

Atteinte des voies respiratoires basses dans la papillomatose respiratoire récurrente : étude de cohorte multicentrique

Maitre T.¹ ; Ratsihorimanana R.¹ Dusselier M.²; Mangiapan G.³ ; Ngo M.T.⁴ ; Guibert N.⁵ ; Fournier C.⁶ ; Matar M.⁷ ; Jouneau S.⁸ ; Bourdin A.⁹ ; Egenod T.¹⁰ ; Wermert D.¹¹ ; Favrolt N.¹² ; Freynet O.¹³ ; Gounant V.¹⁴ ; Borie R.¹⁴ ; Caliandro R.¹⁵ ; Boitiaux J.F.¹⁶ ; Mankikian J.¹⁷ ; Camuset J.¹⁸ ; Parrot A.¹ ; Fortin M.² ; Cottin V.¹⁹ ; Vergnon J.M.²⁰ ; Cadranet J.¹

¹Service de Pneumologie et d'Oncologie Thoracique et centre constitutifs Maladies Pulmonaires ares, Hôpital Tenon, APHP Sorbonne Université, Paris; ²Department of Pulmonology and Thoracic Surgery, Institut Universitaire de Cardiologie et de Pneumologie de Québec, Laval University, Québec, Canada ³Service de Pneumologie, Centre Intercommunale de Créteil, France ; ⁴Service de Pneumologie, Hôpital Foch, Suresnes, France ; ⁵Service de Pneumologie, CHU Toulouse, France ; ⁶Service de Pneumologie, CHU Lille, France ; ⁷Service de Pneumologie, CHU Strasbourg, France ; ⁸Service de Pneumologie, IRSET UMR 1085, Université de Rennes, CHU Rennes, France ; ⁹Service de Pneumologie, CHU Montpellier, France ; ¹⁰Service de Pneumologie, CHU Limoges, France ; ¹¹Service de Pneumologie, Hôpital Européen Georges Pompidou, APHP, Paris, France ; ¹²Service de Pneumologie, CHU Dijon, France ; ¹³Service de Pneumologie, Hôpital Avicenne, Bobigny, France ; ¹⁴Service d'Oncologie Thoracique Hôpital Bichat, APHP, Paris, France ; ¹⁵Service de Pneumologie, Institut Mutualiste Montsouris, Paris, France ; ¹⁶Service de Pneumologie, Centre Hospitalier de Pontoise, France ; ¹⁷Service de Pneumologie, CHU Tours, France ; ¹⁸Service de Chirurgie Thoracique de l'Hôpital Tenon, APHP Sorbonne Université, Paris, France ; ¹⁹Orphalung, Centre National de Référence des Maladies Pulmonaire rares, Service de Pneumologie, Hospices Civils de Lyon, Hôpital Louis Pradel, Lyon, France. ; ²⁰GETIF, Pneumologie et Oncologie thoracique, CHU de Saint Etienne, France

Introduction

La papillomatose respiratoire récurrente (PRR) est une maladie rare due à une infection chronique par le papillomavirus humain, survenant dans l'enfance (JuPRR) ou chez l'adulte (AdPRR). La PRR se caractérise par une obstruction progressive par des papillomes affectant principalement les voies aériennes supérieures et plus rarement basses, y compris les poumons. Cette étude décrit les caractéristiques des atteintes respiratoires basses de PRR.

Méthode

Etude rétrospective multicentrique française et québécoise des caractéristiques cliniques, histologiques, thérapeutiques et pronostiques des atteintes respiratoires basses de PRR, incluant une revue systématique.

Résultats

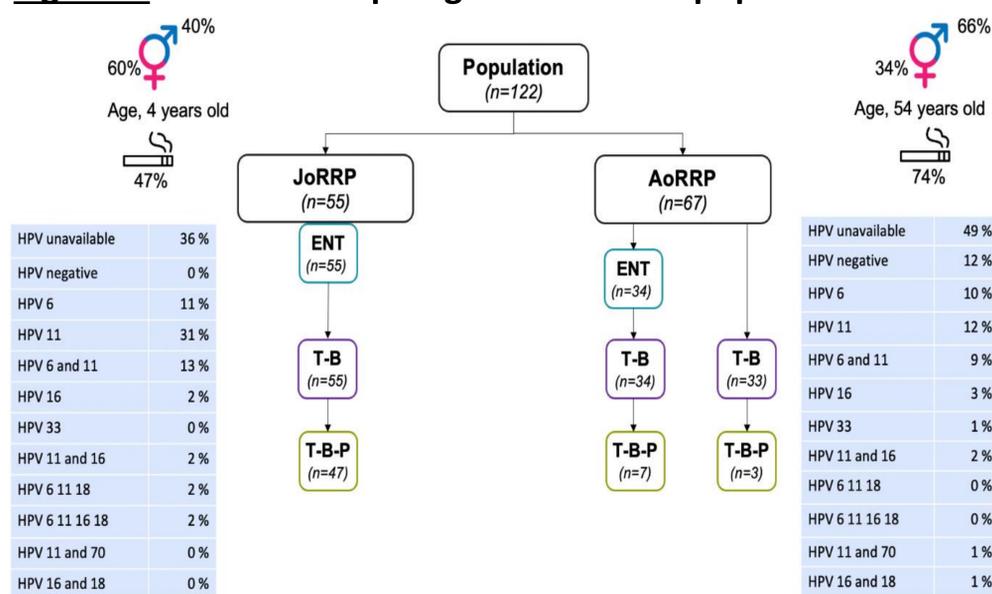
Parmi les 122 patients (pts), 55 (45%) étaient des JuPRR et 67 (55%) des AdPRR. L'âge moyen au moment du diagnostic était de 4 ans pour les JuPRR et de 67 ans pour les AdPRR. Une atteinte ORL a été observée chez tous les JuPRR et chez 34 (51%) AdPRR. L'atteinte pulmonaire a été observée dans 47 (85%) JuPRR et 10 (15%) AdPRR. Les principales anomalies au scanner étaient des lésions nodulaires chez 40 patients (70 %) et des kystes ou des nodules cavités chez 39 patients (68 %), avec une combinaison possible des deux chez 22 patients (39 %), prédominant dans les lobes inférieurs.

| | sans atteinte pulmonaire | avec atteinte pulmonaire | P-value |
|-----------------------------------|--------------------------|--------------------------|---------|
| Total | 65 (53%) | 57 (47%) | |
| Age (moyen) | 48 | 12 | < 0.001 |
| Femme | 25 (38%) | 31 (54%) | 0.08 |
| Tabac | 40 (68%) | 15 (41%) | 0.009 |
| AdPRR | 57 (88%) | 10 (18%) | <0.001 |
| HPV 11 | 14 (44%) | 28 (78%) | 0.004 |
| Trachéotomie | 4 (6%) | 20 (35%) | <0.001 |
| Résections endoscopiques répétées | 14 (22%) | 47 (83%) | <0.001 |
| Transformation maligne | 9 (14%) | 33 (58%) | <0.001 |
| Décès de PRR | 1 (2%) | 18 (32%) | <0.001 |

Tableau 1: Comparaison (univariée) des patients avec ou sans atteinte pulmonaire

En analyse multivariée, l'atteinte pulmonaire était plus fréquemment associée au JuPRR (OR=1,06 (1,02-1,2) p<0,0001), aux antécédents de résections endoscopiques répétées (OR=5,2 (1,6-17) p=0,007) et à la transformation maligne (OR=7,9 (2,3-28), p=0,01). Une transformation maligne est survenue chez 42 patients (34%). Les cancers broncho-pulmonaires étaient plus fréquents que les cancers trachéaux (86% vs. 14%), localisés dans les poumons (86%) ou la trachée. En analyse multivariée, la transformation maligne était associée à une atteinte pulmonaire (OR=8,6 (3,6-21) p<0,001).

Figure 1 – Caractéristiques générales de la population



| | sans transformation maligne | avec transformation maligne | P-value |
|---------------------|-----------------------------|-----------------------------|---------|
| Total | 80 (66%) | 42 (34%) | |
| Femme | 33 (41%) | 23 (55%) | 0.15 |
| Tabac | 43 (65%) | 12 (40%) | 0.02 |
| ADPRR | 53 (66%) | 14 (33%) | 0.001 |
| HPV 11 | 26 (36%) | 16 (59%) | 0.7 |
| Trachéotomie | 31 (38%) | 30 (71%) | 0.002 |
| Atteinte pulmoanire | 24 (30%) | 33 (79%) | <0.001 |
| Décès de PRR | 3 (4%) | 16 (38%) | <0.001 |

Tableau 2: Comparaison (univariée) des patients avec ou sans transformation maligne

Conclusion

Dans cette cohorte d'atteinte respiratoire basse de PRR, la fréquence élevée de l'atteinte pulmonaire et de la transformation maligne justifie des mesures de dépistage ciblées et une stratégie thérapeutique préventive.