connue sous le nom « ALPPS hybride », est sans doute l'une des innovations les plus prometteuses parmi les différentes variations techniques de l'ALPPS (19). Le fait d'éviter la dissection du pédicule hépatique lors du premier



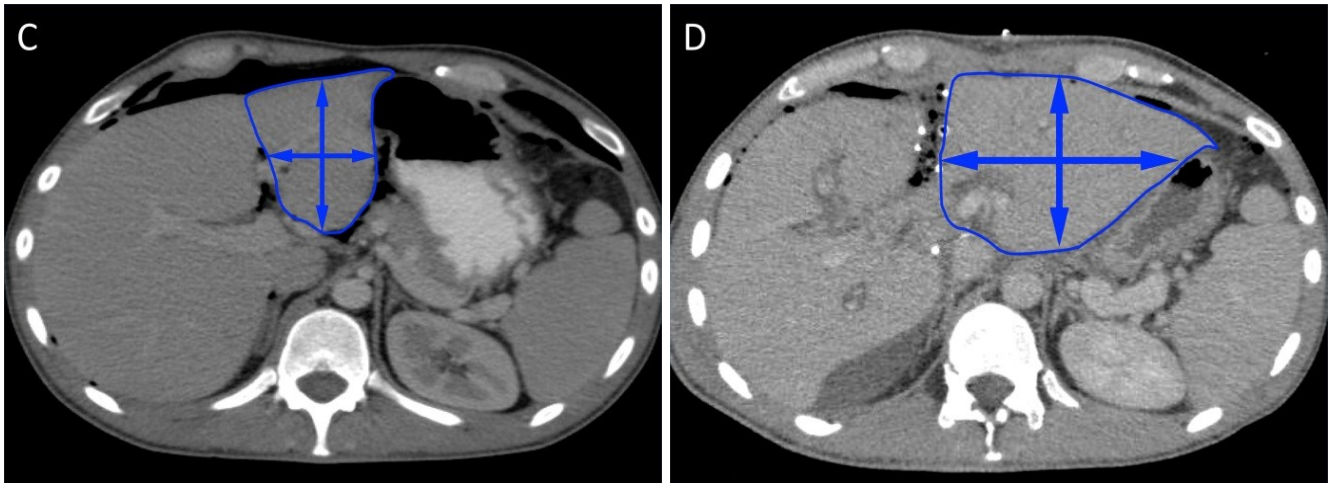


Figure 3. Femme de 57 ans ayant des métastases hépatiques colorectales bilobaires. (A) premier temps montrant un petit futur foie restant (FFR) après plusieurs résections atypiques, (B) FFR hypertrophié pendant le deuxième temps, (C) scanner volumétrique avant le premier temps, (D) scanner volumétrique control 6 jours après le premier temps montrant une hypertrophie du FFR de 67 %.

temps est plus en ligne avec le principe oncologique de « non-touch » et facilite le deuxième temps en générant moins d'adhérences.

## Induction d'hypertrophie

La caractéristique la plus distinctive de l'approche ALPPS est une hypertrophie très rapide et importante du FFR (Fig 3a-b-c-d). L'hypertrophie de l'ALPPS est nettement supérieure aux stratégies traditionnelles, en particulier pour les patients ayant initialement un très petit FFR. Une étude comparative récente a démontré que l'ALPPS est significativement supérieure à l'EP en termes d'hypertrophie (84,3 % vs 36 % ;  $p < 0,001$ ) et de vitesse de croissance (32,7 cc / jour vs 4.4 cc / jour ;  $P < 0,001$ ) (20). Ces résultats sont en ligne avec ceux de Schade et al (21), qui ont démontré que la vitesse de croissance était 11 fois plus élevée avec l'ALPPS par rapport à l'EP ou LP (34,8 cc/jour vs 3 cc/jour ;  $P = 0,001$ ). À l'Hôpital Italiano de Buenos Aires, nous avons retrouvé que 80 % des patients traités par l'ALPPS avaient une hypertrophie suffisante en moins de 10 jours (9). Par ailleurs, l'ALPPS est une alternative efficace pour induire une hypertrophie additionnelle et permettre une résection chez les patients n'ayant pas un FFR suffisant après EP ou LP (9,22). Aujourd'hui, ce scénario est devenu une indication incontestable de l'ALPPS.

Il a été émis l'hypothèse que la congestion ou l'inflammation pourraient expliquer l'hypertrophie macroscopique du FFR au cours de l'ALPPS. Cependant, il existe déjà des études à la fois chez les animaux (23) et les humains (7,10) indiquant qu'il y a des changements prolifératifs histologiques qui accompagnent l'hypertrophie macroscopique au cours de l'ALPPS. Bien que les études précédentes aient observé des changements prolifératifs et architecturaux au niveau histologique accompagnant l'hypertrophie macroscopique, il y a encore des incertitudes concernant le degré d'augmentation de la fonction hépatique pendant une hypertrophie tellement accélérée du

FFR. Parmi les différentes études fonctionnelles hépatiques plus sophistiquées disponibles, l'évaluation par scintigraphie à l'HIDA est probablement la plus prometteuse étant donné qu'on peut évaluer la fonction hépatique sectorielle (9).

Même si l'interruption de la circulation portale bilatérale semble être le catalyseur principal de l'hypertrophie hépatique accélérée dans l'ALPPS, la cinétique de restauration de la masse hépatocytaire reste mal comprise et est probablement multifactorielle. Ce phénomène pourrait être éventuellement expliqué par les mécanismes suivants :

- la LP crée une redistribution du débit sanguin portal et des facteurs de croissance au FFR ;
- la partition du parenchyme altère la circulation collatérale et provoque un traumatisme chirurgical qui induit la libération systémique de facteurs de croissance qui pourraient être cruciale pour l'hypertrophie du foie ;
- cette nouvelle approche pourrait aussi impliquer un phénomène de préconditionnement pour le FFR, où l'hémi-foie malade agit comme un foie auxiliaire transitoire qui aide le FFR dans des fonctions métaboliques, de synthèse et de détoxification pendant la première semaine après résection (9).

En outre, les données préliminaires indiquent que la modulation du flux et de la pression portale pourraient également influencer sur le phénomène hypertrophique observé dans l'ALPPS (9). La restauration de la masse hépatocytaire est un domaine fascinant de la médecine régénérative. L'ALPPS est un modèle chirurgical innovant qui donnera progressivement naissance à plus de recherche et de connaissances des réseaux de régulation qui contrôlent les mécanismes de régénération du foie.

## Sécurité de la procédure

L'adoption mondiale rapide de l'ALPPS, après sa description en Allemagne, a donné lieu à des expériences préliminaires

	Auteur	Année	N°	Morbidité %	Insuffisance Hépatique %	Mortalité %
2eme TEMPS	Lamb <i>et al</i> (28)	2013	459	40	-	3
	Brouquet <i>et al</i> (5)	2011	65	29	5	6.4
	Tsai <i>et al</i> (27)	2010	45	28	8.6	8.8
	Adam <i>et al</i> (26)	2008	59	59	22	7
ALPPS	Registre de l'ALPPS (25)	2015	229	36	9	4
	Alvarez <i>et al</i> (12)	2015	22	24	9	0
	Hernandez <i>et al</i> (10)	2014	14	14	29	0

MCCR, métastases de cancer colorectal  
Tableau 1. Morbidité et mortalité opératoires après ALPPS et hépatectomies en deux temps pour MCCR.



	Auteur	Année	N°	SG (%)			SSR (%)		
				1 an	2 ans	3 ans	1an	2 ans	3 ans
<b>Zeme TEMPS</b>	Lamb <i>et al</i> (28)	2013	459	-	-	59	-	-	20
	Brouquet <i>et al</i> (5)	2011	65	89	80	67	39	-	20
	Tsai <i>et al</i> (27)	2010	45	88	74	57	85	68	45
	Adam <i>et al</i> (26)	2008	41	87	76	60	60	40	26
<b>ALPPS</b>	Registre de l'ALPPS (11)	2014	141	88	74	-	59	41	-
	Alvarez <i>et al</i> (12)	2015	22	82	-	-	56	-	-

MCCR, métastases de cancer colorectal ; SG, survie globale ; SSR, survie sans récurrence

Tableau 2. Résultats oncologiques de l'ALPPS par rapport à deux temps classique pour MCCR.

montrant des taux élevés de morbidité et de mortalité (7,13). Une méta-analyse récemment publiée par Schade et al (24), comprenant 295 patients avec des tumeurs d'origine différente a montré un taux de mortalité à 90 jours de 11 % et un taux de complications de type supérieur au IIIa de Clavien de 44 %. Cependant, la dernière communication du Registre International de l'ALPPS chez 320 patients montre des résultats plus acceptables en termes de sécurité, avec une mortalité à 90 jours de 9 % pour la série globale et de 5 % sur les MCCR (25). Dans cette étude, les patients ayant des MCCR avaient les meilleurs résultats en termes de complications et de mortalité. De plus, une étude prospective sur 30 patients récemment publiée, a démontré que l'ALPPS peut être réalisé avec une sécurité suffisante dans les centres spécialisés, avec un taux de morbidité globale à 6,6 % et même de 0 % dans les MCCR (9). Les taux de morbidité et de mortalité relativement élevés rapportés avec l'ALPPS pourraient être expliqués par le fait qu'il s'agit d'une stratégie composée de deux interventions chirurgicales complexes au lieu d'une seule, appliquée à des patients ayant une maladie localement avancée et nécessitant un temps d'apprentissage (Tableau 1).

Lorsque nous analysons de façon approfondie la morbidité de la procédure, il est intéressant de remarquer que dans la dernière communication du Registre International de l'ALPPS, le taux d'IHP était de 14 % après le premier temps et de 30 % après le deuxième temps (25). Et d'une façon plus importante, 75 % de tous les décès étaient dus à une insuffisance hépatique et 93 % des décès sont survenus après le deuxième temps (25). Le fait que la mortalité est plus fréquente après le deuxième temps et que l'IHP reste une cause importante de décès, indique que les critères utilisés pour estimer la fonctionnalité du foie résiduel avant la réintervention ne sont pas adéquats dans la plupart des centres. En ce qui concerne les facteurs de risque de mortalité, l'analyse des résultats montre les patients ayant un âge supérieur à 60 ans, un score MELD supérieur à 10 avant le deuxième temps et une IHP après le premier temps ont un risque significativement supérieur aux autres (25). En conséquence, il ne faut pas faire le deuxième temps chez les patients ayant un état clinique détérioré, des complications non résolues ou une fonction hépatique anormale, l'hypertrophie accélérée du volume ne se traduisant pas nécessairement par une augmentation aussi accélérée de la fonction. À l'Hôpital Italiano de Buenos-Aires, nous avons montré dans une étude prospective qu'aucun patient dont la fonction sectorielle du FFR représentait >30 % de la fonction hépatique globale, sur la scintigraphie à l'HIDA, n'avait développé une IHP (9). Aussi, la partition partielle du foie était associée à un taux significativement plus bas de complications (38 % vs 89 % ; P= 0,049) avec une induction d'hypertrophie comparable (90 % vs 107 % ; P= 0,45) (9).

Malgré les taux relativement élevés de morbidité et de mortalité de l'ALPPS, la sécurité de cette intervention dans le registre mondial chez les patients ayant des MCCR, est comparable à celle de l'hépatectomie en deux temps classique (Tableau 1). Dans une publication récente du groupe du MD Anderson aux Etats Unis, parmi les 65 patients qui ont eu une hépatectomie en deux temps, il a été retrouvé 49 % de morbidité et 6,4 % de mortalité, en ne considérant que le deuxième temps (5). Des taux similaires ont été publiés par le groupe de l'Hôpital Paul Brousse en France chez 59 patients, avec une morbidité de 59 % et une mortalité de 7 % après le deuxième

temps (26). En outre, une expérience coopérative, comprenant 45 patients à partir de deux grands centres hépatobiliaires a montré une mortalité globale de 8,8 % (4 % après le premier temps et 5 % après le deuxième temps) (27). Comme indiqué ci-dessus, à partir des données disponibles sur les séries les plus importantes d'hépatectomies en deux temps, les taux de morbidité et de mortalité rapportés sont semblables à ceux obtenue avec l'ALPPS en les séries récentes.

## Résultats oncologiques à court terme

La plupart des séries de l'ALPPS à ce jour ne font état que de résultats à court terme. Leur interprétation en termes d'oncologie est rendue difficile en raison de l'hétérogénéité des patients atteints de pathologies sous-jacentes variées, et de celle des traitements associés. Concernant la résécabilité de la tumeur, l'ALPPS offre des taux de résécabilité plus élevés que l'EP ou la LP dans l'hépatectomie classique en deux temps (9,11,21,24). Le premier rapport du Registre Internationale de l'ALPPS a démontré que les deux temps ont été accomplis dans 98 % (197/202) des patients (12). Par ailleurs, dans une méta-analyse récente incluant 295 patients, le taux de résection R0 était de 91 % (24). Ces résultats contrastent avec une récente revue de 459 patients ayant eu une hépatectomie en deux temps, où la résection R0 n'a été possible que chez 75 % et où seulement 76 % des patients sont finalement arrivés au deuxième temps (28). En plus, une expérience comparative multicentrique récente a démontré que l'ALPPS avait une efficacité supérieure en termes de résection complète de la tumeur par rapport à l'EP et la LP (83 % vs 66 %, p = 0,027) (21). Contrairement à l'EP ou la LP, où jusqu'à 40 % des patients peuvent ne jamais arriver au deuxième temps, l'approche ALPPS offre le bénéfice potentiel d'une résection complète de la tumeur à presque tous les patients traités. Cette réduction du « drop-out » peut être lié au court intervalle nécessaire à l'hypertrophie et à la partition du foie rendant peu probable la progression tumorale et l'envahissement du foie résiduel.

En ce qui concerne les résultats oncologiques, probablement la question la plus importante qui reste sans réponse est de savoir si la résécabilité tumorale élevée se traduit finalement par une meilleure survie globale (SG) et sans récurrence (SSR) à long terme. Bien que les données disponibles ne répondent pas définitivement à cette question, des études récentes suggèrent que les patients avec MCCR peuvent avoir des résultats oncologiques similaires à court terme par rapport aux patients traités par des approches traditionnelles (Tableau 2) (9,10,11). Une étude comparative multicentrique récente a montré que la fréquence de récurrence tumorale à 12 mois était comparable dans les deux groupes 54 % après ALPPS et 52 % après EP ou LP (21). L'analyse de survie dans le Registre de l'ALPPS chez les patients atteints des MCCR a montré une SG à 1 et 2 ans de 76 % et 62 % ainsi qu'une SSR de 59 % et 41 % respectivement (11). La SSR médiane de 14 mois dans la même étude est clairement supérieure aux 7,5 mois de SSR médiane récemment rapporté avec l'hépatectomie en deux temps dans l'expérience actualisée de l'Hôpital Paul Brousse (29). En outre, dans le Registre Intentionnel le sous-groupe de patients de moins de 60 ans ayant des MCCR, présentait une SG à 1 et 2 ans de 88 % et 74 % respectivement, avec une sur-

vie médiane de 24 mois (11,25). Même si seulement un suivi à court terme est disponible, ces chiffres de survie (sur une analyse en intention de traiter) sont similaires à ceux des séries d'épatectomie en deux temps, en sachant que la plupart des publications ne font mention que de la survie des patients qui sont arrivés au deuxième temps (5,29). Par ailleurs, la SG de 64 % à 3 ans chez les patients avec des MCCR dans le groupe dirigé par Hans Schlitt (30), se compare favorablement à celle des approches classiques. Enfin, lors de l'analyse de survie, il doit être pris en compte que les résultats sont directement liés à la sélection des patients, et que dans le cas des ALPPS les patients ont une maladie bilatérale très lourde (probablement pas le candidat idéal, mais le « vrai » candidat), ce qui devrait rendre les résultats plus déjoratifs.

## Perspectives futures

Depuis les premiers rapports en 2011, l'ALPPS a rapidement gagné en popularité et impact mondial, avec plus de 600 patients actuellement inscrits dans le Registre International. L'ALPPS a des avantages uniques par rapport aux modalités classiques de traitement des patients avec une maladie localement extensive :

- nettoyage agressif du FFR, avec la possibilité de ne laisser qu'un seul segment hépatique comme FFR ;
- hypertrophie accélérée du FFR ;
- intervalle réduit entre les deux interventions, avec moins d'adhérences et une résection définitive plus facile ;
- une seule hospitalisation ;
- taux de résécabilité plus élevé que l'approche conventionnelle ;
- possibilité de sauvetage après l'échec de l'EP ou LP.

Malgré les avantages potentiels de l'ALPPS, il existe encore un débat au sein de la communauté chirurgicale en raison d'une morbidité et d'une mortalité élevées et de résultats oncologiques encore incertains à long terme. Ceci a motivé l'organisation de la 1ère « Réunion de Consensus sur ALPPS » en février 2015 à Hambourg, en Allemagne (8). En termes de la sécurité, de la qualité de parenchyme hépatique et de sa fonction l'ALPPS semble clairement un avantage, ainsi que la rapidité de programmation du deuxième temps chirurgical. Il est recommandé de mieux évaluer la fonction hépatique périopératoire que le volume parenchymateux, en utilisant de manière systématique des méthodes plus sophistiquées d'évaluation de la fonction hépatique comme par exemple la Scintigraphie à l'HIDA. Par rapport à la technique chirurgicale, des alternatives moins agressives de la procédure pourraient dans le futur diminuer la morbidité et la mortalité de la stratégie. Lors de la réunion internationale de consensus à Hambourg, nous avons proposé un nouveau paradigme chirurgical de l'ALPPS, le « Mini-ALPPS ». Cette proposition représente un changement profond du paradigme actuel, en transformant le premier temps en une procédure beaucoup moins invasive et en laissant la procédure chirurgicale principale pour le deuxième temps. Cette stratégie consiste à combiner une transection partielle du parenchyme avec une EP peropératoire permettant d'éviter la dissection pédiculaire et la mobilisation hépatique, avec le but de réduire au maximum l'impact chirurgical du premier temps, de permettre une récupération rapide du patient et de faciliter le second temps. Cette nouvelle philosophie semble prometteuse, et les bons résultats préliminaires à l'Hospital Italiano de Buenos Aires, indiquent qu'elle pourrait améliorer à la fois la sécurité et les résultats oncologiques.

## Conclusion

L'ALPPS est une stratégie en deux temps à intervalle court qui entraîne des taux de résécabilité élevés chez des patients ayant une maladie autrement non résécable, et grâce à laquelle presque tous les patients finissent par bénéficier d'une résection curative. Des données récentes indiquent que l'ALPPS peut être réalisée avec une sécurité acceptable dans les centres expérimentés, comparables à l'hépatectomie classique en deux temps. En plus, les taux élevés de morbidité et mortalité publiés dans les rapports multicentriques vont très probablement s'améliorer dans un proche avenir en raison de la courbe d'apprentissage, des progrès techniques et d'une meilleure sélection des patients.

Bien qu'il existe des patients qui peuvent être traités avec soit EP, hépatectomie en deux temps classique soit par ALPPS, un certain nombre de patients ne peuvent avoir qu'une ALPPS à l'exclusion d'une autre technique. Ces patients ont souvent un antécédent d'échec d'une EP ou LP, une maladie bilatérale extensive, un très petit FFR nécessitant une hypertrophie supérieure à 65 %, ou une tumeur très proche du FFR. Par rapport au type de tumeur à traiter, l'ALPPS devrait être effectuée de préférence pour les MCCR et chez les patients ayant moins de 60 ans. Dans le but d'améliorer les résultats immédiats de l'ALPPS, le deuxième temps ne devrait pas être effectué chez les patients ayant un bilan hépatique anormal ou un score MELD >10. Dans un futur proche, des résultats à long terme nous permettront de savoir si les hauts taux de résécabilité de l'ALPPS se traduisent vraiment en un bénéfice de survie par rapport aux stratégies classiques. Finalement, étant donné que l'ALPPS est une innovation chirurgicale complexe et en cours de développement, elle ne devrait être effectuée que dans des centres spécialisés, chez des patients sélectionnés par une équipe multidisciplinaire et inscrits dans le registre international d'ALPPS.

## Discussions en séance

### Question de R Adam

Pourquoi privilégier un premier temps moins agressif (mini ALPPS) alors que la mortalité survient surtout après le deuxième temps ?

### Réponse

Les raisons pour lesquelles on a développé ce nouveau paradigme de l'ALPPS sont principalement deux. Premièrement on pense que le Mini-ALPPS va nous permettre d'élargir les indications de la stratégie d'une manière plus sûre. Même si dans la dernière communication du Registre International de l'ALPPS la mortalité globale de la stratégie était de presque 9 %, pour le cancer de la vésicule elle était, de 71 % et pour le cholangiocarcinome perihilaire elle était de 36 %, une mortalité certainement prohibitive. Ces types de chirurgie se développent dans le pédicule hépatique, et la dissection du pédicule pour faire la ligature portale dans le paradigme actuel de l'ALPPS génère une inflammation marquée du pédicule qui rend le deuxième temps trop risqué. Avec le Mini-ALPPS, le fait de ne pas toucher pas le pédicule hépatique et ne pas mobiliser le foie pendant le premier temps, permet un deuxième temps techniquement plus facile grâce à l'absence d'adhérences et d'inflammation. Deuxièmement, et plus important, après avoir une analyse approfondie des causes de mortalité pour la « première Réunion de Consensus du ALPPS » en février 2015, nous avons trouvé que l'insuffisance hépatique est encore fréquente et responsable de 75 % de la mortalité. En fait, le taux d'insuffisance hépatique était aussi haut que 30 % après le deuxième temps parce qu'il y a eu évidemment une mauvaise sélection des patients pour le deuxième temps. Il y avait des patients qui ont eu le deuxième temps malgré un bilan indiquant de l'insuffisance hépatique, et si le patient a déjà une insuffisance hépatique avec le foie

en totalité on ne peut pas s'attendre à de bons résultats après le deuxième temps quand le patient perd son foie auxiliaire. Le fait de changer le paradigme pour un premier temps moins agressif vise à faciliter le deuxième temps mais aussi à améliorer la récupération du patient en faisant moins probable l'apparition de complications pendant la période d'intervalle. Les résultats préliminaires de cette nouvelle alternative technique à l'Hospital Italiano sont favorables. Nous avons trouvé que les patients récupèrent rapidement, arrivant au deuxième temps en meilleur état général et avec une fonction hépatique adéquate pour supporter le deuxième temps.

#### Questions d'H Bismuth

1-Pensez-vous également aux techniques alternatives comme le R-ALPPS ?

#### Réponse

Oui, l'utilisation de radiofréquence ou micro-ondes pour induire l'interruption de la collatéralité portale entre deux parties du foie et simuler une partition parenchymateuse a déjà été décrite dans la littérature comme des alternatives moins agressives par rapport à l'ALPPS classique. Il y a aussi un groupe espagnol qui a décrit la mise en place d'un lac autour du foie avec le même but. Toutes ces alternatives sont acceptables et font parties des différents efforts pour réduire la morbidité et mortalité de l'ALPPS, comme c'est aussi le cas du Mini-ALPPS. Le premier temps du Mini-ALPPS est presque comme une embolisation portale droite plus l'embolisation du segment 4, parce qu'avec la transection partielle nous divisons les branches portales qui partent du récessus de Rex au segment 4, mais sans avoir le risque de complications associées à l'embolisation accidentelle du futur foie restant.

2-Est-ce sûr que la résection hépatique soit à l'origine de l'hypertrophie hépatique ?

#### Réponse

La cause d'hypertrophie dans l'ALPPS est manifestement multifactorielle. Ce phénomène pourrait être expliqué partiellement par une redistribution du flux sanguin au futur foie restant à cause de la ligature portale et de l'interruption de la circulation portale collatérale par la partition parenchymateuse. D'autre part, il y a une libération systémique de facteurs de croissance probablement liée à un phénomène inflammatoire créé par la partition parenchymateuse, comme il était démontré récemment par le Pr Clavien et son équipe dans une étude expérimentale. Ils ont montré chez la souris que l'ALPPS est associé à une augmentation de facteurs de croissance systémique significativement supérieure par rapport à la ligature portale, et qu'après injection de sérum des souris ayant eu soit l'ALPPS soit un traumatisme viscéral chez les souris ayant eu seulement une ligature portale, le taux d'hypertrophie étaient équivalents. Par ailleurs, à l'Hospital Italiano de Buenos Aires, nous avons trouvé qu'une pression portale, élevée dans le premier temps, baisse ensuite à des valeurs normales dans le deuxième temps, indiquant que la modulation de la pression portale pourrait influencer aussi sur le phénomène hypertrophique observé dans l'ALPPS.

#### Question de B Viana

N'est-il pas important de bien sélectionner les patients candidats à l'ALPPS ?

#### Réponse

La sélection de candidats pour l'ALPPS est un facteur vraiment important. À part les critères que j'ai mentionnés pendant ma présentation concernant l'origine tumorale et les critères morphologiques, aujourd'hui nous sommes très stricts avec les patients ayant une maladie extra-hépatique, parce que nous avons eu de mauvaises expériences pendant notre courbe d'apprentissage. Nous avons eu une patiente avec un petit nodule ovarien qui n'était pas suspect de malignité,

mais dans un intervalle de 10 jours entre les deux temps il est passé de 2 à 14 cm de taille. Bien que nous ayons pu compléter le deuxième temps avec la résection hépatique, les chirurgiens colorectaux n'ont pas pu enlever la tumeur pelvienne et la patiente est décédée à cause de la progression de la maladie. Donc, il faut vraiment penser au risque/bénéfice de l'ALPPS chez les patients ayant un haut risque d'avoir une maladie extra-hépatique même microscopique, parce que comme je l'ai dit auparavant, il y aura des facteurs de croissance au niveau systémique qui pourraient induire une stimulation dans n'importe quel endroit du corps humain. C'est pour ça qu'aujourd'hui à l'Hospital Italiano de Buenos Aires on ne sélectionne que les patients sans maladie extra-hépatique. Peut-être le seul cas qu'on pourrait discuter est celui de la maladie pulmonaire limitée. Et si le patient a la tumeur primitive colorectale en place, on l'enlève pendant le premier temps.

## Références

1. Abdalla EK, Adam R, Bilchik AJ, Jaeck D, Vauthey JN, Mahvi D. Improving resectability of hepatic colorectal metastases: expert consensus statement. *Ann Surg Oncol*. 2006;13:1271-80.
2. Vauthey JN, Pawlik TM, Abdalla EK, Arens JF, Nemr RA, Wei SH, et al. Is extended hepatectomy for hepatobiliary malignancy justified? *Ann Surg* 2004;239:722-30.
3. Rahbari NN, Garden OJ, Padbury R, Brooke-Smith M, Crawford M, Adam R, et al. Posthepatectomy liver failure: a definition and grading by the International Study Group of Liver Surgery (ISGLS). *Surgery*. 2011;149:713-24.
4. Liu H, Zhu S. Present status and future perspectives of preoperative portal vein embolization. *Am J Surg*. 2009;197:686-90.
5. Brouquet A, Abdalla EK, Kopetz S, Garrett CR, Overman MJ, Eng C, et al. High survival rate after two-stage resection of advanced colorectal liver metastases: response-based selection and complete resection define outcome. *J Clin Oncol*. 2011;29:1083-90.
6. Adam R, Laurent A, Azoulay D, Castaing D, Bismuth H. Two-stage hepatectomy: A planned strategy to treat irresectable liver tumors. *Ann Surg*. 2000;232:777-85.
7. Schnitzbauer AA, Lang SA, Goessmann H, Nadalin S, Baumgart J, Farkas SA, et al. Right portal vein ligation combined with in situ splitting induces rapid left lateral liver lobe hypertrophy enabling two-staged extended right hepatic resection in small-for-size settings. *Ann Surg*. 2012;255:405-14.
8. Donati M, Basile F, Oldhafer KJ. Present status and future perspectives of ALPPS (associating liver partition and portal vein ligation for staged hepatectomy). *Future Oncol*. 2015;11:2255-8.
9. Alvarez FA, Ardiles V, de Santibañes M, Pekolj J, de Santibañes E. Associating liver partition and portal vein ligation for staged hepatectomy offers high oncological feasibility with adequate patient safety: a prospective study at a single center. *Ann Surg*. 2015;261:723-32.
10. Hernandez-Alejandro R, Bertens KA, Pineda-Solis K, Croome KP. Can we improve the morbidity and mortality associated with the associating liver partition with portal vein ligation for staged hepatectomy (ALPPS) procedure in the management of colorectal liver metastases? *Surgery*. 2015;157:194-201.
11. Schadde E, Ardiles V, Robles-Campos R, Malago M, Machado M, Hernandez-Alejandro R, et al. Early survival and safety of ALPPS: first report of the International ALPPS Registry. *Ann Surg*. 2014;260:829-36.
12. Alvarez FA, Ardiles V, Sanchez Claria R, Pekolj J, de Santibañes E. Associating Liver Partition and Portal vein ligation for Staged hepatectomy (ALPPS): Tips and Tricks. *J Gastrointest Surg*. 2013;17:814-21.
13. Dokmak S, Belghiti J. Which limits to the "ALPPS" approach? *Ann Surg*. 2012;256:e6; author reply e16-7.
14. Gauzolino R, Castagnet M, Blanleuil ML, Richer JP. The ALPPS technique for bilateral colorectal metastases: three "variations on a theme." *Updates Surg*. 2013;65:141-8.
15. de Santibañes M, Alvarez FA, Santos FR, Ardiles V, de Santibañes E. The associating liver partition and portal vein ligation for staged hepatectomy approach using only segments I and IV as future liver remnant. *J Am Coll Surg*. 2014;219:e5-9.
16. Schadde E, Malagó M, Hernandez-Alejandro R, et al. Monosegment ALPPS hepatectomy: Extending resectability by rapid hypertrophy. *Surgery*. 2015;157:676-89.



17. Robles R, Parrilla P, López-Conesa A, et al. Tourniquet modification of the associating liver partition and portal ligation for staged hepatectomy procedure. *Br J Surg*. 2014;101:1129-34.
18. Schadde E, Clavien PA. Reply to letter: "Accelerated liver hypertrophy: ALPPS and more!" *Ann Surg*. 2015;261:e46-e47.
19. Li J, Kantas A, Itrich H, Koops A, Achilles Eg, Fischer L, Nashan B. Avoid "All-Touch" by Hybrid ALPPS to Achieve Oncological Efficacy. *Ann Surg*. 2016;263:e6-7.
20. Croome KP, Hernandez-Alejandro R, Parker M, Heimbach J, Rosen C, Nagorney DM. Is the liver kinetic growth rate in ALPPS unprecedented when compared with PVE and living donor liver transplant? A multicentre analysis. *HPB (Oxford)*. 2015;17:477-84.
21. Schadde E, Ardiles V, Slankamenac K, et al. ALPPS Offers a Better Chance of Complete Resection in Patients with Primarily Unresectable Liver Tumors Compared with Conventional Staged Hepatectomies: Results of a Multicenter Analysis. *World J Surg*. 2014;38:1510-9.
22. Tschuor Ch, Croome KP, Sergeant G, Cano V, Schadde E, Ardiles V et al. Salvage parenchymal liver transection for patients with insufficient volume increase after portal vein occlusion -- an extension of the ALPPS approach. *Eur J Surg Oncol*. 2013;39:1230-5.
23. Schlegel A, Lesurtel M, Melloul E, Limani P, Tschuor C, Graf R et al. ALPPS: from human to mice highlighting accelerated and novel mechanisms of liver regeneration. *Ann Surg*. 2014;260:839-46.
24. Schadde E, Schnitzbauer AA, Tschuor C, Raptis DA, Bechstein WO, Clavien PA. Systematic Review and Meta-Analysis of Feasibility, Safety, and Efficacy of a Novel Procedure: Associating Liver Partition and Portal Vein Ligation for Staged Hepatectomy. *Ann Surg Oncol*. 2015;22:3109-20.
25. Schadde E, Raptis DA, Schnitzbauer AA, et al. Prediction of Mortality After ALPPS Stage-1: An Analysis of 320 Patients From the International ALPPS Registry. *Ann Surg*. 2015;262:780-6.
26. Wicherts DA, Miller R, de Haas RJ, et al. Long-term results of two-stage hepatectomy for irresectable colorectal cancer liver metastases. *Ann Surg*. 2008;248:994-1005.
27. Tsai S, Marques HP, de Jong MC, et al. Two-stage strategy for patients with extensive bilateral colorectal liver metastases. *HPB (Oxford)*. 2010;12:262-9.
28. Lam VW, Laurence JM, Johnston E, et al. A systematic review of two-stage hepatectomy in patients with initially unresectable colorectal liver metastases. *HPB (Oxford)*. 2013;15:483-91.
29. Faitot F, Faron M, Adam R, Elias D, Cimino M, Cherqui D et al. Two-stage hepatectomy versus 1-stage resection combined with radiofrequency for bilobar colorectal metastases: a case-matched analysis of surgical and oncological outcomes. *Ann Surg*. 2014;260:822-7.
30. Lang SA, Loss M, Benseler V, Glockzin G, Schlitt HJ. Long-term results after in-situ split (ISS) liver resection. *Langenbecks Arch Surg*. 2015;400:361-9.

# Développement des réseaux dans les sarcomes

## Development of Networks in Sarcomas

Jean-Michel Coindre

Anatomo-cyto-pathologie - Institut Bergonié

### Mots clés

- ◆ Sarcome
- ◆ Réseau
- ◆ Diagnostic
- ◆ Traitement

### Keywords

- ◆ Sarcoma
- ◆ Network
- ◆ Diagnosis
- ◆ Treatment

### Résumé

Les sarcomes sont des tumeurs rares, de diagnostic et de prise en charge thérapeutique difficiles. De ce fait, l'Institut National du Cancer (INCa) a soutenu la mise en place de réseaux nationaux pour le diagnostic histologique et moléculaire des sarcomes (Réseau de Référence en Pathologie des Sarcomes - RRePS) et la prise en charge clinique de ces tumeurs (NetSarc). Ces réseaux qui travaillent en collaboration étroite avec une base de données commune ont permis une amélioration du diagnostic et du traitement des sarcomes en France. Le problème principal actuel est celui du traitement chirurgical de ces tumeurs qui reste à améliorer.

### Abstract

Sarcomas are rare cancers with difficulties for diagnosis and management of patients. Therefore, National Institute of Cancer (INCa) supported the development of national network for histological and molecular diagnosis (Réseau de Référence en Pathologie des Sarcomes - RRePS) and for clinical management of patients (NetSarc). These networks work in strong collaboration with a common shared database. This allowed an improvement of diagnosis and treatment of sarcomas in France. However, primary surgical treatment is not optimal yet, and needs to be improved.

Les sarcomes correspondent aux tumeurs malignes conjonctives et sont rares par rapport aux carcinomes, aux lymphomes et aux mélanomes. Ils représentent environ 1 % des tumeurs solides de l'adulte avec de 4 à 5 000 nouveaux cas par an en France. Ils ont une localisation ubiquitaire avec 60 % au niveau des tissus mous, 30 % au niveau des viscères, principalement le tube digestif et l'appareil génital féminin et 10 % au niveau des os.

Ces tumeurs sont de diagnostic histologique difficile dû au grand nombre de types et sous-types (plus de 80) avec de très nombreux types moléculaires différents (1).

Plus de la moitié des nouveaux cas est d'ailleurs adressée spontanément pour avis à un expert par les pathologistes généralistes. Parmi les cas adressés pour simple relecture demandée par l'Institut National du Cancer, alors que le diagnostic a été posé formellement par le pathologiste initial, il existe environ 10 % de discordances majeures, en particulier de confusion entre un sarcome et une lésion bénigne.

Ces tumeurs sont susceptibles de récidiver localement dans 10 à 20 % des cas lorsque le traitement chirurgical initial est correctement. Ce taux de récurrence locale dépend principalement de la qualité du traitement chirurgical (2). Les sarcomes métastasent dans 30 à 50 % des cas. Le potentiel métastatique dépend du grade tumoral qu'il s'agisse du grade histologique (3) ou du grade moléculaire (4).

Le traitement initial des tumeurs localisées est difficile et nécessite une imagerie préalable, suivie d'une microbiopsie

qui permet d'affirmer le diagnostic de sarcome et de le classer. A l'issue de ces deux examens, une réunion de concertation pluridisciplinaire de spécialistes a pour objectif de décider du traitement premier qui est le plus souvent une chirurgie d'exérèse d'emblée dont la qualité est déterminante pour le pronostic. Comme il s'agit d'une chirurgie élargie, il est nécessaire de connaître le diagnostic avant d'opérer. Les examens extemporanés sont source d'erreur et sont contre indiqués.

### Réseaux cancers rares de l'adulte en France

Les cancers rares représentent environ 20 % des cancers et 30 % de la mortalité par cancer (5). La prise en charge des patients avec un cancer rare est de moins bonne qualité que celle des patients avec une tumeur fréquente. De ce fait, l'Institut National du Cancer (INCa) a soutenu la mise en place en 2010 de réseaux de prise en charge des cancers rares de l'adulte avec trois réseaux pour les sarcomes : Réseau de Référence en Pathologie des Sarcomes (RRePS) pour la relecture histologique des nouveaux cas de sarcomes des tissus mous et des viscères, NetSarc pour la prise en charge clinique des patients et en 2013 mise en place de ResOs pour la relecture des cas de sarcomes osseux.

### Correspondance :

Jean-Michel Coindre

Anatomo-cyto-pathologie - Institut Bergonié - 229, cours de l'Argonne - 33076 Bordeaux Cedex.

Tél : 05 56 33 33 29 / E-Mail : j.coindre@bordeaux.unicancer.fr

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000

	2010	2011	2012	2013	2014	2015	Total
Sarcomes	2311	2479	2779	2790	2798	2684	15841
GIST	532	600	602	639	658	729	3760
Desmoïdes	194	212	245	261	233	275	1420
Malignité intermédiaire	404	467	552	644	679	567	3313
T. malignes non conjonctives	111	109	143	145	133	130	771
Tumeurs bénignes	251	308	340	335	305	238	1777
<b>Total</b>	<b>3803</b>	<b>4175</b>	<b>4631</b>	<b>4814</b>	<b>4806</b>	<b>4623</b>	<b>26852</b>

Tableau I. Activité de relecture des nouveaux cas de sarcomes, GIST, tumeurs desmoïdes et autres tumeurs à malignité intermédiaire par le Réseau de Référence en Pathologie des Sarcomes entre 2010 et 2015.

## Réseau de référence en pathologie des sarcomes

Les objectifs de ce réseau sont d'assurer une seconde lecture histologique systématique pour tout nouveau cas de sarcome, GIST ou tumeur desmoïde développé au niveau des tissus mous et des viscères et d'améliorer le diagnostic moléculaire de ces tumeurs.

Le réseau est constitué de trois sites coordonnateurs (Institut Bergonié à Bordeaux, Centre Léon Bérard à Lyon et Institut Gustave Roussy à Villejuif) avec 17 centres régionaux experts et 15 centres de compétences. Il comporte une organisation régionale avec double lecture de tout nouveau cas, analyse moléculaire systématique pour toute suspicion d'anomalie moléculaire spécifique et enregistrement en temps réel dans une base partagée via Internet. Le recours national est représenté par les trois sites coordonnateurs et par des réunions mensuelles autour d'un microscope multi têtes localisé à Paris.

Le Tableau I montre l'activité de ce réseau entre 2010 et 2015 avec plus de 15 000 sarcomes relus et près de 4 000 GIST.

Pendant cette période, plus de 1 500 prélèvements ont été adressés avec le diagnostic de sarcome, GIST ou tumeur desmoïde alors qu'il s'agissait d'une tumeur ou lésion bénigne et plus de 700 cas ont été adressés avec le diagnostic de sarcome, GIST ou desmoïde alors qu'il s'agissait d'un carcinome, d'un mélanome ou d'un lymphome.

Plus de la moitié des cas adressés par les pathologistes généralistes sont des cas adressés spontanément pour second avis parce qu'il s'agit de cas de diagnostic difficile. Dans cette catégorie, il y a environ 35 % de cas de discordance entre le diagnostic initial proposé et le diagnostic final, tandis que pour les cas adressés en simple relecture, lorsque le diagnostic est formellement établi par le pathologiste initial, il y a environ 10 % de discordance majeure.

Le délai moyen de relecture dépend principalement du délai d'envoi avec un délai global de relecture d'environ 15 jours pour les prélèvements effectués dans les centres du réseau, 35 jours pour les cas adressés pour avis de l'extérieur et plus de 2 mois pour les cas adressés en simple relecture de l'extérieur.

Le prélèvement standard de ces tumeurs est actuellement représenté par la microbiopsie éventuellement guidée par l'imagerie, selon les recommandations de l'ESMO (European Society of Medical Oncology) (6). Globalement, ce taux de micro biopsie est un indicateur de qualité de prise en charge.

En effet la microbiopsie permet d'opérer ensuite le patient selon les techniques « sarcome », donc de manière adaptée et élargie. En effet, les micro biopsies exposent à moins de complications que les biopsies chirurgicales qui étaient recommandés dans le passé. Dans les trois sites coordonnateurs environ 90 % des cas prélevés le sont par microbiopsie, tandis que dans les centres régionaux experts, le taux de microbiopsies est passé de 35 % en 2010 à 65 % en 2014. Il est par contre plus bas de manière régulière lorsque les patients sont pris en charge en dehors du réseau (15 % de microbiopsies en 2010 et 25 % en 2014).

## NetSarc

Les objectifs du réseau clinique NetSarc sont de prendre en charge sur le plan thérapeutique les patients porteurs d'un sarcome, d'une GIST ou d'une tumeur desmoïde avec, en particulier structuration d'une filière de soins et passage systématique des patients en réunion de concertation pluridisciplinaire pour décision thérapeutique.

Le Tableau II rapporte l'activité de ce réseau entre 2011 et 2014 avec un nombre important de dossiers discutés en réunion de concertation pluridisciplinaire et la prise en charge actuellement de plus de 80 % des nouveaux patients avec un sarcome, GIST ou tumeur desmoïde contre seulement 60 % en 2011.

Un travail récent effectué par le Professeur Jean-Yves BLAY du Centre Léon Bérard à Lyon a montré qu'entre 2010 et 2014, 13 454 nouveaux patients ont été pris en charge par ce réseau, dont 41 % référés avant la chirurgie en 2010, contre 48 % en 2014. 4 304 patients ont été opérés par des chirurgiens du réseau NetSarc et 4 639 ont été opérés en dehors du réseau NetSarc. Les critères de qualité de ces interventions sont significativement meilleurs lorsque le patient est pris en charge dans le réseau : imagerie avant la chirurgie 86 % versus 59 % ( $p < 0,0001$ ), biopsie avant la chirurgie 80 % versus 36 % ( $p < 0,0001$ ), Exérèse macroscopiquement complète, (R1 n'est pas vraiment satisfaisant...), 76 % dans le réseau versus 55 % hors réseau. Seulement 5 % des patients ont dus avoir une reprise chirurgicale dans le réseau alors qu'ils ont été 17 % lorsque le patient a été opéré hors réseau ( $p < 0,0001$ ). Le bénéfice d'une prise en charge dans le réseau Netsarc a été montré également chez les patients porteurs d'une tumeur desmoïde (7).

Ces résultats montrent bien que le problème majeur de la prise en charge thérapeutique des sarcomes de l'adulte est celui de la qualité de la chirurgie. Elle nécessite une imagerie

	RCP 2011	RCP 2012	RCP 2013	RCP 2014	Incidents 2011	Incidents 2012	Incidents 2013	Incidents 2014
Sarcomes	3452	3873	4187	4322	1955	2192	2395	2530
GIST	361	387	441	454	191	201	234	259
Desmoïdes	206	301	308	325	108	166	152	169
Malignité intermédiaire	199	312	327	397	132	213	225	289
<b>Nombre total</b>	<b>4218</b>	<b>4873</b>	<b>5263</b>	<b>5498</b>	<b>2386</b>	<b>2772</b>	<b>3006</b>	<b>3247</b>
<b>% par rapport aux 4 000 patients attendus</b>					<b>60 %</b>	<b>69 %</b>	<b>75 %</b>	<b>81 %</b>

Tableau II. Activité de Réunion de Concertation Pluridisciplinaire (RCP) et nombre de patients incidents de 2011 à 2014 dans le cadre du réseau NetSarc.



adaptée et une microbiopsie avant tout geste de façon à discuter de la stratégie thérapeutique en réunion de concertation pluridisciplinaire et de l'extension de la chirurgie par un chirurgien expérimenté dans le domaine.

Afin d'améliorer cette prise en charge chirurgicale, il a été décidé en 2013 d'ajouter une recommandation à la fin du compte rendu anatomo-pathologique : « Selon les recommandations OMS 2013, il est préconisé que les modalités de la prise en charge de ces lésions soit discutée dans des Centres Spécialisés. En France vous trouverez la liste des réunions de concertation pluridisciplinaire (RCP) à l'adresse suivante : <https://netsarc.sarcomabcb.org> ».

La Société Française de Radiologie est en cours de discussion pour mettre la même recommandation à la fin du compte rendu d'imagerie.

Des formations spécifiques pour les chirurgiens ont été mises en place avec la rédaction de recommandations en particulier par EMSOS (European Musculoskeletal Oncology Society), la mise en place d'une formation européenne (e Surge). La mise en place d'un diplôme inter universitaire est en cours de discussion.

La définition de chirurgien expert pour les sarcomes est également en cours de discussion au sein du réseau NetSarc.

## Conclusion

Ce double réseau, pathologique et moléculaire d'une part et clinique et thérapeutique d'autre part, sur le plan national avec un réseau structuré a permis une amélioration importante de la prise en charge des patients.

La collecte des données en temps réel permet une évaluation constante des pratiques et la mise en place de mécanismes correcteurs. Le problème principal qui persiste est celui de la qualité de la prise chirurgicale initiale.

## Références

1. Fletcher CDM, Bridge JA, Hogendoorn PCW, Mertens F. WHO classification of tumours of soft tissue and bone. World Health Organization. IARC Press: Lyon 2013.
2. Stoeckle E, Gardet H, Coindre JM et al. Prospective evaluation of quality of surgery in soft tissue sarcoma. *Eur J Surg Oncol* 2006;32:1242-8.
3. Coindre JM, Terrier P, Bui NB et al. Prognostic factors in adult patients with locally controlled soft tissue sarcoma. A study on 546 patients from the French Federation of Cancer Centers Sarcoma group. *J Clin Oncol* 1996;14:869-77.
4. Chibon F, Lagarde P, Salas S et al. Validated prediction of clinical outcome in sarcomas and multiple types of cancer on the basis of a gene expression signature related to genome complexity. *Nat Med* 2010;16:781-7.
5. Gatta G, van der Zwan JM, Casali PG et al. Rare cancers are not so rare: the rare cancer burden in Europe. *Eur J Cancer* 2011;47:2493-511.
6. Hoerber I, Spillane AJ, Fisher C, Thomas JM. Accuracy biopsy techniques for limb and limb girdle soft tissue tumors. *Ann Surg Oncol* 2001;8:80-7.
7. Penel N, Coindre JM, Bonvalot S et al. Management of desmoid tumours: a nationwide survey of labelled reference centre networks in France. *Eur J Cancer* 2016;58:90-6.

# Le réseau national des tumeurs rares du péritoine (RENAPE) : réseau labellisé par l'INCa. Mise au point

## French National Network for the Treatment of Rare Peritoneal Surface Malignancies (RENAPE): an INCa-labeled Network

L Villeneuve [1,2], O Glehen [2,3], FN Gilly [2,3] et membres du Réseau RENAPE

1. Unité de recherche clinique - Pôle d'information médicale - Centre Hospitalier Lyon Sud - Hospices Civils de Lyon - 69495 Pierre-Bénite - France.

2. EMR 3738 - Ciblage thérapeutique en oncologie - Université Lyon 1 - Lyon - France.

3. Service de chirurgie générale et digestive - Centre Hospitalier Lyon Sud - Hospices Civils de Lyon 69495 Pierre-Bénite.

### Mots clés

- ◆ Cancer rare
- ◆ Mésothéliome
- ◆ Réseau
- ◆ Péritoine
- ◆ Pseudomyxome péritonéal

### Résumé

L'organisation de la prise en charge des patients atteints de cancers rares du péritoine s'appuie sur un réseau national (RENAPE) dont l'objectif est de garantir à chaque patient l'accès à l'expertise médicale quel que soit son lieu de traitement, à la fois par la mise en place d'une relecture de ses prélèvements tumoraux par des experts pathologistes pour un diagnostic certain, et par la discussion systématique de son dossier médical par des experts cliniciens pour guider la prise en charge thérapeutique. Le réseau RENAPE participe à l'actualisation de recommandations de bonnes pratiques cliniques et contribue à promouvoir la recherche sur ces cancers rares à travers des études fondamentales, translationnelles et cliniques qui peuvent s'appuyer sur une base de données nationale et une tumorothèque virtuelle associée.

### Keywords

- ◆ Rare cancer
- ◆ Mesothelioma
- ◆ Network
- ◆ Peritoneum
- ◆ Pseudomyxoma peritonei

### Abstract

The French health care organization for rare peritoneal malignancies has been structured with a national network (RENAPE). The RENAPE network is responsible for arranging double reading of tumour specimens, structuring referral multidisciplinary consultative meetings, sponsoring multicentre studies in basic, translational and clinical research on these rare cancers, drafting and updating recommendations for good practice, establishing a national database to contribute to the epidemiological observation of these cancers, organizing training for all health professionals involved, working in collaboration with the patient association (AMARAPE), and providing relevant information to general public.

Dans le cadre du Plan Cancer II (1), l'Institut National du Cancer (INCa) et la Direction Générale de l'Organisation des Soins ont ouvert des appels à projets visant à structurer l'offre de soins pour les patients adultes atteints de cancers rares. L'objectif était de fédérer, en réseau, des équipes à l'échelle nationale pour améliorer les connaissances épidémiologiques et la prise en charge de ces pathologies et faire émerger des projets de recherche collaboratifs. En 2009, à l'initiative du Pr François-Noël Gilly, s'est alors constitué le réseau RENAPE (Réseau National des Tumeurs Rares du Péritoine) centré sur cinq, puis six types de tumeurs péritonéales : les pseudomyxomes péritonéaux, les mésothéliomes péritonéaux, les carcinomes séreux primitifs péritonéaux, les tumeurs desmoplastiques à petites cellules rondes, les psammocarcinomes, et plus récemment les léiomyomatoses péritonéales disséminées. La localisation péritonéale et la prise en charge thérapeutique (chirurgie hautement spécialisée associée potentiellement à une chimiohyperthermie intra-péritonéale) définissent l'unicité de ces maladies. Ces tumeurs rares nécessitent une prise en charge complexe avec des spécificités de compé-

tences et de moyens depuis le diagnostic jusqu'au suivi post-thérapeutique. L'organisation spécifique ainsi mise en place pour les cancers rares du péritoine est devenu un modèle pour d'autres pays européens. Elle vise à garantir aux patients atteints de ces cancers une prise en charge adaptée et de qualité, partout en France.

### Les actions coordonnées par le Réseau RENAPE

#### Structuration de la filière de soins pour les patients atteints de tumeurs rares du péritoine

La coordination de 3 centres experts associés à 6 centres de compétences et 22 structures spécialisées permet d'assurer un maillage de l'ensemble du territoire national. De plus, des

### Correspondance :

Laurent Villeneuve, Unité de recherche clinique - Pôle d'information médicale - Centre Hospitalier Lyon Sud - Hospices Civils de Lyon - 69495 Pierre-Bénite.

Tél. : +33 (0) 478 864 536 - E-mail : laurent.villeneuve@chu-lyon.fr

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000

groupes thématiques et spécialisés se sont constitués secondairement tels que :

- le Groupe RENA-PATH qui est composée des pathologistes référents dans la prise en charge des tumeurs rares du péritoine (2). Le Groupe RENA-PATH a centré prioritairement ses travaux sur l'harmonisation des critères diagnostiques anatomopathologiques. Tout pathologiste peut demander un avis diagnostique en sollicitant directement l'un des pathologistes du groupe RENA-PATH (cf. liste des membres - [www.renapeonline.fr](http://www.renapeonline.fr)). Des séances de relecture collégiales et nationales sont organisées pour discuter des cas difficiles et confirmer un diagnostic de certitude ;
- le Groupe RENA-RAD rassemble quant à lui des radiologues fortement impliqués dans la prise en charge radiologique des tumeurs rares du péritoine. Formé en 2015 sous l'égide conjointe de RENAPE et de la Société française d'Imagerie Abdominale et Digestive (SIAD), le Groupe RENA-RAD a pour objectif d'harmoniser les pratiques en établissant des protocoles standardisés de réalisation des scanners et IRM du péritoine. Tout radiologue ou clinicien peut demander un avis diagnostique en sollicitant directement l'un des radiologues référents du groupe RENA-RAD (cf. liste des membres - [www.renapeonline.fr](http://www.renapeonline.fr)). Des séances de relecture collégiales nationales et de discussion sont organisées lors congrès annuel de la Société Française de Radiologie.

### Activité de recours

Des réunions de concertation pluridisciplinaires (RCP) de recours suprarégionales ont été mises en place en Auvergne-Rhône-Alpes, Île-de-France, Languedoc-Roussillon-Midi-Pyrénées et Alsace-Lorraine-Franche-Comté. Ces RCP de recours sont réservées aux cas et situations cliniques complexes où le diagnostic et/ou la prise en charge sont particulièrement difficiles et nécessitent un second avis d'experts. Des référents des groupes RENA-PATH et RENA-RAD sont présents lors de ces RCP pour organiser le cas échéant, les relectures histologiques et radiologiques nécessaires, sur lesquelles reposent les indications thérapeutiques.

### Référentiels et recommandations de bonnes pratiques

Du fait de leur rareté la prise en charge des cancers primitifs du péritoine posent des difficultés de diagnostic, de disparités dans les prises en charge thérapeutiques initiales, d'analyses anatomopathologiques imprécises et de suivis non standardisés. Des référentiels nationaux et des mises au point ont donc été édités par un Groupe de Travail multidisciplinaire en vue d'harmoniser les pratiques pour le diagnostic, le traitement et les modalités de surveillance des pseudomyxomes et mésothéliomes péritonéaux (3-5).

### Recherche

Le Réseau RENAPE a pour objectifs :

- de fédérer les différentes équipes constitutives et complémentaires au Réseau autour de projets nationaux collaboratifs (type PHRC, Base Clinico-Biologique) dans le domaine de la chirurgie digestive oncologique et de constituer ainsi une valeur ajoutée à la réalisation de ce types de projets (6) ;
- de promouvoir l'émergence de travaux de recherche fondamentale, translationnelle ou clinique, propres aux cancers primitifs du péritoine en s'appuyant sur l'expertise et les axes de recherche des groupes RENA-PATH (7-9) et RENA-RAD (10-14) ;
- de faciliter l'accès pour les patients aux techniques innovantes, aux essais thérapeutiques nationaux et internationaux, requis dans la prise en charge de ces tumeurs rares ;
- de favoriser les interactions entre scientifiques de diffé-

rentes disciplines fondamentales et cliniciens, dans le but d'accélérer le transfert des innovations dans la prise en charge des patients (15,16).

Le recensement des échantillons tumoraux sous la forme d'une tumorothèque virtuelle, participe également à promouvoir des travaux, destinés à une meilleure compréhension des mécanismes physiopathologiques à l'origine de la tumorigénèse, et nécessaires pour l'identification de marqueurs diagnostiques et pronostiques d'intérêt.

### Surveillance épidémiologique et observation

Le Réseau RENAPE a mis en place un observatoire national pour le recensement et le suivi des patients atteints de cancers rares du péritoine. Plus de 2 000 cas de patients atteints de cancers rares du péritoine ont été enregistrés en 2016. Cette base, unique, est partagée entre les cliniciens et les pathologistes référents du réseau et est associée à une tumorothèque virtuelle. Des contrôles de cohérence réguliers et spécifiques ont été mis en place pour s'assurer de la qualité des données clinico-biologiques ainsi enregistrées. Cette base constitue un outil majeur pour la recherche et l'amélioration des connaissances de ces pathologies rares. Par ailleurs, les cliniciens et pathologistes du Réseau RENAPE participent activement au dispositif de déclaration obligatoire mis en place par l'Institut national de Veille Sanitaire (InVS) depuis 2012 pour les mésothéliomes malins (5,17). Par cette base, le Réseau RENAPE a participé à plusieurs travaux internationaux (18,19).

### Formation et information

Le Réseau RENAPE participe activement au DIU Carcinomes Péritonéales (Universités Paris Diderot VII et Claude Bernard Lyon 1) et organise, annuellement, une journée d'information et de présentation des différents travaux conduits par les équipes du Réseau. Le réseau développe des outils interactifs visant à homogénéiser les pratiques et standardiser les comptes rendus chirurgicaux et médicaux.

Par ailleurs, l'activité de double lecture histologique pourrait s'inscrire dans le cadre du développement professionnel continu car il représente un « outil de formation continue pour l'ensemble des pathologistes » en conditions réelles grâce aux échanges sur les cas difficiles.

Le Réseau RENAPE soutient également l'association AMARAPE (Association contre les Maladies Rares du Péritoine), association Loi 1901 créée en 2007 par des patients atteints de maladies rares du péritoine. Créée pour répondre à un besoin d'information, AMARAPE a orienté ses actions vers les malades et leurs proches, ainsi que les professionnels de santé. Apporter des informations actualisées et orienter les malades vers les équipes du Réseau RENAPE pour leur offrir un diagnostic fiable et des soins adaptés, sont des conditions déterminantes pour combattre efficacement la maladie et préserver la qualité de vie du malade. Par les conseils apportés, l'association AMARAPE accompagne celles et ceux qui en ont besoin dans leur parcours de soins, et souhaite au travers de témoignages, donner des perspectives et l'espoir d'une vie avec et après la maladie.

### Remerciement

Remerciements à l'INCa pour son soutien au réseau Tumeurs Rares du Péritoine (RENAPE).



## Déclaration d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relation avec cet article.

## Références

1. INCa. Plan cancer 2009-2013. 2009.
2. Villeneuve L, Isaac S, Glehen O, Capovilla M, Chevallier A, Croce S, et al. The RENAPE network: Towards a new healthcare organization for the treatment of rare tumors of the peritoneum. Description of the network and role of the pathologists. *Ann Pathol.* 2014;34:4-8.
3. (GRECOPE) GdtsLRdbpcdtrdP. Recommandations de Bonnes Pratiques Cliniques. Pseudomyxomes et mésothéliomes péritonéaux - Diagnostic, traitement et surveillance. *Journal de Chirurgie Viscérale.* 2014;151(6, Supplément).
4. Dartigues P, Isaac S, Villeneuve L, Glehen O, Capovilla M, Chevallier A, et al. Peritoneal malignant mesothelioma: An overview emphasizing pathological assessment and therapeutic strategies. *Ann Pathol.* 2014;34:14-25.
5. Mery E, Hommell-Fontaine J, Capovilla M, Chevallier A, Bibeau F, Croce S, et al. Peritoneal malignant mesothelioma: review and recent data. *Ann Pathol.* 2014;34:26-33.
6. Glehen O, Passot G, Villeneuve L, Vaudoier D, Bin-Dorel S, Boschetti G, et al. GASTRICHIP: D2 resection and hyperthermic intraperitoneal chemotherapy in locally advanced gastric carcinoma: a randomized and multicenter phase III study. *BMC Cancer.* 2014;14:183.
7. Dartigues P, Bibeau F, Isaac S, Carr NJ, Glehen O, Gilly F-N, et al. Mucinous neoplasms of the appendix and peritoneum: virtual microscopy for histomorphologic assessment and interobserver diagnostic reproducibility. 9th International Congress on Peritoneal Surface Malignancies; Amsterdam, NL2014.
8. Hommell-Fontaine J, Isaac S, Passot G, Decullier E, Traverse-Glehen et al. Malignant Peritoneal Mesothelioma Treated by Cytoreductive Surgery and Hyperthermic Intraperitoneal Chemotherapy: Is GLUT1 Expression a Major Prognostic Factor? A Preliminary Study. *Ann Surg Oncol.* 2013;20:3892-8.
9. Carr NJ, Cecil TD, Mohamed F, Sobin LH, Sugarbaker PH, Gonzalez-Moreno S, et al. A Consensus for Classification and Pathologic Reporting of Pseudomyxoma Peritonei and Associated Appendiceal Neoplasia: The Results of the Peritoneal Surface Oncology Group International (PSOGI) Modified Delphi Process. *Am J Surg Pathol.* 2016;40:14-26.
10. Menassel B, Duclos A, Passot G, Dohan A, Payet C, Isaac S, et al. Preoperative CT and MRI prediction of non-resectability in patients treated for pseudomyxoma peritonei from mucinous appendiceal neoplasms. *Eur J Surg Oncol.* 2016 Jan 22. pii: S0748-7983(16)00047-0. doi: 10.1016/j.ejso.2016.01.005. [Epub ahead of print].
11. Dohan A, Eveno C, Soyer P, Pocard M. Focal fatty infiltration in Segment IV of the liver mimicking peritoneal carcinomatosis on CT and MR imaging. *J Visc Surg.* 2014;151:319-21.
12. Dohan A, Lousquy R, Eveno C, Goere D, Broqueres-You D, Kaci R, et al. Orthotopic animal model of pseudomyxoma peritonei: An in vivo model to test anti-angiogenic drug effects. *Am J Pathol.* 2014;184:1920-9.
13. Jouvin I, Dohan A, Gergi P, Pocard M. Intra-abdominal benign multicystic peritoneal mesothelioma. *J Visc Surg.* 2014;151:155-7.
14. Mohkam K, Passot G, Cotte E, Bakrin N, Gilly FN, Ledochowski S, et al. Resectability of Peritoneal Carcinomatosis: Learnings from a Prospective Cohort of 533 Consecutive Patients Selected for Cytoreductive Surgery. *Ann Surg Oncol.* 2016;23:1261-70.
15. Kepenekian V, Aloy MT, Magne N, Passot G, Armandy E, Decullier E, et al. Impact of hyperthermic intraperitoneal chemotherapy on Hsp27 protein expression in serum of patients with peritoneal carcinomatosis. *Cell Stress Chaperones.* 2013;18:623-30.
16. Vlaeminck-Guillem V, Bienvenu J, Isaac S, Grangier B, Golfier F, Passot G, et al. Intraperitoneal Cytokine Level in Patients with Peritoneal Surface Malignancies. A Study of the RENAPE (French Network for Rare Peritoneal Malignancies). *Ann Surg Oncol.* 2013;20:2655-62.
17. Grange D, Le Moal J, Audignon-Durand S, Bonnet N, Rigou A, Gane J, et al. La déclaration obligatoire des mésothéliomes : bilan du dispositif et intérêt des enquêtes d'exposition. *Revue des Maladies Respiratoires.* 2016;33(S):A38-A9.
18. Kusamura S, Moran BJ, Sugarbaker PH, Levine EA, Elias D, Baratti D, et al. Multicentre study of the learning curve and surgical performance of cytoreductive surgery with intraperitoneal chemotherapy for pseudomyxoma peritonei. *Br J Surg.* 2014;101:1758-65.
19. Yan TD, Deraco M, Elias D, Glehen O, Levine EA, Moran BJ, et al. A novel tumor-node-metastasis (TNM) staging system of diffuse malignant peritoneal mesothelioma using outcome analysis of a multi-institutional database\*. *Cancer.* 2011;117:1855-63.

# Greffe de visage : extrapolation à l'enfant et à l'adolescent

## Face Transplant: Extrapolation to Children and Teenagers

B Devauchelle [1], S Testelin [1], S Dakpe [1], C Neiva [1], B Lengelé [2], JM Dubernard [3]

1. CHU Amiens - Service de chirurgie maxillo-faciale.

2. Université Catholique de Louvain - Bruxelles.

3. HCL Lyon - Service urologie - transplantation.

### Mots clés

- ◆ Allotransplantation
- ◆ Chirurgie faciale pédiatrique
- ◆ Reconstruction microchirurgicale
- ◆ Transplantation faciale chez l'enfant
- ◆ Transplantation néonatale et tolérance
- ◆ Malformation faciale

### Résumé

S'il y a incontestablement place pour l'allotransplantation de tissu composite au niveau de la face chez l'adulte, même si le bilan des 35 greffes de visage en dix ans est loin d'être aussi positif que ne le laisse apparaître la littérature, il n'est pas sûr qu'elle puisse être extrapolée chez l'enfant en l'état.

La question n'est pas chirurgicale. Elle est liée d'abord aux pathologies dont le traitement requerrait un tel geste. À cela s'ajoute la difficulté à trouver un donneur dont les critères immunologiques, mais aussi d'âge, de phototype soient compatibles. Spécifique du nouveau-né, la malformation faciale ne répond pas à un déficit de tissu. Il n'y a pas donc place pour la greffe à ce niveau.

Enfin, rien n'est connu de la durée de vie de la transplantation, nonobstant les complications propres aux traitements immunosuppresseurs. Bref, tous les indicatifs sont négatifs.

Poser la question a cependant le double mérite de rappeler que toute innovation chirurgicale vient le plus souvent d'une observation clinique non imaginable, ou non imaginée, et que le cadre spécifique de la transplantation néo-natale vient reposer la question de la tolérance.

### Keywords

- ◆ VCA (vascularized composite allotransplantation)
- ◆ Facial pediatric surgery
- ◆ Microsurgical reconstruction
- ◆ Facial transplantation on children
- ◆ Tolerance and neonatal transplantation

### Abstract

If there is without any contest a place for face transplant in adults despite the real status of the first 35 realised ones, it is not so obvious that face transplant could be so clearly extrapolated to children.

The question is not surgical. It is related to the pathologies themselves for which transplant could be suitable. Moreover the procurement of face transplant will be more difficult because of immunologic criteria but also age and photo type. Specificity of the newborn malformative face is usually not only a question of tissue defect. It is reasonably not an indication for VCA. It should be added that nothing is known about the future of transplantation in terms of duration but also morbidities due to immunosuppression. Indications criteria are rather negative.

To raise the question of VCA for children has a double benefit. The first is to point out that surgical innovation oftenly arise from a non-imaginable or non-imagined clinical situation. The second is the question of VCA in newborn regarding the tolerance.

*Nous nous trouvons devant un homme de génie qui a commencé par faire de grandes découvertes et qui s'est demandé ensuite comment il fallait s'y prendre pour les faire : démarche paradoxale en apparence et pourtant naturelle, la manière inverse de procéder ayant été tentée beaucoup plus souvent et n'ayant jamais réussi.*

Henri Bergson (1).

## Introduction

La question de l'allotransplantation de tissu composite au niveau de la face se pose-t-elle chez l'enfant ? Et si elle se pose, quelles inconnues nous donne-t-elle à affronter ? Y a-t-il lieu d'ailleurs de se la poser en amont quand l'histoire nous rappelle qu'en chirurgie les circonstances et les actes ont toujours précédé les concepts. Enfin, l'expérience acquise

chez l'adulte, fragile, permet-elle d'extrapoler chez l'enfant ?

Voilà autant de points d'interrogation que celui qui eut privilège de réaliser la première greffe de visage il y a dix années pleines (2) et dont l'exercice s'étend à la défiguration malformative du nouveau-né, s'efforcera de partager à défaut de pouvoir les lever. Et si le titre fut ainsi choisi, délibérément, c'est que les termes, bien qu'honnis en leur temps par le Comité Consultatif National d'Éthique (3) disent toute la dimension ontologique d'une telle pratique chirurgicale.

## De l'allotransplantation faciale

Que dire de l'allotransplantation de tissu composite au niveau de la face, si ce n'est qu'en se tenant aux publications scientifiques, recenser plus de deux cents articles parus avant

### Correspondance :

Bernard Devauchelle, Service de Chirurgie Maxillo-Faciale - CHU - Place Victor Pauchet - 80000 AMIENS

Tél. : 03-22-66-83-25

E-mail : cmf@chu-amiens.fr

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000

qu'elle ne se produise et y ajouter plusieurs centaines d'écrits édités dans la presse spécialisée depuis. Ce recensement, fastidieux, laisse penser que là comme dans d'autres champs disciplinaires, paroles et écrits prévalent sur les faits.

Car la greffe de visage parle d'elle-même, et davantage que d'épiloguer sur son compte, la faire et la montrer, l'entendre et la voir suffisent à la justifier. Au demeurant, les expositions suscitent catalogues et exégèses, et la « science médicale » se nourrit de chiffres et de mots.

L'un des derniers articles synoptiques parus sur la transplantation faciale (4) prouve la limite de l'exercice, celui d'un regard rétrospectif qui se voudrait objectif et exhaustif. Il recense 28 « greffes de visage » réalisées en neuf années quand pour notre propre compte nous en comptabilisons 31 (Tableau 1) et ne retrouve aucune trace écrite de sept d'entre elles. (Ce sont 36 transplantations qui ont été pratiquées en ce début d'année 2016).

Mérite doit cependant être rendu à l'auteur de cette publication d'en avoir, pour propre compte, réalisé une (mars 2012), (il en a réalisé une seconde en 2015) et d'en avoir fait une analyse critique honnête. Mérite supplémentaire, il met l'accent sur les points fondamentaux que sont la tolérance et les thérapeutiques immunosuppressives, la réhabilitation fonctionnelle et tout particulièrement la réhabilitation nerveuse, la spatialisation du squelette facial et la restauration de l'occlusion, passant plus rapidement sur les questions psychologiques et éthiques et de ce dernier point de vue insistant sur le coût d'une telle intervention.

Défait d'époque, soumission au biopouvoir ou attirance vers lui, il conclut en appelant de ses vœux une protocolisation du geste et de son indication quand la leçon première à tirer de l'allotransplantation faciale est qu'elle est unique et première pour chacun des patients qui en bénéficient.

Plus regrettable est de voir ces mêmes journaux scientifiques accepter des avis d'experts n'ayant qu'une vue du dehors. Censeurs arguant d'une distanciation, d'autant plus péremptives dans leurs aphorismes qu'ils sont éloignés du sujet (5). On ne reprendra donc pas ici la description d'un acte chirurgical à réinventer chaque fois. Le lecteur est donc invité à une lecture critique de ces articles.

## D'une possible allotransplantation faciale chez l'enfant

C'est avec humilité (l'auteur de ces quelques lignes les reniera un jour peut-être) que l'on évoquera sous l'angle chirurgical (technique - indications) cette éventualité.

À perte de substance acquise (traumatique ou post-exérèse tumorale) il n'y a pas techniquement de différence entre l'adulte et l'enfant dans la réalisation d'une greffe de visage. Certes, les structures anatomiques y sont plus grêles, mais leurs capacités physiologiques intactes. Régénération et cicatrisation sont plus rapides. S'il s'agit d'un syndrome malformatif (à supposer qu'il requiert une telle thérapeutique), il faudra préalablement s'assurer qu'à distance les réseaux vasculaires et nerveux répondent à une anatomie classique. Autrement dit, chirurgicalement, il n'y a guère de différence ici comme là-bas entre replantation et transplantation.

### De l'indication

Soit, la transplantation de tout ou partie de la face est possible chez l'enfant. Est-elle cependant indiquée ?

### La face brûlée

C'est la réflexion menée autour des séquelles de brûlure qui a initié, puis justifié le recours à la transplantation faciale. Paradoxalement, il n'y en eut que quatre chez l'adulte, auxquelles il convient d'ajouter les trois observations de Boston

Patient	Date	Lieu	Equipe Chirurgicale	Age/ Sexe	Etiologie
1	Nov 2005	Amiens France	Devauchelle Dubernard	38/F	Morsure de chien
2	Avril 2006	Xi'an Chine	Guo	30/M	Morsure d'ours
3	Janv 2007	Paris France	Lantieri	29/M	Neurofibromatose
4	Déc 2008	Cleveland USA	Siemionow	45/F	Trauma balistique
5	Mars 2009	Paris France	Lantieri	27/M	Trauma balistique
6	Avril 2009	Paris France	Lantieri	37/M	Brûlure au 3 <sup>e</sup> degré
7	Avril 2009	Boston USA	Pomahac	60/M	Brûlure électrique
8	Août 2009	Paris France	Lantieri	33/M	Trauma balistique
9	Août 2009	Valence Espagne	Cavadas	42/M	Séquelle carcinologique
10	Nov 2009	Amiens France	Devauchelle Dubernard	27/M	Trauma balistique
11	Janv 2010	Séville Espagne	Gomez-Cia	35/M	Neurofibromatose
12	Mars 2010	Barcelone Espagne	Barrett	30/M	Trauma balistique
13	Juin 2010	Paris France	Lantieri	35/M	Neurofibromatose
14	Mars 2011	Boston USA	Pomahac	25/M	Brûlure électrique
15	Avril 2011	Paris France	Lantieri	45/M	Trauma balistique
16	Avril 2011	Paris France	Lantieri	41/M	Trauma balistique
17	Avril 2011	Boston USA	Pomahac	30/M	Brûlure électrique
18	Mai 2011	Boston USA	Pomahac	57/F	Attaque animale
19	Janv 2012	Ghent Belgique	Blondeel	M	Accident industriel
20	Janv 2012	Antalya Turquie	Ozkan	45/M	Brûlure
21	Févr 2012	Ankara Turquie	Nasir	25/M	Brûlure
22	Mars 2012	Ankara Turquie	Ozmen	20/F	Trauma balistique
23	Mars 2012	Baltimore USA	Rodriguez	37/M	Trauma balistique
24	Mai 2012	Antalya Turquie	Ozkan	34/M	Brûlure
25	Juin 2012	Amiens France	Devauchelle Dubernard	52/F	Tumeur vasculaire
26	Févr 2013	Boston USA	Pomahac	44/F	Brûlure chimique
27	Mai 2013	Gliwice Pologne	Maciejewski	33/M	Trauma balistique
28	Juill 2013	Antalya Turquie	Ozkan	27/M	Trauma balistique
29	Août 2013	Antalya Turquie	Ozkan	54/M	Trauma balistique
30	Déc 2013	Gliwice Pologne	Maciejewski	26/M	
31	Déc 2013	Antalya Turquie	Ozkan	22	Trauma balistique

Tableau 1. Répartition des allotransplantations dans le monde depuis 2005.



Figure 1. Jeune patiente de 14 ans : séquelles de brûlures panfaciales à 2 ans.



Figure 2. Enfant algérien âgé de 9 ans : fentes faciales multiples et complexes.

(deux brûlures électriques et une brûlure chimique). L'une d'entre elles décéda de complications infectieuses et l'on ne sait que peu des résultats à moyen terme des trois observations turques.

Vice de pensée, l'allogreffe du visage a été imaginée initialement dans cette indication, mettant en avant ce qui pouvait constituer un « resurfaçage » idéal, faisant abstraction en contrepartie du bénéfice fonctionnel attendu. Et, conceptuellement parlant, l'on ne sait rien aujourd'hui, dans une telle indication, de la restauration des fonctions d'expression du visage : faut-il ou non transplanter les muscles peauciers ? Faut-il les superposer ? Et comment assurer leur ré-innervation ?

Sans doute existe-t-il ici ou là quelques séquelles gravissimes de brûlures faciales chez l'enfant. Hors un cas venu d'Amérique du Sud (Fig 1), les auteurs n'ont jamais été sollicités sur ce sujet. Demeureront, si la chose advenait, les mêmes interrogations que celles posées chez l'adulte.

### Le traumatisme

Si la règle des trois tiers (étage frontal, étage maxillo-nasal, étage masticatoire) s'applique au visage adulte, il n'en est pas de même chez l'enfant tout petit où la face est verticalement divisée en deux étages de taille équivalente (fronto-cranien, naso-orbito-maxillo-mandibulaire). Ce qui d'emblée l'expose moins au traumatisme. Et le traumatisme balistique est en temps de paix quasi inexistant en pédiatrie.

Le visage de l'enfant est, par contre, particulièrement vulnérable aux morsures animales. Celles-ci dilacèrent souvent mais elles amputent rarement, sauf peut-être le pavillon de l'oreille. La littérature rapporte une observation originale de réimplantation d'un visage largement amputé, avec un résultat à distance excellent car le fragment n'était pas trop dilacéré. C'est ce contexte particulier qui, telle notre observation princeps chez l'adulte, pourrait le plus sûrement faire l'objet d'une éventuelle transplantation de la partie manquante. Et ce sont les mêmes aires anatomiques (le cercle péri-labial en l'occurrence) qui répondrait le mieux à cette indication. Une observation d'amputation labio-mentonnaire a été rapportée par nos soins, réparée par un transfert de lambeau libre de gracilis préfabriqué. Le résultat est sujet à commentaires et l'on est en droit de s'interroger sur l'incidence de la rétraction cicatricielle sur la croissance mandibulaire (6).

### La malformation

L'étroite dépendance organogénétique entre face et cerveau rend non viable ce qui pourrait être une agénésie de tout ou partie du visage. Il n'y a pas de pendant facial à l'anencéphalie. Si, de ce point de vue, la nature a horreur des monstres, pour reprendre l'expression de Canguilhem (7), et la mythologie s'est largement nourrie de ce que la nature avait offert à voir (Cyclope et Janus) et la tératologie en a rempli ses bœufs formolés, demeurent viables bon nombre de malformations cranio-faciales pour lesquelles ont été élaborées au fil du temps des prises en charge complexes, laissant toutefois persister à l'âge adulte des séquelles morpho-fonctionnelles sévères. Diagnostic anténatal aidant, ces malformations se voient en France de moins en moins.

Au-delà des classifications qui ont pu en être faites (8), on en retiendra deux grands types :

- Les malformations fissuraires : systématisées par Paul Tessier (9), elles relèvent moins de perte de substance (d'agénésie) que de dysraphie ou d'incomplétude de formation (dysplasie), permettant au chirurgien des reconstructions utilisant les tissus propres du sujet atteint, sans nécessairement faire apport de greffe ou d'auto-transplantation. Une thèse récente (10) a fait le recensement des plus rares d'entre elles, accréditant le fait que depuis 2005 aucun nouveau cas n'a été répertorié et l'illustration ici rapportée (Fig 2) concerne un jeune enfant algérien.
- Les malformations « tumorales » : c'est par analogie que ce qualificatif est ici employé. Car si le tératome est une authentique tumeur bénigne, il résulte dans son expression néonatale (et le mot porte en lui toute sa signification) d'un vice de formation. Et la question qu'il pose est davantage celle de la compatibilité d'une vie quand la tumeur vient obstruer les voies aérodigestives supérieures. Même en cas de tératome géant (*fœtus in fœtu*), sa simple exérèse au moment de la naissance ne laisse à l'enfant qui en est porteur que des séquelles modérées.
- Différentes sont les malformations vasculaires. Si l'hémangiome est en réalité une authentique tumeur relevant aujourd'hui de thérapeutiques médicales, les malformations lymphatiques, veineuses ou artério-veineuses, peuvent avoir une extension considérable. Et leur exérèse imposera des reconstructions tellement complexes que le recours à une allogreffe puisse s'envisager. Mais la vie même de ces malformations est capricieuse, leur évolution mal maî-



Figure 3. Enfant présentant une tumeur rhabdoïde (aspect à une semaine de vie).

trisée. Et de manière à éviter la mutilation qu'engendrerait inéluctablement une exérèse chirurgicale élargie, les essais thérapeutiques s'orientent aujourd'hui toujours plus vers le médicament, la sclérose, la radiologie interventionnelle ou la destruction par de nouvelles énergies (haute fréquence, laser...). Il n'en reste pas moins que ces pathologies évoluant avec le temps de manière non maîtrisable, ne pouvant relever de traitements étiologiques (un traitement qui réorienterait la morphogénèse), doivent se contenter de mesures palliatives. Impuissance du compromis ; le choix cornélien entre une chirurgie radicale extirpant le mal, mettant en jeu le pronostic vital, susceptible cependant d'améliorer la qualité de vie et une attitude contemplative, compassionnelle mais impuissante.

### La tumeur

Rarissimes sont les tumeurs faciales néonatales. Quelques sarcomes ont été rapportés tel cet exemple (Fig 3). Le pronostic vital est ici en jeu. Que ce pronostic autorise la plus grande hardiesse chirurgicale : soit ! Que la mutilation imposée soit sévère : soit encore ! Mais l'on sait que la réparation par allotransplantation, la plus à même de restaurer forme et fonction, n'est guère possible dès lors qu'un traitement immunosuppresseur est inéluctablement lié au geste de réparation. Limite à la dépendance de l'autre. Sous peine de voir se réactiver le processus tumoral extirpé du corps, mais dont le corps garde mémoire au point que la moindre faiblesse de ses défenses ne donne l'opportunité à la tumeur de réapparître. Ce qui est vrai chez l'enfant, l'est aussi chez l'adulte.

Les tumeurs bénignes néonatales sont exceptionnelles aussi : on ne reviendra pas sur l'hémangiome dont l'extension peut mettre en jeu le pronostic vital : les possibilités offertes par les traitements médicaux en ont modifié le devenir.

Une observation personnelle unique de nævus congénital de l'hémiface, ici illustrée (Fig 4), a fait poser la question d'une possible indication de transplantation. L'étendue et la profondeur de cet hamartome géant entraînait conséquences fonctionnelles (oculaires) et douloureuses (prurit) non contrôlables. Indépendamment du risque de dégénérescence, la relative urgence à régler le problème nous a incités à privilégier une solution d'attente qui se confirme quelques années plus tard comme un choix heureux, quoique loin des objectifs à atteindre. Cette observation a rétrospectivement mérité à introduire, puisqu'il s'est produit, le questionnement sur la croissance possible d'un transplant, sur la géographie d'une transplantation qui mettrait en comparaison obligée, profil

droit, profil gauche, et restituerait ce que l'on appellera un visage « schizophrène ».

C'est dans un cadre tout différent que s'inscrit la maladie de Von Recklinghausen de type I, dont l'évolution au fil de la croissance s'apparente à ce que l'on peut observer dans certaines malformations vasculaires, veineuses ou lymphatiques. Rien n'est dit de l'incidence des chirurgies partielles sur l'évolution de la maladie. Les quatre observations d'allotransplantation faciale chez l'adulte dans cette indication laissent penser que, exérèse incomplète obligée, les thérapeutiques entourant la transplantation n'ont guère d'incidence sur la poursuite évolutive de la maladie.

Une observation unique de maladie de Von Recklinghausen, suivie depuis la petite enfance pendant presque vingt années, achevée dramatiquement alors qu'était posée l'indication d'une transplantation hémifaciale, inviterait volontiers à un radicalisme plus précoce des traitements chirurgicaux, ou à l'opposé à une abstention contemplative quand aucun autre traitement n'est envisageable. Cette observation impose une nouvelle fois humilité (Fig 5).

Il est vain de vouloir ici couvrir tout le champ des pathologies néonatales ou de l'enfant qui, atteignant le visage, par leur gravité ou leur étendue, pourraient faire évoquer la possibilité d'une greffe de visage à venir. L'expérience des auteurs, liée aux confrontations cliniques qu'ils ont pu avoir, doit nécessairement croiser celle d'autres acteurs de la pathologie pédiatrique. Elle sert ici d'illustration non exhaustive. C'est dire, qu'indépendamment du propre chemin de chacun, la transplantation faciale chez l'enfant se verra indiquée un jour moins par les chirurgiens, que par le cas pathologique inimaginé qui se présentera à eux.

### De la croissance

Si la croissance d'un individu est classiquement liée à des facteurs alimentaires, hormonaux et héréditaires, on sait moins de la croissance d'un organe transplanté. Faut-il penser qu'elle est ici anisotrope, quand elle serait là isotrope ? Peut-on extrapoler aussi aisément d'une transplantation d'organes à une allotransplantation de tissu composite ? Qui plus est, l'on sait que la croissance squelettique des os de la face est liée pour partie aux sollicitations biomécaniques qui s'exercent sur eux. Forme et fonction sont liées.

La littérature étant muette sur le sujet ou presque, peut-on extrapoler des constatations faites chez l'adulte ou de l'auto-transplantation faciale chez l'enfant ?

### L'allotransplantation chez l'adulte

Soit qu'aucune mesure objective n'eût été entreprise, soit que l'on manquât de recul, il n'a pas été constaté de modification volumique évidente des transplants faciaux chez l'adulte. Tout au plus peut-on dire que les fonctions « végétatives » des transplantations cutanées sont restaurées intégralement (pilosité, vasodilatation ou constriction, pigmentation...). Certes, les rejets réitérés, comme dans le cas de notre deuxième transplantation, induisent une sclérose et une rétraction des tissus. C'est, privilège de pionnier, le sentiment subjectif que l'on peut ressentir avec notre première patiente. Mais on peut arguer que la fonction (les mouvements) du transplant étant moindre, existe un certain degré d'atrophie des tissus musculaires.

Dans le cas présent, concernant ce que l'on appellera la quatrième dimension, celle du temps, nous nous sommes davantage intéressés à la question du « vieillissement » du transplant. La lecture ici rapportée est quelque peu contradictoire et partielle, car si la peau du transplant semble moins vieillir, apparaît plus lisse et moins ridée, le doit-on à sa moindre sollicitation mécanique par la mimique faciale alors qu'un certain degré d'atrophie la ferait apparaître vieillissante plus rapidement ?





Figure 4. Naevus hémi-facial congénital géant avec infiltration profonde (A-B-C-D-E-F-G-H).

A-B : Patient âgé de 10 mois.

C-D : Scanner en coupes axiales et coronales.

E-F : L'eczématisation et la limitation d'ouverture buccale qui amène à l'indication d'une résection large avec couverture par lambeau libre de latissimus dorsi. Respect de l'œil droit et de la conjonctive tarsale. Résultat à l'âge de trois ans.

G-H : Aspect à 10 ans.

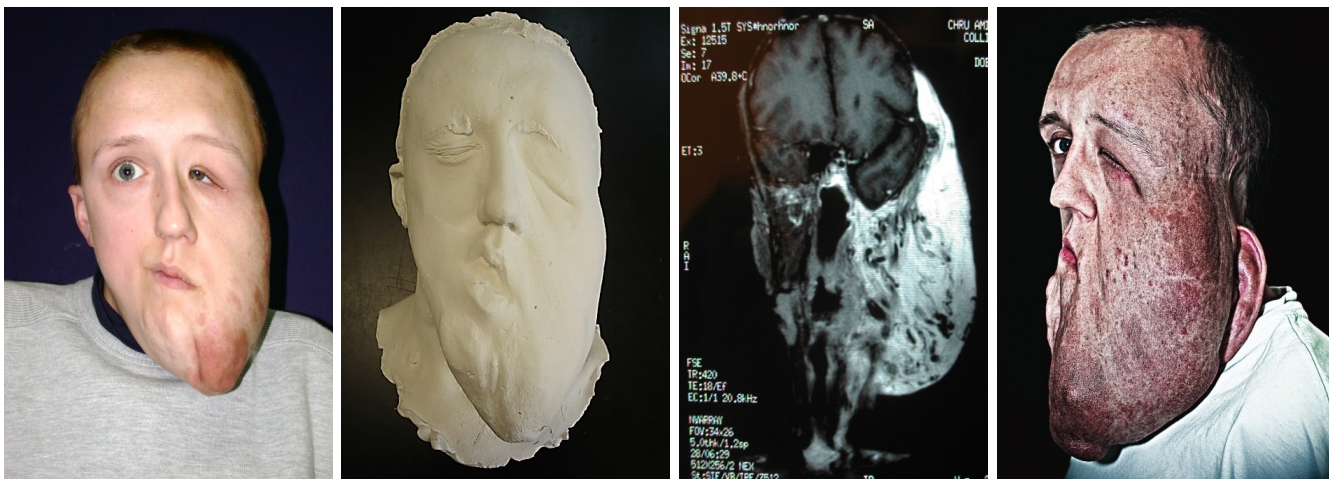


Figure 5. Patient suivi depuis l'enfance pour une maladie de Von Recklinghausen (A-B-C-D) (Atteinte faciale exclusive).

A-B : Aspect à 11 ans.

C : Déformation progressive lors de la croissance (coupe coronale de scanner).

D : Aspect à 20 ans.



### L'autotransplantation chez l'enfant

À défaut d'avoir l'expérience de l'autotransplantation d'orteil pour reconstituer un premier rayon agénésique, qui pourrait constituer un parangon utile, nous pouvons rapporter une observation de transplantation de fibula en remplacement d'une héli-mandibule avec un suivi de plusieurs années. Chez une enfant opérée d'un sarcome mandibulaire, la croissance faciale de l'étage inférieur de la face s'est faite sans asymétrie notable. Par contre, si la fibula a continué de croître sur son axe longitudinal, elle ne semble pas l'avoir fait dans son épaisseur. La finesse de la baguette osseuse demeure. On objectera que l'on remplace ici un os à croissance membraneuse par un os à croissance enchondrale et que la fibula n'est pas sensible aux sollicitations biomécaniques dont elle est l'objet dans les mouvements d'ouverture - fermeture buccale, d'autant qu'édentée elle ne subit pas les pressions exercées lors de la mastication. Mais c'est reconnaître a contrario que la croissance des os longs dans leur volume et non dans leur longueur est fonction des pressions qui s'exercent sur eux (Fig 6).

Soit, il y a tout lieu de penser qu'une allotransplantation faciale chez l'enfant suit les règles normales de la nature dès lors que l'écart d'âge entre donneur et receveur sera aussi réduit que possible. Ce qui inéluctablement fait poser la question de la possibilité d'un don d'organe.

### De la donation d'organe

On sait trop le frein obligé que la difficulté à obtenir un don d'organe impose aux transplantations. Un besoin sur trois est couvert en France. A des degrés divers ce blocage est, culture et religion aidant, le même ou plus aigu encore dans d'autres pays. Cette réalité sur laquelle aucun jugement ne peut être porté, est encore plus criante quand il s'agit de trouver un donneur de tout ou partie de ce qui constitue un visage. Oserait-on, à ce sujet, se poser la question à soi-même, moins en tant que donateur potentiel qu'en tant que parent d'un enfant en état de mort cérébrale ? Comment oser déléguer cette demande aux équipes de coordination qui sont composées elles-mêmes de jeunes mères de famille et dont on sait a posteriori que certaines ne sont pas prêtes à demander chez l'adulte la cornée ou la part de visage dont un receveur pourrait avoir besoin ? Chez l'adulte, et dans ce domaine précis, les délais d'attente ont été pour chacune de nos trois transplantations de plusieurs mois. Cette attente serait-elle compatible avec l'évolution de la pathologie (si tant est que ce soit le cas) de l'enfant receveur ?

Au point d'interrogation imposé au fronton de cet essai, commodément levé dès lors que sont évoquées les questions relatives à la technique, répondent deux autres points d'interrogation, bloquants l'un et l'autre, ceux de l'offre et de la demande, dans ce jeu métaphorique cruel qui use des mots du marché dans toute leur inhumanité, quand le sujet même aborde les tréfonds de notre humanité (« *Il vous faut, à vous chirurgiens, tout à la fois beaucoup d'humanité et beaucoup d'inhumanité* » Paul Valéry (11)).

### Parangonage

Sans doute faut-il qu'une population de chirurgiens pédiatres se réunissent au sein de l'Académie pour qu'enfin soit évoquée pour la première fois (comblant ainsi une lacune dans la littérature, exception faite de la récente publication de Doumit et coll (12) qui évoque le sujet) la transplantation faciale chez l'enfant.

Avant que de clore définitivement ce débat, dont les hypothèses ne seront définitivement levées que le jour où l'observation clinique s'imposera d'elle-même, comme il a été dit, il est, remontant à rebours le cours de l'histoire, utile de

rechercher trace d'une même interrogation s'appliquant aux autres allotransplantations de tissu composite.

Sur un plan général, la récente publication de Doumit conclut qu'il est aujourd'hui prématuré d'envisager une telle transplantation chez l'enfant, qu'il s'agisse de la reconstruction des extrémités ou de la face, en raison de la lourdeur des traitements immunosuppresseurs et de l'inconnue qui demeure en termes de croissance. Cette publication ne repose, encore une fois, que sur une revue de la littérature.

Plus intéressante est la démarche entreprise par Berli et coll (13) concernant la réparation des larges pertes de substance de la paroi abdominale associées à une transplantation d'organe sous-jacente). Fouillant dans une littérature abondante (plus de 280 articles), ils en isolent cinq d'entre eux et comparent deux approches techniques différentes. Sur les 17 cas recensés, un quart d'entre eux concernaient des enfants de moins de 15 ans. Sur les 17 observations, seulement six d'entre elles étaient en vie, sans complication, avec un recul allant de deux à sept années. L'auteur ne retrouve aucune publication ayant simplement trait à la reconstruction unique de la paroi abdominale. Comme d'autres, il conclut que l'indication ne peut être aujourd'hui retenue que dans les transplantations multi organes et à condition que des progrès soient accomplis en termes de tolérance, donc en pénibilité des traitements immunosuppresseurs.

La main ayant précédé le visage dans l'histoire de la transplantation, elle le précède également dans cette hypothèse d'une allotransplantation néonatale. Deux articles issus des mêmes auteurs (14,15) aboutissent d'emblée aux mêmes conclusions : tant que la question immunologique n'est pas résolue, il n'y a pas lieu d'envisager l'allotransplantation pour compenser l'agénésie de la partie distale du membre supérieur. Mais cet article évoque aussi la particularité du système immunitaire néonatal qui permettrait d'obtenir une certaine tolérance.

Pour vérifier cette hypothèse, un travail expérimental est mené sur le porc nouveau-né, travail qui conclut malheureusement que le statut immunologique du nouveau-né n'est pas suffisant pour espérer une tolérance sans traitement immunosuppresseur et que, l'âge aidant et le poids, augmentent les risques de rejet et de décès de l'animal. Mais la réflexion menée par les auteurs est intéressante, quoique non applicable à la face, quand ils évoquent le caractère hypotrophique du moignon restant et « l'impossible » intégration cognitive du transplant. De ce dernier point de vue, l'autotransplantation fait la preuve d'une possible intégration corticale du transfert du deuxième orteil pour remplacer un pouce ou des doigts manquants. Le fait est, cependant, qu'il n'existe pas d'authentique malformation agénésique de la face, hormis peut-être certaines formes graves de syndrome du premier arc. Et, fait remarquable, l'allotransplantation faciale ne peut se prévaloir que d'un regard frontal, celui d'une image miroir, et moins d'une vision de profil.

### Conclusion

En ponctuant le titre de cet essai d'un point d'interrogation, c'est redire le risque qu'il y a à conjecturer en médecine ou en chirurgie, écueil dans lequel est tombé le Comité Consultatif National d'Éthique en 2004 dans son avis 82 quand il refusait le terme même de « greffe de visage » et émettait une opinion très négative à sa réalisation.

L'allotransplantation de tissu composite au niveau de la face ne vaut que si elle est greffe de visage, que si, reconstituant l'organe détruit dans sa forme et sa fonction, elle permet au sujet défiguré de se reconstruire dans son entièreté. Cela vaut quel que soit l'âge de l'individu.

Si des questions ont été posées, spécifiques à une telle transplantation chez l'enfant, elles l'ont été avec le regard rétrospectif de qui a croisé et pris en charge quelques défigurations

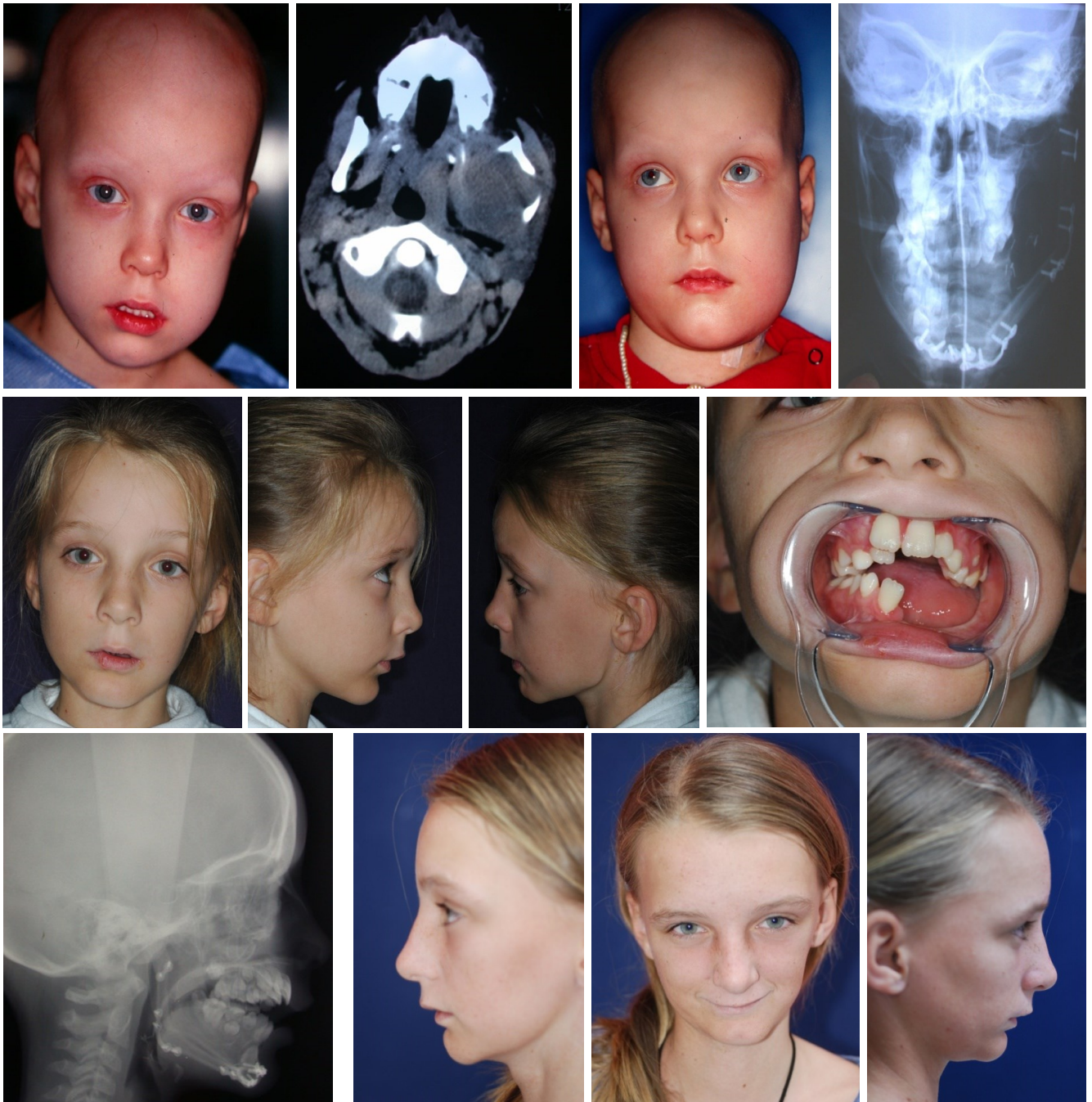


Figure 6. Patiente atteinte d'un sarcome mandibulaire traité par chimiothérapie puis résection chirurgicale et reconstruction par lambeau libre de péroné

A-C : Patiente âgée de trois ans.

B : Scanner en coupe axiale : atteinte de l'angle gauche.

D : Contrôle radiographique de face.

E-F-G : Aspect de face et de profil à 6 ans.

H : Dysharmonie dento-dentaire - Vue endobuccale.

I : Radiographie de profil.

J : Aspect à 15 ans.

extrêmes de l'enfant. Mais ce regard rétrospectif ne vaut rien, même doublé de l'expérience de qui a transplanté des adultes. Ce sont les circonstances non imaginées, non imaginables, qui imposeront, comme chez l'adulte, les greffes de visage chez l'enfant, suscitant de nouvelles interrogations non imaginées ou non imaginables aujourd'hui. Toute autre posture serait erreur.

## Discussion en séance

### Questions de JM Dubernard

1-Rien n'est plus injuste de naître sans main ou sans visage d'où la nécessité de greffes du nouveau-né ?

2-Comment induire une tolérance néo-natale ?

3-Faut-il associer une greffe de moelle qui semble remplacer le traitement immunosuppresseur ?

4-Faut-il utiliser le modèle des transplantations d'organes vitaux ?

5-Quelle utilisation des organes de jumelles avec un jumeau donneur ?

6-Quelle est la tolérance des greffes après arrêt du traitement chez le nouveau-né ?

7-Problème de l'autorisation administrative : montrer d'abord que l'on peut faire tolérer une greffe chez le nouveau-né.

### Réponses

Ses questions sont davantage des propositions et des mises à jour du programme de recherche aujourd'hui entrepris à Lyon



en termes de tolérance des transplantations néonatales, tout particulièrement les transplantations de tissu composite. Il apparaît possible sur un modèle expérimental chez l'animal d'induire ainsi en allotransplantation néonatale un phénomène de tolérance qui permet au bout de quelques semaines de s'affranchir d'un traitement immunosuppresseur. Cela étant, la chose mérite d'être vérifiée chez l'humain. Il est entendu qu'il existe peu d'indication pour la transplantation faciale et que l'indication porterait davantage sur des agénésies du membre supérieur. Les propos transmis par le Professeur Dubernard n'ont toujours pas été confirmés officiellement en publication scientifique.

#### Questions de L Lantieri

1-Trouver l'opportunité de l'indication idéale...Cas d'un enfant qui a besoin d'une greffe hépatique et de visage ?

2-Quel est le cadre administratif dans une situation inédite unique et exceptionnelle ?

#### Réponses

Le Professeur Lantieri reconnaît que dans l'état actuel de connaissance des malformations ou tumeurs de l'enfant, il n'y a pas d'indication évidente à une allotransplantation de tissu composite au niveau du visage. Se pose la question récurrente de l'autorisation administrative à obtenir, le système français paralysant quelque peu l'initiative, l'Agence de la Biomédecine reposant son avis sur l'autorisation de l'ANSM, laquelle s'appuie sur les PHRC obtenus il y a une dizaine d'années, lesquels enfin ont bien évidemment évolué. D'aucun s'accorde à reconnaître que la réglementation en la matière a un écrit quelque peu paralysant et qu'ici le principe de précaution bloque l'initiative des chercheurs.

#### Commentaire de MP Vasquez

Le cas du visage est particulier.

#### Réponse

Ceci confirme nos propos dans la mesure où à l'heure actuelle et compte tenu de ce qui, en pathologie de l'enfant, peut être rencontré, il n'y a pas place pour l'allotransplantation de tissu composite au niveau du visage de l'enfant. Question, d'ailleurs, à laquelle nulle réponse n'est apportée dans celle de la pérennité de cette transplantation en long terme.

#### Question de M Germain

Pourriez-vous nous donner votre avis et votre expérience sur les transplants préfabriqués pour la face ?

#### Réponse

Concernant les transplants préfabriqués pour la face, nous en avons une expérience. J'ai effectivement souvenir des cas rapportés par Jacques Baudet avec des résultats cosmétiques, aux dires même de notre collègue, moyens. Nous savons ce qu'il en est pour la trachée puisque plusieurs observations ont été rapportées. Il s'agit ici presque davantage d'une prélamination que d'une préfabrication.

Enfin, de ce point de vue, j'avais présenté lors de ma communication à l'Académie de Chirurgie le cas d'une prélamination d'un lambeau de grand dorsal dans le cas d'une réparation hémifaciale droite chez un enfant.

Sur le fond, le sujet est intéressant, même si, s'agissant de cas très particuliers, on ne puisse en déduire une règle quelconque.

À en rediscuter.

#### Commentaires de D Goga

C'est un honneur et un challenge auquel je ne me risque qu'avec prudence que d'ouvrir la discussion après les présentations toujours très brillantes de Bernard Devauchelle

L'allo-transplantation de tissu composite à la face, réalisée par le Professeur Devauchelle et toute son équipe, est et restera une intervention majeure qui marquera l'histoire de la chirurgie, et qui a fait connaître notre discipline, en tout cas, qui a contribué à la mieux faire comprendre.

Mais la question est ici à l'enfant. Que dire de plus ?

- N'est-ce pas encore plus difficile pour des parents ayant perdu leur bébé ou leur enfant de voir son visage sur un autre ?
- Peux-t'on imposer en l'état actuel des connaissances, un traitement lourd de séquences et de longue durée à un jeune enfant ne présentant pas une pathologie évolutive mettant en jeu le pronostic vital ?

Ces questions peuvent sembler être des préoccupations de « café du commerce » et pourtant les problèmes se poseraient peut-être comme cela auprès des parents.

Il n'y a pas donc place pour la greffe à ce niveau comme il a été dit.

Pourtant, particulièrement chez l'enfant, la discrétion est le privilège aristocratique du banal, le rêve d'Éléphant man. Bien que le visage déformé ne soit pas un handicap, au sens où il n'altère en aucune façon ses compétences, l'enfant devient un handicapé à partir du moment où il suscite un traitement social du même ordre.

C'est à nous de l'aider à se normaliser. Plusieurs des axes évoqués lors de cette séance y contribuent efficacement.

Je vous remercie de votre attention et me permet d'ouvrir la discussion après cette remarquable démonstration de Bernard Devauchelle.

## Références

1. Bergson H. La pensée et le mouvant. Paris : PUF, 1969.
2. Devauchelle B, Badet L, Lengele B et al. First human face allograft : early report. *Lancet*. 2006, 368 : 203-9.
3. Avis 82. Comité Consultatif National d'Éthique. 19 février 2002.
4. Khalifian S, Brasio PS, Mohan R, Shaffer C, Brandacher G, Barth RN, Rodriguez ED Facial transplantation : the first 9 years. *Lancet*. 2014;384:2153-63.
5. Smeets R, Rendebach C, Birkelbach M, Al-Dam A, Gröbe A, Hanken H, Heiland M. Face transplantation : on the verge of becoming clinical routine ? Hindawi Publishing Corporation - BioMed Research International. 2014;2014:907272. doi: 10.1155/2014/907272.
6. Lengele B, Testelin S, Bayet B, Devauchelle B. Total lower lip functional reconstruction with a prefabricated gracilis muscle free flap. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2014, 33 : 396-401.
7. Canguilhem G. Le normal et le pathologique. Paris : P.U.F., 1966.
8. Stricker M, Van Der Meulen J, Raphael B, Mazzola R. Craniofacial malformations. New-York : In Churchill Livingstone, 1990.
9. Rougier J, Tessier P, Hervouet F, Woillez M, Lekieffre M, Derome P. Nouvelle classification anatomique des fentes faciales cranio-faciales et latéro-latérales. Leur répartition autour de l'orbite. Paris : In Chirurgie plastique orbito-palpébrale, Edition Masson, 1977, pages 191-208.
10. Racz C. Thèse de Médecine : Fentes orbito-faciales rares : évaluation de la prise en charge à long terme. A propos de 15 observations. Amiens, 2014.
11. Valéry P. Discours de Paul Valéry prononcé en octobre 1938 au Congrès Français de Chirurgie. In La Pleiade, Œuvres de Paul Valéry, Paris, Editions Gallimard.
12. Doumit G, Gharb BB, Rampazzo A, Papay F, Siemionow MZ, Zins JE. Pediatric vascularized composite allotransplantation. *Ann Plast Surg*, 2014;73:445-50.
13. Berli JU, Broyles JM, Lough D, Shridharani SM, Rochlin D, Cooney DS, Lee WPA, Brandacher G, Sacks JM. Current concepts and systematic review of vascularized composite allotransplantation of the abdominal wall. *Clin Transplant*. 2013;27:781-9.
14. Gazarian A, Abrahamyan DO. Allogreffe de main chez le nouveau-né agénésique : étude de faisabilité. *Ann Chir Plast Esth*, 2007;52:451-8.
15. Solla F, Pan H, Watrelot D, Leveueur O, Dubernard JM, Gazarian A. Composite tissue allotransplantation in newborns : a swine model. *J of Surg Research*. 2013;179:e235-43.



# Quelle chirurgie pour le traitement de la spasticité du membre supérieur ? Techniques et indications

## Surgical Treatment of the Spastic Upper Limb: Techniques and Indications

Caroline Leclercq

Institut de la Main - Clinique Jouvenet - 6 square Jouvenet - 75016 Paris.

### Mots clés

- ◆ Spasticité
- ◆ Membre supérieur
- ◆ Toxine botulinique
- ◆ Chirurgie de la spasticité
- ◆ Neurectomie sélective
- ◆ Allongements tendineux
- ◆ Transferts tendineux.

### Résumé

Les étiologies de la spasticité sont diverses : paralysie cérébrale, traumatisme crânien, accident vasculaire cérébral, tétraplégie traumatique ou non, en particulier incomplète.

Toute la difficulté du traitement chirurgical réside dans ses indications. La chirurgie n'est envisagée que dans certains cas sélectionnés sur des critères précis.

C'est dire l'importance de l'examen clinique. Ce dernier est particulièrement difficile au membre supérieur, sujet à variations et à interprétations diverses. Il est multidisciplinaire, comprenant l'équipe médicale, les rééducateurs (kinésithérapeutes, ergothérapeutes) et l'équipe chirurgicale. Il étudie tous les éléments contribuant à la déformation et au déficit fonctionnel : la spasticité, les rétractions musculaires, et les déficits moteurs et sensitifs. Il se termine par l'évaluation fonctionnelle du membre supérieur, permettant de définir le but de la chirurgie : fonction, douleur, nursing, vie sociale.

Le but des interventions est de rééquilibrer les forces en présence en atténuant la spasticité, en libérant les rétractions musculaires et ou articulaires, et en réanimant les fonctions paralysées.

La spasticité, quand elle est isolée, peut être atténuée par neurectomie hypersélective.

Les rétractions musculaires sont traitées par allongement, qui peuvent se faire à plusieurs niveaux : insertion proximale, jonction tendino-musculaire ou tendon.

Les raideurs articulaires concernent surtout le poignet. Quand elles sont sévères, elles peuvent nécessiter une arthrodèse en bonne position.

Si l'objectif est fonctionnel il est parfois possible de réanimer les muscles paralysés par transfert tendineux (extenseurs du poignet).

Dans la mesure du possible, on effectue tous les gestes chirurgicaux en un temps.

### Keywords

- ◆ Spasticity
- ◆ Upper limb
- ◆ Botulinum toxin
- ◆ Surgery of spasticity
- ◆ Selective neurectomy
- ◆ Tendon lengthening
- ◆ Tendon transfer

### Abstract

Spasticity is characterized by muscle hypertonia, caused by an increase of the stretch reflex mechanism. It may occur in several circumstances: *cerebral palsy*, head injury, stroke, *tetraplegia* (most frequently when it is incomplete)

The main difficulty of the surgical treatment lies in defining the proper indications. Only a selected proportion of patients will benefit from surgery. Clinical examination is the key to adequate selection of the patients. It is arduous in the upper limb, because of the variability of the clinical picture, and the difficulty of an objective evaluation of spasticity. It should be performed as a team by all specialists involved in the care of the patient. It involves the assessment of all elements contributing to the deformity and the functional impairment: spasticity, muscle contractures, motor and sensory deficit, as well as the assessment of the upper limb function. This examination will help deciding on the goal of surgery: functional, pain, nursing, appearance.

The goal of surgery is to rebalance the forces: reduction of spasticity, release of muscle and joint contractures, and restauration of paralysed movements. Spasticity can be treated by selective neurectomy, muscle contractures can be released at different levels (muscle origin, musculo-tendinous junction, intra-tendinous). Joint stiffness predominates at the wrist: when severely deformed, it may require a correcting arthrodesis. If the goal of surgery is function, tendon transfers may be performed (mostly for restoring wrist extension).

As far as possible, all procedures are performed during the same operative session.

Selon la définition classique de Lance (1980), la spasticité est une atteinte motrice caractérisée par une augmentation du réflexe d'étirement, c'est-à-dire du tonus musculaire, avec exagération des réflexes musculaires (1). Sa présentation est variée et complexe.

Les étiologies de la spasticité du membre supérieur sont diverses : paralysie cérébrale (PC) survenant à la naissance ou dans la petite enfance, traumatisme crânien (TC), accident vasculaire cérébral (AVC), tétraplégie traumatique ou non, en particulier incomplète.

### Correspondance :

Caroline Leclercq

Institut de la Main - Clinique Jouvenet - 6 square Jouvenet - 75016 Paris.

Tel : 01 42 15 42 02 / E-mail : [caroline.leclercq@institutdelamain.com](mailto:caroline.leclercq@institutdelamain.com)

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000

Toute la difficulté du traitement chirurgical réside dans ses indications. La chirurgie n'est envisagée que dans certains cas sélectionnés sur un certain nombre de critères précis.

C'est dire l'importance de l'examen clinique. Ce dernier est difficile, sujet à variations et à interprétations diverses. Il doit être conduit par une équipe multi-disciplinaire expérimentée comprenant l'équipe médicale (médecin de rééducation, neurologue...), les intervenants de rééducation (kinésithérapeutes, ergothérapeutes) et l'équipe chirurgicale. L'environnement doit être propice, rassurant, avec des outils d'évaluation adaptés à l'âge du patient. Les enregistrements vidéo des sessions précédentes sont visualisés en début de consultation. Les éventuels gestes douloureux sont réalisés à la fin de l'examen.

## Les étapes de l'examen clinique

Elles comprennent l'étude de la spasticité, des éventuelles rétractions musculaires, de la motricité et de la sensibilité. Elles se terminent par l'évaluation fonctionnelle en situation d'examen et dans la réalité des activités de la vie quotidienne (AVQ) (2).

### La spasticité

La *spasticité* est étudiée pour chaque groupe musculaire. Elle prédomine habituellement sur les muscles adducteurs, fléchisseurs, pronateurs, et l'inclinaison ulnaire. Elle est responsable de l'attitude habituelle en adduction d'épaule, flexion du coude, pronation de l'avant-bras, flexion et inclinaison ulnaire du poignet, flexion des doigts et pouce dans la paume. Elle peut être très variable en fonction de la température, des conditions d'examen, de la fatigue ou de l'émotivité du patient, et justifie qu'on répète l'examen à plusieurs reprises avant toute prise de décision chirurgicale.

### La rétraction musculaire

La *rétraction musculaire*, secondaire à la spasticité, touche les mêmes groupes musculaires que la spasticité, dont elle est parfois très difficile à dissocier (exemple : spasticité ET rétraction musculaire des muscles fléchisseurs du poignet). En principe on les distingue car la spasticité finit par céder alors que la rétraction musculaire persiste quelle que soit la force appliquée et sa durée. En cas de doute le recours à la toxine botulique permet de faire la différence : la spasticité disparaît alors que la rétraction musculaire persiste. Au niveau des doigts, la rétraction des muscles fléchisseurs superficiels et profonds peut être évaluée par la mise en flexion du poignet. Les *déformations articulaires* sont souvent une conséquence des rétractions musculaires. Chez l'adulte, elles touchent particulièrement l'épaule (raideur en adduction et rotation interne) et le coude (raideur en flexion).

Les raideurs sont rares chez l'enfant ; dans le cadre de la paralysie cérébrale, les plus fréquentes sont la limitation de l'extension du poignet, et la limitation de la prono-supination (défaut de supination), par rétraction de la membrane interosseuse. On note plus souvent chez l'enfant des hyperlaxités articulaires, en particulier au niveau de la main : hyperextension MP du pouce, déformation en col de cygne des doigts longs.

### La motricité

L'examen moteur n'est pas facile dans ce contexte. Il évalue les différents groupes musculaires concourant à la même fonction, plutôt que les muscles individuels.

Les muscles spastiques sont habituellement actifs. Les fléchisseurs des doigts sont difficiles à tester quand le poignet est

déformé en hyperflexion, et leur valeur est fréquemment sous-estimée. Des contractions involontaires peuvent accompagner l'activité motrice homo-latérale, et même contralatérales.

Les muscles antagonistes (extenseurs, supinateurs) sont souvent paralysés, ou rendus pseudo-paralytiques par hypertonie des muscles spastiques. Plutôt que l'électromyogramme, qui ne donne pas de renseignement quantitatif sur la valeur des muscles, c'est souvent la toxine botulique qui, en atténuant les muscles spastiques, permettra de tester la valeur réelle de ces muscles.

L'examen moteur évalue également les mouvements anormaux (paralyse cérébrale), qui peuvent être une contraindication à une chirurgie à visée fonctionnelle.

### La fonction

Elle est testée à l'aide d'un certain nombre d'objets de taille et de poids différents, sans oublier la fonction bi-manuelle (« poupées russes », plateau, lacets...). Des épreuves fonctionnelles standardisées (Box and Block, Nine Hole Peg...) permettent d'établir des comparatifs intra- et inter-patients. L'interrogatoire du patient et de sa famille renseigne précisément sur l'utilisation réelle du membre supérieur atteint à la maison et dans les activités de la vie quotidienne.

Enfin le contexte neurologique et général est soigneusement évalué :

- Autres atteintes musculo-squelettiques (hémiplegie, quadriplégie...) avec évaluation des éventuelles aides techniques et prises nécessaires à la locomotion (joystick, barre...)
- Evaluation des fonctions supérieures et des éventuels problèmes de communications, stabilité émotionnelle
- Environnement familial et médical (motivation, support familial, possibilités de rééducation post-opératoire...)

Au terme de cet examen, on peut tenter de classer le membre supérieur selon les différentes classifications existantes à visée chirurgicale (3,4) ou fonctionnelles (5-8). Ces différentes échelles ont chacune leur intérêt, mais ne contribuent pas beaucoup, en pratique, à la prise de décision chirurgicale.

## Les examens para-cliniques

Les études électromyographiques n'ont, dans notre expérience, pas beaucoup d'intérêt pour apprécier la fonction motrice, car leurs résultats ne sont pas quantitatifs. Par contre elles peuvent être très utiles dans le choix d'un muscle en vue d'un transfert tendineux (9).

Les radiographies apprécient les déformations articulaires. Les troubles de croissance ostéo-articulaires sont rares, même en cas de déformation importante (poignet).

La toxine botulique est très utile dans l'étape diagnostique : elle permet de faire la part de la spasticité et des rétractions musculaires ; et elle permet d'apprécier la valeur réelle des muscles pseudo-paralytiques en atténuant la spasticité des muscles antagonistes. Elle est également intéressante dans l'étape de prise de décision chirurgicale : quand les injections apportent une amélioration fonctionnelle, leur effet peut être reproduit de façon pérenne par une intervention chirurgicale. Quand elle n'est pas disponible, les blocs anesthésiques peuvent donner des renseignements utiles, s'ils sont bien pratiqués au niveau du point moteur.

## Déterminer les objectifs - Indications

L'objectif premier est *d'améliorer la fonction*. Mais il n'est pas toujours réalisable, soit par impossibilité technique (manque de muscles transférables), soit si d'autres troubles sont au-devant de la scène (déficit sensitif majeur, mouve-

ments anormaux, troubles cognitifs importants...), soit par manque de moyens (absence d'environnement de rééducation), ou par manque d'intérêt ou de coopération.

Il trouve ses meilleures indications chez l'enfant jeune, motivé, et bien entouré. Chez l'adulte hémiplégique séquellaire d'AVC, il existe souvent dans l'hémiplégie droite par atteinte de l'hémisphère non dominant une héminegligence qui interdit tout espoir d'amélioration fonctionnelle.

La chirurgie peut également être indiquée pour *améliorer le confort* du patient ou de ses aidants : atténuer les douleurs, faciliter l'hygiène et le nursing. Dans ces cas, ce sera essentiellement une chirurgie de libération des rétractions musculaires, ou parfois d'arthrodèse.

Dans certains cas la demande est essentiellement *esthétique* (indication dite « de vie sociale »). C'est souvent le cas des adolescents hémiplégiques, qui souhaitent essentiellement corriger la déformation du membre supérieur (flessum de coude, flessum du poignet), sans demande particulière vis-à-vis du handicap fonctionnel auquel ils se sont habitués. Il faut être attentif à leur demande, et ne pas chercher forcément à proposer une amélioration fonctionnelle, qui au final risque de ne pas être utilisée.

Dans tous les cas les buts de l'intervention sont définis avec le patient, son entourage, et l'équipe et clairement expliqués. La réalisation de l'objectif fait partie des critères d'évaluation des résultats (10).

Il existe des contraindications à cette chirurgie, telles les lésions centrales associées au-devant de la scène (traumatismes crâniens, AVC), les espoirs irréalistes, une mauvaise compliance aux traitements. Quand l'objectif est fonctionnel, il faut s'assurer de l'absence ou de la modicité des troubles sensitifs.

## Les interventions chirurgicales : le concept de rééquilibrage des forces

C'est l'évaluation de chaque type d'atteinte qui va guider le choix de la thérapeutique chirurgicale. Ces différents éléments sont souvent associés, et contribuent chacun à la déformation et au déficit fonctionnel. Le but des interventions est de rééquilibrer les forces en présence en atténuant la spasticité, en libérant les rétractions musculaires et ou articulaires, et en réanimant les muscles (ou plutôt les groupes musculaires) paralysés.

On essaie dans la mesure du possible d'effectuer tous ces gestes au cours de la même session opératoire. Quand ce n'est pas possible, on intervient d'abord sur les articulations proximales, puis distales

### Atténuation de la spasticité

La spasticité, quand elle est isolée, peut être atténuée par neurectomie partielle. Plutôt que la neurotomie tronculaire qui n'est pas très sélective, et qui présente le risque de lésion des fascicules sensitifs, nous utilisons la neurectomie hyper-sélective sous grossissement optique (microscope opératoire ou loupes chirurgicales). Il s'agit d'aborder le rameau moteur de chacun des muscles à traiter, et de réséquer une partie de ses fascicules (habituellement les 2/3) à leur point d'entrée dans le muscle (11). Des études anatomiques récentes ont permis d'établir une cartographie précise des nerfs moteurs et de leurs branches terminales au niveau du membre supérieur (12-14). Cette technique, qui permet d'atténuer la spasticité tout en conservant une force musculaire suffisante, fera l'objet d'un article séparé.

## Libération des rétractions musculaires

De nombreux gestes chirurgicaux ont été proposés. Ils ont chacun leurs indications propres.

1-La ténotomie est utilisée essentiellement pour le Flexor Carpi Ulnaris (FCU), et le Pronator Teres (PT). C'est un geste simple, mais définitif. Avant d'y avoir recours, on doit s'assurer que le muscle en question ne peut pas être utile comme transfert tendineux. Dans le cas particulier du Pronator Teres, la rétraction du muscle peut être associée à une rétraction secondaire de la membrane inter-osseuse, qui devra être libérée dans le même temps.

Les ténotomies sont également utilisées au niveau de l'épaule, en particulier au niveau du grand pectoral et du grand dorsal, afin de libérer les rétractions en adduction.

2-Les allongements tendino-musculaires peuvent se faire à quatre niveaux :

- *A l'insertion proximale du muscle.* Cette dernière est détachée de l'os, on la laisse glisser en distal où elle se réinsère spontanément. Cette technique est pratiquée essentiellement pour les muscles épitrochléens et les fléchisseurs des doigts. La classique désinsertion associée des fléchisseurs du poignet et des doigts (intervention de Scaglietti-Page) est une intervention délabrante, demandant une dissection étendue, avec un risque d'hématome et de lésions vasculo-nerveuses. Pour les rétractions de la première commissure, la désinsertion du 1er interosseux dorsal et de l'adducteur du pouce peut se faire par une voie d'abord unique commensurale.
- *Au niveau de l'aponévrose musculaire :* on résèque une bande circulaire d'aponévrose autour du corps charnu du muscle, à quelque distance de son insertion proximale. Cette technique élégante décrite par Zancolli pour les muscles épitrochléens n'est efficace que pour les rétractions mineures chez l'enfant.
- *A la jonction musculo-tendineuse,* par incisions fractionnées transversales du tendon en conservant la continuité des fibres musculaires. Il s'agit d'une technique simple et peu délabrante. Elle demande une attention particulière dans le réglage de l'allongement, avec un risque d'hypercorrection, et donc d'affaiblissement important des muscles concernés.
- *Au niveau du tendon* par allongement en Z ou en chevron. Cette technique oblige à une suture tendineuse et à une immobilisation post-opératoire. Nous l'utilisons essentiellement pour le biceps, et le Flexor Carpi Radialis (FCR), où les allongements fractionnés ne sont pas anatomiquement réalisables.

3-Pour les fléchisseurs des doigts, l'allongement peut se faire par transfert des fléchisseurs superficiels sur les profonds (STP : Superficialis to Profundus) (15). Les tendons fléchisseurs superficiels sont sectionnés distalement, les fléchisseurs profonds proximatement, puis ils sont suturés bout à bout en masse, procurant un effet d'allongement. Cette technique peu sélective est en général proposée dans les cas peu fonctionnels, en particulier dans les mains non fonctionnelles d'origine centrale de l'adulte (16), pour des motifs hygiéniques, de nursing, ou de confort. Elle fait perdre toute indépendance digitale.

4-Cas particulier des muscles intrinsèques des doigts.

Le diagnostic de spasticité (+/- rétraction) des muscles intrinsèques des doigts est souvent difficile à cause de l'atteinte prédominante des muscles fléchisseurs. Elle peut être démasquée soit grâce à la toxine, soit secondairement après libération des extrinsèques.

Quand ces muscles sont rétractés, ils peuvent être libérés soit par section de la lame triangulaire de l'extenseur, soit par ténotomie proximale en amont de la MP quand cette dernière est impliquée dans la rétraction.

Au niveau du pouce, les déformations sont souvent complexes, associant une atteinte extrinsèque (long fléchisseur du pouce) et intrinsèque (adducteur du pouce, premier interos-



seux dorsal) qui doivent toutes deux être prises en compte dans les interventions de libération.

### Correction des déformations articulaires

Les raideurs articulaires concernent surtout le poignet. Quand elles sont sévères, elles peuvent nécessiter une arthrodèse raccourcissante en bonne position.

Les hyperlaxités sont elles aussi source de déformations articulaires. Elles concernent surtout l'articulation métacarpophalangienne du pouce, avec déformation en hyperextension, et les inter-phalangiennes des doigts longs, avec déformation en col de cygne. On peut les traiter par ténodèse, ou dans le cas du pouce par arthrodèse sésamoïdo-métacarpienne (17).

### Réanimation des muscles paralysés

Dans certains cas il est possible de réanimer les muscles paralysés. Ces interventions sont indiquées essentiellement dans les cas où l'on a un objectif de récupération fonctionnelle.

Il existe plusieurs pré-requis :

- Les articulations intéressées doivent être souples, ou avoir été préalablement assouplies
- Le muscle donneur doit être actif et coté au moins à 4 sur l'échelle MRC. Il peut être spastique, mais doit conserver des capacités de relâchement au repos. L'électromyogramme dynamique est très utile pour évaluer les donneurs potentiels.
- Si les muscles antagonistes sont spastiques ou rétractés, ils doivent être traités dans le même temps. Ce rééquilibrage musculaire est indispensable au succès des interventions de transfert tendineux.

Les transferts tendineux concernent le plus souvent les muscles extenseurs du poignet. Les donneurs sont par ordre de fréquence le fléchisseur ulnaire du carpe (FCU), un fléchisseur superficiel des doigts (FS), le fléchisseur radial du carpe (FCR), ou le brachioradialis (BR). Le transfert peut être passé autour du bord ulnaire du poignet (FCU, BR), ou au travers de la membrane interosseuse (FS, FCR). Le cas particulier de l'extenseur ulnaire du carpe (ECU) doit être soigneusement évalué : dans certains cas, il est actif, mais subluxé en avant de l'axe de flexion-extension du poignet, devenant alors un fléchisseur du poignet, ce qui contribue à aggraver la déformation. Il faut alors de le recentrer au dos du poignet.

Au niveau du pouce, les transferts utilisés de réanimation de l'extension du pouce sont quasi-systématiquement associés à un geste de libération de la première commissure, et souvent d'allongement du muscle long fléchisseur du pouce (FPL) (18). La réanimation de la supination peut se faire avec le *pronator teres* (PT), dérivé autour du radius. Si ce dernier est rétracté, son transfert résout les deux problèmes dans le même temps. On doit s'assurer avant le transfert que le *pronator quadratus* est actif, sous peine de créer un nouveau déséquilibre musculaire, avec apparition d'une déformation plus invalidante en supination.

Dans la mesure du possible, on effectue tous les gestes chirurgicaux en un temps, et en tous cas tous les gestes concourant à rétablir l'équilibre d'une articulation. Si on doit procéder en plusieurs étapes, on procède de la racine vers l'extrémité.

Le type de gestes réalisés varie fonction de l'étiologie, de l'âge du patient, et de l'objectif thérapeutique. Le Tableau I compare dans la série de l'auteur les gestes effectués chez 43 enfants et 56 adultes spastiques (2007-2013).

### Date des interventions

Dans le cadre de la paralysie cérébrale, les indications chirurgicales doivent être posées tôt, surtout quand une chirurgie fonctionnelle est envisagée. Chez le grand adolescent et l'adulte, en particulier hémiparétiques, les schémas moteurs

	ADULTES n=56 Gestes = 125		ENFANTS n=43 Gestes =143	
Allongement tendineux	67	53 %	54	38 %
Ténodésie	17	14 %	23	16 %
Transfert tendineux	7	6 %	16	11 %
Neurectomie sélective	15	12 %	15	10 %
Ouverture 1e commissure	11	9 %	9	6 %
Arthrodèse poignet	8	6 %	9	6 %

Tableau I. Comparaison des gestes chirurgicaux effectués chez les adultes et chez les enfants spastiques, mettant en évidence la prédominance des gestes d'allongement tendineux chez l'adulte. Par contre, les transferts tendineux sont deux fois plus fréquents chez l'enfant.

sont déjà plus ou moins figés, et l'apprentissage d'une nouvelle fonction, ou d'une modification substantielle de la fonction existante est difficile et parfois très décourageant pour le patient.

Dans les autres situations, les interventions peuvent être programmées précocement devant une déformation qui ne s'améliore pas ou qui s'aggrave malgré une prise en charge de rééducation bien conduite. Quand l'état du patient est stabilisé, elles sont envisagées pour le traitement des séquelles gênantes, en coordination avec l'ensemble de l'équipe soignante.

La chirurgie du membre supérieur spastique a longtemps été ignorée, et n'a pas toujours joui d'une bonne réputation. Les progrès actuels de la prise en charge, et particulièrement l'utilisation de la toxine botulinique, ont permis d'affiner l'analyse des déformations, et de proposer aux patients une chirurgie ciblée, avec des résultats satisfaisants.

### Références

1. Lance JW. Symposium synopsis. In: Feldman RG, Young RR, Koella WP, eds. Spasticity: disordered motor control. Chicago: Yearbook Medical; 1980:485-94.
2. Leclercq C. General assessment of the spastic upper limb. *Hand Clin.* 2003;19:557-64.
3. Zancolli EA. Structural and dynamic basis of hand surgery, 2nd edn, Philadelphia, JB, Lippincott, 1979.
4. Goldner JL. The upper extremity in cerebral palsy. *Orthop Clin North Am* 1974;5:389-414.
5. House JH, Gwathmey FW, Fidler MO. A dynamic approach to the thumb-in-palm deformity in cerebral palsy. *J Bone Jt Surg* 1981;63A:216-25.
6. Eliasson AC, Rösblad B, Krumlinde-Sundholm L, Beckung E, Arner M et al. Manual Ability Classification System (MACS) for children with cerebral palsy: scale development and evidence of validity and reliability. *Dev Med Child Neurol* 2006;48:549-54.
7. Holmfur M, Krumlinde-Sundholm L, Bergstrom J, Eliasson AC. Longitudinal development of hand function in children with unilateral cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2010;52:352-7.
8. Romein E, Bard R. Comment mesurer le retentissement d'un traitement en situation écologique par une évaluation fiable de la fonction manuelle chez les enfants présentant une atteinte unilatérale: le Assisting Hand Assessment (AHA). *Motr Cérébr* 2010; 31:111-8.
9. Hoffer MM. Dynamic electromyography and decision-making for surgery in the upper extremity of patients with cerebral palsy, *J Hand Surg.* 1979;4:424.
10. Allieu Y, Denormandie P, Goubier JN. Main de l'hémiparétique. *Encyclopédie Médico chirurgicale. Techniques chirurgicales* 2004;44-462.
11. Brunelli G, Brunelli F. Partial selective denervation in spastic palsies (hyponeurotization), *Microsurgery* 1983;4:221-4.
12. Cambon-Binder A, Leclercq C. Anatomical study of the musculocutaneous nerve branching pattern: application for selective neurectomy in the treatment of elbow flexors spasticity. *Surg Radiol Anat.* 2015;37:341-8.
13. Paulos R, Leclercq C. Motor branches of the ulnar nerve to the forearm: an anatomical study and guidelines for selective neurectomy. *Surg Radiol Anat.* 2015;37:1043-8.

14. Parot C, Leclercq C. Anatomical study of the motor branches of the median nerve to the forearm and guidelines for selective neurectomy. *Surg Radiol Anat* 2015;Dec 9 (Epub ahead of print).
15. Braun RM, Vise GT, Roper B. Preliminary experience with superficialis to profundus tendon transfers in the hemiplegic upper extremity. *J Bone Jt Surg* 1974;56(A):466-72.
16. Facca S, Louis P, Isner ME, Gault D, Allieu Y, Liverneaux P. Allongement des fléchisseurs selon Braun dans la main non fonctionnelle d'origine centrale. *Rev Chir Orth* 2010;96:724-30.
17. Tonkin MA, Beard AJ, Kemp SJ, Eakins DF. Sesamoid arthrodesis for hyperextension of the thumb metacarpophalangeal joint. *J Hand Surg.* 1995;20A:334-8.
18. Tonkin M, Freitas A, Koman A, Leclercq C, Van Heest A. The surgical management of thumb deformity in cerebral palsy. *J Hand Surg* 2008;33 E: 77-80.

# Libre circulation des malades dans l'UE : quelles réalités ?

## Cross-border Healthcare in Europe: the Reality in 2016

Raymond Lies

Centre Hospitalier du Kirchberg - Luxembourg.

### Mots clés

- ◆ Directive 2011/24/UE transmise en loi nationale (25.10.2013)
- ◆ Droits des malades
- ◆ Soins transfrontaliers
- ◆ Remboursement des frais
- ◆ Points de contact nationaux
- ◆ Enquête Commission Européenne (2015) / Enquête AEMH / FEMS (2015-2016)
- ◆ Confirmation de manque d'informations auprès des malades et des médecins
- ◆ Actuellement statu quo des soins transfrontaliers

### Résumé

La directive 2011/24/UE relative à l'application des droits des patients en matière de soins de santé transfrontaliers a été transposée en loi nationale depuis le 25 octobre 2013. En résumé on peut retenir les points forts de cette réglementation visant surtout à être en concordance avec les jugements de la Cour de Justice Européenne pour clarifier les droits des malades dans les soins transfrontaliers notamment dans les domaines :

- de la libre circulation
- du remboursement des frais hospitaliers et de traitements à la même valeur que dans le pays de l'assuré
- de la création de points de contacts nationaux pour informer les patients
- de la coopération renforcée des États membres concernant les maladies rares et des Centres d'Excellence
- de la reconnaissance des ordonnances médicales dans les autres états membres

Pour apprécier l'impact réel de cette directive dans les pays de l'UE, l'auteur se base sur :

- une enquête auprès des délégations nationales des membres de l'AEMH (Association Européenne des Médecins Hospitaliers) et de la FEMS (Fédération Européenne des Médecins salariés)
- un rapport de la Commission Européenne au Parlement et au Conseil

Les deux démarches ont révélé qu'à ce stade, la directive n'a pas encore été à la source d'un changement d'attitude notable aussi bien auprès des patients qui manquent encore visiblement d'informations sur leurs droits qu'auprès des Caisses de maladies soucieuses de ne pas s'exposer à des frais supplémentaires et à des bouleversements mettant en danger « l'intérêt majeur national ».

Avec l'évolution rapide de l'influence de E-health et de M-health, cette directive devra sûrement être adaptée rapidement à l'évolution des progrès technologiques en matière de communication.

Par ailleurs, les études ont également permis de constater les différences de réaction auprès des pays de l'UE allant d'un protectionnisme caché à une ouverture totale pour le secteur de Santé Européen.

### Keywords

- ◆ Cross-border Healthcare in Europe / The reality in 2016
- ◆ Directive 2011/24/EU / Patients rights, Reimbursement, national contact points
- ◆ Report from the Commission 2015 / Questionnaire AEMH / FEMS 2015/2016
- ◆ Lack of informations for patients and doctors
- ◆ No increase of transborder healthcare

### Abstract

The Directive on cross-border healthcare in Europe (2011/24/EU) has been transposed into the national legislation of all member states since October 2013.

The main provisions of the new directive, in respect of the case law of the European Court of Justice on patients' rights in cross-border healthcare concern especially the reimbursement up to the level of costs that would have been assured by the member state of affiliation if this healthcare has been provided on its territory. But for overriding reasons of general interest, a member state of affiliation may limit the application of the rules on reimbursement for cross-border healthcare. Therefore, member states may introduce a system of prior authorization to manage the possible outflow of patients.

In order to inform patients about their rights, member states will have to establish national contact points.

By analysing different european reports, the author takes stock of the current situation in the field of cross-border healthcare in Europe.

As well the report ordered by the Commission, the report of DG Sanco and the different answers to a questionnaire sent to the national delegations of hospital doctors confirm that since the application of the directive, there has been no significant rise of the number of patients looking for cross-border healthcare.

The lack of information, the probability of administrative barriers in some countries and the quality of healthcare in their own country are the reasons why cross-border healthcare has not become the rule, but it gives the opportunity to the patients with serious health problems (cancer, rare diseases a.s.o.) to be treated with quality and safety in the neighbouring country.

The analysis of the different reports confirms however that some countries for « overriding reasons of national interest » continue by operating a protectionist policy.

### Correspondance :

Raymond Lies

Centre Hospitalier du Kirchberg - 9, rue Edward Steichen - L-2540 Luxembourg.

E-mail : [rlies@pt.lu](mailto:rlies@pt.lu)

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000



## Les réalités

Travaillant au Luxembourg, état frontalier par excellence et mandaté comme Président des médecins hospitaliers européens, j'ai pu suivre les évolutions de la thématique à travers les méandres du labyrinthe des législations nationales et européennes.

Avant d'évoquer la Directive Européenne elle-même, je dois quand même relever que bien des dispositions nationales permettaient aux citoyens européens en déplacement en Europe de bénéficier d'un traitement aux mêmes conditions que les ressortissants du pays concerné. Mais souvent les problèmes étaient plus compliqués lorsqu'un citoyen européen décidait de se faire soigner de son propre gré dans un pays « étranger » et voulait accéder aux remboursements des frais. Ainsi, on parlait de plus en plus d'une médecine à deux vitesses à l'avantage de ceux qui pouvaient se l'offrir. Par ailleurs, au niveau politique, les décideurs, obnubilés par les consensus au niveau des stratégies économiques et financières prioritaires, excluaient les questions de santé aussi bien dans les traités de Paris, Rome et Maastricht.

## Depuis le traité de Rome

En 1957, la libre circulation des personnes est autorisée pour les travailleurs des pays membres. Mais depuis 1985, où l'Allemagne, la France, la Belgique, les Pays-Bas et le Luxembourg ont signé les premiers accords de Schengen, la libre circulation des personnes est étendue à tous les ressortissants de l'espace Schengen. En 2015, l'espace Schengen regroupe 26 pays et concerne 420 millions d'habitants (Fig 1).

La réalisation du marché intérieur européen, la reconnaissance des diplômes, la reconnaissance à la propriété intellectuelle sont d'autres étapes qui ont façonné l'Europe de la Santé et ce sont finalement les jurisprudences de la Cour de Justice Européenne qui ont donné le déclic pour les travaux préparatoires d'une nouvelle directive 2011/24/UE votée par

le Parlement et le Conseil de l'Union Européenne le 9 mars 2011.

Le délai de transposition en loi nationale était le 25 octobre 2013.

Pendant les 12 années de ma présidence à l'AEMH, les sujets de reconnaissance des diplômes, le problème de la liste d'attentes dans certains pays européens du Nord, les arrêts Kohl et Decker et finalement la thématique de la libre circulation ont occupé tous les agendas de réunion des médecins européens soit au CPME (le comité permanent) soit dans les différentes assemblées des organisations médicales européennes. En effet, la prise de décision n'est pas facile dans une Union où les parties prenantes ont une voie consultative incontournable, car ce sont aussi des électeurs.

## L'influence grandissante des parties prenantes

Les « malades » sont regroupés dans le « EU Patients Forum » et représentent une soixantaine d'organisations (Fig 2).

Les hôpitaux d'Europe sont regroupés dans HOPE, organisation très structurée avec siège à Bruxelles et très concernée par l'absence de réglementations budgétaires concernant le traitement de citoyens non assurés au pays où ils se font traiter.

Les médecins, représentés au CP (Comité permanent) où j'ai réussi pendant ma présidence à l'AEMH à créer un comité des présidents de toutes les organisations médicales européennes afin d'arriver à des prises de position communes, entreprise très difficile à réaliser en milieu médical.

Les infirmières, très nombreuses en Europe, plus d'un million, très écoutées par les pouvoirs politiques.

L'industrie pharmaceutique, lobby très puissant avec 1,3 millions de salariés.

Les caisses de maladie incontournables pour les remboursements mais très soucieuses de garder leur autonomie et finalement les pouvoirs politiques pour lesquels les ministères de santé et de sécurité sociale jouent souvent un rôle nécessaire mais peu attrayant.

Les points forts de la Directive 2011/24/EU :

- Les accès aux soins de santé transfrontaliers même pro-

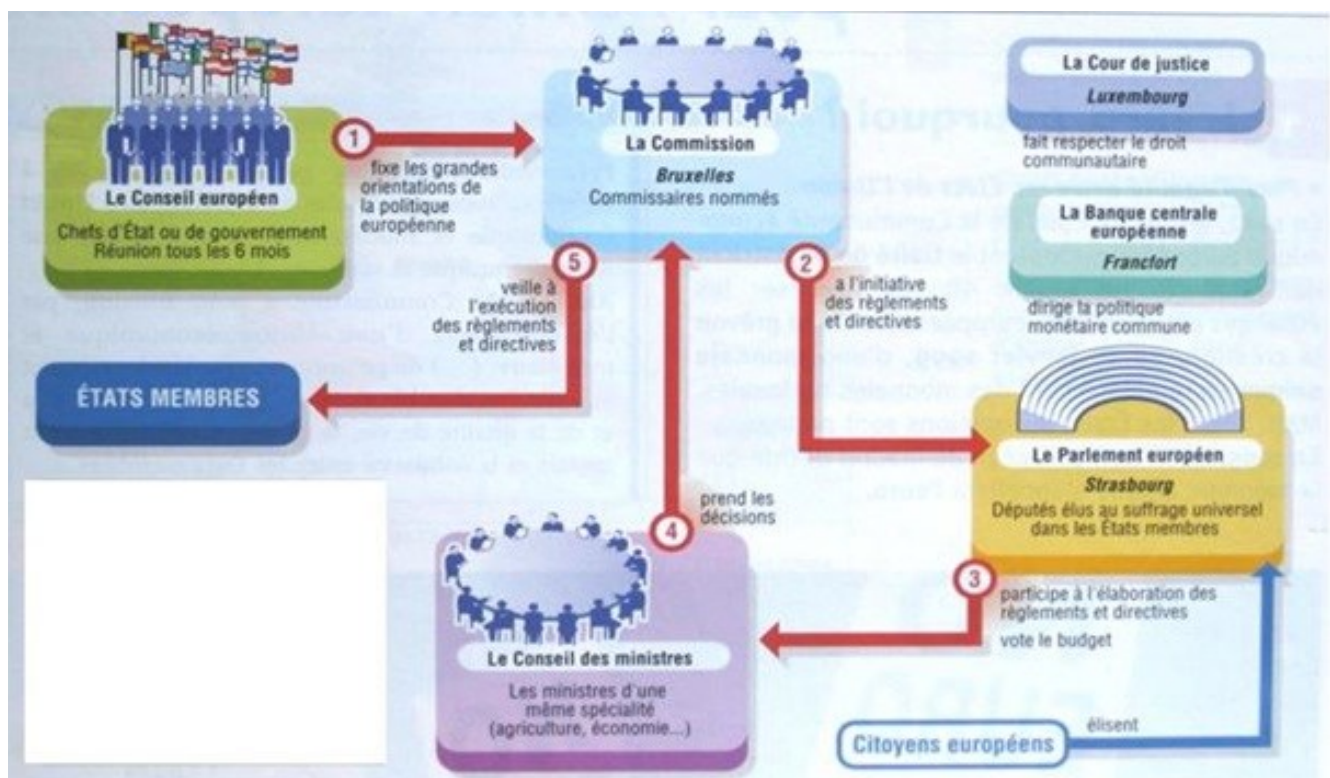


Figure 1. Les mécanismes décisionnels en Europe.



Figure 2. Les parties prenantes.

grammés et en dehors des urgences (très important pour les frontaliers de tous les pays)

- Les remboursements des frais à la hauteur des frais remboursés au pays de l'assuré
- Les points de contact nationaux et les autorisations préalables
- Les coopérations transfrontalières et services d'excellence
- Les coopérations en matière de maladies rares et E-health
- La reconnaissance des prescriptions médicales

La directive ne concerne pas :

- Les maladies chroniques
- Les transplantations
- Les traitements de confort

### Les raisons impérieuses d'intérêt général

Dans les discussions avec des parlementaires et des membres de la commission, il apparaît que le texte au Chapitre III, art. 7, pt. 9 jouait un rôle déterminant pour l'adoption de toute la directive. Les différentes études avaient cependant montré qu'en **moyenne** les demandes pour remboursement de frais pour soins à l'étranger n'excédaient pas 5 % dans le total des frais incombant aux caisses de maladie.

Il fallait donc pour empêcher le risque de déséquilibres financiers supplémentaires un frein pour toute demande exagérée. Nous reviendrons sur ce point après avoir passé en revue les différentes études récentes.



Figure 3. Accès aux soins transfrontaliers dans le contexte du Luxembourg.

### Rapport de la Commission

En effet, comme il est prévu dans la directive, la Commission a effectué un premier rapport au parlement et au Conseil des Ministres le 04/09/2015 (accessible sur Internet en français COM (2015) 421 final). Tous les 3 ans un rapport suivra.

En ce qui concerne la transposition, 26 états n'avaient pas encore transposé complètement la directive à la date prévue du 25/10/2013.

Le 1er juillet 2015, quatre états étaient encore en procédure d'infraction.

La mobilité des patients a été au cœur de l'étude de la Commission (Fig 3).

L'autorisation préalable pour les soins de santé impliquant au moins une nuit à l'hôpital ou s'ils nécessitent un recours à des infrastructures ou des équipements médicaux hautement spécialisés et coûteux. Mais le rapport mentionne correctement que tout système d'autorisation préalable doit être nécessaire et proportionné par rapport à l'objectif à atteindre et ne peut constituer un moyen de discrimination arbitraire ou une entrave injustifiée à la libre circulation des patients.

Ce qui sort de cette enquête, c'est le fait que dans 14 états, les patients ne savent pas exactement quels traitements sont soumis à autorisation préalable (Fig 4).

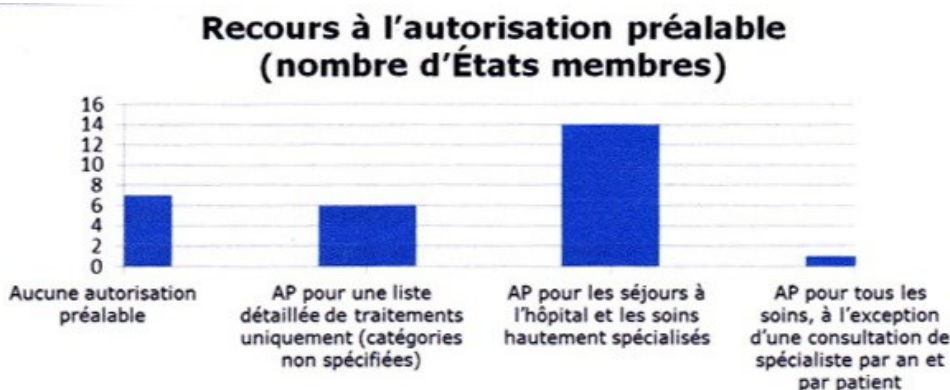


Figure 4. Recours à l'autorisation préalable.



Figure 5. Les difficultés du parcours administratif.

En ce qui concerne le remboursement et l'administration, le rapport fait état de différentes procédures :

Au moins trois états ont adopté le principe de base de la directive c'est-à-dire le remboursement à la hauteur des frais opposables pour des soins analogues dispensés sur son territoire.

Trois états membres demandent au patient pourquoi il était médicalement nécessaire de se faire soigner à l'étranger.

Douze états membres exigent l'intervention du médecin référent pour la demande d'autorisation pour soins à l'étranger.

Quatre états membres exigent une traduction assermentée des factures dont un état qui exige la certification par le consul du pays de traitement.

Au vu de ces exemples, on peut imaginer le travail pour la Cour de Justice européenne, surtout que l'ampleur grandissante de E-health et de la télémédecine compliqueront la prise en charge pour la caisse de maladie.

### Les flux des patients

Le rapport mentionne que les flux de patients qui se font soigner à l'étranger en vertu de la directive sont faibles en 2014 surtout en ce qui concerne des cas avec autorisation préalable.

Pour les traitements qui ne sont pas soumis à autorisation préalable, la Finlande, la France et le Luxembourg ont rapporté une activité considérable avec respectivement 17142, 422680 et 117962 remboursements.

Par ailleurs, 20 états ont effectué ensemble seulement 39826 remboursements dont 31032 déclarés par le seul Danemark.

85 % des demandes de remboursement ont été effectuées.

J'ai donné ces chiffres pour vous illustrer que les situations varient selon les pays (ex. Luxembourg) et que les pouvoirs politiques possèdent les chiffres réels concernant la circulation effective des malades.

### Les points de contacts nationaux (PCN)

Leur impact reste faible car l'enquête Eurobaromètre indique que moins de 2 citoyens sur 10 ont le sentiment d'être bien informés sur leurs droits et 1 sur 10 seulement connaît l'existence des PCN.

Une association de patients affirme « que le sentiment dominant est que le PCN doit être une porte d'accès aux soins de santé et non un gardien qui bloque le passage ».

### Les coopérations transfrontalières

La reconnaissance des prescriptions médicales dans un autre pays que celui du prescripteur représente un avantage pour les patients et constitue une suite logique dans la reconnaissance des diplômes.

Les réseaux européens de référence manquent encore de définition quoique les premières nominations sont attendues pour les premiers mois de 2016. Il est évident que les critères de ces réseaux doivent être établis en concertation avec les parties prenantes.

En ce qui concerne le projet de santé en ligne (2012-2020), les évolutions des dernières décennies montrent qu'il s'agit d'innovations qui dépassent le cadre européen.

Les collaborations transfrontalières connaissent une évolution avec le flux des frontaliers grandissant (Fig 5).

## Conclusions

### Les conclusions du rapport de la Commission

Le niveau de mobilité des patients qui se rendent à l'étranger pour recevoir des soins de santé programmés reste bas, alors qu'il paraît être beaucoup plus élevé quand il s'agit de soins non programmés.

Vu que dans l'enquête Eurobaromètre le nombre de personnes qui se déclarent disposés à recourir à des soins transfrontaliers est supérieur, la Commission est d'avis que les potentialités qu'offre la Directive ne sont pas encore épuisées, ceci d'autant plus que :

- Certains états ont tardé avec la mise en application
- La connaissance des droits des malades n'a pas encore évolué malgré la mise en place de points de contacts
- Les obstacles administratifs restent très élevés dans certains états

### L'enquête AEMH / FEMS

J'ai soumis un questionnaire aux délégations de l'Association européenne des médecins hospitaliers et de la Fédération des médecins salariés européens.

La moitié des délégations n'a pas répondu sous prétexte qu'il n'y avait pas de changements notables par rapport au passé. Cependant les réponses des délégations :

- De l'Allemagne, de la Belgique, des Pays-Bas, du Luxembourg au Centre
  - De l'Italie, de l'Espagne au Sud
  - Du Danemark au Nord
  - De la Slovénie, de la Slovaquie et de la Roumanie à l'Est
- Ont permis de tirer les conclusions suivantes :
- La Directive est loi nationale dans tous les pays ;
  - Il n'y a pas de changements notables dans l'activité hospitalière proprement dite ;
  - En cas de transferts à l'étranger, il s'agit :
    - de maladies en relation avec le cancer ;
    - de la cardiologie ;
    - de l'orthopédie ;



Figure 6. Le rapport du médecin avec son malade reste le centre de toutes les décisions.



- de la rhumatologie ;
- de l'ophtalmologie ;
- de téléradiologie.
- La plupart des délégations ignorent l'impact des points de contact nationaux ;
- Des obstacles administratifs sont surtout relevés pour l'Italie, la Slovaquie, la Slovénie et la Roumanie ;
- Toutes les délégations pensent que E-health et la Télémédecine vont accélérer les échanges dans le futur ;
- Le remboursement n'est pas un incitant pour les Roumains et les Allemands ;
- Les listes d'attente ne semblent pas touchées par les nouvelles dispositions, mais il faut dire que les pays du Nord n'ont pas répondu au questionnaire.

### Les conclusions d'autres rapports

Notamment celui de

- DG Sanco (Direction générale de la Santé et des consommateurs)
- L'EPHA (European Public Health Alliance)

Et surtout l'Eurobaromètre spécial 425 que je vous recommande de consulter sur le site : [http://ec.europa.eu/public\\_opinion/index\\_fr.htm](http://ec.europa.eu/public_opinion/index_fr.htm)

Confirment que :

- L'information sur les mécanismes administratifs et les droits des citoyens et de beaucoup de parties prenantes sur le terrain n'est pas encore passée
- Que plus de 50 % des citoyens sont d'accord pour se faire soigner à l'étranger en cas de maladie grave
- Que la Commission est bien consciente que l'Europe de la Santé est encore bien sous la responsabilité des différents États mais que de nouveaux cas de jurisprudence attendent la Cour de Justice Européenne.

Compte tenu des évaluations diverses et des intérêts divers dans le contexte de cette directive, je pense personnellement que la relation médecin-malade reste la clé et la boussole dans les décisions d'orientation pour le malade principal intéressé dans la réussite de son traitement (Fig 6).

### Discussion en séance

#### Commentaire de M Merle

Il convient de remercier Raymond Lies qui vient de nous initier aux arcanes du fonctionnement de l'Union Européenne lorsque celle-ci veut par une directive instituer la libre circulation des malades dans les 28 pays qui la compose.

Sa longue expérience en tant que Président de l'Association Européenne des Médecins Hospitaliers nous permet de découvrir combien l'Europe est pavée de bonnes intentions et combien les états sont encore réticents à appliquer les directives.

Je retiendrai que dans le cadre des soins d'urgence il existe peu de problème de prise en charge pour un patient de l'Union européenne.

- Dans le cadre des soins programmés j'aimerais connaître quels sont les spécialités et les pays les plus recherchés.
- Afin d'éviter le tourisme médico-chirurgical il est souhaitable que pour les soins coûteux une autorisation préalable soit nécessaire, ma question : est-ce le médecin traitant ou la caisse d'assurance maladie qui doit être le décisionnaire quand on connaît la réticence de cette dernière à se déposer de son assuré comme si elle en était le propriétaire ?
- Vous nous avez montré le nombre d'intervenants à Bruxelles pour aboutir à une directive qui s'impose aux 28 membres de l'Union Européenne. Ce qui est inquiétant c'est la difficulté des médecins pour se faire entendre face aux lobbies. J'observe qu'il y a plus de 60 organisations de malades représentées dans ces institutions, un lobby très puissant des hôpitaux publics (HOPE), en France il existe 600 000 infirmières pour 260 000 médecins et l'industrie pharmaceutique européenne est riche de 1,300 000 salariés.
- Ma dernière question compte tenu de votre importante expérience à Bruxelles : quelles recommandations feriez-vous à nos confrères pour peser dans la politique de santé au niveau Européen ?

#### Questions de M Merle

- Qui doit orienter les malades : les médecins ?
- Quelle est leur place dans le système ?

#### Réponse

D'après la Directive que je viens de présenter, c'est le malade qui peut « circuler librement » dans l'UE : il est le premier concerné et tout dépend de sa propre décision.

Comme l'étude Eurobaromètre spécial de mai 2015 (page 8) la montre, les spécialités les plus concernées sont l'oncologie, la chirurgie cardiaque, les traitements dentaires, la chirurgie prothétique des hanches et des genoux ainsi que la chirurgie de la cataracte.

C'est le rôle du médecin traitant du malade de l'aider dans l'orientation avant sa prise de décision. Il est évident que ce sont les critères de qualité et d'efficacité médicale qui devraient être déterminants pour le choix. Pour le malade et le médecin, selon un slogan bien connu, la santé n'a pas de prix ; mais rétorquent les payeurs, c'est-à-dire les caisses de maladie, la santé a un coût et voilà qu'on arrive à comprendre pourquoi le texte de la Directive comprend l'argument des « raisons d'intérêt national » (overriding reasons of national interest).

C'est dans ce cas très précis où le rôle des différents acteurs sera déterminant.

Le malade seul dans cette controverse économique est souvent perdant, car le remboursement d'un traitement à l'étranger, s'il est autorisé, ne se fera qu'à la hauteur du remboursement du pays de l'assuré. Par contre, en face d'arguments médicaux objectifs, selon le texte de la Directive, je

ne vois pas comment on pourrait refuser l'autorisation de soins à l'étranger, surtout en face de l'argument de « non-assistance à personne en danger ». Je suis d'avis que dans l'avenir les cas soumis à la Cour de Justice Européenne seront encore très nombreux.

Avant d'en arriver là, le rôle du médecin est de conseiller le malade dans l'intérêt majeur de son état de santé et les discussions dans le contexte de cette Directive l'ont bien montré : les organisations médicales européennes, par leurs avis parmi les parties prenantes, ont contribué à améliorer l'état antérieur où le vide juridique était trop important.

Voilà pourquoi j'ai toujours plaidé contre l'attitude trop répandue « de la chaise vide », défendue par certains dans notre profession qui argumentent que les médecins ne doivent faire que de la médecine, ceci surtout à une époque où circule déjà le slogan provocateur mais pas anodin « de la médecine sans médecins ».

#### **Question de J Caton**

Quelle prise en charge aux urgences pour un malade extra-européen ?

#### **Réponse**

Cette question n'est pas touchée par la Directive sur les soins transfrontaliers en UE.

Elle révèle bien l'ambiguïté et la complexité de la réalité qui se pose au « service d'urgence ».

Il n'y a pas de doute ce qu'il faut faire en face d'une vraie urgence, surtout vitale : la prise en charge doit être adaptée à la situation clinique surtout dans le contexte de la non-assistance à personne en danger, concept qui n'est pas lié à la nationalité du malade.

Théoriquement, les frais et honoraires résultant de cette prise en charge sont opposables au patient ou au fonds spécial que la plupart des états mettent à disposition pour les cas sociaux d'origines diverses.

En pratique, souvent l'épisode équivaut à la fin à une action humanitaire pure et simple ce qui est le cas actuellement dans les pays touchés par l'immigration, car les fonds spéciaux destinés à ces prises en charge sont dans la plupart des pays insuffisants ou débordés.

### **Références accessibles sur internet**

1. Directive 2011/24/UE du Parlement Européen et du Conseil du 9 mars 2011 relative à l'application des droits des patients en matière de soins de santé transfrontaliers. Journal Officiel de l'Union européenne.
2. Rapport de la Commission au Parlement Européen et au Conseil COM (2015) 421 final du 4 septembre 2015.
3. Evaluation study on the cross-border healthcare directive 2011/24/EU. Final report Executive Summary 21 March 2015. DG Sanco / European Commission.
4. EPHA (European Public Health Alliance). Report on the Implementation of the cross-border healthcare directive (October 2015).
5. Questionnaire AEMH / FEMS sur la libre circulation des malades après la Directive 2011/14/UE.
6. Eurobaromètre spécial 425 de mai 2015. A consulter sur : [http://ec.europa.eu/public\\_opinion/index\\_fr.htm](http://ec.europa.eu/public_opinion/index_fr.htm)
7. La directive des soins transfrontaliers 31 octobre 2013. Santé gouv. fr. du 26 février 2015.

# Reconstruction œsophagienne par ingénierie tissulaire - l'expérience de l'hôpital Saint-Louis

## Esophageal Tissue Engineering - The Experience of Saint-Louis Hospital

L Arakelian [1], V Vanneaux [1], T Poghosyan [2], J Catry [3], M Luong-Nguyen [3], J Larghero [1], P Cattan [1,3]

1. CIC de Biothérapies - INSERM UMR 1160 - Institut Universitaire d'Hématologie - Unité de thérapie cellulaire - Hôpital Saint Louis - Paris.

2. Assistance Publique - Hôpitaux de Paris - Service de chirurgie digestive, oncologique et métabolique - Hôpital Ambroise Paré - Boulogne-Billancourt.

3. Assistance Publique - Hôpitaux de Paris - Service de chirurgie générale, digestive et endocrinienne - Hôpital Saint-Louis - Paris.

### Mots clés

- ◆ Ingénierie tissulaire
- ◆ Œsophage
- ◆ Bioengineering
- ◆ Matrice acellulaire

### Résumé

L'ingénierie tissulaire, dont le concept repose sur la mise en présence et l'implantation *in vivo* des éléments jugés nécessaires à un remodelage tissulaire vers le phénotype de l'organe voulu, pourrait représenter une alternative aux techniques classiques de remplacement œsophagien. Tout en préservant les organes intra-abdominaux, elle autoriserait un remplacement adapté à la longueur du défaut œsophagien à traiter, ce qui est particulièrement intéressant dans le cadre des atrésies de l'œsophage et des sténoses réfractaires aux dilatations endoscopiques. Elle représenterait une alternative à l'alimentation définitive par jéjunostomie chez les patients sujets à des échecs répétés de reconstruction œsophagienne. L'approche hybride consistant à créer un substitut composé d'une matrice naturelle décellularisée, de cellules épithéliales et de cellules musculaires est jusqu'à présent la voie de recherche la plus aboutie. Dans un avenir proche, les cellules souches mésenchymateuses, de par leur multipotence et leurs propriétés immunomodulatrices et anti-inflammatoires, pourraient supplanter les cellules différenciées dans les modèles expérimentaux, puis chez l'homme. Dans un avenir plus lointain, la confection de « matrices intelligentes » non cellularisées, mais contenant les facteurs permettant la régénération tissulaire permettrait de s'affranchir de l'implantation cellulaire et d'obtenir des réponses biologiques standardisées *in vivo*.

### Keywords

- ◆ Tissue engineering
- ◆ Esophagus
- ◆ Bioengineering
- ◆ Absorbable scaffold

### Abstract

Tissue engineering, which consists of the combination and *in vivo* implantation of elements required for tissue remodeling toward a specific organ phenotype, could be an alternative for classical techniques of esophageal replacement. While avoiding the sacrifice of other intra-abdominal organs, this technique would allow a replacement tailored to the exact length of the esophageal defect and that is particularly interesting in case of esophageal atresia or strictures refractory to endoscopic dilatation. Finally, tissue engineering could be a response to the critical situation of repeated failures of esophageal reconstruction.

The current hybrid approach that entails creation of an esophageal substitute composed of an acellular matrix and autologous epithelial and muscle cells provides the most successful results. In the near future, mesenchymal stem cells, because of their potential for differentiation and proangiogenic, immune-modulatory and anti-inflammatory properties could replace differentiated cells in experimental protocol and in humans. Later, esophageal substitutes could be constructed from acellular "intelligent matrices" that contain the molecules necessary for tissue regeneration; this should allow circumvention of the implantation step and still obtain standardized *in vivo* biological responses. At present, tissue engineering applications to esophageal replacement are limited to enlargement plasties with absorbable, non-cellular matrices.

Ce programme de recherche en ingénierie tissulaire a pour but de mettre au point un substitut œsophagien qui pourrait représenter une alternative aux techniques classiques de remplacement de l'œsophage par gastroplasties et coloplasties. Ces dernières autorisent une reprise de l'alimentation chez la plupart des patients, mais comportent certaines limites que l'ingénierie tissulaire pourrait dépasser. A titre d'exemple, le traitement chirurgical des sténoses œsophagiennes réfractaires aux dilatations endoscopiques nécessite actuellement le

remplacement de l'ensemble de l'œsophage. L'ingénierie tissulaire, par la création d'un substitut adapté à la longueur du défaut à traiter, pourrait autoriser le remplacement de la seule zone lésée tout en conservant le reste de l'œsophage et les organes intra-abdominaux habituellement utilisés pour son remplacement. Par ailleurs, l'ingénierie tissulaire représente le seul espoir de reprise d'une alimentation orale chez les patients sujets à des échecs répétés de reconstruction œsophagienne.

### Correspondance :

Pierre Cattan

Service de chirurgie générale, digestive et endocrinienne - Hôpital Saint-Louis - 1, av Claude Vellefaux - 75010 Paris.

E-mail : pierre.cattan@aphp.fr

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000



Le concept d'ingénierie tissulaire date des années 1990. Il a été défini par Langer et Vacanti comme la création de substituts biologiques faisant appel à des techniques d'ingénierie et de sciences du vivant (1). En pratique, l'idée n'est pas de construire *in vitro* un organe finalisé, mais de mettre en présence et d'implanter *in vivo* des éléments jugés nécessaires à la reconstruction *in vivo* d'un organe déficient. Ces éléments sont en général représentés par une matrice acellulaire et des cellules autologues, le substitut réalisé pouvant alors être considéré comme une autogreffe. Les matrices et les cellules utilisées peuvent faire l'objet de diverses manipulations afin de faciliter le remodelage tissulaire après implantation *in vivo*.

## L'ingénierie tissulaire appliquée à l'œsophage

Les recherches actuelles tendent à répondre à deux situations différentes. La première est la prévention de la sténose après mucosectomie endoscopique circulaire pour endobrachy-œsophage dégénéré. Seule cette situation a fait l'objet d'essai clinique chez l'homme. Il s'est agi de mettre en place après mucosectomie soit des patches de cellules épithéliales (2), soit une matrice acellulaire (3). Ces tentatives ont donné des résultats intéressants, mais non entièrement satisfaisants en raison de la complexité de la procédure dans le premier cas et d'un taux élevé de sténoses dans le second.

Ce qui intéresse d'avantage les chirurgiens est la possibilité d'effectuer par ingénierie tissulaire un remplacement circonferentiel de l'œsophage après résection œsophagienne. Aucun essai clinique n'a encore été réalisé en ce sens. L'ensemble des protocoles de recherche translationnelle menés chez le gros animal sur le sujet concourent à dire qu'afin d'avoir une chance de succès, le substitut doit être formé d'une combinaison de matrice acellulaire et de cellules autologues (4). Le remplacement œsophagien par une matrice acellulaire utilisée isolement, entraîne invariablement une sténose réfractaire aux dilatations endoscopiques.

Il a été établi qu'après implantation, la matrice initialement utilisée comme support cellulaire, était vouée à disparaître et à être remplacée par une matrice sécrétée par les cellules implantées ou par les cellules de l'hôte venues la coloniser (5). Une des principales qualités requises des matrices utilisées est ainsi une bonne biocompatibilité, afin de limiter la réaction inflammatoire après implantation *in vivo* et la fibrose qui en résulte.

Dans le choix des types cellulaires, deux possibilités s'ouvrent au chercheur. Le choix peut se porter sur des cellules différenciées qui pourraient avoir un intérêt pour la régénération œsophagienne, en l'occurrence les cellules épithéliales et les cellules musculaires. L'autre possibilité est d'utiliser des cellules souches mésenchymateuses qui ont la capacité de se différencier en une multitude de types cellulaires, ce qui représente un avantage séduisant pour l'ingénierie tissulaire. Les cellules souches mésenchymateuses ont par ailleurs un potentiel pro-angiogénique qui pourrait favoriser la vascularisation du substitut. Elles ont un pouvoir chimiotactiques qui permettrait d'attirer des cellules susceptibles de participer au remodelage tissulaire. Enfin, ces cellules ont une activité anti-inflammatoire, ce qui est particulièrement intéressant quand on sait l'importance de la réaction inflammatoire qui suit l'implantation du substitut.

## Les étapes

Les différentes étapes du remplacement œsophagien par ingénierie tissulaire sont les suivantes :

1. Des biopsies tissulaires sont réalisées afin d'en extraire les cellules d'intérêt (biopsies de moelle osseuse pour les cellules

souches mésenchymateuses, biopsies musculaires pour les cellules musculaires, biopsies de muqueuse jugale pour les cellules épithéliales)

2. Ces cellules sont caractérisées sur le plan phénotypique et fonctionnel, puis la population cellulaire est expandue en culture.

3. La matrice acellulaire estensemencée de ces cellules à une concentration cellulaire et pour une durée de culture déterminées

4. Le substitut ainsi constitué fait l'objet d'une maturation par implantation dans un « bioréacteur naturel », en l'occurrence le grand épiploon ou le muscle grand dorsal de l'animal. Cette étape permet d'initier la vascularisation du substitut dans un environnement stérile.

5. Après 14 jours de maturation, le remplacement œsophagien est effectué par le substitut laissé en continuité avec son « bioréacteur », à la manière d'un transplant pédiculé.

## Expérience de l'équipe de l'hôpital Saint-Louis

Initialement, notre démarche a été d'utiliser une approche hybride qui a consisté à utiliser deux matrices (une matrice acellulaire issue de la sous-muqueuse intestinale du porc et une membrane amniotique humaine) et deux types cellulaires (cellules musculaires et cellules épithéliales). Dans un premier temps, nous avons démontré la faisabilité de la culture de ces cellules sur ces matrices et avons défini les conditions optimales d'ensemencement et de culture (6). Nous avons ensuite réalisé, chez 30 porcs de race minipigs des remplacements circonferentiels de l'œsophage cervical par ce substitut, qui a fait l'objet d'une maturation préalable dans le grand épiploon (7). Le remplacement était réalisé sous couvert d'une endoprothèse extractible, afin de calibrer temporairement la zone de greffe. Des sacrifices séquentiels des minipigs pendant 12 mois après le remplacement œsophagien ont permis d'observer aux temps tardifs un remodelage tissulaire de la zone de greffe vers un phénotype œsophagien, avec présence d'un épithélium mature, de glandes sous-muqueuses et d'une couche musculaire pluristratifiée. Bien qu'intéressants, ces résultats ne nous ont pas semblé parfaitement satisfaisants en raison de la lenteur du remodelage tissulaire et de la nécessité de laisser en place une endoprothèse pendant 6 mois afin d'éviter une sténose de la zone de greffe, traduction d'une réaction inflammatoire et fibrosante majeure secondaire à l'implantation du substitut. Par ailleurs, l'approche hybride qui consiste à utiliser deux types cellulaires et deux matrices nous a semblé trop complexe. Enfin, il est probable que le choix du modèle utilisé dans cette étude, c'est-à-dire le remplacement de l'œsophage cervical, n'ait pas été optimal. En effet, l'ascension du substitut au cou nécessite la réalisation d'une épiploplastie qui chez le cochon compromet chez bon nombre d'animaux la vascularisation du substitut. L'ischémie du substitut qui en résulte explique probablement la perte cellulaire massive observée lors des sacrifices précoces par comparaison à l'importante population cellulaire présente dans le substitut à la fin de la période de maturation dans l'épiploon.

Nous nous sommes donc tournés vers l'utilisation de cellules souches mésenchymateuses issue de la moelle osseuse. En suivant des étapes similaires, nous avons réalisé le remplacement circonferentiel de l'œsophage abdominal avec une matrice acellulaireensemencée de cellules souches mésenchymateuse chez 10 minipigs. Le remplacement était effectué par la matrice nonensemencée de cellules dans le groupe contrôle. Nous nous sommes cette fois-ci porté sur l'œsophage abdominal afin d'éviter la dévascularisation éventuelle du substitut, car il n'est pas nécessaire pour un remplacement de l'œsophage abdominal de réaliser d'épiploplastie pour ascensionner le substitut pédiculé jusqu'à la zone de greffe. Ce

travail a permis de montrer que les cellules souches mésenchymateuses favorisaient la régénération épithéliale mature dans la lumière du substitut et que leur présence était associée à l'apparition de cellules musculaires dans le substitut dès le deuxième mois, alors qu'aucune cellule musculaire n'est jamais apparue dans la zone de greffe dans le groupe contrôle. La grande fréquence de migration de l'endoprothèse œsophagienne, favorisée par l'hyper motricité de la région œsogastrique, ne nous a permis de suivre ses animaux plus de 3 mois

## Perspectives

1. En ce qui concerne le modèle expérimental, nous nous porterons à l'avenir sur l'œsophage thoracique, afin de ne pas rencontrer les aléas inhérents aux remplacements de l'œsophage cervical et abdominal. Ce choix de l'abord thoracique n'a pas été notre choix initial, bien que plus relevant sur le plan clinique, en raison de la nécessité de réaliser un abord thoracique et un drainage thoracique temporaire postopératoire.

2. Afin de comprendre le rôle joué par les cellules souches mésenchymateuses dans le remodelage tissulaire ainsi que leur devenir, nous utiliseront à l'avenir des cellules marquées par un fluorochrome (mcherry), marquage qui persiste malgré les divisions cellulaires. Il nous sera ainsi notamment possible de déterminer si les cellules différenciées présentent dans la zone de greffe proviennent des cellules souches mésenchymateuses.

3. La matrice que nous avons utilisée jusqu'à présent est issue de la sous-muqueuse intestinale du porc et est commercialisée comme renfort pariétal (Surgisis®). Elle semble être à l'origine d'une importante réaction inflammatoire, faisant le lit de la fibrose et compromettant ainsi la régénération œsophagienne. Nous nous sommes rendu compte que cette réaction inflammatoire était probablement liée à une décellularisation imparfaite de cette matrice. Parallèlement, il est intéressant que l'utilisation d'une matrice spécifique d'organe pourrait avoir de meilleures performances dans la promotion d'une régénération tissulaire spécifique d'organe (8). Par conséquent, nous avons mis au point un protocole de décellularisation œsophagienne performant, afin d'utiliser à l'avenir comme support une matrice œsophagienne décellularisée par nos propres soins.

Dans un avenir probablement plus lointain, la confection de « matrices intelligentes » permettrait de s'affranchir de l'implantation cellulaire, qui est à l'origine d'une grande variabilité dans la réponse biologique observée *in vivo*. En effet, il est intéressant d'envisager utiliser des matrices porteuses des molécules impliquées dans le remodelage tissulaire et identifiées par l'étude du sécrétome des cellules souches mésenchymateuses (9). L'avantage de ces « matrices intelligentes » par rapport aux matrices cellularisées est la possibilité de standardiser leur production et ainsi d'espérer avoir des réponses biologiques reproductibles *in vivo*.

## Conclusions

Actuellement, les efforts de remplacement circonférentiel de l'œsophage portent sur de courts segments et se heurtent à l'importance des phénomènes inflammatoires locaux qui conduisent à la fibrose, qui limite elle-même les possibilités de remodelage tissulaire vers un phénotype œsophagien. Les recherches actuelles portent sur l'utilisation des cellules souches mésenchymateuses, dont le potentiel de différenciation, les propriétés pro-angiogénique, immuno-modulatrice et anti-inflammatoire, constituent des atouts prometteurs. Cependant, les applications cliniques existantes de remplacement par ingénierie tissulaire d'autres organes, associées à la

multiplication des protocoles de recherche translationnelle de remplacement œsophagien chez le gros animal, laissent présager à court terme l'obtention d'une autorisation des autorités sanitaires pour l'initiation d'un essai clinique. Outre la mise au point d'un substitut utilisable chez l'homme, la recherche fondamentale et translationnelle menée actuellement sur ce thème permettra de mieux comprendre les mécanismes de réparation et de régénération tissulaire.

## Remerciements

Association Française de l'Atrésie de l'Œsophage (AFAO), Fondation pour la Recherche Médicale (DBS20140930773), Fondation de l'Avenir (ETO-579), Agence de la Biomédecine, Académie Nationale de Médecine.

## Références

1. Langer R, Vacanti JP. Tissue engineering. *Science*. 1993;260:920-6.
2. Ohki T, Yamato M, Ota M, Takagi R, Murakami D et al. Prevention of esophageal stricture after endoscopic submucosal dissection using tissue-engineered cell sheets. *Gastroenterology*. 2012;143:582-8.
3. Hoppe T, Badylak SF, Jobe BA. A novel esophageal-preserving approach to treat high-grade dysplasia and superficial adenocarcinoma in the presence of chronic gastroesophageal reflux disease. *World J Surg*. 2012;36:2390-3.
4. Poghosyan T, Catry J, Luong-Nguyen M, Bruneval P, Domet T et al. Esophageal tissue engineering: Current status and perspectives. *J Visc Surg*. 2016;153:21-9.
5. Londono R, Badylak SF. Biologic scaffolds for regenerative medicine: mechanisms of *in vivo* remodeling. *Ann Biomed Eng*. 2015;43:577-92.
6. Poghosyan T, Gaujoux S, Vanneaux V, Bruneval P, Domet T et al. *In Vitro* Development and characterization of a tissue engineered conduit resembling esophageal wall using human and pig skeletal myoblast, oral epithelial cells and biologic scaffolds. *Tissue Eng Part A*. 2013 ;19:2242-52.
7. Poghosyan T, Sfeir R, Michaud L, Bruneval P, Domet T et al. Circumferential esophageal replacement using a tube-shaped tissue-engineered substitute: An experimental study in minipigs. *Surgery*. 2015 ;158:266-77.
8. Keane TJ, DeWard A, Londono R, Saldin LT, Castleton AA et al. Esophageal Extracellular Matrix. *Tissue Engineering Part A*. 2015;17-18: 2293-300.
9. Salgado AJ, Gimble JM. Secretome of mesenchymal stem/stromal cells in regenerative medicine. *Biochimie*. 2013;95:2195.

# Prise en charge et indications de la chirurgie d'urgences dans les brûlures caustiques graves de l'œsophage de l'adulte

## Conservative versus Surgical Management of Severe Caustic Injuries of the Esophagus in Adults

L Bonavina, E Asti, M Porta, C Ceriani

Department of Surgery - IRCCS Policlinico San Donato - University of Milan Medical School - Piazza Malan 1 - 20097 San Donato Milanese - Milano, Italy.

### Mots clés

- ◆ Ingestion caustique
- ◆ Oesophagectomie en urgence
- ◆ Patch pulmonaire
- ◆ Pancréatico duodénectomie
- ◆ Endoscopie gastroduodénale
- ◆ Scanner

### Résumé

**Objectif :** L'ingestion de caustiques avec ses complications vitales reste une question de santé publique, cependant trop peu rapportée. La conduite à tenir chez ces patients est mal définie et la littérature médicale courante sur les brûlures caustiques du segment initial du tube digestif manque de méthodologie prospective. L'incapacité de l'endoscopie pour mesurer avec précision la profondeur de la nécrose intrapariétale aboutit souvent à une chirurgie inappropriée. Bien plus, l'endoscopie d'urgence est inutile chez près de 30% des patients qui n'ont pas une lésion du tube digestif initial à la suite de l'ingestion d'agents détersifs ou corrosifs autres que des produits acides ou alcalins forts.

**Méthodes :** Une revue systématique de la littérature publiée entre 1990 et 2015 a été faite par un groupe d'experts de la World Society of Emergency Surgery. Le niveau d'évidence a été calculé selon les critères d'Oxford suivi d'une discussion étendue sur toutes les questions cliniques qui s'y rapportent, dans le but d'atteindre un consensus sur une conduite à tenir appropriée.

**Résultats :** Le scanner compense les insuffisances des algorithmes basés sur l'endoscopie; il est utile pour sélectionner les patients dont on peut préserver l'œsophage. (Esophagectomie trans hiatale avec préservation gastrique et gastrectomie totale avec œsophagojejunostomie peuvent être réalisées si la nécrose transmurale est limitée à l'œsophage ou à l'estomac respectivement. Une chirurgie étendue doit être réalisée en cas d'atteinte d'organes associés car les lésions caustiques progressent toujours. La nécrose trachéobronchique nécessite une œsophagectomie transthoracique et un patch pulmonaire. Les facteurs ayant un impact négatifs sur la survie concernent: l'œsophagectomie d'urgence - l'âge avancé- les lésions trachéobronchiques et la nécessité de résections étendues.

**Conclusion :** Les nouvelles recommandations ont un potentiel pour diminuer la nécessité d'une chirurgie d'urgence, pour augmenter le taux de préservation d'organes et pour améliorer la survie chez les patients qui ont des lésions caustiques aiguës du tube digestif initial.

### Keywords

- ◆ Caustic ingestion
- ◆ Emergency esophagectomy
- ◆ Pulmonary patch
- ◆ Pancreaticoduodenectomy
- ◆ Upper gastrointestinal endoscopy
- ◆ CT scan

### Abstract

**Objective.** Caustic ingestion along with its life-threatening complications remains a largely unreported public health issue. The work-up of these patients is poorly defined and current literature on foregut caustic injuries lacks prospective methodology. Inability of endoscopy to predict accurately the depth of intramural necrosis often results in inappropriate surgery. Moreover, emergency endoscopy is futile in up to 30% of patients who do not have injuries of the upper digestive tract following ingestion of bleach or corrosive agents other than strong acids or alkali.

**Methods.** A systematic review of the literature published between 1990 and 2015 was performed by expert panel members of the World Society of Emergency Surgery. The level of evidence was graded using the Oxford criteria, and extensive discussion of the relevant clinical questions followed with the aim to reach a consensus on appropriate management.

**Results.** Computed tomography compensate for the shortcomings of endoscopy-based algorithms and is useful to select patients for esophageal preservation. Transhiatal esophagectomy with gastric preservation and total gastrectomy with esophagojejunostomy can be performed if transmural necrosis is limited to the esophagus or the stomach, respectively. Extended surgery should be attempted in case of associated organ injuries as caustic lesions invariably progress. Tracheobronchial necrosis requires transthoracic esophagectomy and pulmonary patch. Factors with a negative impact on outcome include emergency esophagectomy, advanced age, tracheobronchial injuries, and the need for extended resections.

**Conclusions.** The novel recommendations have the potential to reduce the need of emergency surgery, increase the rate of organ preservation, and improve survival in patients with acute foregut caustic injuries.

### Correspondance :

Luigi Bonavina, MD, FACS

Department of Surgery - IRCCS Policlinico San Donato - University of Milan Medical School - Piazza Malan 1 - 20097 San Donato Milanese - Milano, Italy. E-mail: luigi.bonavina@unimi.it

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000



Accidental or intentional ingestion of corrosive substances is a largely under-reported public health issue. Primary prevention was first advocated in the United States with the Federal Caustic Act (1927) which mandated proper labeling of corrosive agents. Subsequent acts have enforced proper labeling, antidote instructions, concentration restrictions, and child-resistant packaging, leading to a decreased incidence and severity of caustic ingestions in the United States (1,2). The frequency of foregut caustic injuries is still high in countries where legislation is less restrictive or even absent, such as Africa, Turkey, India, Eastern Europe, and Southeast Asia (3). Adults in the fourth decade of life who have usually ingested strong corrosives with suicidal intent, account for about 20% of caustic ingestion cases (4).

The degree of injury is related to the volume, concentration, viscosity, and duration of exposure to the caustic agent. Liquid bleach, although often reported, does rarely cause severe injuries. Strong acids (pH<2) and alkali (pH<11), readily available as household cleaners, cause the most severe corrosive damage. Acids cause coagulation necrosis, whereas alkali cause liquefaction necrosis which penetrates deep into tissues and may lead to full-thickness damage of the esophageal/gastric wall and adjacent organs (5,6). Strong alkali cause the most severe injuries in Western Europe (7,8).

Injuries caused by caustic ingestion range in severity from mild oral burns to mucosal erythema or transmural necrosis of the esophagus and stomach with visceral perforation. Emergency surgery should only be indicated in patients with hemodynamic instability, free perforation, peritonitis, mediastinitis, and hemorrhage. Full-thickness esophagogastric necrosis is the most severe form of injury, generally due to ingestion of a large amount or highly concentrated corrosive substance, and is associated with high morbidity and mortality. The transmural extent of necrosis may also involve adjacent thoracic and abdominal structures (airways, aorta, pericardium, duodenum, small intestine, colon, gallbladder, and pancreas) (9-15).

Current therapeutic algorithms for the management of patients with acute caustic injuries rely on the findings of upper digestive endoscopy. Patients with severe endoscopic lesions (grade 3b, diffuse necrosis according to Zargar's classification) (16), are considered for surgical exploration, while patients with low grade injuries are generally offered non-operative treatment (17). Although the establishment of poison control centers and the improvement in intensive care and damage control surgery have improved the emergency management of these life-threatening injuries, the overall survival is poor and no consensus exists yet on the criteria for aggressive versus conservative surgery in these patients due to the lack of a reliable and reproducible therapeutic algorithm (18-25).

## Methods

Two independent MEDLINE and EMBASE searches were performed to identify papers with full-text in English published between 1990 and 2015. The following medical subject headings terms were used in the searches: caustic ingestion, caustic lesions, corrosive injuries, esophagus, stomach, esophageal dilatation, gastric outlet obstruction. The search terms were identified in the title, abstract, or medical subject heading (26). The level of evidence for each recommendation statement was assigned by using the grading system proposed by the Oxford Centre for Evidence-Based Medicine (27). A preliminary manuscript was prepared by an international panel of 12 experts including anesthesiologists, endoscopists, surgeons, and toxicologists. The key recommendations and proposed management algorithms were discussed at a dedicated meeting held in Milan in April 2015, and at the 3rd Congress of the World Society of Emergency Surgery (WSES) held

in Jerusalem in July 2015. Finally, evidence based guidelines for the management of foregut caustic injuries were developed to outline clinical recommendations. The final manuscript was reviewed and approved by all the authors and by the WSES council.

## Results

Initially, 2143 abstracts of the retrieved studies were reviewed and screened for exclusion criteria. At the end of the search, 1113 abstracts that fulfilled the inclusion criteria were selected. Finally, 147 full papers which addressed the relevant clinical questions of the research were admitted to the consensus conference. Forty-four papers related to the initial therapeutic approach, including emergency surgery, were used as the basis for further discussion, drafting of key recommendations, and proposal of management algorithms. The main recommendations and clinical practice guidelines resulting from the final consensus conference were approved by the WSES council and are shown below. The level of evidence (LOE) for these recommendations based on the Oxford classification ranged from 3 to 5.

1. Establish the diagnosis of caustic agent ingestion by identifying the involved agent. pH testing may help in case the product is not identified (LOE 4-5).
2. Evaluate the ingestion scenario by ascertain ingestion, determine the intentional or unintentional mechanism, detect concomitant ingestion of alcohol/drugs, try to assess ingested volume and delay from ingestion (LOE 4-5).
3. Identify additional risk factors such as pregnancy, underlying disease, and the form of the ingested agent (solid, liquid, gel, vapors-concomitant aspiration) (LOE 5).
4. Focus on supportive care rather than specific antidotes. Secure airway patency and stabilize hemodynamics. Prevent vomiting and aspiration by intravenous metoclopramide, use seated 45° position during transport, avoid gastric lavage, induced emesis, and any diluent (water, milk) (LOE 5).
5. Avoid attempts at pH neutralization with either weak alkali or acid (LOE 5).
6. Provide adequate pain relief while waiting to evaluate the severity of injuries. If airway support is required, favor fiberoptic laryngoscopy over blind intubation; perform tracheotomy if necessary (LOE 5).
7. Laboratory tests should include WBC, hemoglobin, platelet count, CRP, pH, serum levels of electrolytes, urea, creatinin, LDH, CPK, AST, ALT, lactates, alcohol (LOE 5).
8. Contact Poison Control Center to evaluate systemic toxicity of the ingested agent (LOE 4-5).
9. Avoid nasogastric tube positioning (LOE 5).
10. The efficacy of proton-pump inhibitors and H2 blockers in minimizing esophageal injury has not been proven (LOE 5). The utility of corticosteroids for stricture prevention is controversial. Steroids should be reserved only for patients with airway symptoms (LOE 3).
11. Broad-spectrum antibiotics are advised in grade 3 injuries if corticosteroids are initiated or if lung involvement is identified (LOE 5).
12. Patients with clinical signs of peritonitis and hemodynamic instability require immediate surgical exploration. Symptoms such as chest pain, dysphagia, odynophagia, drooling, hemorrhage are usually associated with severe injuries after intentional ingestion; the absence of oropharyngeal damage does not exclude severe esophagogastric injuries (LOE 4).
13. Results of laboratory tests such as WBC, platelet count, CRP, pH, AST, ALT, creatinin, and lactate can help decision making in difficult situations (LOE 5).
14. Endoscopy should be performed within 6 hours after ingestion, and injuries should be graded according to the Zargar's classification. Patients with severe (grade 3b) esophagogastric injuries are considered for surgery while patients with low

grade injuries ( $\leq$  grade 3a) are offered non-operative treatment. Inability of endoscopy to predict accurately the depth of intramural necrosis may result in either futile surgery, with negative effects on survival, quality of life and costs, or in patient death due to inappropriate non operative treatment. Moreover, emergency endoscopy is futile in up to 30% of patients who do not have injuries of the upper digestive tract following ingestion of bleach or corrosive agents other than strong acids or alkali (LOE 4).

15. Computed tomography can compensate for the shortcomings of endoscopy based algorithms. The use of CT is helpful in selecting patients with grade 3b caustic injury who may need esophagectomy. CT has been shown to be superior to endoscopy in selecting patients for surgery or non-operative treatment, suggesting that CT may replace endoscopy in the management of caustic injuries. CT criteria of transmural esophageal necrosis include esophageal-wall blurring and periesophageal-fat blurring on unenhanced images, and absence of post-contrast esophageal-wall enhancement; transmural necrosis of the stomach is defined as the absence of post-contrast gastric-wall enhancement (LOE 3).

16. Emergency surgery is eventually required in a small number of patients with transmural necrosis to avoid involvement of adjacent organs. Laparotomy is usually performed but laparoscopic exploration has been reported as feasible and safe (LOE 4).

17. Transhiatal esophagectomy and total gastrectomy are the most frequently employed surgical procedures in the acute setting. Esophagectomy with gastric preservation and total gastrectomy with esophagojejunostomy can be performed if transmural necrosis is limited to the esophagus or the stomach, respectively (LOE 4).

18. Extended surgery (beyond esophagogastrectomy) should be attempted in case of injuries spread to adjacent abdominal organs. All severely injured organs should be resected during the first operation as caustic lesions invariably progress. Mortality rates are high, but surgery may be the only choice for these patients (LOE 4).

19. Feeding jejunostomy should be systematically constructed at the end of the operation, regardless of the type of surgical procedure performed (LOE 4).

20. Massive intestinal necrosis should be a reasonable limit to extensive surgery due to inability of later reconstruction and enteral nutrition (LOE 5).

21. If the patient's conditions allow, immediate biliary and pancreatic reconstruction could be attempted after pancreatoduodenectomy for caustic necrosis (LOE 5).

22. Transmural esophageal necrosis can lead to tracheobronchial involvement. Preoperative bronchoscopy should be performed in all patients considered for surgery. In the presence of tracheobronchial necrosis, esophagectomy combined with a pulmonary patch should be performed through a right thoracic approach (LOE 4).

23. Despite the high mortality rates, surgery may be only choice for these patients. Factors which have a negative impact on outcome include advanced age, tracheobronchial injuries, emergency esophagectomy, need for extended resections and severe alterations of laboratory tests (pH<7.2, AST>2N, renal failure, etc.) (LOE4).

24. The need to perform emergency surgery for caustic injuries has a persistent long-term negative impact both on survival and functional outcome. Moreover, esophageal resection is an independent negative predictor of survival after emergency surgery (LOE 4).

25. Caustic ingestion may induce systemic inflammatory response syndrome or sepsis. Negative nitrogen balance and weight loss are related to injury severity (LOE 3-4). Enteral nutrition should be provided as soon as possible. Patients with low grade injuries should resume oral alimentation as soon as they are able to swallow. In patients with severe injuries, enteral feeding through jejunostomy or nasojejunal tube is

recommended rather than a gastrostomy due to the possibility of a hidden gastric outlet obstruction (LOE 5).

## Discussion

The criteria for aggressive versus conservative surgery in patients with foregut caustic injuries are still widely debated due to the lack of a reliable and reproducible management algorithm. Until the year 2000, the scenario has been dominated by an endoscopy-based algorithm and by an early and aggressive surgical approach in patients with grade 3 lesions. The major limitation of endoscopy has been its inability to predict accurately the transmural extension of necrosis, which is the primary element driving the choice of the therapeutic approach. The WSES recommendations are based on expert opinions and extensive literature review including mainly retrospective studies with a low level of evidence. Unfortunately, the majority of published data lack homogeneous classification systems and prospective methodology.

Of special note is that the WSES has endorsed the usefulness and reproducibility of CT scan evaluation in the grading of acute foregut caustic injuries. The new combined endoscopy-CT scan decision-making algorithm, which allows to avoid endoscopy in selected patients and to increase the rate of esophageal preservation, has the potential to improve long-term patients outcome and quality of life (28). Limitations in the use of CT may be renal failure and contrast agent allergy. An esophagectomy may be planned at a later stage to prevent mucocele and cancer of the excluded esophagus in survivors who require reconstruction of the alimentary tract (29).

Another important message is the need for close multidisciplinary cooperation and the adoption of standard management algorithms in the management of foregut caustic injuries. Interestingly, a recent WSES survey found that 80% of the responders to a questionnaire treat fewer than 10 cases of caustic ingestion per year, <60% use Zargar's classification, 72% use a nasogastric tube, and only 29% perform CT scan (30), indicating the utility to apply and share clinical practice guidelines to improve patients' care worldwide.

## Conclusion

On the light of this consensus conference, the World Society of Emergency Surgery will be promoting a World Registry of foregut caustic injuries ([www.clinicalregisters.org](http://www.clinicalregisters.org)). This could be useful to collect a homogeneous data-base for prospective clinical studies that may help improving the current clinical practice guidelines.

## References

1. Leape LL, Ashcraft KW, Scarpelli DG, Holder TM. Hazard to health-liquid lye. *N Engl J Med* 1971;284:578-81.
2. Kikendall JW. Caustic ingestion injuries. *Gastroenterol Clin North Am* 1991;20:847-57.
3. Contini S, Scarpignato C. Caustic injury of the upper gastrointestinal tract: a comprehensive review. *World J Gastroenterol* 2013;19:3918-30.
4. Chang JM, Liu NJ, Pai BC, et al. The role of age in predicting the outcome of caustic ingestion in adults: a retrospective analysis. *BMC Gastroenterol* 2011;11:72.
5. Sarfati E, Gossot D, Assens P, Celerier M. Management of caustic ingestion in adults. *Br J Surg* 1987;74:146-8.
6. Peracchia A, Bardini R, Bonavina L, et al. Lesioni da caustici dell'esofago. Esperienza su 143 casi osservati. *Chirurgia* 1989;2:1-6.
7. Cabral C, Chirica M, de Chaisemartin C, et al. Caustic injuries of the upper digestive tract: a population observational study. *Surg Endosc* 2012;26:214-21.
8. Chirica M, Bonavina L, Kelly MD, Sarfatti E, Cattani P. Caustic

- ingestion. *Lancet* 2016 (In press).
9. Cattan P, Munoz Bongrand N, Berney T, Halimi B, Sarfati E, Celestrier M. Extensive abdominal surgery after caustic ingestion. *Ann Surg* 2000;519-23.
  10. Landen S, Wu MH, Jeng LB, Delugelau V, Launois B. Pancreaticoduodenal necrosis due to caustic burn. *Acta Chir Belg* 2000; 100:205-9.
  11. Munoz-Bongrand N, Cattan P, de Chaisemartin C, Bothereau H, Honigman I, Sarfati E. Extensive digestive caustic burns: what are the limits for resection? A series of 12 patients. *Ann Chir* 2003;128:373-8.
  12. Lefrancois M, Gaujoux S, Resche-Rigon M, et al. Oesophagogastratomy and pancreaticoduodenectomy for caustic injury. *Br J Surg* 2011; 98:983-90.
  13. Sarfati E, Jacob L, Servant JM, et al. Tracheobronchial necrosis after caustic ingestion. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1992;103:412-3.
  14. Chiba S, Brichkov I. Pulmonary patch repair of tracheobronchial necrosis with perforation secondary to caustic ingestion. *Ann Thorac Surg* 2014; 97:2205-7.
  15. Benjamin B, Agueb R, Vuarnesson H, et al. Tracheobronchial necrosis after caustic injury. *Ann Surg* 2016;263:808-13.
  16. Zargar SA, Kochhar R, Mehta S, Mehta SK. The role of fiberoptic endoscopy in the management of corrosive ingestion and modified endoscopic classification of burns. *Gastrointest Endosc* 1991; 37:165-9.
  17. Andreoni B, Farina ML, Biffi R, Crosta C. Esophageal perforation and caustic injury: emergency management of caustic ingestion. *Dis Esophagus* 1997;10:95-100.
  18. Cheng HT, Cheng CL, Lin CH, et al. Caustic ingestion in adults: the role of endoscopic classification in predicting outcome. *BMC Gastroenterology* 2008;8:31.
  19. Ryu HH, Jeung KW, Lee BK, et al. Caustic injury: can CT scan grading system enable prediction of esophageal stricture? *Clin Toxicol* 2010;48:137-42.
  20. Zerbib P, Voisin B, Truant S, et al. The conservative management of severe caustic gastric injuries. *Ann Surg* 2011;253:684-8.
  21. Gornet JM. Pris en charge en urgence des brûlures digestives par caustiques. *Acta Endosc* 2012;42:81-3.
  22. Bonnici KS, Wood DM, Dargan PI. Should computerised tomography replace endoscopy in the evaluation of symptomatic ingestion of corrosive substances? *Clin Toxicol* 2014;52:911-25.
  23. Park KS. Evaluation and management of caustic injuries from ingestion of acid or alkaline substances. *Clin Endosc* 2014 ;47 :301 -7.
  24. Chirica M, Resche-Rigon M, Munoz Bongrand N, et al. Surgery for caustic injuries of the upper gastrointestinal tract. *Ann Surg* 2012;256:994-1001.
  25. Chirica M, Resche-Rigon M, Pariente B, et al. Computed tomography evaluation of high-grade esophageal necrosis after corrosive ingestion to avoid unnecessary esophagectomy. *Surg Endosc* 2015;29:1452-61.
  26. Bonavina L, Chirica M, Skrobic O, et al. Foregut caustic injuries: results of the world society of emergency surgery consensus conference. *World J Emerg Surg* 2015;10:44.
  27. OCEBM Levels of Evidence Working Group. The Oxford 2011 levels of evidence. <http://www.cebm.net/index.aspx?o=5653> .
  28. Chirica M, Resche-Rigon M, Zagdanski AM, et al. Computed tomography evaluation of esophagogastric necrosis after caustic ingestion. *Ann Surg* 2016 (In press).
  29. Ribet M, Chambon JP, Pruvot FR. Oesophagectomy for severe corrosive injuries: is it always legitimate? *Eur J Cardio-Thorac Surg* 1990;4:347-50.
  30. Kluger Y, Ben Ishay O, Sartelli M, et al. Caustic ingestion management: world society of emergency surgery preliminary survey of expert opinion. *World J Emerg Surg* 2015;10:48.



# Radiologie interventionnelle de l'ostéolyse maligne

## Interventional Radiology in Bone Metastases

J Chiras, E Cormier, F Clarencon

*Service de neuroradiologie interventionnelle - Groupe Hospitalier Pitié-Salpêtrière - 47-83, boulevard de l'Hôpital, 75013 Paris. Faculté de Médecine Paris VI.*

### Mots clés

- ◆ Vertébroplastie
- ◆ Métastase osseuse
- ◆ Chimioembolisation
- ◆ Cimentoplastie
- ◆ Radiofréquence
- ◆ Cryothérapie

### Résumé

La radiologie interventionnelle prend une place de plus en plus importante dans la prise en charge des métastases osseuses.

En effet, les différents procédés techniques percutanées qu'elle utilise, ou endovasculaires permettent de traiter de manière simple et sans immobilisation prolongée des patients dont l'état est parfois précaire.

Ainsi, la vertébroplastie permet de stabiliser les métastases du corps vertébral, réduisant la douleur et améliorant la qualité de vie des patients.

Du fait de son succès, cette technique a été étendue aux métastases du bassin ou des têtes humérales. Enfin la mise au point de technique de cimentoplastie renforcée permet actuellement de consolider des lésions autrefois inaccessibles à la radiologie interventionnelle. Si la cimentoplastie entraîne une destruction tumorale par effet carcinolytique lié à l'hyperthermie dégagée lors de la polymérisation du ciment, la technique de radiofréquence qui, dans certains cas, peut lui être associée permet, par un moyen d'introduction percutané, une destruction tumorale complète et tend à remplacer les anciennes techniques de destruction par alcoolisation.

En revanche, les techniques endovasculaires ont un intérêt plus limité. L'embolisation préopératoire reste de mise dès lors que l'on doit traiter chirurgicalement une lésion hypervasculaire. Elle est moins utilisée à titre palliatif pour supprimer les douleurs locales car on lui préfère actuellement la chimio-embolisation qui allie à la fois l'antalgie liée à l'embolisation et l'efficacité anti-tumorale d'une chimiothérapie sélective.

Ces différents procédés devraient encore se développer dans les prochaines années.

### Keywords

- ◆ Vertebroplasty
- ◆ Bone metastasis
- ◆ Chimioembolization
- ◆ Cementoplasty
- ◆ RF ablation
- ◆ Cryotherapy

### Abstract

Interventional radiology takes a large place in the treatment of bone metastases by various techniques, percutaneous or endovascular.

Vertebroplasty appears actually as the most important technique for stabilisation of spine metastases as it induces satisfactory stabilisation of the vertebra and offer clear improvement of the quality of life.

Due to the success of this technique cementoplasty of other bones, mainly pelvic girdle, largely develop. The development of reinforced cementoplasty allows to treat prefractural osteolysis of some long bones. The health due to the polymerisation of the cement induce carcinolytic effect but this effect is not as important as that can be created with radiofrequency destruction. This last technique appears actually as the most important development to destroy definitively some bone metastases and replace progressively per cutaneous alcoholic destruction of such lesions.

Angiographic techniques appear more confidential but endovascular embolization is very useful to diminish the risk of surgical treatment of hyper vascular metastases. Chemoembolization is actually developed to associate the relief of pain induced by Endovascular embolization and the carcinolytic effect obtained by local endovascular chemotherapy.

All these techniques should develop largely during the next years.

Le traitement local des métastases osseuses est fondamental pour améliorer le pronostic fonctionnel de patients dont l'espérance de vie s'allonge. Le développement de nouvelles techniques de radiologie interventionnelle durant ces dernières années a permis de modifier considérablement cette prise en charge locale.

Chaque technique de radiologie interventionnelle a ses indications propres, dans la prise en charge antalgique, à visée consolidatrice ou carcinologique de la tumeur. Aussi ces indications doivent-elles être discutées au sein de réunions de con-

certation multidisciplinaires, associant chirurgiens orthopédistes, radiologues interventionnels, radiothérapeutes et oncologues.

Les techniques s'articulent autour de deux objectifs : consolidation osseuse et destruction tumorale.

La cimentoplastie (ou la vertébroplastie) est la technique de consolidation de référence. Récemment ont été développées des techniques de cimentoplastie renforcée qui repoussent les limites des indications de cette technique.

### Correspondance :

*Service de neuroradiologie interventionnelle - Groupe Hospitalier Pitié-Salpêtrière - 47-83, bd de l'Hôpital, 75013 Paris. Faculté de Médecine Paris VI.*

*Tel : 01 42 16 35 10 / Fax : 01 42 16 35 15 / E-mail : jacques.chiras@aphp.fr*

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000

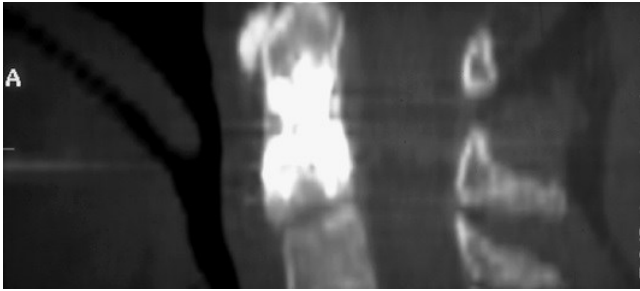


Figure 1. Métastases de cancer du sein. Lésion ostéolytique vertébroplastie cervicale.

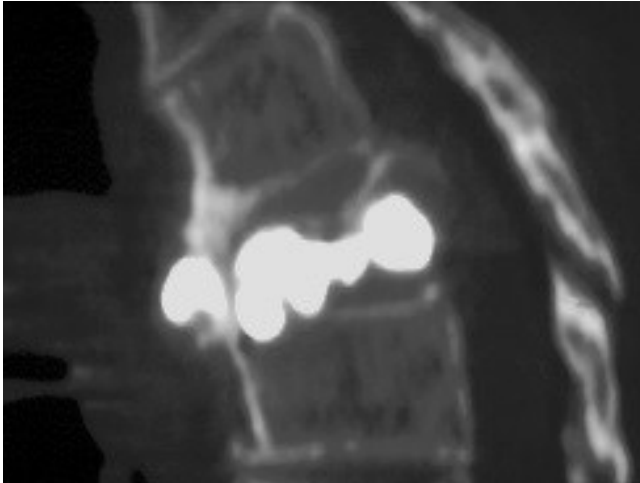


Figure 2. Métastases de cancer du sein. Fracture vertébrale importante. Rupture du mur postérieur. Importantes douleurs locales  
A. Scanner préopératoire.

Les techniques de destruction sont plus nombreuses. Il s'agit essentiellement de techniques de destruction thermique (destruction par radiofréquence Cryo-ablation voir cimentoplastie). Les techniques de destruction chimique (alcool) ou médicamenteuse (chimio embolisation) sont d'indication plus rare.

Lors de traitements non curateurs, cas le plus fréquent, la stratégie thérapeutique dépendra non seulement des possibilités techniques mais également de l'état clinique du patient, de son espérance de vie et de l'objectif recherché, qu'il s'agisse de stabilisation osseuse, de destruction tumorale ou d'effet antalgique simple.

L'ensemble de ces techniques nécessite des conditions de réalisation et d'accompagnement du geste percutané adaptées :

- Un environnement anesthésique, permettant une surveillance étroite per et post-procédure.



Figure 3. Cancer du rein. Métastases ostéolytiques. Indication de consolidation pour prévenir rupture venue d'une fracture tassement.

- Une salle de radiologie interventionnelle conforme aux règles de Neuroradiologie Interventionnelle (norme ISO 6) avec arceau de scopie, capteur-plan, iso centrée permettant la réalisation rapide de contrôles dans toutes les incidences, en particulier de face et de profil, mais également des acquisitions rotationnelles volumiques.

Ces conditions permettant un contrôle optimal de la procédure et limitant considérablement le risque de complication.

## Techniques percutanées

Les techniques percutanées se sont développées dans les vingt dernières années et ont pris rapidement une place essentielle dans l'arsenal thérapeutique de la pathologie cancéreuse en général, et dans le traitement des MO en particulier. Il s'agit essentiellement de la vertébroplastie, initialement développée pour stabiliser une vertèbre métastatique et, par cet effet, obtenir une sédation douloureuse. La technique de cimentoplastie a par la suite été étendue à de nombreuses autres localisations osseuses. D'autres techniques, telles que l'embolisation percutanée et surtout la radiofréquence ou la cryothérapie, présentent un intérêt dans le traitement des MO de par les possibilités de destruction tumorale qu'elles apportent. Enfin récemment la cimentoplastie renforcée a permis d'étendre ce type de geste de consolidation aux lésions atteignant les os longs.

## Techniques de consolidation

### Vertébroplastie

Ce procédé le plus connu consiste à injecter sous contrôle radiologique, au moyen de trocarts introduits par voie percutanée dans la vertèbre, du ciment PMMA dédiée de manière à consolider le corps vertébral (1). Ce geste permet ainsi d'obtenir dans la majorité des cas une stabilisation vertébrale et par voie de conséquence une rémission douloureuse.

L'abord du corps vertébral est réalisé sous contrôle radiologique en salle de radiologie interventionnelle numérisée, permettant un contrôle de face et de profil de la vertèbre à trai-

ter. Ce geste est réalisé sous sédation anesthésique par voie antérolatérale au niveau cervical (Fig 1), transpédiculaire dans tous les cas où cela est possible au niveau thoracique ou lombaire, postéro-latérale lorsqu'une lyse pédiculaire ou la présence de matériel chirurgical contre-indiquent la voie d'abord pédiculaire. Au cours du geste, une biopsie coaxiale doit être le plus souvent réalisée afin d'évaluer l'activité tumorale chez les patients sous traitement antimitotique ou pour mettre en évidence une éventuelle modification du statut des récepteurs tumoraux. L'injection de ciment est contrôlée de façon continue par fluoroscopie ; en post-opératoire immédiat un scanner de contrôle de la vertèbre est réalisé pour vérifier la répartition du ciment et l'absence de fuite extra-vertébrale (2) qui pourrait être source de complications.

### Indications

Initialement utilisée pour obtenir un effet antalgique en cas d'échec ou de récurrence des douleurs après un traitement local (chirurgie ou radiothérapie). La vertébroplastie prend une part de plus en plus importante dans le traitement des métastases dès leur découverte. Son efficacité peut être attribuée en premier lieu à la consolidation du corps vertébral par le ciment induisant une réduction des douleurs mécaniques liées à la métastase, mais également à une destruction des cellules métastatiques. En effet, certains auteurs ont montré que la polymérisation du ciment était responsable d'une nécrose tissulaire dans un périmètre de plusieurs millimètres (3).

L'origine de cet effet anti-tumoral reste controversée et pourrait être liée à la libération de monomères cytotoxiques lors de la phase de polymérisation, mais il est, plus probablement, en rapport avec l'hyperthermie locale générée lors de la polymérisation du ciment (70-80°C). Cette hyperthermie reste limitée à la vertèbre ce qui explique que la vertébroplastie n'a pas d'efficacité sur l'envahissement péri-vertébral.

Enfin, l'atteinte du mur postérieur et une destruction vertébrale importante ne sont pas des contre-indications à la réalisation d'une vertébroplastie (Fig 2), mais nécessitent une expérience particulière de l'opérateur. L'existence d'une compression médullaire avec signes neurologiques ou d'une épidurite importante doit faire préférer une autre option thérapeutique comme le traitement chirurgical ou la radiothérapie (4). Une vertébroplastie pouvant être secondairement réalisée en complément de ces actes

Actuellement, on pose l'indication d'une vertébroplastie dans deux circonstances principales :

- **Récidive ou persistance de douleurs après traitement local par radiothérapie associé ou non à la chirurgie.** Dans ces cas, la douleur est habituellement d'origine mécanique et la vertébroplastie permettra d'obtenir un effet antalgique important dans la majorité des cas, du fait de la consolidation du corps vertébral (Fig 1).
- **Métastases vertébrales non traitées antérieurement :** la vertébroplastie apparaît actuellement comme un traitement local de premier plan au même titre que la radiothérapie. Ces deux procédés peuvent être utilisés indépendamment ou en association ; le choix thérapeutique dépendant du degré de radiosensibilité de la lésion. Il est important de noter que la vertébroplastie permet de stabiliser la vertèbre et souvent d'obtenir très rapidement un effet antalgique. Elle apparaît donc particulièrement indiquée en cas de métastases lytiques instables non chirurgicales ou hyperalgiques (Fig 3).

### Résultats

L'effet antalgique est obtenu très rapidement, en règle dans les 24H qui suivent le geste de vertébroplastie.

L'efficacité antalgique a été évaluée par différents auteurs (5,6). Elle est de l'ordre de 90 %, dont 60 à 70 % de sédations douloureuses complètes.

La stabilisation et la rémission douloureuse obtenues permettent habituellement de réduire considérablement les doses

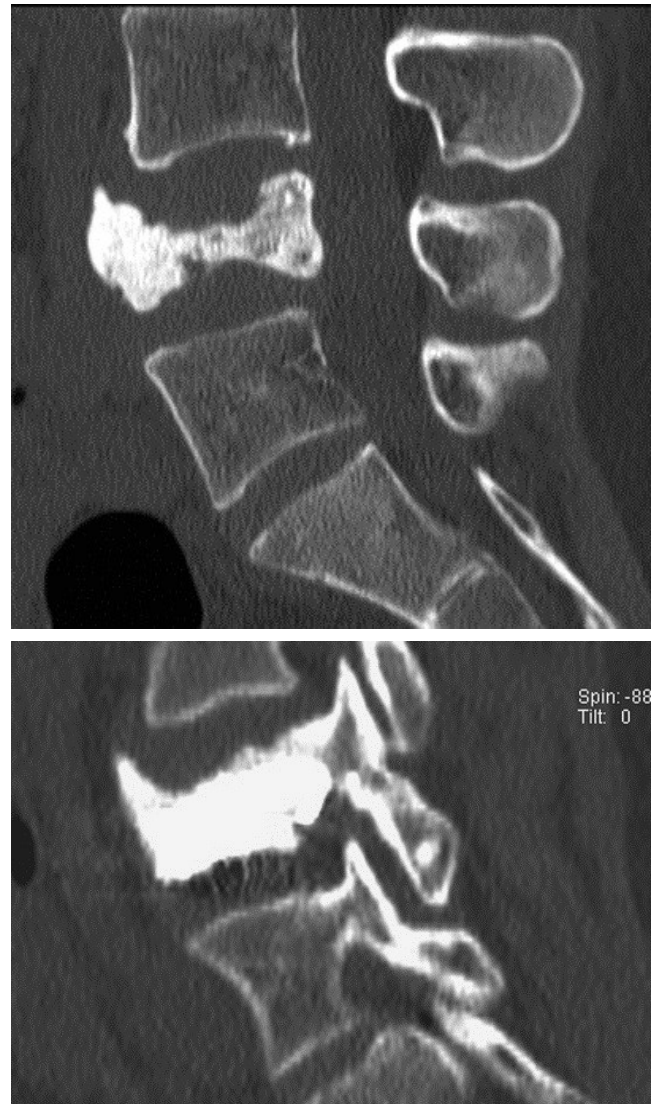


Figure 4. Cancer du sein. Métastases condensantes. Radiothérapie douleurs locales mécaniques.  
B. Scanner post-vertebroplastie excellent effet antalgique.

d'antalgiques et d'améliorer de manière très significative la qualité de vie, en particulier en redonnant une autonomie de déplacement et de mouvements.

Si de tels résultats ont été surtout décrits pour les métastases ostéolytiques, la vertébroplastie est également efficace, avec un effet antalgique similaire, dans les métastases ostéosclérotiques (Fig 4) ou mixtes. Néanmoins, dans ce cas, la réalisation du geste est beaucoup plus délicate et le risque de complications locales plus élevé que dans les lésions ostéolytiques (7).

Les complications générales sont rares et sont représentées principalement par les fuites dans l'arbre artériel pulmonaire (non rares, mais exceptionnellement symptomatiques) (8).

Les complications locales sont directement en rapport avec une fuite de ciment dans les veines péri-vertébrales, dans les disques intervertébraux, dans les parties molles ou, dans le canal rachidien. La plupart de ces fuites sont asymptomatiques mais dans certains cas, en particulier lors de fuites intra-canalaires, elles peuvent être responsables de complications neurologiques. Si une compression médullaire est tout à fait exceptionnelle dans des conditions adaptées de réalisation du geste (salle de radiologie interventionnelle avec équipement de scopie de bonne qualité), une douleur radiculaire peut être observée (1,5 %) (8), liée au contact entre une racine nerveuse et un fragment de ciment. La plupart de ces



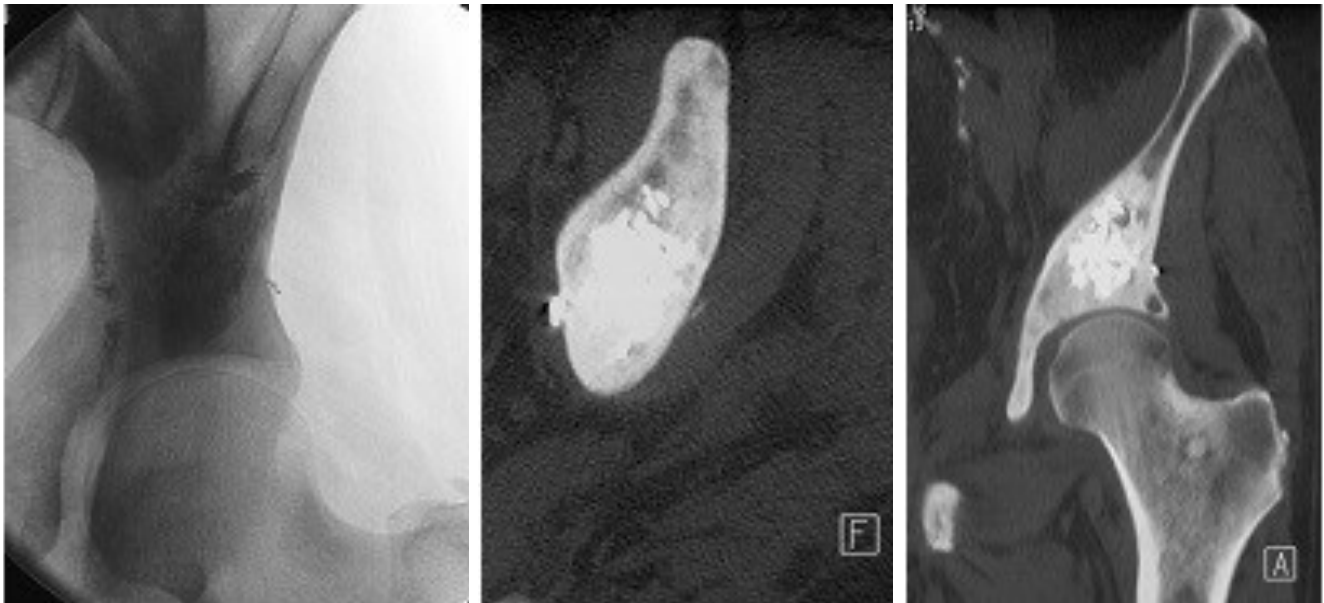


Figure 5. Métastase mixte lytique et condensante du cotyl gauche Cancer du sein. Importantes douleurs locales. Consolidation par cimentoplastie avec excellent résultats antalgique.

radiculgies sont régressives spontanément mais elles peuvent nécessiter un traitement propre : infiltration ou libération radiculaire chirurgicale. Comme précédemment, évoqué, l'atteinte du mur postérieur de la vertèbre ne contre-indique pas la vertébroplastie s'il n'y a pas d'atteinte neurologique déficitaire (7,10).

Il est également important de souligner que l'effet antalgique apparaît prolongé dans le temps, ce qui est vraisemblablement en rapport avec la nécrose tumorale induite par le ciment, soulignant l'apport essentiel de la vertébroplastie dans le maintien à long terme de la qualité de vie chez les patients présentant des métastases osseuses symptomatiques.

Une étude récente portant sur les MO du cancer du sein traitées par vertébroplastie a montré que les récurrences locales après vertébroplastie étaient rares (14 %) alors que les progressions de la maladie tumorale sur d'autres sites osseux étaient observées dans 86 % des cas ; ceci indépendamment de l'association à la vertébroplastie d'un traitement par radiothérapie (11). Ceci confirme l'effet carcimolytique de la vertébroplastie

### Cimentoplastie non vertébrale

La technique de cimentoplastie a progressivement été étendue à d'autres localisations métastatiques dès lors qu'il existait

une nécessité de stabilisation (12). Les principales indications concernent la stabilisation du cotyle (13-15), du sacrum (16), de la tête humérale, voire des régions intertrochantériennes. La technique est la même que celle employée pour la vertébroplastie ; le geste est réalisé en salle de radiologie interventionnelle avec mise en place du ou de(s) trocart(s) sous contrôle radiologique (scopique ou scanner) et injection radioguidée du ciment dans la lésion.

### Plasties cotyloïdiennes (cotyloplasties) et plasties du bassin

Les lésions secondaires du cotyle sont souvent hyper-algiques et exposent à un risque de fracture dans la mesure où cette région anatomique est une zone portante. Aussi, la cimentoplastie permet-elle d'obtenir un effet antalgique et une consolidation osseuse prévenant ce risque fracturaire (14) (Fig 6) Comme pour la vertébroplastie, le résultat antalgique est très bon. Ainsi, une amélioration des douleurs est-elle observée dans plus de 80 % (15) après une cotyloplastie. D'un point de vue fonctionnel, la plastie cotyloïdienne permet une reprise rapide de la marche, dans les 24h suivant le geste.

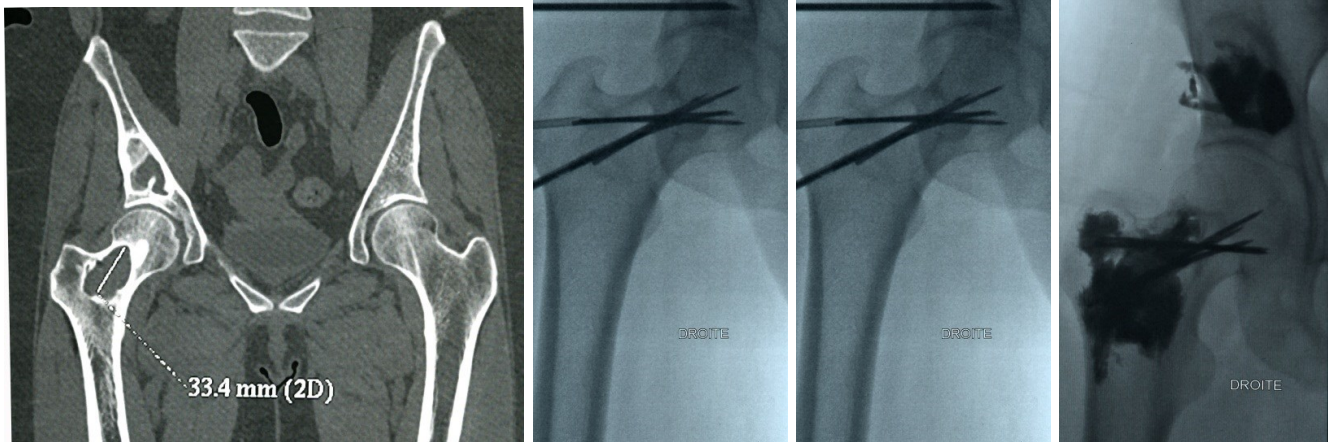
Le risque spécifique de la cotyloplastie est principalement la migration de ciment dans l'interligne articulaire avec atteinte fonctionnelle de l'articulation coxo-fémorale ; risque qui est



Figure 6. Cancer du sein. Volumineuse lésion ostéolytique du sacrum  
A. Clichés pré-cimentoplastie abord trans lyaque.

B. Résultat post-cimentoplastie remplissage subtotale de la lésion lytique.

Figure 7. Cimentoplastie renforcée du fémur. Métastase bipolaire de cancer du sein lyse du cotyl du col fémoral. B et C. Mise en place d'aiguilles au niveau du col fémoral et du cotyl, puis de broche au niveau du col fémoral. D. Contrôle après cimentoplastie renforcée du col fémoral et cimentoplastie du cotyl gauche.



augmenté lors de la présence d'une effraction importante de la corticale articulaire.

Plusieurs autres régions du bassin peuvent également bénéficier de la cimentoplastie dans le cadre de lésions secondaires hyperalgiques (18). Parmi ces localisations, on retiendra principalement l'aile iliaque ainsi que les branches ilio et ischio-pubiennes (17).

#### Plasties sacrées (sacroplasties)

La plastie sacrée est un geste techniquement difficile du fait de la forme du sacrum, qui s'apparente à un coquillage et du fait de possibles difficultés à bien individualiser les forams sacrés en scopie. Plusieurs voies d'abord peuvent être utilisées ; principalement la voie postérieure et la voie trans-sacro-iliaque (16) (Fig 6).

L'efficacité antalgique rapportée après sacroplastie est d'environ 85 % (16). Une étude récente a montré que la sacroplastie permettait en moyenne une réduction des douleurs de 4 points sur l'EVA. Il a été également montré que la sacroplastie permettait une réduction significative de la consommation d'antalgiques, notamment d'opiacés (24). Enfin, les résultats en terme fonctionnel sont très intéressants, avec une amélioration de la marche dans 80 % des cas (16).

Les risques spécifiques de la sacroplastie sont principalement les fuites canalaire ou au niveau d'un foramen sacré. Les migrations de ciment dans le canal sacré, comme pour la vertébroplastie, sont exceptionnelles. En revanche, la fuite d'un fragment de ciment dans un foramen sacré est plus fréquente et expose à la compression d'une racine sacrée pouvant être responsable de la survenue d'une sciatalgie (16).

#### Plasties scapulaires

Les lésions secondaires de la scapula entraînent une symptomatologie douloureuse lors des mouvements. La chirurgie en est compliquée, la cimentoplastie représente une option thérapeutique intéressante (19,20). Ces lésions sont la plupart du temps volumineuses, et ne peuvent souvent pas être remplies complètement par le ciment injecté. Néanmoins, comme cela a été montré pour la vertébroplastie des métastases rachidiennes (5), même un remplissage incomplet par le ciment PMMA entraîne un effet antalgique significatif.

#### Plasties humérales

La cimentoplastie est une alternative valable à la chirurgie ouverte pour le traitement des MO de l'extrémité proximale de l'humérus, même si son efficacité n'a pas fait, à ce jour, l'objet d'étude sur une série de patients et n'a été rapportée qu'à travers de courtes séries (12). Le risque spécifique de ce type de cimentoplastie au niveau de la tête humérale est la fuite de ciment dans l'articulation scapulo-humérale, poten-

tiellement source d'impotence fonctionnelle. Certains auteurs ont proposé, pour les métastases inopérables, la cimentoplastie des diaphyses humérales métastatiques (22). Néanmoins, celle-ci n'élimine pas le risque fracturaire et constitue plutôt une indication à cimentoplastie renforcée.

#### Plasties fémorales

Les MO de la partie proximale du fémur, principalement celles pré-fracturaires, sont une bonne indication de cimentoplastie. L'efficacité antalgique est bonne avec une baisse moyenne de l'EVA rapporté de 5,5 points (21). Le lever et l'appui peuvent se faire dès le lendemain de l'intervention. Néanmoins, il a été montré que cette technique n'était pas adaptée aux lésions responsables d'une lyse corticale de plus de 30 mm ou quand il existait un antécédent de fracture du petit trochanter (22). En effet, le risque fracturaire est élevé dans ces cas de figure, malgré la cimentoplastie. Les lésions diaphysaires ne sont la plupart du temps pas éligibles à la cimentoplastie car celle-ci ne prévient pas le risque fracturaire. Enfin, on rappellera que, pour augmenter les chances de destruction tumorale, la cimentoplastie peut être précédée d'une radiofréquence percutanée (23,24).

Les indications de plastie simple sont donc limitées aux lésions du grand trochanter, les lésions s'étendant sur le col ou la région intertrochanterienne devant être traitées par cimentoplastie renforcée.

#### Cimentoplastie renforcée

En effet comme nous l'avons évoqué ci-dessus, pour les zones soumises à de fortes contraintes mécaniques, notamment celles en torsion comme au niveau des os longs (diaphyses fémorale et humérale), un traitement par cimentoplastie renforcée devra être préféré pour assurer une consolidation plus durable.

Le ciment acrylique (PMMA) a une résistance satisfaisante en compression, mais insuffisante lors de contraintes en torsion ou flexion. La technique dite de « cimentoplastie renforcée » consiste à positionner des broches métalliques d'ostéosynthèse par voie percutanée, puis d'injecter du ciment PMMA autour de ces broches. Cette technique permet d'augmenter la résistance aux contraintes de torsion et de flexion. Cette méthode présente tout son intérêt pour la consolidation des métastases des os longs, que ce soit au niveau de la métaphyse ou de la diaphyse, mais également des épiphyses et en particulier au niveau du col fémoral, et permet d'éviter ainsi un geste chirurgical (prothèse) plus lourd et nécessitant une fenêtre d'interruption du traitement oncologique. (Fig 7)

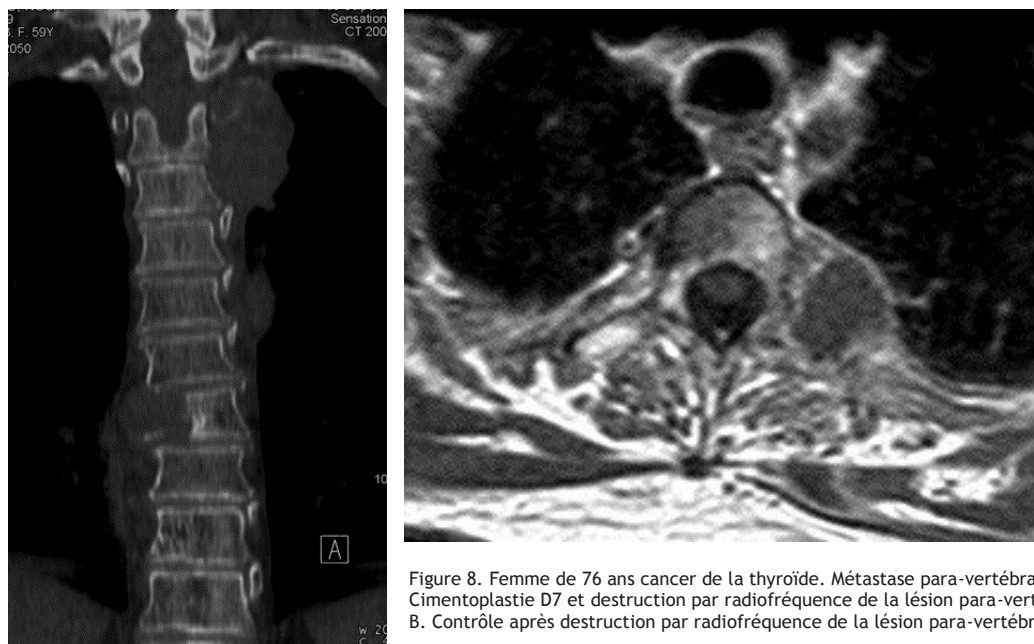


Figure 8. Femme de 76 ans cancer de la thyroïde. Métastase para-vertébrale gauche en D2 et lyse de D7. Cimentoplastie D7 et destruction par radiofréquence de la lésion para-vertébrale. B. Contrôle après destruction par radiofréquence de la lésion para-vertébrale gauche.

### Technique de destruction tumorale

Ces techniques percutanées ont été développées pour induire une nécrose tumorale dès lors que l'objectif principal n'était pas de stabiliser l'os mais de détruire une tumeur non contrôlée par le traitement oncologique et inaccessible aux autres procédés thérapeutiques locaux ou simplement douloureux.

#### Embolisation percutanée

Développée il y a de nombreuses années pour obtenir une nécrose tumorale. Elle consiste à mettre en place au sein de la métastase par un abord percutané habituellement sous scanner d'une ou plusieurs aiguilles pour injecter de l'alcool à 98 % mélangé à un opacifiant permettant d'obtenir ainsi une nécrose chimique. Cette destruction tumorale réduit l'hyperpression sur les terminaisons nerveuses à la périphérie de la tumeur et permet d'obtenir un effet antalgique quasi immédiat et souvent très important. La durée de cet effet antalgique est variable mais habituellement ne dépasse pas trois à cinq mois (25). On lui préfère actuellement les techniques de destruction par radiofréquence ou cryo-ablation d'effet plus durable.

#### Radiofréquence percutanée

Cette technique a été mise au point pour obtenir la destruction tumorale de lésions hépatiques. Son utilisation s'est progressivement étendue au traitement des lésions osseuses : la mise en place d'une sonde de radiofréquence au centre de la lésion permet d'obtenir la destruction tumorale souvent complète par l'hyperthermie qu'elle induit. Elle ne permettra pas en revanche d'obtenir une stabilisation osseuse et dès lors que celle-ci s'avère nécessaire, elle doit être remplacée par la cimentoplastie ou lui être associée (24) (Fig 8).

Enfin, il faut souligner que l'hyperthermie au contact des éléments nerveux peut être responsable de complications neurologiques algiques ou déficitaires qui limitent son intérêt dans la prise en charge des métastases vertébrales.

#### Cryoablation

La cryoablation vise à détruire la tumeur par congélation des tissus (33). La congélation est obtenue par l'introduction d'une sonde placée sous contrôle radiologique au centre de la tumeur. Le dispositif de cryo-ablation génère une température de  $-100^{\circ}\text{C}$  à l'extrémité de la sonde par circulation d'ar-

gon. Dès  $-20^{\circ}\text{C}$ , on observe une mort cellulaire secondaire à une dénaturation protéique et à une perte de l'intégrité des membranes cellulaires. Si l'emploi de la cryothérapie en chirurgie est ancienne, son extension aux techniques percutanées est plus récente (26). D'un usage relativement répandu pour le traitement des lésions tumorales hépatiques, son utilisation pour le traitement des lésions osseuses est récente (27). Ses principaux avantages sont une bonne visualisation du volume détruit en contrôle scanner et l'indépendance de son efficacité vis-à-vis des tissus traversés (MO lytique ou condensante). D'autre part, son effet antalgique propre rend plus aisé la réalisation de la procédure sous sédation légère. Les principales limites à son utilisation restent la longueur de la procédure le coût du matériel (28), et la difficulté de l'association à une cimentoplastie dans le même temps opératoire.

### Techniques endovasculaires

L'embolisation endovasculaire a été développée durant les 30 dernières années pour réduire le saignement peropératoire, en particulier dans l'exérèse de lésions hypervasculaires (cancers du rein, de la thyroïde). Parallèlement, son intérêt pour provoquer une nécrose tumorale et par ce biais obtenir un effet antalgique a été rapporté (29).

Sur cette base, certains auteurs, encouragés par le succès de l'embolisation, ont développé des techniques de perfusion intra-artérielle d'antimitotiques ou de chimio embolisation qui associent chimiothérapie intra-artérielle et embolisation hypersélective (30).

#### Embolisation endovasculaire

##### Technique

Elle consiste à injecter aussi distalement que possible dans les artères alimentant la tumeur des matériaux d'embolisation pour obtenir une dévascularisation tumorale puis une nécrose tumorale.

Différents agents d'embolisation ont été utilisés : microparticules calibrées (*polyvinyl alcohol* [PVA], Embosphère®) ou agents liquides (alcool absolue, colle biologique). Si les agents liquides permettent d'obtenir une dévascularisation définitive, ils restent peu utilisés car ils nécessitent une injection au sein de la lésion tumorale pour éviter une nécrose tissulaire extensive.

Avec des particules la dévascularisation est d'autant plus importante et distale que les particules utilisées sont de petit



calibre (100 à 300  $\mu\text{m}$ ) mais l'utilisation de telles particules accroît également le risque de nécrose des tissus adjacents à la lésion tumorale.

Quoi qu'il en soit, entre des mains entraînées, les complications sont exceptionnelles. Mais lors d'embolisations de masses tumorales volumineuses, un syndrome post-embolisation associant fièvre et douleurs locales peut être observé dans les suites opératoires ; il régresse habituellement dans les 15 jours.

Les deux principales indications de l'embolisation endovasculaire sont la dévascularisation préopératoire d'une lésion tumorale ou l'embolisation antalgique chez des patients dont les douleurs sont difficilement contrôlables par les antalgiques usuels.

Différents auteurs ont rapporté l'intérêt de l'embolisation palliative chez des patients présentant une métastase osseuse inopérable chimio-résistante et difficilement contrôlable par les antalgiques classiques (29).

Si l'effet antalgique est quasi constant, sa durée est très variable de 3 semaines à 8 mois et dépend de l'agressivité de la tumeur.

Actuellement, on la préfère à la chimio-embolisation.

### Chimio-embolisation

L'association à l'embolisation à l'aide de microparticules d'une perfusion d'antimitotiques ou plus récemment l'utilisation de microparticules chargées en antimitotiques est un progrès considérable dans la prise en charge de certaines lésions osseuses métastatiques.

En effet, dans certains cas, cette technique permet de traiter des lésions osseuses uniques ou prévalentes, préalablement irradiées, inopérables et échappant au traitement médical. Le principe est celui d'une embolisation endovasculaire, associée à une infusion locale par voie intra-artérielle de produits anti-mitotiques, ce qui permet de multiplier par 20 à 40 fois leur efficacité anti-tumorale. Les doses d'antimitotiques sont relativement faibles (300 à 400 mg de carboplatine et 10 mg d'Adriamycine), ce qui est habituellement insuffisant pour entraîner une toxicité générale. En revanche, au contact des racines, ces doses élevées d'antimitotiques peuvent être responsables d'une toxicité nerveuse, en particulier au niveau du bassin.

Quoi qu'il en soit, une réponse partielle ou complète est observée dans 50 à 70 % des cas et cette méthode s'avère souvent efficace dans la prise en charge des métastases prévalentes non accessibles aux autres traitements locaux (30).

Outre la destruction tumorale, cette chimio-embolisation permet dans certains cas d'obtenir une reconstruction osseuse en cas de métastases ostéolytiques invalidantes (Fig 9).

Enfin, la chimio-embolisation peut être associée à une destruction osseuse par cimentoplastie dans certaines lésions destructrices, en particulier au niveau du bassin.

### Conclusion

Le développement de ses nouvelles techniques mini invasives de radiologie interventionnelle, l'amélioration de leur sécurité d'utilisation permet de traiter plus précocement les métastases osseuses sans interférence avec le traitement oncologique, ce qui diminue le risque fonctionnel et améliore considérablement le pronostic fonctionnel et la qualité de vie dont l'espérance de vie est parfois très longue.

### Références

1. Chiras J, Depriester C, Weill A, Sola-Martinez MT, Deramond H. Percutaneous vertebral surgery. Techniques and indications. *Journal of neuroradiology*. 1997;24:45-59.
2. Nieuwenhuijse MJ, Van Erkel AR, Dijkstra PD. Cement leakage in

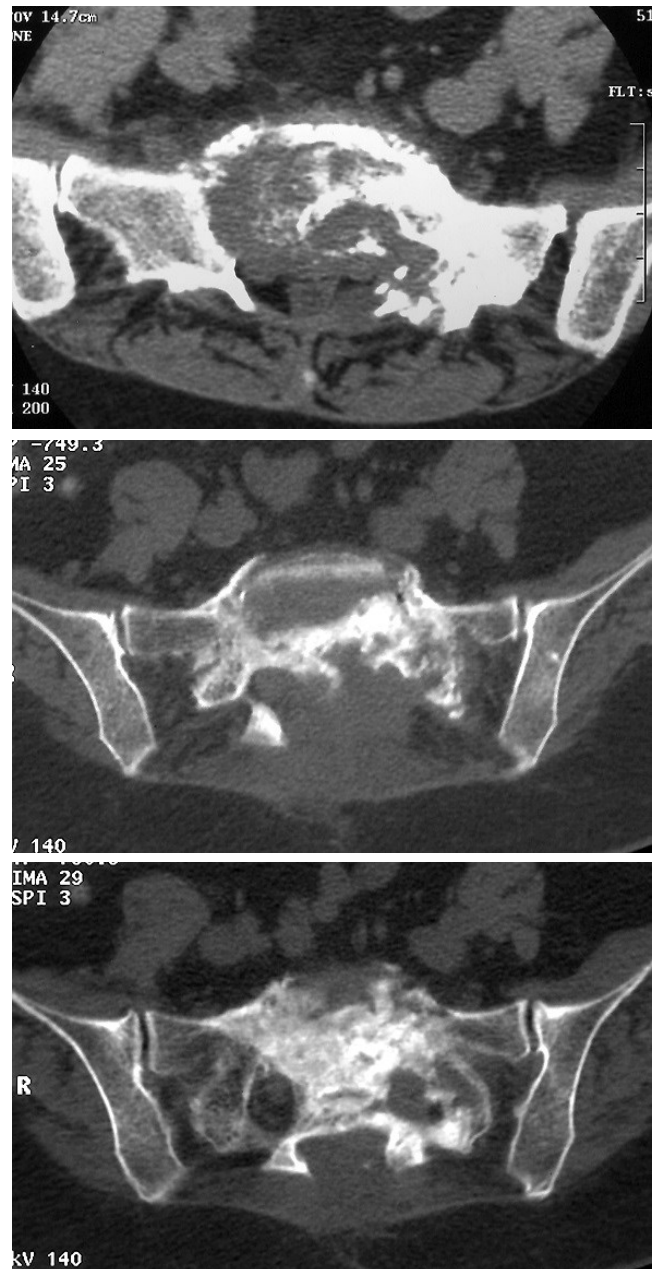


Figure 9. Cancer de l'utérus. Récidive après chirurgie et radiothérapie. Importantes douleurs locales.

C. Construction osseuse et disparition des douleurs après 2 cures chimio-embolisation.

- percutaneous vertebroplasty for osteoporotic vertebral compression fractures: identification of risk factors. *The spine journal : official journal of the North American Spine Society*. 2011;11:839-48.
3. Radin EL, Rubin CT, Thrasher EL, Lanyon LE, Crugnola AM, Schiller AS, et al. Changes in the bone-cement interface after total hip replacement. An in vivo animal study. *The Journal of bone and joint surgery American volume*. 1982;64:1188-200.
4. Itshayek E, Or O, Kaplan L, Schroeder J, Barzilay Y, Rosenthal G, et al. Are they too old? Surgical treatment for metastatic epidural spinal cord compression in patients aged 65 years and older. *Neurological research*. 2014;36:530-43.
5. Weill A, Chiras J, Simon JM, Rose M, Sola-Martinez T, Enkaoua E. Spinal metastases: indications for and results of percutaneous injection of acrylic surgical cement. *Radiology*. 1996;199:241-7.
6. Cotton A, Dewatre F, Cortet B, Assaker R, Leblons D, Duquesnoy B, et al. Percutaneous vertebroplasty for osteolytic metastases and myeloma : effects of the percentage of lesion filling and leakage of methyl methacrylate at clinical follow-up. *Radiology*. 1999;200:525-30.

7. Chiras J, Clarencon F, Barragan H, Cormier E, Rose M. Percutaneous vertebroplasty in spinal metastases. *E-Mem Acad Natle Chir.* 2011;10(4):066-071.
8. Calmels V, Vallee JN, Rose M, Chiras J. Osteoblastic and mixed spinal metastases : evaluation of the analgesic efficacy of percutaneous vertebroplasty. *AJNR American journal of neuroradiology.* 2007;28:570-4.
9. Luetmer MT, Bartholmai BJ, Rad AE, Kallmes DF. Asymptomatic and unrecognized cement pulmonary embolism commonly occurs with vertebroplasty. *AJNR American journal of neuroradiology.* 2011;32:654-7.
10. Basile A, Cavalli M, Fiumara P, Di Raimondo F, Mundo E, Caltabiano G, et al. Vertebroplasty in multiple myeloma with osteolysis or fracture of the posterior vertebral wall. Usefulness of a delayed cement injection. *Skeletal radiology.* 2011;40:913-9.
11. Roedel B, Clarençon F, Touraine S, Cormier E, Molet-Benhamou L et al. Has Percutaneous Vertebroplasty a Role to Prevent Progression or Local Recurrence in Spinal Metastases of Breast Cancer? *Journal of neuroradiology.* 2014;In press.
12. Sun G, Jin P, Liu XW, Li M, Li L. Cementoplasty for managing painful bone metastases outside the spine. *European radiology.* 2014;24:731-7.
13. Karachalios T, Roidis N, Lampropoulou-Adamidou K, Hartofilakidis G. Acetabular reconstruction in patients with low and high dislocation: 20- to 32-year survival of an impaction grafting technique (named cotyloplasty). *The bone & joint journal.* 2013;95-B:887-92.
14. Cotten A, Demondion X, Boutry N, Cortet B, Chastanet P, Duquesnoy B, et al. Therapeutic percutaneous injections in the treatment of malignant acetabular osteolyses. *Radiographics : a review publication of the Radiological Society of North America, Inc.* 1999;19:647-53.
15. Pereira LP, Clarencon F, Cormier E, Rose M, Jean B, Le Jean L, et al. Safety and effectiveness of percutaneous sacroplasty: a single-centre experience in 58 consecutive patients with tumours or osteoporotic insufficient fractures treated under fluoroscopic guidance. *European radiology.* 2013;23:2764-72.
16. Weill A, Kobaiter H, Chiras J. Acetabulum malignancies: technique and impact on pain of percutaneous injection of acrylic surgical cement. *European radiology.* 1998;8:123-9.
17. Yamada K, Matsumoto Y, Kita M, Yamamoto K, Kohda W, Kobayashi T, et al. Clinical outcome of percutaneous osteoplasty for pain caused by metastatic bone tumors in the pelvis and femur. *Journal of anesthesia.* 2007;21:277-81.
18. Kelekis A, Lovblad KO, Mehdizade A, Somon T, Yilmaz H, Wetzel SG, et al. Pelvic osteoplasty in osteolytic metastases: technical approach under fluoroscopic guidance and early clinical results. *JVIR.* 2005;16:81-8.
19. Gupta AC, Chandra RV, Yoo AJ, Leslie-Mazwi TM, Bell DL, Mehta BP, et al. Safety and Effectiveness of Sacroplasty: A Large Single-Center Experience. *AJNR.* 2014;35:2202-6.
20. Choi HR, Lee PB, Kim KH. Scapulothoracic alleviates scapular pain resulting from lung cancer metastasis. *Pain physician.* 2010;13:485-91.
21. Sun G, Jin P, Li M, Lu Y, Ding J, Liu X, et al. Percutaneous cementoplasty for painful osteolytic humeral metastases: initial experience with an innovative technique. *Skeletal radiology.* 2011;40:1345-8.
22. Deschamps F, Farouil G, Hakime A, Barah A, Guiu B, Teriitehau C, et al. Cementoplasty of metastases of the proximal femur: is it a safe palliative option? *Journal of vascular and interventional radiology : JVIR.* 2012;23:1311-6.
23. Deschamps F, Farouil G, Hakime A, Teriitehau C, Barah A, de Baere T. Percutaneous stabilization of impending pathological fracture of the proximal femur. *Cardiovascular and interventional radiology.* 2012;35:1428-32.
24. Hoffmann RT, Jakobs TF, Trumm C, Weber C, Helmberger TK, Reiser MF. Radiofrequency ablation in combination with osteoplasty in the treatment of painful metastatic bone disease. *JVIR.* 2008;19:419-25.
25. Clarencon F, Jean B, Pham HP, Cormier E, Bensimon G, Rose M, et al. Value of percutaneous radiofrequency ablation with or without percutaneous vertebroplasty for pain relief and functional recovery in painful bone metastases. *Skeletal radiology.* 2013;42:25-36.
26. Gangi A, Kastler B, Klinkert A, Dietemann JL. Injection of alcohol into bone metastases under CT guidance. *Journal of computer assisted tomography.* 1994;18:932-5.
27. Beland MD, Dupuy DE, Mayo-Smith WW. Percutaneous cryoablation of symptomatic extraabdominal metastatic disease: preliminary results. *AJR American journal of roentgenology.* 2005;184:926-30.
28. Callstrom MR, Charboneau JW, Goetz MP, Rubin J, Atwell TD, Farrell MA, et al. Image-guided ablation of painful metastatic bone tumors: a new and effective approach to a difficult problem. *Skeletal radiology.* 2006;35:1-15.
29. Moser T, Buy X, Goyault G, Tok C, Irani F, Gangi A. Image-guided ablation of bone tumors: review of current techniques. *Journal de radiologie.* 2008;89:461-71.
30. Laille I, Flandroy P, Trotteur G, Dondelinger RF. Arterial embolization of bone metastases: is it worthwhile? *Journal belge de radiologie.* 1998;81:223-5.
31. Chiras J, Adem C, Vallee JN, Spelle L, Cormier E, Rose M. Selective intra-arterial chemoembolization of pelvic and spine bone metastases. *Eur Radiol.* 2004;14:1774-80.
32. Morrison PR, Silverman SG, Tuncali K, Tatli S. MRI-guided cryotherapy. *Journal of magnetic resonance imaging : JMRI.* 2008;27:410-20.
33. Mala T. Cryoablation of liver tumours -- a review of mechanisms, techniques and clinical outcome. *Minimally invasive therapy & allied technologies : MITAT : official journal of the Society for Minimally Invasive Therapy.* 2006;15:9-17.
34. Yamane B, Weber S. Liver-directed treatment modalities for primary and secondary hepatic tumors. *The Surgical clinics of North America.* 2009;89:97-113.
- 35.

# Le rôle de la France dans l'initiation des traitements chirurgicaux du syndrome des apnées obstructives du sommeil (SAOS)

## The Early Days of the Surgical Treatments of Obstructive Sleep Apneas Syndrome (OSAS): Efforts and Achievement in France

Claude-Henri Chouard

Ancien Chef du service ORL du Centre-Hospitalo-Universitaire de Paris Saint-Antoine - 10, boulevard Flandrin - 75116 Paris.

### Mots clés

- ◆ Apnée obstructive du sommeil
- ◆ Chirurgie bariatrique
- ◆ Chirurgie d'avancée maxillo-mandibulaire
- ◆ Mandibule
- ◆ Orthèse
- ◆ Orthodontie
- ◆ Ronflement
- ◆ Ventilation

### Résumé

Le SAOS est dû à un obstacle anatomique intermittent siégeant au niveau du carrefour aéro-digestif, qui perturbe, pendant le sommeil, le passage de l'air vers les poumons. La spécialité ORL est impliquée dans la levée chirurgicale de cette obstruction, autant que dans la mise en place de certaines prothèses, notamment la plus connue : le masque en pression positive. Dans cette prise en charge, le rôle de la France a été précoce et important. La section de la luette, pour traiter l'obstruction pharyngée due à l'œdème de cet organe, fut décrite pour la première fois en 1777 par Morand, chirurgien du Roy. En 1983, nous nous sommes intéressés à cette pathologie en constituant à Saint-Antoine à Paris une équipe pluridisciplinaire, qui nous a permis de contribuer à la définition de ce syndrome, de ses conséquences et des modalités de ses traitements, dépendant de l'obstacle responsable. Avant qu'elle ne s'installe, cette obstruction respiratoire nocturne est très souvent précédée, puis toujours accompagnée par un ronflement. Depuis plus de trente ans nous estimons qu'il existe un continuum évolutif entre le ronflement isolé bénin et négligé initialement, et le SAOS le plus sévère. Dès 1987, cette association nous a conduits à évoquer une maladie nouvelle, la rhonchopathie chronique, dont il existe plusieurs formes de gravité variable, du ronflement simple au syndrome de Pickwick. Le bien-fondé clinique de cette conception n'a depuis jamais été discuté, et a été finalement confirmé dans la littérature en 2006. Depuis la nuit des temps, cette association était méprisée et le plus souvent méconnue, tant le ronflement, gage parfois d'une puissance extrême, paraissait en tout cas sans signification pathologique, gênant les couples dans leur sommeil et prêtant à rire. Nous décrivons ses divers traitements locorégionaux, médicaux ou chirurgicaux. Nous formulerons, 30 ans après, quelques remarques, puis conclurons en évoquant l'avenir que nous proposons aujourd'hui la stimulation électrique du nerf grand hypoglosse et la chirurgie bariatrique.

### Keywords

- ◆ Breathing
- ◆ Mandible
- ◆ Maxillomandibular advancement surgery
- ◆ Obstructive sleep apnea
- ◆ Oral appliance
- ◆ Orthodontics

### Abstract

I describe the characteristic of a new disease, the Chronic Rhonchopathy. Obstructive Sleep Apnoea Syndrome (OSAS) is caused by anatomical, intermittent obstruction of the upper airway which impedes passage of air to the lungs during sleep. ENT and maxillofacial specialists can surgically remove this obstruction, especially by the placement of prostheses, the most well-known being the Continuous Positive Airway Pressure. This historical review underlines France's early and important role in defining treatment and its indications for obstruction, as well as in sharing knowledge internationally beginning in the early eighties. The ENT Department at the Paris-Saint-Antoine University Hospital contributed by setting up the first international congress on the subject in 1987 and through two reports and a recent book. Before to summarize the potential treatments for OSAS that the ENT surgical speciality has developed, from the simple adenoidectomy-tonsillectomy procedure to mandibular surgery or partial glossectomie, we will remind the anatomical and pathophysiological mechanisms of these more or less lengthy apnoea episodes, and the snoring that frequently precedes and always accompany them. We will then explain the reasons which led us to define a new disease - chronic rhonchopathy - from the early years years that this nocturnal chronic asphyxia was identified. 30 years on, I will comment mainly on the prevalence of this disease and metabolic syndrome. Lastly, I will conclude by discussing the advent of these potential prospects which are currently the hypoglossal nerve stimulation procedures and recent knowledge of by-pass bariatric surgery results.

Le SAOS est dû à un obstacle anatomique intermittent siégeant au niveau du carrefour aéro-digestif, qui perturbe, pendant le sommeil, le passage de l'air vers les poumons. La spécialité ORL et maxillo-faciale est impliquée dans la levée chi-

urgicale de cette obstruction, autant que dans la mise en place de certaines prothèses, notamment la plus connue : le masque en pression positive. Cette revue historique souligne le rôle de la France, précoce et important, aussi bien dans la

### Correspondance :

Claude-Henri Chouard

Ancien Chef du service ORL du Centre-Hospitalo-Universitaire de Paris Saint-Antoine - 10, boulevard Flandrin - 75116 Paris.

Tel : 06 14 55 81 39 / E-mail : [claudc@chouard.com](mailto:claudc@chouard.com)

Disponible en ligne sur [www.academie-chirurgie.fr](http://www.academie-chirurgie.fr)

1634-0647 - © 2016 Académie nationale de chirurgie. Tous droits réservés.

DOI : 10.14607/emem.2016.1.000



définition et les indications des traitements opposables à cette obstruction, que dans la diffusion internationale des connaissances, qui émergent au début des années quatre-vingt. Le Service ORL du CHU Paris-Saint-Antoine y a contribué en initiant le premier Congrès International sur le sujet en 1987 (1) et à travers deux Rapports (2,3) et un livre récent (4).

Nous rappellerons d'abord les mécanismes anatomo-physiopathologiques de ces blocages obstructifs en apnées plus ou moins longues, et de ce ronflement qui accompagne pratiquement toujours celles-ci. Nous décrirons simultanément les possibilités que la spécialité chirurgicale ORL a apportées dans le traitement du SAOS. Nous exposerons ensuite les raisons qui, dans les premières années de l'identification de cette asphyxie chronique, nous ont conduits à définir une maladie nouvelle : la Rhonchopathie Chronique.

Nous conclurons en évoquant l'avenir de ces futurs possibles, que sont aujourd'hui la stimulation électrique et la chirurgie bariatrique.

## Les mécanismes de cette obstruction nocturne des voies aériennes supérieures

### Anatomie et physiologie

Le carrefour aéro-digestif est limité en haut par les fosses nasales - cavité schématiquement ostéo-cartilagineuse, a priori rigide - et en bas par le début de l'axe respiratoire laryngo-trachéal, également rigide parce qu'il est cartilagineux. Entre ces 2 régions, un couloir pharyngé, musculaire en avant et sur les côtés, est fermé en arrière par le plan vertébral ; ces muscles, volontiers entourés de graisse selon la corpulence du dormeur, sont pour la plupart dilatateurs du pharynx ; leur tonus diminue plus ou moins en fonction du niveau de profondeur du sommeil.

### Physio-pathologie

Ainsi ce couloir pharyngé peut-il se rétrécir pour plusieurs raisons. La position déclive du sommeil (surtout sur le dos) favorise la chute en arrière des parties molles antérieures dès que le tonus musculaire lingual diminue. Ceci entraîne un réflexe de défense contre l'asphyxie : il comporte une accentuation des efforts thoraciques (*diaphragme essentiellement*), qui réalisent dans ce couloir une pression négative importante : celle-ci n'en repousse que davantage les parties flaccides du *rhinopharynx* (*voile, luette*) et surtout du *pharynx* (*avec la base de langue*) contre le plan osseux ; de plus, cette aspiration intense les fait vibrer, à l'instar d'un voile qui faysaye, du tuyau d'une trompe à eau ou des lèvres d'un trompettiste. Les phénomènes de Venturi rendent compte de ces vibrations et les lois de Bernoulli aident à les quantifier.

Mais, les efforts inspiratoires s'accroissant, les organes musculo-muqueux antérieurs finissent par se trouver plaqués sur le mur osseux postérieur, obstruant complètement la filière aérienne : c'est alors *l'apnée et le silence respiratoire*. En quelques dizaines de secondes cette anoxie réveille plus ou moins le ronfleur, ce qui augmente le tonus musculaire, ramène la langue ou le voile en avant, et permet ainsi au passage de l'air de se rétablir. Ces réveils incomplets s'accompagnent de changements brutaux, différents selon les organes, des tonus sympathique et parasympathique : leur répétition explique schématiquement les complications viscérales du SAOS, notamment cardio-vasculaires et cérébrales.

Les paramètres de ces apnées et de l'asphyxie permettent de quantifier la gravité du SAOS et guident les indications thérapeutiques.

## Trois autres mécanismes aggravent encore ces risques de ronflement et d'apnées

### En bas

*L'atrophie du maxillaire inférieur*. Elle est fréquente, mais de gravité variable. Au minimum, elle donne un visage rond au patient. Mais si *l'amygdale linguale est plus ou moins hypertrophique*, elle repoussera la langue en bas et en arrière en la verticalisant au-dessus de l'épiglotte et du larynx. Cette atrophie est majeure dans les malformations.

Les *glossectomies* partielles les *ostéoplasties*, avec ou sans *distraktion osseuse* peuvent améliorer ces patients.

### En haut, dans les fosses nasales, 3 rétrécissements peuvent se rencontrer

Tous ils peuvent considérablement gêner l'usage du masque de ventilation par pression positive (VPPP).

#### a) À l'entrée du nez

*Les cartilages, plus ou moins flaccides, et les muscles dilatateurs des ailes du nez, plus ou moins puissants*, maintiennent les narines ouvertes à l'air inspiratoire, dont le nez est le vrai passage physiologique, la voie buccale n'étant qu'une sécurité inconfortable, nécessaire en cas d'urgence. Quand ce système musculo-cartilagineux est peu développé, la dépression inspiratoire, dès qu'elle s'amplifie, peut collaber les narines, au point que, lors du sommeil, des petits ressorts dilatateurs, de forme et de point d'appui variés, soient utiles pour élargir le début du trajet de l'air vers les poumons. Parfois un obstacle (*synéchie* ou *pied de cloison antérieur*) doit être supprimé pour ouvrir cette *valve nasale*.

#### b) Au milieu du nez

Les rhinites allergiques, caractérisées ou non, et surtout la polyposé naso-sinusienne, représentent une cause d'intolérance au masque respiratoire, difficile à supprimer définitivement.

#### c) Vers le plancher du nez

Si, en avant, une *luxation septale* (habituellement traumatique) peut obstruer l'entrée narinair et doit alors être opérée, l'obstacle le plus gênant dans la pratique quotidienne siège plus en arrière : *le tissu spongieux et érectile de la muqueuse nasale*, retrouvé avant tout sur la partie antérieure et moyenne des *cornets inférieurs*, assure le réchauffement de l'air inspiré, son humidification et son dépoussiérage. Cette muqueuse, comme beaucoup de celles des zones frontières cutanéomuqueuses naturelles : urologie, gencives, cathéters, sont le siège de cette infection torpide, qu'est la *plaque microbienne*. Mais, à elle seule, la position déclive du sommeil la fait gonfler : cette *obstruction nasale, bilatérale ou unilatérale et dans ce cas volontiers à bascule d'un côté à l'autre, peut alors gêner considérablement l'action du masque respiratoire en pression continue*.

Son éradication dépend avant tout de la cautérisation de ces cornets selon des techniques, dont les plus simples restent les meilleures : le laser, notamment, n'est ni la plus logique, ni la moins iatrogène. Si cette obstruction reste méconnue ou non traitée, elle va conduire à augmenter la pression du masque, au point que l'air reflue par la bouche ou les narines, si ce n'est par les voies lacrymales. Voici une des raisons de *l'importance quotidienne de la spécialité ORL, même pour des gestes « mineurs »* dans l'équipe idéale apte à prendre en charge le SAOS.

## Une conséquence particulière du ronflement doit être rappelée ici

Souvent les ronfleurs, le matin, ont mal à la gorge ; au réveil, leur voile est rouge et épais, tant leur luette a été malmenée contre leur pharynx. Il peut arriver qu'à force de vibrer, ronfler et subir le **traumatisme répété de cette flagellation contre la paroi osseuse du rhino-pharynx, la luette au réveil**

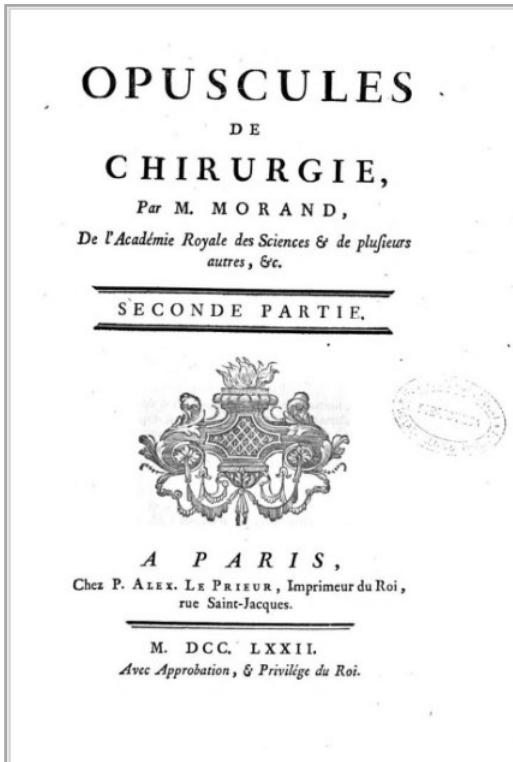


Figure 1. Page de garde de l'ouvrage de Morand.

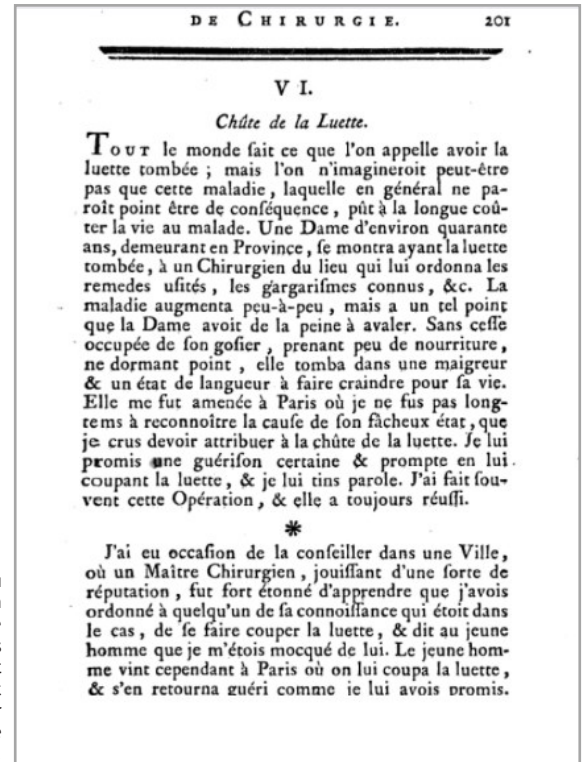


Figure 2. Page où Morand décrit, non pas la technique de l'uvulectomie, mais l'environnement dans lequel il était amené à pratiquer cette intervention.

devienne énorme, œdématisée, grosse comme une phalange, fort douloureuse, revêtue d'un enduit séreux, voire purulent. Dans l'inquiétude d'une consultation matinale d'urgence, il m'est arrivé au moins 2 ou 3 fois de l'observer. Cette complication anecdotique semble devenue rare de nos jours, car elle est vue par les médecins de famille ou SOS-médecins, et surtout elle se soigne facilement : antibiotiques et corticoïdes font tout rentrer dans l'ordre en quelques heures. Mais autrefois, quand manquaient ces thérapeutiques, *le syndrome de la « lnette tombée » était bien connu* et mettait plusieurs jours avant de s'amender spontanément ; en raison de l'*obstruction respiratoire et digestive*, il était alors volontiers traité par la résection de celle-ci.

La description qu'en a donnée Jean-Sauveur Morand, l'un des premiers Directeurs de l'Académie Nationale de chirurgie, dans un de ses Opuscules de Chirurgie, introduira le chapitre suivant.

## Le rôle de la France au début de l'identification de cette asphyxie chronique

### Sauveur-François Morand : 1697-1771

Il fut, de 1731 à 1738, le premier Secrétaire Perpétuel, puis de 1739 à 1741, le second Directeur de cette Académie Royale de Chirurgie (1731-1793), qui devint de nos jours l'Académie Nationale de Chirurgie, après quelques vicissitudes lors de la Révolution. Voici sa publication (5), parue peu de temps après sa mort, extraite de ses Opuscules de Chirurgie : (Fig 1 et 2). Quelques remarques préliminaires concernant ce texte :

1) Certes, Morand n'est pas le premier chirurgien français qui ait traité les diverses affections de la lnette : nous sommes tous debout sur l'épaule d'un géant d'autrefois ! Deux siècles plus tôt, en effet, Ambroise Paré (1510-1590) (6) évoque une instrumentation capable de réséquer plus ou moins complètement cet organe, quelle qu'en soit la raison. De plus, Morand

ne dit rien sur le ronflement de cette Dame...de Province, comme si, jusqu'à nos jours, *le ronflement du sommeil ait de tout temps semblé normal*, si ce n'est, en plus, d'être parfois le *gage d'une puissance insigne*. Sûrement pourtant ce signe clinique devait accompagner cette « chute », c'est à dire la turgescence de cet organe. Mais l'*obstruction pharyngée* était telle, qu'elle gênait la déglutition (sans doute même, la nuit, entraînait-elle des apnées... !) et *la faisait tomber dans une maigreur...à faire perdre la vie*. Cette maigreur ne se rencontre plus de nos jours, où la surcharge pondérale est presque la règle.

2) Morand ne dit rien sur le ronflement de cette Dame...de Province, comme si, jusqu'à nos jours, *le ronflement du sommeil ait de tout temps semblé normal*, si ce n'est, en plus, d'être le *gage d'une puissance insigne*. Sûrement pourtant ce signe clinique devait accompagner cette « chute », c'est à dire la turgescence de cet organe. Mais l'*obstruction pharyngée* était telle, qu'elle gênait la déglutition (sans doute même, la nuit, entraînait-elle des apnées... !) et *la faisait tomber dans une maigreur...à faire perdre la vie*. Cette maigreur ne rencontre plus de nos jours, où la surcharge pondérale est presque la règle dans le Royaume.

3) Dans son deuxième paragraphe, on note aussi que :

a) à l'époque, les promoteurs d'un procédé nouveau avaient les mêmes difficultés qu'aujourd'hui à diffuser leurs méthodes ;

b) la dextérité de Morand, et la minutie de ses soins immédiats, lui permirent aussi d'être le précurseur de la chirurgie ambulatoire et d'inspirer cette technique aux chirurgiens d'aujourd'hui, deux cent cinquante ans avant que nos Organismes Sociaux les y invitent.

### Henri Gastaut : 1915-1995

En 1965, ce neurologue marseillais spécialisé en épilepsie, constate pour la première fois chez les patients atteints du syndrome de Pickwick (7) la survenue d'arrêts fréquents de la respiration durant le sommeil. C'est à lui qu'on doit la classification des apnées du sommeil en apnée obstructive, centrale ou mixte.

## M. Jouvét : 1925 -

Interne des Hôpitaux de Lyon en 1951, docteur en médecine, neurobiologiste féru de neurochirurgie et d'éthologie, il travaille pendant les années 1954 et 1955 aux États-Unis, notamment au *Veteran's Hospital de Long Beach* en Californie, puis revient en France et effectue toute sa carrière de chercheur clinicien à Lyon.

Il décrit en 1959 les signes électroencéphalographiques de la mort cérébrale. Il est l'inventeur en 1961 du concept de sommeil paradoxal et l'auteur de la classification du sommeil en ses différents stades. Il a été certainement le *chercheur le plus utile* pour la prise en charge contemporaine des différents troubles respiratoires du sommeil.

## C. Guilleminault : 1936 -

Interne des Hôpitaux de Lyon, il fut l'élève de Jouvét, avant de réaliser la plus grande partie de sa carrière scientifique en Californie. En 1976, il affine les critères décrits précédemment par Gastaut : selon Guilleminault, pour qu'il y ait apnée du sommeil, il est nécessaire de rencontrer *cinq arrêts respiratoires par heure, qu'il y ait ou non obésité ou hypoventilation alvéolaire* (8). Cet Auteur a grandement contribué à mieux expliquer les mécanismes des divers syndromes d'apnée du sommeil, et à démontrer l'efficacité des traitements proposés. Ses travaux ont inspiré la réalisation de nombreux Centres d'Exploration du Sommeil, un peu partout dans le monde, notamment en Europe et en France, mais surtout aux États-Unis.

Quelques années plus tard, il a individualisé un *syndrome de haute résistance des voies aériennes supérieures* (9), sur la définition et l'intérêt clinique duquel nous reviendrons plus loin.

## L'École de Saint-Antoine

### Le Centre d'Explorations Respiratoires du sommeil de Saint-Antoine

C'est à l'initiative de **Frédéric Chabolle**, à l'époque mon *Chef de Clinique*, que nos recherches ont démarré au début des années 80 : au staff hebdomadaire du Service, il nous exposa la *chirurgie du ronflement* initiée au Japon en 1957, et, pour traiter les apnées du sommeil, la *ventilation en pression positive*, inventée en 1976 en Californie.

Je m'y suis personnellement consacré entre 1983 et 1991. Aidé de mon adjoint **Bernard Meyer**, Frédéric Chabolle s'attachait à obtenir la création à Saint-Antoine du premier *Centre d'Exploration des Troubles Respiratoires du Sommeil de l'AP-HP*, avec la participation essentielle de **Bernard Fleury** d'une part, et **Jean Valty** et **Jean Le Heuzey** d'autre part, des Services de Pneumologie (Pr Derenne) et Cardiologie de l'Hôpital.

Ce centre multidisciplinaire nous permet de mieux comprendre les mécanismes du ronflement et les conséquences physiologiques de cette hypoxie chronique nocturne intermittente à laquelle il aboutit. Il nous aida à établir des contacts fructueux entre le monde O.R.L. et les pneumologues, les neurologues, les cardiologues, les spécialistes du sommeil.

À ces deux décennies d'efforts du Service ORL dans le domaine du SAOS sont venus se joindre vers la fin du siècle :

1) **Michel-Christian Ouayoun** actuellement PU-PH ORL du CHU René Muret à Sevran. Dans un livre récent (4), il a résumé la *biologie du syndrome métabolique* et il décrit la nouvelle *réglementation actuelle du permis de conduire*, née fort justement de la *somnolence au volant* particulière au SAOS, mais devenue très contraignante, aussi bien pour le médecin que pour le patient ;

2) Pendant mon Consultanat à Saint-Antoine, **Boris Pételle** a été l'Interne, puis l'Assistant du Pr B. Meyer, qui m'avait succédé à la tête du Service ; outre la chirurgie linguale et mandibulaire, il s'est consacré, jusqu'aux confins de la dentisterie, au développement des *orthèses endobuccales nocturnes d'avancée mandibulaire* et à leurs indications en cas de SAOS supportant mal les contraintes de la *Ventilation Par Pression Positive* (VPPP) au masque.

Grâce à ce Centre, localisé dans le Service de Pneumologie de l'hôpital, nous avons pu facilement évaluer l'efficacité de nos recherches thérapeutiques, et notamment :

### Codifier la suppression chirurgicale des obstacles nouvellement identifiés

C'est-à-dire, non pas l'obstruction nasale, ni l'hypertrophie adénoïdo-amygdalienne. Il s'agit de l'*hypertrophie de la luette et de la muqueuse vélaire* d'une part, et d'autre part des *glossectomies partielles* et de la *chirurgie du maxillaire inférieur*.

### La luette et le voile

Le risque de cette chirurgie était de réaliser une résection trop large, laissant en séquelle un reflux nasal à la déglutition. Le dilemme était : *où placer la limite supérieure de cette suppression tissulaire* ? Quelques recherches en laboratoire (10) sont vite devenues inutiles, quand nous en trouvâmes la plus simple définition peropératoire : nous l'avons décrite (11) en donnant les résultats chez 1222 patients opérés à l'anesthésie locale et en ambulatoire, quand l'anesthésie générale n'était pas nécessaire pour d'autres gestes simultanés, tels une septoplastie ou une amygdalectomie.

Mais l'arrivée de la radiofréquence a permis de scléroser au cabinet en quelques séances ces tissus importuns, et de nos jours ces résections chirurgicales uvulo-vélares, avec ou sans plastie d'élargissement, ne sont plus que rarement pratiquées.

### Glossectomies partielles et chirurgie du maxillaire inférieur

F. Chabolle s'est investi dans cette chirurgie relativement lourde pour le patient et il a contribué à en définir les indications (12). Elles proviennent des échecs de la VPPP, en cas d'hypertrophie linguale, et de l'incongruence entre la masse musculaire de la langue et la boîte osseuse, que lui forme un maxillaire inférieur atrophique, tel qu'on le rencontre, au maximum, dans les syndromes de Franceschetti ou de Pierre Robin. Aujourd'hui, cette chirurgie opérateur-dépendante se pratique en des Centres, qui en ont l'habitude, et notamment à l'Hôpital Foch à Suresnes.

### Définir une maladie nouvelle : la Rhonchopathie Chronique

Au début des années 80, depuis les travaux de Gastaut (7), le SAOS était de mieux en mieux connu des neurologues et des pneumologues. Cependant, le ronflement qui l'accompagnait, n'avait guère eu d'importance aux yeux des cliniciens, qui le négligeaient ou même l'ignoraient complètement : il n'était pratiquement pas cité dans la description sémiologique de l'affection.

Cependant, ce ronflement, objet de rires ou de mécontentement, n'avait étrangement en lui-même jamais non plus suscité l'intérêt des ORL. La plupart d'entre eux ignoraient encore la notion de SAOS : lorsqu'ils étaient sollicités pour faire disparaître ce bruit nocturne, dont l'origine rhinopharyngée était évidente, autant pour le patient que pour l'ORL, les thérapeutiques de bon sens qui étaient proposées (*suppression des végétations* et surtout des grosses *amygdales* de l'enfant ronfleur et de l'adulte, la remise en place d'une *cloison nasale* nocive parce que *déviée*) étaient pratiquement toujours efficaces. Certes, un auteur japonais, T. Ikematsu, dès 1964 (13),



avait réalisé avec succès une résection de la luette et de la partie adjacente du voile, pour guérir, avec succès un ronflement. Mais sa publication était passée inaperçue et pendant 15 ans resta sans suite.

Au début des années 80, elle fut sortie de l'oubli presque simultanément par le Français Guilleminault (14), le Japonais Fujita (15) et le Californien Blair Simmons (16), qui remarquèrent l'existence du ronflement au cours du SAOS, et eurent l'idée de réaliser l'intervention d'Ikématsu à leurs patients apnéiques, porteurs d'une longue luette et de larges replis muqueux des piliers antérieurs et postérieurs du voile. Les améliorations sonores et fonctionnelles obtenus chez plusieurs dizaines de patients incitèrent dans les années suivantes quelques écoles, notamment celle de Yves Dejean (2) à Montpellier et nous-mêmes, à proposer dans ces cas ce mode de traitement.

Nous avons alors, nous aussi, constaté que la disparition du ronflement s'accompagnait de l'amélioration de toute une série de petits signes, auxquels, au début, nous n'avions prêté que peu d'attention. Or, ces troubles (mauvais sommeil, asthénie matinale, somnolence diurne), réalisaient, comme en mineur, presque toute la symptomatologie clinique du SAOS connue depuis longtemps.

Une étude prospective (17) nous permit de démontrer, chez une cinquantaine de patients ronfleurs faisant suffisamment de bruit pour demander une aide chirurgicale, que la levée de l'obstacle respiratoire responsable de cette nuisance sonore - essentiellement une luette trop longue, associée souvent à une hypertrophie amygdalienne et/ou surtout, à une obstruction nasale - entraînait en plus l'amélioration statistiquement significative d'éléments souvent témoin d'une asphyxie chronique : *hyperérythrocytémie*, élévation de l'*oxyhémoglobine*, céphalées et, *asthénie matinales, somnolence diurne*, notamment au volant.

Ainsi, très tôt, nous est-il apparu que *l'intensité sonore du ronflement reflétait l'asphyxie chronique du ronfleur pendant son sommeil*. C'est l'endurance du patient, et/ou son âge, qui l'amenaient plus ou moins rapidement à en ressentir les conséquences diurnes, acceptées avec fatalité, quand l'origine n'en était pas recherchée en vain dans d'autres pathologies. C'est pourquoi, dans le Service, fleurit l'adage : *le ronfleur ne doit plus être considéré comme un empêcheur de dormir ensemble, mais comme un asphyxique qui s'ignore*. Certes, cet aphorisme n'était pas démontré statistiquement, si ce n'est indirectement, mais il illustre bien la réalité des choses, même s'il faisait fi de *l'evidence based medicine*, qui était déjà à la mode.

Rassembler tous les aspects cliniques rencontrés en une seule maladie, et lui donner un nom, la *rhonchopathie chronique* (18), nous a permis d'objectiver le continuum de gravité qui relie le *ronflement simple isolé* avec le SAOS authentique, et notamment sa forme fulminante qu'est le *syndrome de Pickwick*.

L'orthographe de la *rhonchopathie chronique* reflète son étymologie. La rhonchopathie doit comporter 3 H : si on omettait le premier H, et l'écrivait « ronchopathie », on ferait appel au terme ronchus, qu'utilisent les pneumologues. Mais l'origine trachéo-bronchique de timbre grave de ces *ronchi*, et la signification de ces bruits entendus à l'auscultation n'ont rien à voir avec celles du ronflement.

### Le syndrome des hautes résistances des voies aériennes supérieures, Morand et la rhonchopathie chronique

Dans le Rapport de 2006 (3), C. Guilleminault écrit lui-même le chapitre intitulé : *Facteurs prédictifs du développement d'un syndrome d'apnées obstructives lors du sommeil* (19), et au terme de celui-ci, il précise tout d'abord :

a) : 1) que *l'apparition d'apnées et d'hypopnées signait le passage d'un état à un autre et que le SAOS est une affection qui n'est jamais complètement maîtrisable* ; 2) il nomme le premier état *syndrome des hautes résistances*, en remar-

quant que *d'autres le classent simplement sous le terme de ronflement chronique* ; 3) Il considère que *cet état étant réversible si traité de façon adéquate, le prendre en charge serait utile sur le plan médical, économique et social*.

Lorsque l'Équipe de Saint-Antoine a inventé le concept de *rhonchopathie chronique en 1987*, en nommant ainsi le Premier Congrès International sur le SAOS, nous pressentions, sans l'avoir démontré, ce continuum d'un état à l'autre et l'effet prophylactique du traitement du ronflement simple, pourvu que n'apparaissent pas d'autres facteurs de risque, et notamment *l'obésité*.

b) Guilleminault observe ensuite que « *ce syndrome induit par l'usage répété d'outils émettant des fréquences vibratoires de faibles amplitudes, responsable entre autres* » de nombreuses altérations histo-pathologiques des éléments musculaires et nerveux des muscles pharyngés, pouvant atteindre le larynx supérieur. Selon lui, *il semble que ces lésions permanentes ne s'établissent que progressivement et que les sujets ayant un syndrome des hautes résistances en soient encore indemnes*. C'est vraisemblable en effet. Mais, par contre, ces *outils responsables* ne sont pas précisés.

N'est-il donc pas pensable que cet « *outil émettant des fréquences vibratoires* » soit simplement ce *traumatisme violent et répété* que le ronflement inflige aux tissus mous de la gorge ? Pourquoi cet Auteur n'a-t-il pas estimé que ce mécanisme simple puisse être le bon ? Parmi tous les patients plus ou moins apnéiques qu'il a examinés, n'a-t-il donc jamais rencontré, ne serait-ce qu'un matin, une de ces *luettes tuméfiées*, comme celles que l'on peut voir maintenant sur le net, puisque on ne peut que pressentir celles dont Morand nous avait fait part autrefois ?

## Discussion en forme de remarques 30 ans plus tard

### Le concept de l' « evidence based medicine »

La multiplicité des travaux qui ont été nécessaires pour définir les facteurs de gravité du SAOS et prouver l'efficacité des traitements proposés conduit à rappeler l'antagonisme classique entre l'« *evidence based medicine* » et la médecine personnalisée, notamment lorsque cette « *evidence* » oblige à effectuer des mesures complexes des pressions négatives intra-thoraciques, impliquant la mise en place d'une sonde œsophagienne, geste qui n'est pas sans danger (21,22). Au nom de la médecine fondée sur des preuves, est-il éthiquement possible de réaliser une telle investigation instrumentale en prenant le risque d'une blessure iatrogène de cet organe fragile qu'est l'œsophage, quand on sait qu'il s'agit de mesures d'intérêt discutable : beaucoup ont été réalisées sur un sujet éveillé, alors qu'il devrait être endormi et, pour la plupart des praticiens, ces recherches paraissent sans intérêt thérapeutique.

### Le traitement postural

Il consiste à prendre l'habitude de dormir de telle manière que la *force de gravité* conduise les parties molles antérieures à s'éloigner spontanément de la paroi postérieure osseuse du rhino-pharynx, sur lesquelles elles s'écrasent. Je me suis intéressé aux procédures de cet adjuvant ; il peut compléter l'effet de la chirurgie ; je l'ai souvent conseillé avec succès (20).

## La prévalence actuelle de la surcharge pondérale et du SAOS

### La quantification de cette surcharge

Elle est indispensable pour poser les indications thérapeutiques et évaluer les résultats, notamment d'une équipe à l'autre.

Mais quelle formule adopter ? L'Indice de Masse Corporelle (IMC) est la plus employée (23) ; elle apprécie le poids (en kilos), par rapport à la taille (mesurée en mètre)<sup>2</sup> ; ses valeurs vont de 25 (début du surpoids) à 40 et plus, dans l'obésité de classe III morbide, massive ; certes, l'IMC n'est pas adapté pour différencier les sujets à masse musculaire importante des sujets sarcopéniques ; mais il a l'avantage d'être employé par toutes les équipes et d'être recommandé par l'OMS. Cependant ses valeurs parlent aux patients moins que d'autres, telle par exemple, chez l'homme, la mesure de la taille en cm, en sachant que le nombre de centimètres au-delà de 1 mètre donne le poids en kilos à partir duquel commence l'obésité. Certains auteurs tiennent grand compte du taux des triglycérides, du tour de cou, ainsi que du tour de taille prenant l'ombilic, définissant l'obésité *androïde*, périviscérale, plus souvent associée aux risques cardiovasculaires ; on l'oppose aux obésités *gynoïdes*, sous-cutanées, de meilleur pronostic.

### La surcharge pondérale de la population

En 1976 la surcharge pondérale n'apparaissait, dans la pathogénie du SAOS, que comme un facteur *accessoire* (8), aggravant des obstacles mécaniques bien plus pathogènes.

Pourtant, dix ans plus tard, son importance était déjà évidente. Par exemple, en cas de ronflement simple sans signe clinique, mais avec un léger embonpoint, tant que l'amaigrissement préalable du patient pour être aux normes n'avait pas été obtenu, nous ne pratiquions aucune de ces interventions bénignes, endonasales ou vélaïres, qui auraient cependant apporté une amélioration immédiate ; et nous annoncions toujours, à notre éventuel opéré, qu'à notre avis la reprise ultérieure de poids ferait réapparaître le ronflement. Ceci s'est produit parfois : quelques années après l'intervention, certains de nos patients sont revenus quémander à nouveau le geste dont ils avaient été satisfaits. Mais ces anciens opérés avaient pris de l'importance socioprofessionnelle et surtout du poids ; leur tour de cou et d'abdomen n'étaient plus ce qu'ils avaient été : une ré-intervention aurait été inutile, et surtout dangereuse pour la déglutition. Certes, pendant quelque temps et pour quelques patients, nous avons essayé la liposuction des deux régions cervicales, qui nous paraissaient les plus responsables ; mais ce fut très rapidement un échec. Le seul traitement que nous pouvions prescrire était de reperdre du poids, puis, en cas d'insuccès, de vérifier que le secours du masque en pression positive, ou de la prothèse d'avancée mandibulaire, ne devait pas être conseillé.

Pour tous les media, entre 1976 et aujourd'hui, la surcharge pondérale de la population a augmenté. Cependant, les appréciations relevant des Organismes Officiels reposent sur des *déclarations de poids et taille effectuées par les sujets eux-mêmes*, et non pas sur des mesures objectives réalisées par un tiers. Quelles que soient les réserves que pourraient impliquer les algorithmes des statisticiens pour éluder cet inconvénient, il n'empêche que, entre 1981 et 2006 et selon l'INSEE le pourcentage des Franciliens obèses est passé de 5 à 7 en augmentant de près de 50 %. (24).

### L'augmentation de la prise en charge de la rhonchopathie chronique, et notamment du SAOS

Elle croît régulièrement pour deux raisons : 1) la signification pathologique du *ronflement*, qui réveille le conjoint, et celle des *apnées*, qui l'inquiètent, sont mieux connues du public ;

2) qu'il soit chirurgical ou prothétique, le traitement de la rhonchopathie chronique s'est simplifié en améliorant son efficacité. Mais le poids des patients a augmenté lui aussi. De plus, la responsabilité de cette surcharge pondérale dans toutes les complications du SAOS est devenue tellement évidente, qu'elle a entraîné, dans les formes graves, le développement de la chirurgie bariatrique.

### Le syndrome métabolique et ses multiples paramètres

Né il y a presque vingt ans, cet ensemble exprime l'élargissement de nos connaissances physiopathologiques, et c'est pour cela que sa définition se modifie fréquemment. Mais il objective aussi l'aggravation des tableaux cliniques observés aujourd'hui, au regard de ceux rencontrés à la fin des années 70 ; à cette époque, par exemple, l'obésité (8) n'intervenait pas dans la définition du syndrome des apnées-hypopnées du sommeil. Aujourd'hui, au contraire, l'obésité est devenue le signe clinique majeur de ce syndrome métabolique ; elle est tenue pour responsable de l'anoxie cérébrale et cardiovasculaire, du déséquilibre permanent des tonus vagal et sympathique, si n'est, pour Guilleminault (19), des changements histologiques des tissus pharyngés, objectivant des troubles de la sensibilité vagale proprioceptive et sensorielle de ces régions (nous avons vu plus haut ce qu'on peut en penser). Quoi qu'il en soit, cette obésité serait à l'origine de la plupart des complications biologiques observées, notamment le développement du diabète de type 2. Et surtout, il se confirme aujourd'hui que l'amaigrissement améliore plusieurs des paramètres biologiques de ce syndrome, en particulier les troubles de la régulation glycémique. Ainsi, la chirurgie bariatrique (25) connaît-elle depuis 10 ans un essor qui ne peut que continuer, la technique du *by-pass* gastrique semblant la moins iatrogène, au moins à moyen terme, et la plus efficace. Son propos est un des volets de notre conclusion.

## Conclusion

C'est sur deux progrès, dont l'espoir aurait paru utopique il y a 25 ans, que je terminerai cet aperçu historique.

### La stimulation électrique du nerf grand hypoglosse

F. Chabolle avait participé dans mon Service à la mise au point de l'implant cochléaire multi électrodes (26). Il connaissait les particularités de la chirurgie de la stimulation nerveuse et les paramètres de celle-ci. Il savait depuis longtemps que la solution logique serait de stimuler les muscles de la langue, car ils sont *presque tous dilatateurs* du pharynx, et, de plus, le nerf, uniquement moteur, est incapable de transmettre la moindre douleur induite par cette stimulation électrique. Chabolle évoquait déjà cette avancée dans la Conclusion de son Rapport (3) de 2006. Deux appareils de stimulation linguale sont apparus successivement sur le marché : tous deux étaient Américains. F. Chabolle a été *un des premiers étrangers expérimentateurs* « pivot » de ces deux appareils. Le premier modèle, *INSPIRE*, le plus ancien, est *mono électrode*. Il est apparu en 2010 et a obtenu l'approbation de la FDA le 5 mai 2014. C'est le *plus simple électroniquement*, mais il est *le plus complexe à mettre en place*. Sous anesthésie générale, dans la région sous-mentonnière, l'électrode est enroulée sur une des branches de terminaison du nerf grand-hypoglosse ; puis, sur le patient endormi, un contrôle endoscopique du pharynx vérifie que le réglage des paramètres de la stimulation des muscles protracteurs de la langue est suffisant pour *projeter en avant la base de langue et élargir le couloir aérien* pharyngo-épiglottique. Le paramètre déclenchant cette stimulation est actuellement la contraction du

diaphragme, physiologique ou entraînée par l'anoxie née de l'apnée ; elle est détectée par un capteur logé plus ou moins confortablement dans un espace intercostal (27,28).

Le second modèle, l'*IMTHERA*, tout récent, est multiélectrodes. Depuis novembre 2014, il est en « étude pivot » pour obtenir l'approbation de la FDA. Il est plus simple à mettre en place et à régler, plus physiologique, mais beaucoup plus complexe sur le plan électronique. C'est le tronc du nerf qui est stimulé en plusieurs endroits, grâce à un porte-électrodes en forme de manchon contenant six plots répartis en spirale pour atteindre les différents fascicules du nerf. L'ensemble est relié à un récepteur sous-cutané, comportant une batterie rechargeable, une antenne électromagnétique et le processeur. L'appareil extérieur est une télécommande, qui permet l'arrêt-marche, la recharge-batterie et la sélection et le réglage des électrodes. L'appareil, pendant le sommeil, fonctionne en permanence ; seules sont stimulées les électrodes qui projettent la langue en avant ; elles le sont à tour de rôle, selon un ordre et une durée réglables, assurant à chaque muscle une période de repos. Ce « *body-buiding* » lingual des muscles protracteurs, est indolore, au contraire de tous les électrostimulateurs percutanés du commerce. La qualité des six interfaces électrode-nerf paraît assurée. Leur pérennité ouvrirait beaucoup de perspectives en matière de réhabilitation des troubles de la motricité grâce à un stimulateur nerveux multicanal. Ce n'était pas encore le cas à la fin du siècle dernier, lors de la tentative du Doyen de Montpellier Pierre Rabischong (29) avec un dérivé de cet implant cochléaire que nous avions mis au point avec P. MacLeod et la Sté Bertin<sup>®</sup> (26).

D'autres améliorations sont attendues, concernant la transmission de l'information et de l'énergie aux électrodes implantées, ou la venue d'un nano-capteur, mesurant l'oxygénation sanguine, telle une de ces microsondes développées actuellement au CEA-Leti de Grenoble (30).

### Les mécanismes biologiques de l'efficacité du by-pass bariatrique

Les chirurgiens et les diabétologues ont très vite remarqué que la chirurgie bariatrique, qui utilise la technique du by-pass dérivant le bol alimentaire très loin au-delà du carrefour jéjuno-pancréatique, était rapidement suivie d'une amélioration des troubles glycémiques qui accompagnaient la surcharge pondérale, et ceci bien avant que l'amaigrissement obtenu soit notable (31).

Les mécanismes de cet effet paraissaient jusqu'ici mystérieux. Mais, dans une publication récente (32), les médecins et les chercheurs de l'Unité Mixte de Recherche 1190 « *Recherche Translationnelle sur le Diabète* » dirigée par le Pr François Pattou du CHRU de Lille, ont apporté une réponse simple : cette dérivation permet au sucre ingéré de n'être plus absorbé que dans la partie basse de l'intestin grêle, lorsqu'il entre tardivement en contact avec les sels biliaires. Ils ont souligné que c'était le sodium endogène, excrété dans la bile, et les sécrétions digestives, qui assurent la majorité de l'absorption physiologique du sucre par l'intestin.

Ces résultats confirment l'influence, démontrée récemment (33), de la quantité de sel dans les repas sur l'élévation de la glycémie.

Au-delà du syndrome métabolique et du SAOS, l'ensemble de ces résultats souligne également l'intérêt de prévenir ou de traiter le diabète de type 2 en modulant l'absorption intestinale du sucre, par des mesures, soit diététiques telle la diminution de l'absorption simultanée du sucre du sel, soit même médicamenteuses comme y travaillent certains laboratoires.

### Liens d'intérêt

L'auteur ne déclare aucun lien d'intérêt en relation avec le contenu de cet article.

### Références

1. Chouard CH. Chronic Rhonchopathy. Proceedings of the First International Congress on Chronic Rhonchopathy. John Libbey Eurotext Édit. 1987, 390 p.
2. Dejean Y, Chouard CH. La Rhonchopathie chronique : ronflement et syndrome d'apnées du sommeil. Rapport à la Société Française d'ORL et de Pathologie Cervico-Faciale. Arnette, Édit. 1993, Paris, 348 p.
3. Chabolle F, Fleury B. ORL et troubles du sommeil. Rapport à la Société Française d'ORL et de Chirurgie de la face et du cou. L'Européenne d'Éditions, Édit., 92100 Boulogne. 2006; 363 p.
4. Ouayoun JM. Le syndrome d'apnées-hypopnées obstructives de l'adulte. John-Libbey Édit 2015, 92120 Montrouge, 119 p.
5. [https://books.google.fr/books?id=Kqr28LLFbXAC&pg=PA201&lpg=PA201&dq=morand+luette&source=bl&ots=21YlJlpKri&sig=f4YHbLnuyxZNL2GdpZMM-jL\\_yE&hl=fr&sa=X&sqi=2&ved=0ahUKewjvIMykjOrLahWfBoKHbdPDToQ6AEIKDAC#v=onepage&q=morand%20luette&f=false](https://books.google.fr/books?id=Kqr28LLFbXAC&pg=PA201&lpg=PA201&dq=morand+luette&source=bl&ots=21YlJlpKri&sig=f4YHbLnuyxZNL2GdpZMM-jL_yE&hl=fr&sa=X&sqi=2&ved=0ahUKewjvIMykjOrLahWfBoKHbdPDToQ6AEIKDAC#v=onepage&q=morand%20luette&f=false)
6. <https://books.google.fr/books?id=Vj5FAAAACAAJ&pg=PA169&lpg=PA169&dq=%22ambrose+Paré%22+instrument+luette&source=bl&ots=VUROy6WOrM&sig=2nNmVHq0eEZxLk9v8hPZOLHnfjQ&hl=fr&sa=X&ved=0ahUKewjvIMykjOrLahWfBoKHbdPDToQ6AEIKDAC#v=onepage&q=%22ambrose%20Paré%22%20instrument%20luette&f=false>
7. Gastaut H, Tassinari CA, Buron B. Étude polygraphique des manifestations épisodiques (hypnique et respiratoires), diurnes et nocturnes, du syndrome de Pickwick. Rev Neurol 1965;112:568-73.
8. Guilleminault C, Tilkian A, Dement WC. The sleep apnea syndrome. Ann Rev Med 1976;27:465-84.
9. Guilleminault C, Stoohs R, Clerk A, Cetel M, Maistros P. A cause of excessive daytime sleepiness. The upper airway resistance syndrome. Chest. 1993;104(3):781-787. doi:10.1378/chest.104.3.781
10. Chouard CH, Meyer B, Chabolle F. The velo-impedancemetry - a new technique for dynamic study of soft palate. (in Proceedings of the First International Congress on Chronic Rhonchopathy. Chouard CH Editor, John Libbey Eurotext 1988;1987:160-76.
11. Chouard CH, Meyer B, Chabolle F, Fleury B. Clinical results of the surgical treatment of 1222 cases of chronic snoring. Ann Otolaryngol Chir Cervicofac. 1990;107:154-8.
12. Chabolle F, Blumen M. Traitement chirurgical du syndrome d'apnées du sommeil : chirurgies linguale et des bases osseuses. in Rapport à la Société Française d'ORL et de Chirurgie de la face et du cou. L'Européenne d'Éditions, Édit. 92100 Boulogne. 2006;283-300.
13. Ikematsu T. Study of snoring, 4th report: therapy. Journal of Japanese Otorhinolaryngology. 1964;64:434-5.
14. Guilleminault C, Eldridge FL, Tilkian A, Simmons FB, Dement WC. Sleep apnea syndrome due to upper airway obstruction: a review of 25 cases. Arch Intern Med. 1977;137:296-300.
15. Fujita AS, Conway W, Zorik F, et al. Surgical correction of anatomic abnormalities in obstructive sleep apnea syndrome : uvulopharyngopalatoplastie. Otolaryngol Head Neck Surg 1981;89:923-34.
16. Simmons FB, Guilleminault C, Silvestri R. Snoring and some obstructivesleep apnea can be cured by oropharyngeal surgery: palatopharyngoplasty (PPP). Arch Otolaryngol 1983; 109:503-7.
17. Chabolle F, Fleury B, Meyer B. Effectiveness of uvulopharyngoplasty in snorers with sleep apnea syndrome ; (in Proceedings of the First International Congress on Chronic Rhonchopathy. 1987;305-10. Chouard CH Editor, John Libbey Eurotext 1988.
18. Chouard CH, Valty J, Meyer B, et al. Chronic rhonchopathy or snoring : aspects cliniques et indications thérapeutiques. Ann Otolaryngol Chir Cervicofac. 1986;103:319-27.
19. Guilleminault C. Facteurs prédictifs du développement d'un syndrome d'apnées obstructives lors du sommeil. in Rapport à la Société Française d'ORL et de Chirurgie de la face et du cou. L'Européenne d'Éditions, Édit., 92100 Boulogne. 2006;25-32.
20. [http://recorlsa.online.fr/ronflement/k1G2\\_POSTURAL.html](http://recorlsa.online.fr/ronflement/k1G2_POSTURAL.html)
21. Prat F. Traitement des perforations oesophagiennes et des fistules après chirurgie de l'oesophage par endoscopie interventionnelle. E-Mem Acad Natle Chir. (sous presse).
22. Triboulet JP, Cattan P. Indication actuelles du traitement chirur-



- gical des perforations oesophagiennes. E-Mem Acad Natle Chir. (sous presse).
23. Zimmermann MB, Gübeli C, Püntener C, and Molinari L. Detection of overweight and obesity in a national sample of 6-12-y-old Swiss children: accuracy and validity of reference values for body mass index from the US Centers for Disease Control and Prevention and the International Obesity Task Force<sup>1,2,3</sup>. *Am J Clin Nutr*. 2004;79:838-43.
  24. [http://www.insee.fr/fr/themes/document.asp?reg\\_id=0&ref\\_id=IP1123&page=graph#carte](http://www.insee.fr/fr/themes/document.asp?reg_id=0&ref_id=IP1123&page=graph#carte)
  25. Bruant-Rodier C, Bodin F, Schohn T, Dissaux C. Chirurgie post-bariatrique : une chirurgie qui n'a d'esthétique que le nom. *E-Mem Acad Natle Chir*. 2016;15(1):037-039.
  26. Chouard CH, Fugain C, Meyer B, Chabolle F. The Chorimac 12. A multichannel intracochlear implant for total deafness. *Otolaryngol Clin North Am*. 1986;19:355-70.
  27. Malhotra A. Hypoglossal-nerve stimulation for obstructive sleep apnea. *N Engl J Med*. 2014;370:170.
  28. Certal VF, Zaghi S, Riaz M, Vieira AS, Pinheiro CT, Kushida C, et al. Hypoglossal nerve stimulation in the treatment of obstructive sleep apnea: A systematic review and meta-analysis. *Laryngoscope*. 2015;125:1254-64.
  29. Guiraud D, Pacetti A, Meola E, Divoux JL, Rabischong P. One year implanted patients follow up: Suaw project first results, IFESS'01: 6th Annual Conference of the International Functional Electrical Stimulation Society, 01/01/2001, S. 55-57.
  30. Ollier E. Les NEMS en marche. *Pour la Science*, Octobre 2015;456:56-9.
  31. Pattou F. La chirurgie métabolique. Séance Académie Nationale de Chirurgie du 11 mars 2015.
  32. Baud G, Daoudi M, Hubert T et al. Bile Diversion in Roux-en-Y Gastric Bypass Modulates Sodium-Dependent Glucose Intestinal Uptake. *Cell Metabolism*. 2016;23:547-53.
  33. Zeevi D, Korem T, Zmora N, Israeli D et al. Personalized Nutrition by Prediction of Glycemic Responses. *Cell*. 2015;163:1079-94.