

**CASE REPORT**

# **Spontaneous Bilateral Idiopathic Hemothorax**

## ***Hémothorax spontané idiopathique bilatéral***

Layla Belliraj<sup>a</sup>  ; Marouane Lakranbi<sup>ab</sup> ; Yassine Ouadnoui<sup>ab</sup> ; Mohamed Smahi<sup>ab</sup>

<sup>a</sup> Service de chirurgie thoracique, CHU HASSAN II, Fès, MAROC.

<sup>b</sup> Faculté de médecine et de pharmacie, Université Sidi Mohamed Ben Allah, Fès, MAROC

**ABSTRACT :** The spontaneous hemothorax is defined by the presence of blood in the pleural cavity, outside any traumatic context. Idiopathic spontaneous hemothorax is an extremely rare form of spontaneous hemothorax, in which there is no apparent cause that justifies bleeding.

We report the case of a young patient, treated in our department, for a spontaneous bilateral idiopathic hemothorax.

**KEYWORDS:** Hemothorax, Idiopathic, Thoracic Drainage, Hemostatic Thoracotomy, Surgical Exploration.

**RESUME :** L'hémothorax spontané (HS) est défini par la présence de sang dans la cavité pleurale, en dehors de tout contexte traumatique. L'hémothorax spontané idiopathique(HSI) est une forme extrêmement rare d'hémothorax spontané, dans lequel il n'y a pas de cause apparente qui justifie un saignement.

Nous rapportons le cas d'un jeune patient, pris en charge au sein de notre département, pour un hémothorax spontané bilatéral idiopathique.

**MOTS CLES :** Hémothorax, idiopathique, drainage thoracique, thoracotomie d'hémostase, exploration chirurgicale.

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

E-mail: [lbelliraj@yahoo.fr](mailto:lbelliraj@yahoo.fr)

**Copyright © 2020 Belliraj L et al.** This is an open access article distributed under the [Creative Commons Attribution 4.0 International](https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

### **INTRODUCTION**

L'hémothorax spontané est défini comme un épanchement sanguin dans la cavité pleurale en dehors de tout contexte traumatique ou d'autres causes notamment iatrogènes. On parle d'hémothorax idiopathique si aucune étiologie n'est mise en évidence [1].

Il s'agit d'une entité pathologique extrêmement rare, les données de la littérature concernant ces hémothorax spontanés dits "idiopathiques" sont limitées à quelques cas cliniques sporadiques [2-5].

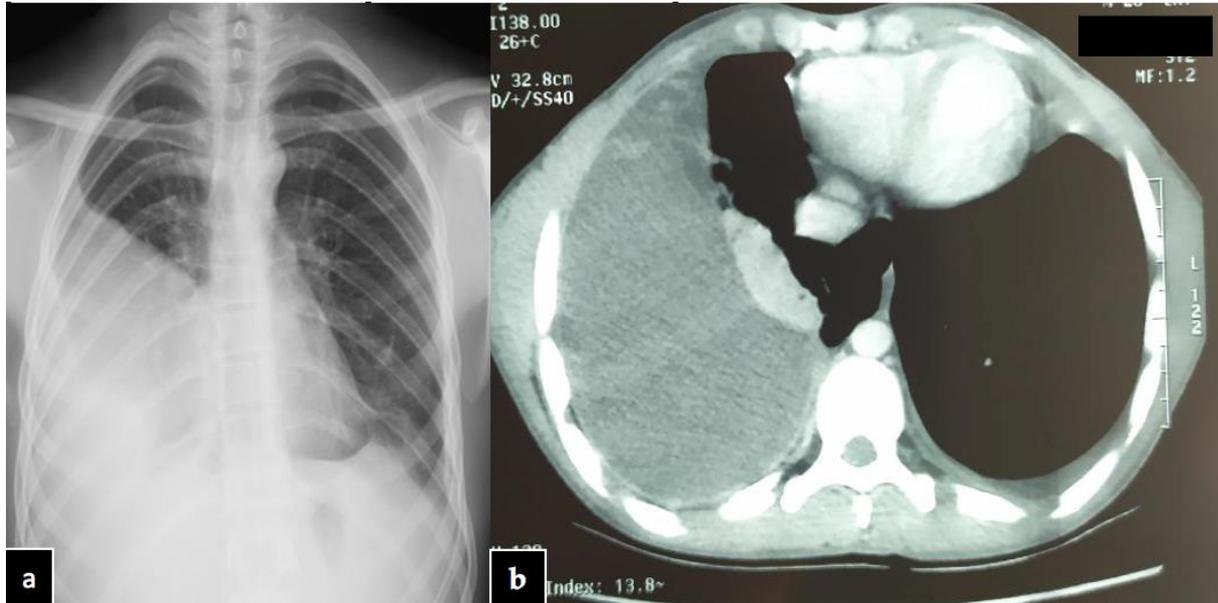
### **OBSERVATION**

Il s'agissait d'un jeune patient de 20 ans, avec un antécédent de pleuropéricardite un an auparavant, et dont le bilan étiologique était négatif. Le patient n'avait pas d'histoire de traumatisme thoracique, de saignement spontané, ni de prise médicamenteuse récente. Il avait consulté pour des douleurs thoraciques droites de type pleural avec une toux sèche, sans fièvre ni altération de l'état général, ni perte de poids. L'examen physique avait objectivé, un patient eupnéique, avec des conjonctives

normocolorées. Son thorax était de morphologie normale, sans lésions cutanées notamment pas de tache café au lait ni de télangiectasies. L'examen pleuro-pulmonaire avait trouvé un syndrome d'épanchement pleural liquidien basithoracique droit.

Une radiographie thoracique a été réalisée, et avait montré une opacité basale droite en rapport avec une pleurésie de moyenne abondance et un médiastin en place (figure 1a). Le bilan biologique était normal avec un taux

d'hémoglobine à 12,4 g/dl, un hémocrite à 38%, leucocytes à 7090 éléments/mm<sup>3</sup>, les plaquettes à 330.000 éléments/mm<sup>3</sup> et un taux de prothrombine à 75 %. La recherche des bacilles de Koch dans les crachats était négative 3 jours de suite. La tomodensitométrie (TDM) thoracique injectée avait montré une poche pleurale basale droite (figure 1.b), sans épanchement péricardique ni autres lésions qui pouvaient orienter le diagnostic.



**Figure 1 : A :** Radiographie thoracique de face montrant l'épanchement pleural droit de moyenne abondance, avec un médiastin en place. **B :** TDM thoracique injectée montrant une poche pleurale basale droite.

Le patient a été admis au bloc opératoire pour décortication pleuropulmonaire. En peropératoire, il s'agissait d'une poche pleurale basale droite à contenu hématique, l'exploration de la cavité pleurale et du parenchyme pulmonaire n'avait pas objectivé d'anomalies. L'examen anatomopathologique des biopsies pleurales était en faveur d'une plèvre inflammatoire sans signes de malignité ni de lésions spécifiques. Les suites opératoires étaient simples, et le patient était suivi en consultation. Au 2<sup>ème</sup> contrôle après sa sortie soit à 3 mois après la chirurgie, le patient s'était présenté avec une radiographie thoracique qui montrait une opacité basale gauche, alors que le patient était asymptomatique.

La TDM thoracique injectée avait confirmé la présence d'une poche pleurale gauche (figure 2) sans extravasation de produit de contraste, et sans lésions parenchymateuses, vasculaires ou pariétales. Une ponction pleurale avait confirmé qu'il agissait encore une fois d'un liquide hématique. Le patient avait bénéficié d'un drainage thoracique postérieur qui avait ramené une quantité d'environ 250 cc. Malgré ce drainage et la kinésithérapie respiratoire active, la radiographie de contrôle n'avait pas montré d'amélioration (figure 3), et une décortication pleuropulmonaire était nécessaire. En peropératoire, l'exploration minutieuse de l'ensemble de la cavité pleurale et du parenchyme pulmonaire n'avait pas

objectivé d'anomalies. L'examen anatomopathologique des biopsies pleurales n'avait pas montré de lésions spécifiques.

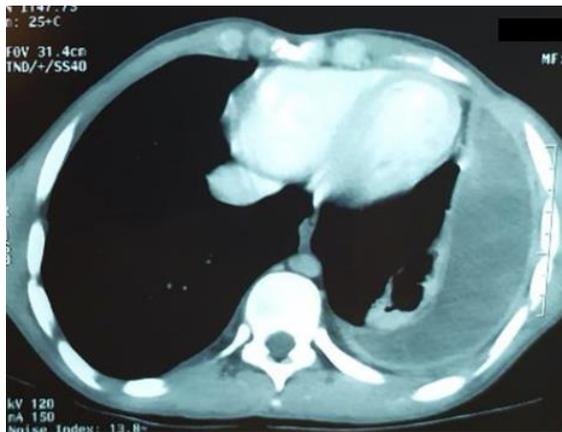
Durant son séjour hospitalier, et en collaboration avec le service de médecine interne le patient avait bénéficié d'un bilan à la recherche de coagulopathies (bilan biologique et temps de saignement) qui était revenu également sans anomalies. Les suites opératoires étaient simples. Après que tout le bilan étiologique réalisé soit revenu négatif le caractère spontané idiopathique de l'hémithorax a été retenu.

## DISCUSSION

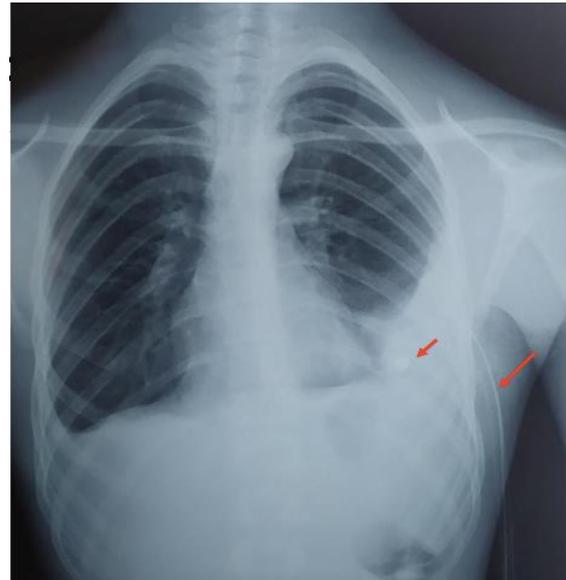
La survenue spontanée d'hémithorax sans aucune notion de traumatisme thoracique aigu, ni d'antécédents pathologiques particuliers ou de geste iatrogène comme la biopsie pleurale est une situation rarissime [6]. Si aucune étiologie n'est mise en évidence après une enquête étiologique bien menée, on parle d'un hémithorax spontané idiopathique [1]. Il s'agit d'une présentation clinique exceptionnelle, et elle devient extrêmement exceptionnelle lorsqu'il s'agit d'un HSI bilatéral. Au cours des 50 dernières années, seulement huit cas d'hémithorax bilatéral spontané ont été rapportés dans la littérature, dont un seul était idiopathique [5]. Devant un épanchement pleural hémorragique, il est important de faire la

distinction entre une pleurésie séro-hématique et un hémithorax vrai. Ce dernier est retenu si l'hématocrite du liquide pleural dépasse 50% du taux de l'hématocrite sanguin [5]. Dans certaines situations, le taux d'hématocrite est très bas, lié à une dilution après 3 à 4 jours d'évolution [1,5-7]. La présentation clinique n'est pas spécifique, elle est variable d'un patient à un autre, peut aller des patients complètement asymptomatiques à d'autres qui présentent d'emblée un état de choc hémorragique. Cette diversité clinique, retarde souvent la consultation et donc le taux d'hématocrite à la ponction pleurale sera diminué, ce qui oriente le diagnostic plus vers une pleurésie séro-hématique que vers un hémithorax. Cela pourrait expliquer la rareté des cas rapportés dans la littérature.

Pour confirmer le caractère idiopathique de l'HS, un interrogatoire minutieux, un examen clinique bien conduit (tableau1), des examens complémentaires adéquats (tableau2), et une exploration chirurgicale de l'ensemble de la cavité pleurale sont les éléments diagnostiques clés pour éliminer toutes les étiologies qui peuvent expliquer cet HS [1,5,6].



**Figure 2 :** TDM thoracique injectée montrant une poche axillaire basale gauche.



**Figure 3 :** Radiographie thoracique qui montre la persistance de la poche pleurale gauche malgré le drainage thoracique (flèches rouges)

**Tableau 1 :** Les éléments de l'anamnèse et de l'examen physique à rechercher devant un hémithorax spontané [1,5]

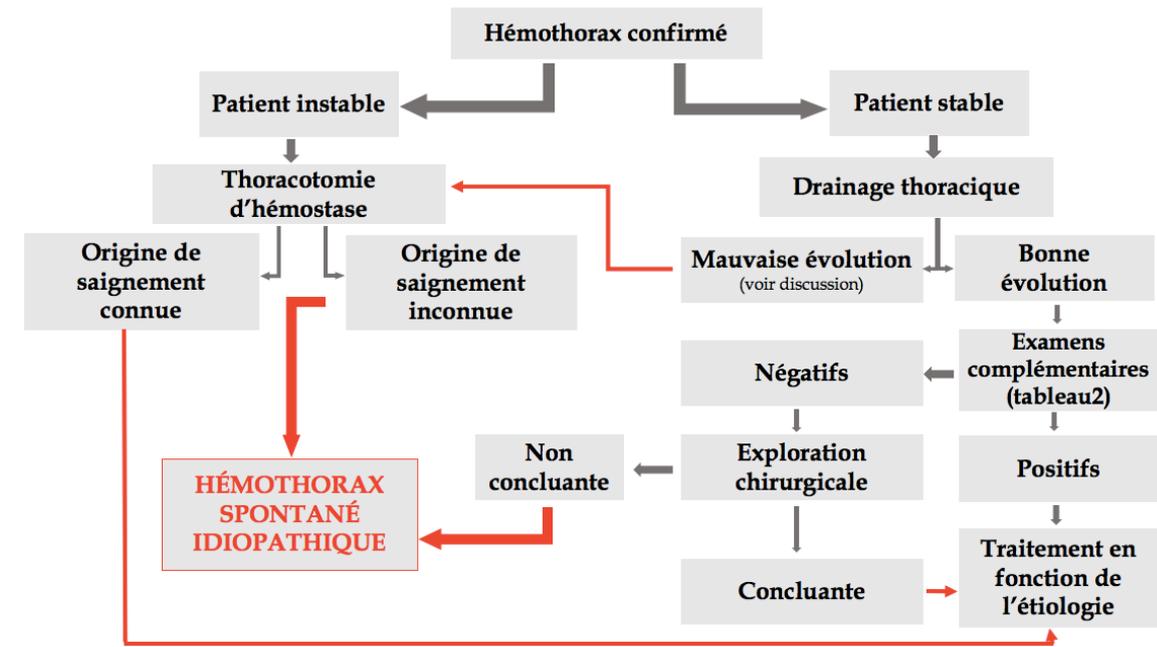
1. Age, sexe
2. Présence de signes généraux avec notion de perte de poids
3. Antécédent d'un hémithorax spontané homo ou controlatéral
4. Antécédent de traumatisme thoracique récent, de chirurgie ou de geste invasif.
5. Médicaments en cours (antiagrégant plaquettaire, anti-thrombotique)
6. Notion de saignement spontané (épistaxis, hémoptysie, hématurie, hémarthrose)
7. Téléangiectasie
8. Périodicité des signes (en rapport avec le cycle menstruel)
9. Hyperlaxité ligamentaire
10. Syndrome myasthénique
11. Taches café au lait (Neurofibromatose)

**Tableau2 :** Les examens complémentaires nécessaires devant un hémithorax spontané [1,6]

Examen complémentaire	But
- TDM thoracique injectée	Les étiologies vasculaires ( dissection, ou anévrisme de l'aorte, malformation...) Les étiologies tumorales bénignes (exostose costale) ou malignes
- Echographie Doppler , Echographie cardiaque transthoracique	Malformations artério-veineuses
- Cytologie pleurale	Etiologies néoplasiques
-Bilan d'hémostase et dosage des facteurs de la coagulation	Coagulopathies congénitales et acquises
- Biopsie pleurale	étiologies néoplasiques

La prise en charge (PEC) dépend étroitement de l'état hémodynamique du patient (figure 4). Chez un patient stable, la PEC consiste en un drainage thoracique, permettant d'évacuer l'hémithorax, le quantifier et donc assurer une bonne ré-expansion pulmonaire. Chez un patient instable sur le plan hémodynamique ou si le drain thoracique ramène plus de 500 ml pendant la première

heure ou plus 200 à 300 ml/h par la suite, une thoracotomie d'hémostase d'emblée sera nécessaire [5,6]. On n'a pas de données spécifiques sur l'évolution des HSI après drainage, mais la suite de la prise en charge semble être comparable avec celle des HS. Si l'évolution après drainage n'est pas favorable, le recours à une décortication est habituellement requis [6].



**Figure 4 :** Prise en charge d'un hémothorax spontané

Le choix de la voie d'abord dépend de l'habitude de chaque équipe [1]. Que ça soit par thoracotomie ou par abord vidéo-assistée (VATS), il faut explorer attentivement toute la cavité pleurale, évacuer complètement l'hémothorax, contrôler le saignement en cours, et réaliser des biopsies pleurales multiples. Comme toute décortication et comme chez tout patient drainé, la bonne analgésie, et une kinésithérapie respiratoire active, permettent une ré-expansion pulmonaire rapide, et donc moins de morbidité et une durée d'hospitalisation courte. Il est important également de suivre le patient le plus long possible, afin de s'assurer qu'il s'agit vraiment d'un cas idiopathique

## REMERCIEMENTS

Les auteurs remercient le service de médecine interne, et le laboratoire d'hématologie du CHU HASSAN II de Fès.

## DECLARATION DE LIENS D'INTERETS

Les auteurs déclarent ne pas avoir de liens d'intérêts.

## REFERENCES

- [1] S. Rabiou, S. Ghazwani, N. Patrick, M. Lakranbi, R. Sani, M. Serraj et al. Conduite à tenir devant les hémothorax et hémopneumothorax spontanés. *J Func Vent Pulm* 2018; 28(9): 1-62. DOI: 10.12699/jfvpulm.9.28.2018.1
- [2] Garcia-Talavera I, Perez Negrín L, Casanova Macario C. Idiopathic spontaneous hemothorax *Arch Bronco-neumol* 2000; 36:59-60.
- [3] Yung CM, Bessen SC, Hingorani V, et al. Idiopathic hemothorax. *Chest* 1993; 103:638-639.
- [4] Kakaris S, Athanassiadi K, Vassilikos K, et al. Spontaneous hemothorax: a rare but life-threatening entity. *Eur J Cardiothorac Surg* 2004; 25:856-8.

d'hémothorax et non pas une façon de présentation initiale d'une maladie d'apparition ultérieure [2].

## CONCLUSION

L'hémothorax spontané idiopathique est une catégorie exceptionnelle des hémothorax. Il doit être connu par tous les praticiens impliqués dans la prise en charge. Le diagnostic repose sur une enquête étiologique algorithmique afin d'éliminer toutes les étiologies d'un HS et confirmer le caractère idiopathique. La prise en charge est multidisciplinaire, dépend essentiellement de l'état hémodynamique du patient, et repose sur une approche la plus conservatrice possible.

## AUTHORS' CONTRIBUTIONS

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

- [5] Ali HA, Lippmann M, Mundathaje U, Khaleeq G. Spontaneous hemothorax: a comprehensive review. *Chest* 2008;134:1056-65
- [6] Patrini D, Panagiotopoulos N, Pararajasingham J, Gvinianidze L, Iqbal Y, Lawrence DR. Etiology and management of spontaneous haemothorax. *J Thorac Dis* 2015;7(3):520-526. doi: 10.3978/j.issn.2072-1439.2014.12.50
- [7] Rabiou S, Senhaji L, Lakranbi M, Bouazzaoui AE, Serraj M, Ouadnoui Y, Smahi M. Notre expérience dans la prise en charge des hémothorax spontanés. *Sang Thrombose Vaisseaux* 2017 ; xx(x) : 1-9 doi:10.1684/stv.2017.0974