



UNIVERSITE DU DROIT ET DE LA SANTE - LILLE 2
FACULTE DE MEDECINE HENRI WAREMBOURG

Année Universitaire 2016-2017

THESE POUR LE DIPLOME D'ETAT
DE DOCTEUR EN MEDECINE

**Facteurs influençant le risque de déformations du rachis après
chirurgie d'exérèse pulmonaire chez l'enfant :
Étude rétrospective chez 123 enfants opérés entre 1995 et 2010
au CHRU de Lille.**

Présentée et soutenue publiquement le 14 septembre 2017 à 18h00

Pôle Recherche

Par Bastien HOCQUET

JURY

Président :

Monsieur le Professeur HERBAUX Bernard

Assesseurs :

Monsieur le Professeur BESSON Rémi

Monsieur le Docteur BONNEVALLE Michel

Monsieur le Docteur NECTOUX Eric

Directeur de Thèse :

Monsieur le Docteur FRON Damien

Avertissement

La Faculté n'entend donner aucune approbation aux opinions émises dans les thèses : celles-ci sont propres à leurs auteurs

Liste des abréviations

CHRU : Centre Hospitalier Régional Universitaire

DDB : Dilatation Des Bronches

GVH : Greffon Versus Hôte

HR : Hazard Ratio

MAKP : Malformation Adénomatoïde Kystique du Poumon

PMSI : Programme de Médicalisation des Systèmes d'Information

RCT : Radiochimiothérapie

Table des matières

CONTEXTE.....	12
I. PATHOLOGIES RENCONTREES	12
A. MALFORMATION ADENOMATOÏDE KYSTIQUE DU POU MON (MAKP)	12
B. DILATATION DES BRONCHES	12
C. TUMORALES	14
D. EMPHYSEME LOBAIRE CONGENITAL	14
E. SEQUESTRATION LOBAIRE	15
II. CHIRURGIE ET VOIE D'ABORD	15
III. DEFORMATIONS THORACIQUES.....	16
A. SCOLIOSE.....	16
B. SCAPULA ALATA	19
C. PECTUS EXCAVATUM	19
IV. INDIVIDUS EN CROISSANCE	20
A. CROISSANCE RACHIDIENNE	20
i. De la naissance à 5 ans.....	20
ii. De 5 ans à 10 ans	21
iii. Après 10 ans	21
B. CROISSANCE PULMONAIRE.....	21
INTRODUCTION.....	23
I. HYPOTHESES.....	23
II. OBJECTIF PRINCIPAL	24
III. OBJECTIFS SECONDAIRES	24
MATERIEL ET METHODES.....	25
I. POPULATION.....	25
II. RECUEIL DES DONNEES	26
III. ANALYSES STATISTIQUES.....	27
IV. DIAGRAMME DE L'ETUDE	28
RESULTATS	29
I. CARACTERISTIQUES DE LA POPULATION	29
II. SUIVI DES PATIENTS	31

III. SURVENUE DES DEFORMATIONS	32
IV. ETUDE COMPARATIVE	35
A. PATIENTS PRESENTANT UNE DEFORMATION	35
B. AGE AU MOMENT DE LA CHIRURGIE	37
C. ETUDE DE LA PATHOLOGIE INITIALE.....	38
D. MALFORMATIONS ASSOCIEES.....	39
E. PATIENTS NECESSITANT UN TRAITEMENT INVASIF.....	40
V. ETUDE DE SURVENUE D'EVENEMENTS	42
A. COURBE DE KAPLAN MEIER	43
B. ANALYSE UNIVARIE	44
DISCUSSION	46
I. ETAT DES CONNAISSANCES.....	46
A. THORACOTOMIE ET DEFORMATIONS	46
i. <i>Atrésie de l'œsophage</i>	46
ii. <i>Pathologie cardiaque</i>	47
iii. <i>Exérèse pulmonaire</i>	47
B. THORACOTOMIE VERSUS THORACOSCOPIE.....	48
II. ANALYSE OBJECTIF PRINCIPAL	49
A. ETUDE DU GESTE CHIRURGICAL	49
B. ETUDE DE LA PATHOLOGIE INITIALE.....	50
C. AGE AU MOMENT DE LA CHIRURGIE	50
D. MALFORMATIONS ASSOCIEES.....	51
E. SURVENUE D'EVENEMENTS ET ANALYSE MULTIVARIEE	52
III. ANALYSE DES OBJECTIFS SECONDAIRES	53
IV. BIAIS RENCONTRES.....	55
V. PROPOSITION DE SUIVI.....	56
CONCLUSION.....	58
ANNEXE : RESULTATS BRUT	65

Liste des tableaux

Tableau 1 : Caractéristiques de la population

Tableau 2 : Caractéristiques du suivi des patients

Tableau 3 : Caractéristiques des déformations

Tableau 4 : Corrélation entre le côté de la chirurgie et la convexité

Tableau 5 : Corrélation entre le lobe concerné et le niveau de la déformation

Tableau 6 : Comparaison des caractéristiques de la population en fonction de l'apparition d'une déformation

Tableau 7 : Survenue d'une déformation en fonction de l'âge au moment de la chirurgie

Tableau 8 : Âge moyen (an) de la chirurgie en fonction de la pathologie initiale et de la survenue d'une déformation.

Tableau 9 : Analyse bivariée de la survenue d'une déformation en fonction de la pathologie initiale

Tableau 10 : Comparaison des caractéristiques des patients en fonction de la nécessité d'un traitement invasif

Tableau 11 : Etude de survenue d'événements

Liste des figures

Figure 1 : Thoracotomie postéro latérale

Figure 2 : Gibbosité thoracique droite

Figure 3 : Mesure de l'angle de Cobb

Figure 4 : Vitesse de croissance des segments rachidiens

Figure 5 : Diagramme de flux de la population

Figure 6 : Courbe de survenue d'évènements de Kaplan-Meier

Figure 7 : Organigramme de suivi des patients opérés par thoracotomie

Résumé

Titre :

Facteurs influençant le risque de déformations du rachis après chirurgie d'exérèse pulmonaire chez l'enfant : étude rétrospective chez 123 enfants opérés entre 1995 et 2010 au CHRU de Lille.

Contexte :

Il est établi que la chirurgie thoracique, *a fortiori* par thoracotomie, est pourvoyeuse de déformations secondaires du rachis. Dans notre pratique courante, nous avons constaté que les patients ayant bénéficié d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire semblaient présenter un risque accru de déformations du rachis thoracique. Cela est-il dû à la chirurgie thoracique elle-même ou existe-t-il d'autres facteurs inhérents à la chirurgie ou au patient expliquant la survenue de telles déformations? L'objectif principal de notre étude était d'évaluer les facteurs de risque de survenue d'une déformation du rachis chez les enfants opérés d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire. Les objectifs secondaires étaient de décrire les caractéristiques des déformations du rachis rencontrées et d'adapter le suivi de ces enfants en fonction de nos résultats.

Matériel et méthode :

Il s'agissait d'une étude rétrospective descriptive et analytique. Les enfants opérés entre 1995 et 2010 d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire au CHRU de Lille ont été inclus.

Résultats :

Au total, 123 patients ont été étudiés, et 28% ont présenté une déformation post-opératoire. La réalisation d'une pneumonectomie est associée à un risque augmenté de déformations (HR=3,11 ; p=0,03). De plus, parmi les patients déformés, il existe une majorité de patients opérés pour dilatation des bronches (56%, p<0,02) alors que cette étiologie ne représente que 45% de la population étudiée. De même, les patients présentant des malformations associées sont plus déformés (p=0,04). Le sexe féminin est plus représenté dans le groupe déformation sans que cette différence ne soit significative. Enfin, lorsqu'on étudie l'ensemble de la population, l'âge au moment de la chirurgie ne semble pas affecter la survenue de déformations. Cependant, dans chaque sous-groupe de pathologies, les patients présentant une déformation ont été opérés significativement plus tôt.

Conclusion :

A la vue de nos résultats, nous proposons une surveillance clinique annuelle par le pédiatre, associée à une radiographie du rachis complet à l'âge de 9 ans chez la fille et 11 ans chez le garçon pour tous les patients opérés d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire. De plus, pour les patients opérés d'une pneumonectomie ou pour dilatation des bronches, nous préconisons un suivi plus rapproché, respectivement 1 et 2 fois par an, par un orthopédiste pédiatre.

Contexte

I. Pathologies rencontrées

Les malformations congénitales incluant les malformations adénomatoïdes kystiques, l'emphysème congénital et les séquestrations intra-lobaires sont les indications les plus fréquentes de lobectomie chez l'enfant (1,2).

a. Malformation adénomatoïde kystique du poumon (MAKP)

Cette anomalie fait partie des malformations congénitales des voies aériennes (3). Il s'agit d'une anomalie du tractus respiratoire inférieur dont l'incidence est comprise entre 1/8 000 et 1/35 000 (4). Elle forme une partie non fonctionnelle du poumon, bien que connectée à l'arbre trachéo-bronchique. Le diagnostic est fait la plupart du temps en anténatal, ou il peut être suspecté lors d'un épisode de détresse respiratoire du nouveau-né. Il est confirmé grâce au scanner. L'évolution vers des complications est maintenant bien démontrée, et des cas de dégénérescence tumorale sont décrits, raison pour laquelle le traitement est dans la grande majorité des cas chirurgical pour les MAKP n'ayant pas régressé lors du troisième trimestre de grossesse (5–7).

b. Dilatation des bronches

Il s'agit d'une pathologie définie par une augmentation permanente et irréversible du calibre des bronches. Leurs fonctions sont altérées dans des territoires plus ou moins étendus (8).

Il existe une multitude d'étiologies mais les étiologies les plus fréquemment en cause dans la dilatation des bronches ou dans les bronchectasies de l'enfant comprennent (9,10) :

- Les causes post-infectieuses, secondaires à des infections respiratoires inférieures récurrentes et/ou sévères au début de la vie, favorisées chez les patients présentant un déficit immunitaire ;
- La fibrose pulmonaire ;
- Une anomalie de la fonction ciliaire (type dyskinésie ciliaire primitive) ;
- Une mucoviscidose ;
- L'inhalation d'un corps étranger ;
- Plus rarement, secondaire à une pathologie malformative ou génétique.

L'incidence de cette pathologie varie chez les enfants âgés de 0 à 14 ans de 0,5 pour 100 000 enfants par an dans les pays développés comme la Finlande, à 1 500 enfants pour 100 000 dans les populations aborigènes d'Australie Centrale et dans les populations natives du sud-ouest de l'Alaska (11,12).

Le traitement est avant tout médical, s'appuyant sur les grands axes du cercle vicieux de Cole, à savoir : permettre un meilleur drainage des sécrétions, contrôler la colonisation et l'infection bactérienne, réduire l'inflammation bronchique, et enfin gérer les complications non-infectieuses et l'insuffisance respiratoire. Cependant, pour un certain nombre de patients, le traitement médical ne suffit pas à contrôler la maladie, le traitement chirurgical constitue alors une très bonne alternative surtout chez l'enfant chez qui il existe des possibilités de croissance pulmonaire (13).

c. Tumorales

Le registre national des tumeurs solides de l'enfant et le registre national des hémopathies malignes de l'enfant ont recensé 8 473 nouveaux cas de cancer de l'enfant de moins de 15 ans entre 2000 et 2004. Les tumeurs solides représentent 60% de la totalité des cancers avant l'âge de 15 ans. Les tumeurs primitives pulmonaires sont rares chez l'enfant, en revanche les localisations secondaires de tumeurs solides sont plus fréquentes. Les tumeurs solides les plus rencontrées en France par ordre de fréquence sont : les tumeurs du système nerveux central, les tumeurs embryonnaires dominées largement par le néphroblastome (ou tumeur de Wilms), les tumeurs malignes osseuses, les sarcomes des tissus mous et les tumeurs germinales (14). Ces tumeurs, qu'elles soient primitives ou secondaires, nécessitent dans la grande majorité des cas une exérèse chirurgicale.

d. Emphysème lobaire congénital

L'emphysème pulmonaire congénital est une anomalie rare du développement pulmonaire avec une hyperinflation d'un ou plusieurs lobes pulmonaires en période néonatale (15). Son incidence est estimée entre 1/20 000 et 1/30 000 (16). L'indication opératoire est fréquente et consiste en une lobectomie. Celle-ci est à discuter au cas par cas en fonction des signes cliniques et de la gravité des symptômes, tout en gardant à l'esprit le risque de complications même tardives et les avantages d'une chirurgie définitive comparée à un suivi au long cours (17).

e. Séquestration lobaire

Une séquestration est une pathologie rare se présentant comme une masse de tissu pulmonaire sans communication avec l'arbre trachéo-bronchique, donc non fonctionnelle. Les séquestrations intra-lobaires se trouvent à l'intérieur d'un lobe pulmonaire sain. Les séquestrations extra-lobaires sont séparées du lobe par la plèvre viscérale. Le traitement est le plus souvent chirurgical représenté, pour les séquestrations intra-lobaires, par la lobectomie.

II. Chirurgie et voie d'abord

Plusieurs voies d'abord sont possibles en chirurgie thoracique pédiatrique. Nous détaillerons ici la thoracotomie postéro-latérale, qui est la voie d'abord classique en chirurgie thoracique (*figure 1*).

Le patient est installé en décubitus latéral légèrement penché vers l'avant. Après mise en place des champs opératoires, l'incision se fait le plus souvent dans le sixième espace intercostal, à moduler en fonction de la zone d'intérêt. Elle débute au niveau de l'épine de la scapula et se termine au niveau de la ligne axillaire antérieure. Le premier plan musculaire est fait des muscles trapèze et Latissimus Dorsi, qui sont incisés afin d'atteindre le deuxième plan musculaire composé des muscles rhomboïdes en arrière et Serratus antérieur en avant. Entre ces deux muscles se trouve « le triangle rhomboïdoserratique », feutrage cellulo-lymphatique dont le sommet est inséré sur la pointe de la scapula. Ce triangle est disséqué et décroché afin d'éviter de sectionner les deux muscles qui en font sa limite (18). Le gril costal apparaît alors et l'incision de l'espace intercostal peut se faire, toujours à la partie supérieure de la côte inférieure afin d'éviter le pédicule vasculo-nerveux, pour accéder à la plèvre et au parenchyme pulmonaire.

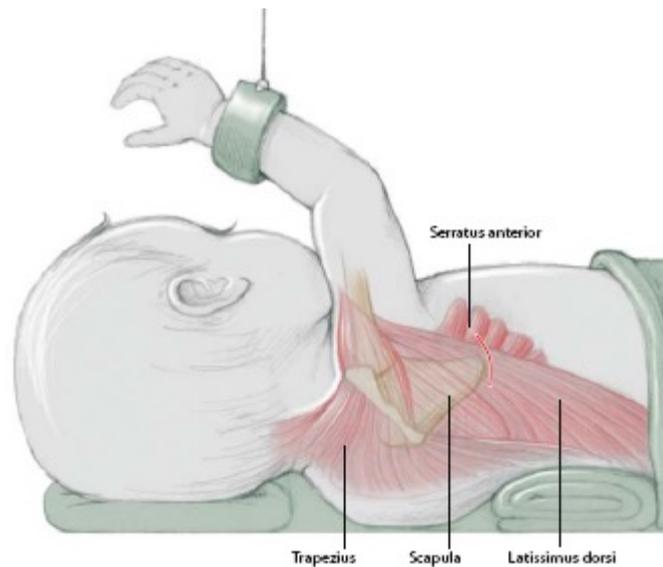


Figure 1 : Thoracotomie postéro latérale

III. Déformations thoraciques

a. Scoliose

La scoliose est une déformation tridimensionnelle du rachis dont les premières descriptions remontent à 3 500 ans avant J.C. Hippocrate a été le premier à introduire le terme de scoliose, à en faire le diagnostic et à réaliser les premiers traitements. Dans 80% des cas la scoliose est idiopathique. Elle affecte préférentiellement les filles avec un ratio garçons/filles de 1/8 et touche 0,47 à 5,2% de la population des adolescents (19,20).

Les critères cliniques sont très bien codifiés : il s'agit d'une déformation dans les trois plans de l'espace avec dans le plan frontal une inclinaison latérale du rachis, dans le plan sagittal le plus souvent une diminution de la cyphose thoracique réalisant une lordo-scoliose, et dans le plan transversal une rotation vertébrale (21).

La rotation vertébrale est le maître signe de la scoliose, permettant de faire la différence avec une attitude scoliotique. Elle se recherche en penchant l'enfant vers l'avant jambes tendues, bassin équilibré, jusqu'à ce que l'examineur puisse porter un regard tangentiel au rachis afin de mesurer la différence de hauteur entre les deux hémi-thorax, que l'on appelle : gibbosité (figure 2).



Figure 2 : Gibbosité thoracique droite (22)

La radiographie du rachis complet en charge permet d'évaluer la sévérité de la scoliose, son évolutivité, de rechercher son étiologie et d'évaluer un traitement. Elle se quantifie grâce à l'angle de Cobb mesuré entre le plateau supérieur de la vertèbre limite supérieure de la déformation et le plateau inférieur de la vertèbre limite inférieure de la déformation (figure 3).

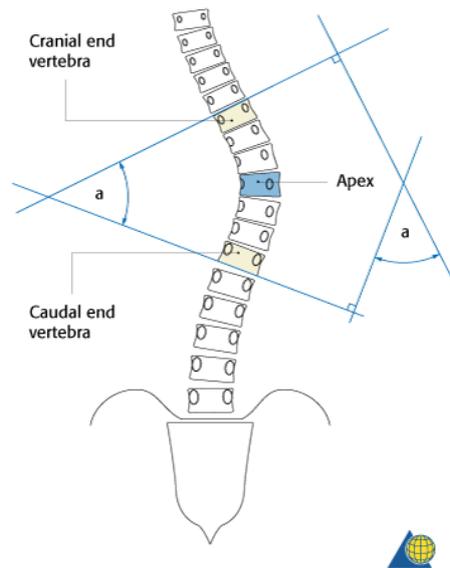


Figure 3 : Mesure de l'angle de Cobb

La scoliose idiopathique est subdivisée en trois groupes en fonction de l'âge de survenue. On distingue la scoliose infantile avant l'âge de 3 ans, la scoliose juvénile entre 3 ans et le début de la puberté et la scoliose de l'adolescent du début de la puberté jusqu'à la fin de la croissance.

Le traitement dépend de la sévérité et de l'évolutivité de la déformation. Les scolioses minimales n'ayant pas un fort potentiel d'évolutivité peuvent bénéficier d'une simple surveillance. Les scolioses ayant un risque d'aggravation, notamment pendant la période de croissance pubertaire, peuvent bénéficier d'un traitement orthopédique comprenant de la kinésithérapie associée ou non à un corset visant à empêcher ou à limiter l'aggravation de la déformation. Enfin, les scolioses sévères peuvent bénéficier d'un traitement chirurgical par arthrodèse vertébrale.

b. Scapula Alata

Il s'agit d'une pathologie définie par le décollement du bord médial de la Scapula, associé à son élévation due à une paralysie du muscle Serratus antérieur (23). Elle peut être de cause idiopathique, congénitale, traumatique ou iatrogène par lésion du nerf thoracique long (24).

c. Pectus excavatum

Le thorax en entonnoir, ou *pectus excavatum*, est une dépression de la paroi thoracique antérieure, représentée majoritairement par le sternum. Elle représente la malformation la plus fréquente de la paroi thoracique, atteignant 0,25% à 1% des enfants (25–27). Son traitement peut être orthopédique (Vacuum Bell®, kinésithérapie), esthétique (prothèse) ou chirurgical (technique de Nuss ou Wurtz).

IV. Individus en croissance

a. Croissance rachidienne

La croissance rachidienne post-natale peut être divisée en trois périodes (28–30). Les vitesses de croissance en fonction de ces trois périodes sont illustrées dans la figure 4 (31).

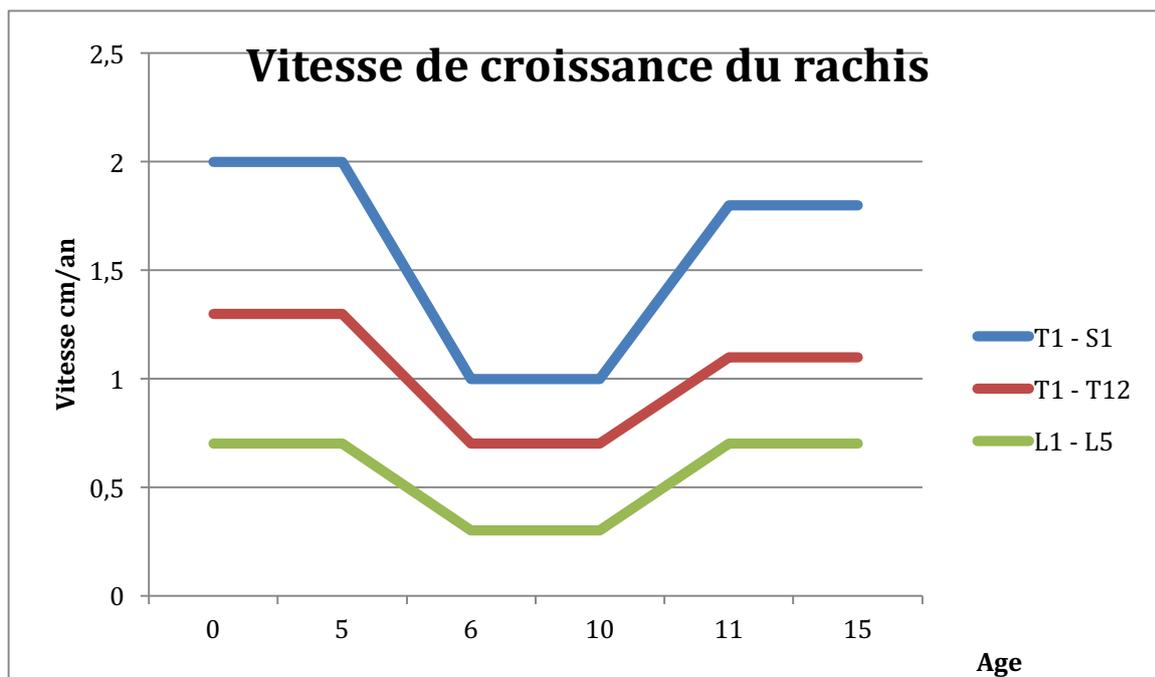


Figure 4 : Vitesse de croissance des segments rachidiens

i. De la naissance à 5 ans

La première période commence à la naissance pour s'achever à l'âge de 5 ans. Il s'agit d'une période pendant laquelle la croissance du rachis est significative. En effet, pendant cette période, la vitesse de croissance du rachis en centimètres par an est la plus rapide, de l'ordre de 2,2 cm/an. A la naissance, le segment T1-S1 mesure environ 20 cm pour atteindre environ 32 cm à l'âge de 5 ans.

ii. De 5 ans à 10 ans

Il s'agit d'une période de quiescence, où la vitesse de croissance du rachis ralentit significativement par rapport à la période précédente. Elle est d'environ 1cm/an. Par conséquent, les déformations rachidiennes auront tendance à moins s'aggraver et à se stabiliser durant cette période.

iii. Après 10 ans

Il s'agit d'une nouvelle période de croissance importante du rachis, correspondant à la poussée pubertaire. Lors de la poussée pubertaire, il y a tout d'abord une phase d'accélération qui s'étale sur environ deux ans, la vitesse de croissance du rachis atteint alors quasiment la vitesse de la première période, suivie d'une phase de décélération pendant les trois années qui suivent (32). Entre l'âge de 10 ans et la maturité squelettique, la vitesse de croissance est d'environ 1,8 cm/an.

b. Croissance pulmonaire

La majorité de la croissance pulmonaire s'effectue également entre la naissance et l'âge de 5 ans. Cette période coïncide donc avec la période de croissance rapide du rachis et de la cage thoracique. Cependant, il s'agit d'un phénomène complexe car les différentes structures pulmonaires ne grandissent pas à la même vitesse et au même rythme. Différentes structures pulmonaires, musculaires, thoraciques et rachidiennes interagissent entre elles pour obtenir un développement pulmonaire satisfaisant. Les régions périphériques des poumons contenant les alvéoles pulmonaires et les capillaires se modifient de façon significative entre la naissance et la fin de la croissance. Pendant la croissance, le nombre de capillaires représentant la surface d'échange augmente de 10 à 11 fois, tandis que les alvéoles augmentent de 7 à 8 fois.

Il est donc très important de protéger à la fois la croissance rachidienne et la croissance alvéolaire pendant les cinq premières années de la vie (31,33,34).

De plus, il est maintenant bien connu qu'il existe des phénomènes de croissance pulmonaire compensatrice secondaire à une chirurgie d'exérèse pulmonaire, et ce particulièrement chez l'enfant (35–38). Ce phénomène de ré-expansion est dépendant des forces physiques telles que l'étirement et la distorsion du poumon restant par la surinflation mais également sous la dépendance de l'acide rétinoïque, de l'oxyde nitrique synthétase et de facteurs comme l'epidermal growth factor, et l'hepatocyte growth factor(39–43).

Introduction

I. Hypothèses

Il est établi que la chirurgie thoracique, *a fortiori* par thoracotomie, est pourvoyeuse de déformations secondaires du rachis. Dans notre pratique courante, nous avons constaté que les patients ayant bénéficié d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire semblaient présenter un risque accru de déformations du rachis thoracique. Cela est-il dû à la chirurgie thoracique elle-même, ou existe-t-il d'autres facteurs inhérents à la chirurgie ou au patient expliquant la survenue de telles déformations?

L'hypothèse que nous soulevons ici est que « le vide » créé par l'ablation de parenchyme pulmonaire peut favoriser l'apparition d'une telle déformation par attraction du rachis vers le côté opéré, et ce malgré les phénomènes de croissance pulmonaire précédemment décrits chez l'enfant. Certains patients ne présentent aucune déformation alors que d'autres présentent des déformations très sévères nécessitant une intervention chirurgicale. Ces différences d'incidence et de gravité doivent être dues à certains facteurs comme l'âge au moment de la chirurgie ou la pathologie primitive elle-même. Nous avons donc décidé d'étudier de manière rétrospective et unicentrique au CHRU de Lille tous les patients opérés d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire entre 1995 et 2010 afin de bénéficier d'un recul suffisant.

II. Objectif principal

L'objectif principal de notre étude était d'évaluer les facteurs de risque de survenue d'une déformation du rachis chez les enfants opérés d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire.

III. Objectifs secondaires

Les objectifs secondaires étaient :

- De décrire les caractéristiques des déformations du rachis rencontrées ;
- D'adapter le suivi de ces enfants en fonction de nos résultats.

MATERIEL ET METHODES

I. Population

Nous avons inclus les enfants opérés au CHRU de Lille d'une résection pulmonaire entre janvier 1995 et décembre 2010. Au total, 155 patients ont été inclus. Les critères d'inclusion étaient :

- Enfant < 15 ans ;
- Opéré d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire ;
- Au CHRU de Lille ;
- Entre 1995 et 2010.

La réalisation d'une biopsie pulmonaire était un critère de non-inclusion.

Les différents critères d'exclusion étaient les suivants :

- Enfant n'ayant pas bénéficié d'un suivi post-opératoire supérieur ou égal à un an ;
- Enfant ne présentant pas une radiographie du rachis ou de thorax dans un délai supérieur ou égal à un an post-opératoire ;
- Enfant présentant des malformations associées de la paroi thoracique ou du rachis ;
- Enfant ayant bénéficié d'une résection chirurgicale de la paroi thoracique.

II. Recueil des données

Les patients ayant bénéficié d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire ont été retrouvés grâce au logiciel de cotation Cora® par le code acte PMSI. Les codes suivants ont été retenus :

Nouvelle Classification (patients de 2005 à 2010) :

- GFFA024 : Pneumonectomie par thoracotomie
- GFFA13 : Lobectomie pulmonaire par thoracotomie
- GFFC001 : Lobectomie par thoracoscopie
- GFFA017 : Exérèse partielle non anatomique unique du poumon, par thoracotomie
- GFFC002 : Exérèse partielle non anatomique du poumon par thoracoscopie
- GFFA035 : Exérèse de séquestration pulmonaire par thoracotomie
- GFFC003 : Exérèse de séquestration pulmonaire par thoracoscopie
- GFFA003 : Exérèse de kyste bronchogénique par thoracotomie
- GFFC004 : Exérèse de kyste bronchogénique par thoracoscopie

Ancienne Classification (patients de 1995 à 2005) :

- K115 : Pneumonectomie
- K119 : Lobectomie pulmonaire
- K120 : Bilobectomie pulmonaire
- K127 : Résections atypiques pulmonaires : périphériques ou tumorectomies

Parmi les patients sélectionnés, n'étaient pas inclus les patients ayant bénéficié d'une biopsie pulmonaire, d'une chirurgie de la paroi thoracique ou d'une exérèse de séquestration extra-lobaire.

L'étude de leur dossier médical s'est faite *via* le logiciel du CHRU Sillage® regroupant le dossier commun informatisé de chaque patient.

Les principales informations recherchées étaient :

- Etude de la procédure chirurgicale : indication, âge au moment de l'intervention, geste réalisé ;
- Etude du suivi : Durée de suivi, analyse radiologique des radiographies de thorax et/ou des radiographies de rachis à la recherche de déformations, nécessité d'une réintervention, radio-chimiothérapie néoadjuvante ou adjuvante.

Notre étude n'étant pas une étude interventionnelle, il n'est pas nécessaire d'avoir un accord préalable du Comité de Protection des Personnes. Ni les patients, ni le promoteur, ni les investigateurs n'étaient rémunérés pour la réalisation de cette étude.

III. Analyses statistiques

L'analyse des données s'est fait grâce au logiciel IBM® SPSS statistics version 20 et au logiciel RSTAT®. Le degré de significativité était fixé à 0,05. Les différences entre les groupes de patients ont été étudiées par analyses bivariées grâce aux tests de Khi 2, de Fischer, de Student, d'ANOVA ou de Kruskal-Wallis en fonction du type de variable analysée. Les Odds Ratios (ou risques relatifs rapprochés) ont été calculés afin de rechercher les facteurs associés au risque de développer une déformation du rachis. Ces Odds Ratios sont associés à la significativité de la modalité associée (« p ratio ») ce qui équivaut au degrés de différence par rapport à la modalité de référence choisie ainsi qu'à une significativité globale de la variable concernée (« p overall »).

Enfin, nous avons effectué une étude de survenue d'évènements, l'évènement étant l'apparition d'une déformation du rachis. Une courbe de Kaplan Meier a été réalisée

ainsi qu'une analyse univarié comprenant un test du Log-rank pour les variables catégorielles et un test de Wald pour les variables continues.

Malheureusement, une étude multivariée, ou modèle de Cox n'a pas été possible pour notre série, probablement par manque de puissance.

Nos analyses ont été réalisées de manière rétrospective et unicentrique sur les patients suivis au CHRU de Lille.

IV. Diagramme de l'étude

Au total, 155 patients ont été inclus. Parmi ces patients, 48 ont été exclus secondairement : 25 car ils présentaient un suivi radio-clinique insuffisant, 6 car nous ne disposions pas d'un recul radiographique suffisant et une patiente car elle présentait une déviation scoliotique au moment de la chirurgie. Au total, 123 patients ont été étudiés.

La répartition des patients est résumée dans le diagramme de flux (*Figure 5*).

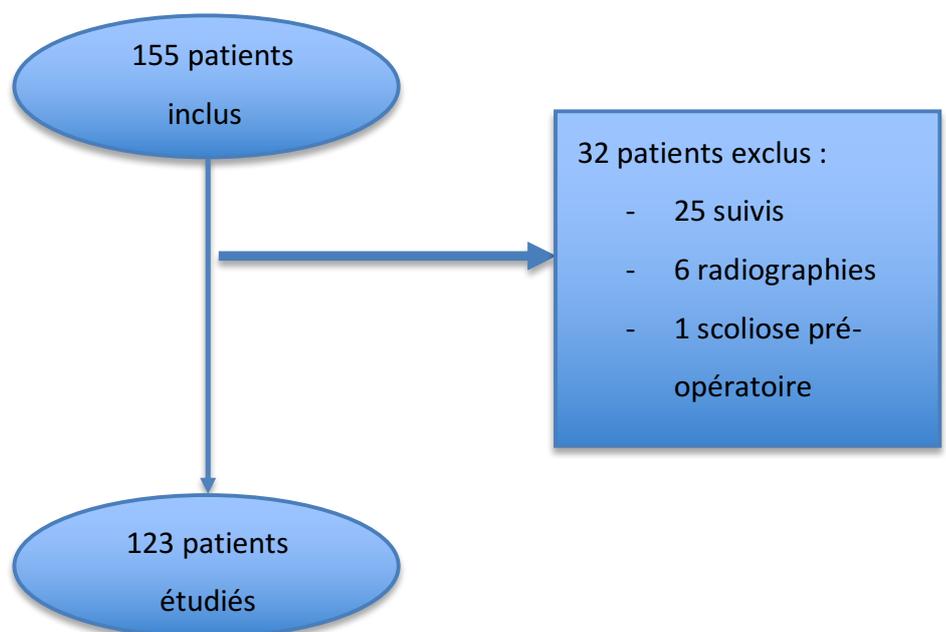


Figure 5 : Diagramme de flux de la population

RESULTATS

I. Caractéristiques de la population

L'effectif global de notre série était de 123 patients. Il y avait 53 garçons (43%) et 70 filles (57%). Les indications principales de la chirurgie étaient : les malformations adénomatoïdes kystiques du poumon (MAKP), les dilatations des bronches (DDB) et les tumeurs. Dans la grande majorité des cas, le geste chirurgical consistait en une lobectomie totale (83% des patients). Tous nos patients ont été opérés par thoracotomie. L'âge moyen au moment de la chirurgie était de 4,7 ans, le poumon gauche était le plus représenté (57%). 105 patients (85%) n'ont eu ni radiothérapie ni chimiothérapie. L'exérèse du lobe inférieur était majoritaire (62%).

Les indications opératoires ont été regroupées en plusieurs classes. Les patients regroupés dans la classe « autre » sont composés de 2 patients présentant un kyste bronchogénique, 2 patients présentant une atrésie bronchique avec bronchocèle, 1 présentant une atrésie pulmonaire secondaire à une hernie diaphragmatique, 1 présentant une malformation vasculaire entrant dans le cadre d'une maladie de Rendu Osler, 1 patient présentant une fibrose pulmonaire secondaire à une GVH dans les suites d'une greffe de moelle osseuse pour leucémie aiguë myéloblastique associée à une mucoviscidose, 1 patient traité pour actinomycose pulmonaire, et enfin 1 patient ayant dû subir une lobectomie inférieure droite suite à l'inhalation d'un corps étranger métallique.

Les patients opérés d'une cause tumorale sont composés dans la majorité des cas de localisations secondaires : 6 à un néphroblastome, 2 à un ostéosarcome fémoral, 1 à un sarcome d'Ewing et 1 à un corticosurréalome. Cinq patients ont été opérés d'une tumeur primitive à savoir d'un neuroblastome pleuro pulmonaire, d'une tumeur

myofibroblastique, d'un carcinome neuro-endocrine à grandes cellules, d'un rhabdomyosarcome thoracique et d'une tumeur carcinoïde lobaire.

Les caractéristiques des patients sont résumées dans le tableau 1.

	Population incluse
Nombre de patients	123
Sexe (M/F)	53 / 70
Age chirurgie	
Moyen (p10 ; p90)	5,3 (0,44 ; 12,52)
Min	0
Max	14,8
Pathologie	
MAKP	29 (23,6%)
DDB	55 (44,7%)
Tumorale	15 (12,2%)
Séquestration	4 (3,3%)
Emphysème	11(8,9%)
Autre	9 (7,3%)
Geste Chirurgical	
Lobectomie	102 (82,9%)
Segmentectomie	16 (13,0%)
Pneumonectomie	5 (4,1%)
Lobe concerné	
Supérieur	37 (30,1%)
Moyen	17 (13,8%)
Inférieur	64 (52,0%)
Tous	5 (4,1%)
Côté de la chirurgie	
Droit	53 (43,1%)
Gauche	70 (56,9%)
RCT	
Non	105 (85,4%)
CT	6 (4,9%)
RCT	12 (9,7%)
Déformations	34 (28%)

Tableau 1 : Caractéristiques de la population

II. Suivi des patients

Les patients étaient revus en consultation initialement en chirurgie pédiatrique puis, dans la plupart des cas, étaient suivis en pneumologie pédiatrique au CHRU de Lille. Les patients n'ayant pas bénéficié d'un suivi supérieur ou égal à 1 an post-opératoire était exclus et il en était de même pour les patients ne présentant pas de radiographies de thorax ou de rachis après 1 an post opératoire.

La durée de suivi moyenne était de 8,3 ans pour un âge moyen à la fin du suivi de 14,6 ans. Ces résultats sont résumés dans le tableau 2.

Durée du suivi	
Moyen (p10 ; p90)	8,3 (3,42 ; 15,46)
Min	1,2
Max	18,7
Age de fin de suivi	
Moyen (DS)	14,6 (6,3)
Min	1,3
Max	32

Tableau 2 : Caractéristiques du suivi des patients

III. Survenue des déformations

Dans notre série, 34 patients (28%) ont vu apparaître une déformation post-opératoire du rachis. L'âge de survenue moyen de ces déformations était de 11,5 ans pour un délai post-opératoire moyen de 7 ans. Ces déformations étaient dans la majorité des cas légères avec un angle de Cobb médian de 15°. Cependant, l'angulation maximale observée était de 68° d'angle de Cobb. Ces déformations atteignaient préférentiellement le rachis dorsal (73%) avec une convexité droite (64%). Une rotation vertébrale associée à la déformation dans le plan frontal était retrouvée chez 22 patients (65%). 12 patients (35%) ont dû bénéficier d'une prise en charge spécifique à savoir : kinésithérapie et /ou traitement orthopédique ou chirurgie par arthrodèse vertébrale. Il nous manque les données des déformations concernant un patient. En effet, ce dernier était suivi dans un autre centre pour la déformation et nous ne disposons pas de radiographie concernant le suivi. Ces différentes caractéristiques sont regroupées dans le tableau 3.

Age de survenue	
Moyen (DS)	11,5 (4,8)
Min	2,2
Max	18,6
Délai post-opératoire	
Moyen (DS)	7,0 (3,4)
Min	1,2
Max	14,1
Angle de Cobb	
Médian	15
Min	10
Max	68
Niveau de la déformation	
Dorsale	25 (73,5%)
Dorsolombaire	2 (5,9%)
Dorsale et lombaire	4 (11,8%)
Lombaire	2 (5,9%)
Rotation (%)	22 (64,7%)
Nombre de vertèbres concernées	
Médian	6
Min	4
Max	15
Apex	
Médian	T7
Min	T4
Max	L3
Traitement	
Aucun	21 (61,8%)
Kinésithérapie	4 (11,8%)
Corset	5 (14,7%)
Chirurgie	3 (8,8%)
Côté convexité	
D	22 (64,7%)
G	11 (32,4%)

Tableau 3 : Caractéristiques des déformations

Il existe une corrélation ($p=0,002$) entre le côté opéré et le côté de la convexité. En effet, une chirurgie pulmonaire droite provoquera préférentiellement une déformation du rachis à convexité gauche, et inversement. Ces résultats sont détaillés dans le tableau 4.

	Convexité droite	Convexité gauche	Total
Chirurgie droite	4	9 (69%)	13
Chirurgie gauche	18 (90%)	2	20
Total	22	11	33

Tableau 4 : Corrélation entre les côtés de la chirurgie et de la convexité

Nous avons ensuite recherché s'il existait une corrélation entre le niveau de la déformation et le lobe opéré. Cependant, les effectifs de ces différents groupes sont trop faibles pour pouvoir conclure statistiquement. Mais il ne semble pas exister de lien. Les effectifs sont détaillés dans le tableau 5.

	Supérieur	Moyen	Inférieur	Totale	Total
Dorsale	8	4	10	3	25
Dorso-lombaire	0	0	1	1	2
Dorsale et lombaire	0	1	2	1	4
Lombaire	2	0	0	0	2
Total	10	5	13	5	33

Tableau 5 : Corrélation entre le lobe concerné et le niveau de la déformation

IV. Etude comparative

a. Patients présentant une déformation

Notre série retrouvait 89 patients ne présentant pas de déformation post-opératoire et 34 patients présentant une déformation post-opératoire. Nous avons alors étudié de manière bivariée deux à deux les différentes caractéristiques de ces 2 groupes afin d'établir quels facteurs pouvaient influencer la survenue d'une telle déformation.

Nous avons donc comparé ces deux groupes sur le sexe, l'âge de la chirurgie, le geste chirurgical, le côté opéré ainsi que le lobe concerné, l'indication chirurgicale, la nécessité d'une radio- et/ou chimiothérapie, la nécessité d'une chirurgie itérative, l'existence d'un syndrome polymalformatif, la durée de suivi et enfin l'âge de fin de fin de suivi.

Ces différents résultats sont résumés dans le tableau 6.

	Déformation du rachis	Absence de déformation	p
Sexe (H/F)	10 (29,4%) / 24 (70,6%)	43 (48,3%) / 46 (51,7%)	0,09
Age de la chirurgie			
Moyen (p10 ; p90)	3,8 (0,26 ; 10,24)	5,3 (0,6 ; 13,2)	0,28
Min	0,0	0,1	
Max	13,8	14,8	
Geste chirurgical			
Lobectomie	23 (67,6%)	79 (88,8%)	<0,001
Segmentectomie	6 (17,6%)	10(11,2%)	
Pneumonectomie	5 (14,7%)	0	
Côté			
Droit	13 (38,2%)	40 (44,9%)	0,64
Gauche	21 (61,8%)	49 (55,1%)	
Lobe concerné			
Supérieur	10 (29,4%)	27 (30,3%)	0,005
Moyen	5 (14,7%)	12 (13,5%)	
Inferieur	14 (41,2%)	50 (56,2%)	
Total	5 (14,7%)	0	
Pathologie			
MAKP	2 (5,9 %)	27 (30,3 %)	0,055
DDB	19 (55,9%)	36 (40,4%)	
Tumorale	6 (17,6%)	9 (10,1%)	
Emphysème	3 (8,8%)	8 (9,0%)	
Séquestration	1 (2,9%)	3 (3,4%)	<0,02
Autre	3 (8,8%)	6 (6,7%)	
RCT			
Non	27 (79,4%)	78 (87,6%)	NS
CT	2 (5,9%)	4 (4,5%)	
RCT	5 (14,7%)	7 (7,9%)	0,26
Chirurgie itérative			
Non	30 (88,2%)	84 (94,4%)	0,26
Oui	4 (11,8%)	5 (5,6%)	
Malformations associées			
Non	26 (76,5%)	81 (91%)	0,04
Oui	8 (23,5%)	8 (9%)	
Durée de suivi			
Moyen (p10 ; p90)	12,65 (5,43 ; 16,80)	7,30 (2,94 ; 14,70)	<0,001
Age de fin de suivi			
Moyen (SD)	16,56 (5,70)	13,82 (6,38)	0,02

Tableau 6 : Comparaison des caractéristiques de la population en fonction de l'apparition d'une déformation

Il existait une différence significative entre ces deux groupes de patients concernant : l'indication chirurgicale, le geste chirurgical, le lobe concerné, l'existence de malformations associées, la durée de suivi et l'âge de fin de suivi. A noter qu'il existe une proportion plus importante de filles présentant une déformation (71% vs 52%) sans que cette différence soit significative ($p=0,09$). Dans le groupe déformation, il existe une proportion plus importante de pneumonectomies, de patients ayant été opérés suite à une dilatation des bronches, de patients présentant des malformations associées, et par conséquent ayant dû bénéficier d'un suivi prolongé.

b. Age au moment de la chirurgie

Nous nous sommes ensuite intéressés plus particulièrement à l'âge au moment de la chirurgie. Nous avons décidé de regrouper les patients en 3 groupes correspondant aux 3 phases de croissance du rachis : opéré avant l'âge de 5 ans, opéré entre 5 et 10 ans et opéré après l'âge de 10 ans. Il n'y a alors pas de différence significative ($p=0,48$) sur la survenue de déformations post-opératoires en fonction du groupe d'âge de la chirurgie. Ces résultats sont détaillés dans le tableau 7.

	Déformation -	Déformation +	Total
< 5 ans	44	19	63
5ans – 10 ans	25	11	36
> 10 ans	20	4	24
Total	89	34	123

Tableau 7 : Survenue d'une déformation en fonction de l'âge au moment de la chirurgie

Nous avons donc étudié dans chaque sous-population l'incidence de la survenue de déformations en fonction de l'âge au moment de la chirurgie. On retrouve une différence significative de l'âge moyen au moment de la chirurgie entre les patients qui présenteront une déformation post-opératoire dans chaque sous-groupe de pathologies hormis les MAKP. Les résultats sont détaillés dans le tableau 8.

	Déformation du rachis	Absence de déformation	p
MAKP (effectif)	0,5 (2)	2,0 (27)	0,44
Tumoral (effectif)	4,8 (6)	9,5 (9)	0,02
DDB (effectif)	5,3 (19)	7,8 (36)	0,01

Tableau 8 : Âge moyen (an) au moment de la chirurgie en fonction de la pathologie initiale et de la survenue d'une déformation.

c. Etude de la pathologie initiale

Nous nous sommes intéressés particulièrement à l'incidence des malformations en fonction de la pathologie initiale.

Lorsque l'on regroupe les patients présentant un emphysème, une séquestration ou une autre cause (hors MAKP, DDB ou Tumoral), afin d'obtenir des groupes plus importants, la pathologie semble influencer le risque de survenue de scoliose ($p < 0,02$). En effet, les MAKP sont associées à un risque plus faible de voir apparaître une scoliose (Odd ratio 0.194) avec uniquement 2 scoliose pour 29 patients, présentant chacun un angle de Cobb maximal de 15° . Un patient n'a pas eu de traitement et l'autre a bénéficié de séances de rééducation. *A contrario*, les patients opérés pour causes tumorales ou dilatation des bronches sont associés à un risque plus élevé de

voir apparaître une scoliose (Odd ratio respectivement de 1,6 et 1,3). Ces résultats sont détaillés dans le tableau 9.

Au vu de ces différences, nous avons calculé l'âge moyen de la chirurgie en fonction de la pathologie initiale. La moyenne d'âge de chirurgie des patients atteints de MAKP est de 1,9 ans contre 6,9 ans pour les patients atteints de dilatation des bronches ou de tumeurs ($p < 0,001$).

	Absence de déformation	Déformation du Rachis	Odd ratio	p. ratio	p. overall
Autre	17 (19,1%)	7 (20,6%)	Référence	Référence	0,02
DDB	36 (40,4%)	19 (55,9%)	1,267 [0,453 ;3,827]	0,66	
MAKP	27 (30,3%)	2 (5,9%)	0,194 [0,024 ;0,945]	0,04	
Tumoral	9 (10,1%)	6 (17,6%)	1,598 [0,393 ;6,502]	0,51	

Tableau 9 : Analyse bivariée de la survenue d'une déformation en fonction de la pathologie initiale

d. Malformations associées

L'existence de malformations associées semble être associée à un risque augmenté de survenue d'une déformation secondaire du rachis ($p=0,04$, Odd ratio 3,08). Dans notre population, les malformations associées regroupent : 8 patients atteints d'une dyskinésie ciliaire primitive dont 2 associant également un syndrome de Kartagener, 3 patients présentant un déficit immunitaire congénital, 2 patients atteints d'une paralysie cérébrale, 1 patient présentant un syndrome de Pierre Robin, 1 patient présentant un syndrome de Di George, 1 patient atteint d'un syndrome de Goldenhar.

e. Patients nécessitant un traitement invasif

Chez les patients présentant une déformation post-opératoire, nous avons ensuite voulu comparer deux groupes de patients : ceux devant bénéficier d'un traitement invasif de cette déformation (traitement orthopédique ou chirurgie), comparé à ceux ne nécessitant pas de traitement ou nécessitant uniquement une prise en charge rééducative. Les différents résultats sont regroupés dans le tableau 10.

	Traitement + (corset chirurgie)	Traitement - (aucun, kinésithérapie)	p
Age de survenue			
Moyen	9,6 (+/- 4,6)	12,18 (+/- 4,8)	0,2
Min	3,7	2,2	
Max	16,3	18,6	
Durée Post-opératoire			
Moyen	5,96 (+/- 3,5)	7,33 (+/- 3,4)	0,3
Min	1,2	2,2	
Max	10,1	14,1	
Age de la chirurgie			
< 5 ans	7	11	NC
5-10 ans	0	10	
> 10ans	1	3	
Geste chirurgical			
Lobectomie	4	18	NC
Segmentectomie	1	4	
Pneumonectomie	3	2	
Côté			
Droit	3	10	0,59
Gauche	5	14	
Lobe concerné			
Supérieur	2	7	NC
Moyen	1	4	
Inferieur	2	11	
Pathologie			
MAKP	0	2	NC
DDB	4	15	
Tumorale	2	3	
Emphysème	2	0	
Autre	0	4	
RCT			
Non	6	20	NC
CT	1	0	
RCT	1	4	
Angle de Cobb			
Médian	39	14	<0,001
Min	12	10	
Max	68	23	

Tableau 10 : Comparaison des caractéristiques des patients en fonction de la nécessité d'un traitement invasif

Il existe une différence significative entre ces deux groupes uniquement en ce qui concerne l'angle de Cobb moyen. En effet, ce dernier est significativement plus important dans le groupe traitement invasif (39° vs 14°). Concernant les autres paramètres, soit il n'y a pas de différence significative, soit les effectifs étant trop faibles nous ne pouvons conclure statistiquement. Cependant, l'âge de survenue moyen de la déformation dans le groupe traitement invasif est de 9,6 ans contre 12,2 ans dans le groupe traitement non invasif sans que cette différence ne soit significative ($p=0,2$).

V. Etude de survenue d'événements

Nous avons enfin effectué une étude de survenue d'évènements afin de prendre en compte la temporalité dans l'étude de risque, l'évènement étant l'apparition d'une déformation du rachis. Une analyse univarié avec un test du Log-rank pour les variables catégorielle et un test de Wald pour les variables continues a été réalisée.

a. Courbe de Kaplan Meier

Dans un premier temps, nous avons réalisé une courbe de Kaplan Meier ou courbe de survenue d'évènements (figure 6).

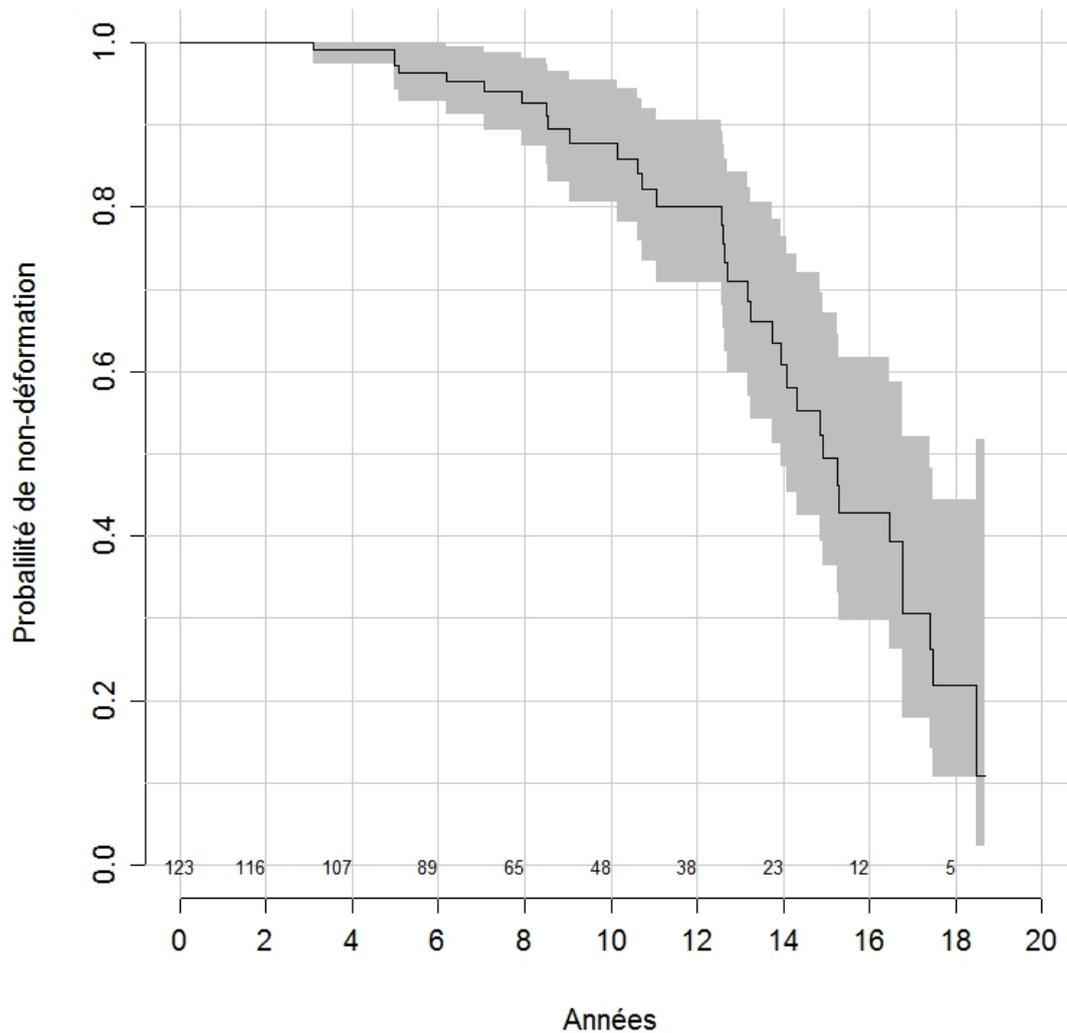


Figure 6 : Courbe de survenue d'évènements de Kaplan Meier

On obtient donc une courbe homogène ou la probabilité de déformation à 18 ans post-opératoire est très importante, de l'ordre de 0,9 sachant que l'intervalle de confiance reste large.

b. Analyse Univarié

Le type de geste chirurgical est un facteur de risque de déformation ($p=0,04$). Ceci est dû essentiellement aux pneumonectomies qui sont un facteur de risque de déformation post-opératoire par rapport aux lobectomies simples ($p=0,03$).

Le sexe semble également avoir un rôle dans la survenue de déformations ($p=0,10$) sans que ce résultat soit significatif. Le sexe masculin serait plutôt associé à un facteur protecteur.

Cependant la pathologie initiale ou l'existence de malformations associées ne sont pas liées à une augmentation du risque de déformation post-opératoire dans notre étude.

Les différents résultats sont regroupés dans le tableau 11.

	Hazard Ratio	P ratio	P overall
Sexe			0,10
Fille	réf.	réf.	
Garçon	0.54 [0.25; 1.14]	0,11	
Pathologie			0,67
Autre	réf.	réf.	
DDB	1.08 [0.45; 2.59]	0,86	
MAKP	0.92 [0.18; 4.75]	0,92	
Tumorale	1.81 [0.60; 5.47]	0,29	
Malformation associée			0,20
Non	réf.	réf.	
Oui	1.69 [0.75; 3.81]	0,21	
Geste chirurgical			0,04
Lobectomie	réf.	réf.	
Segmentectomie	2.10 [0.83; 5.33]	0,12	
Pneumonectomie	3.11 [1.15; 8.42]	0,03	
Lobe concerné			0,11
Inférieur	réf.	réf.	
Moyen	1.52 [0.52; 4.42]	0,44	
Supérieur	1.79 [0.74; 4.31]	0,20	
Total	3.59 [1.22; 10.6]	0,02	
Côté			0,26
Droit	réf.	réf.	
Gauche	0.65 [0.31; 1.37]	0,26	
RCT			0,33
Non	réf.	réf.	
Oui	1.52 [0.66; 3.53]	0,33	
Chirurgie itérative			0,42
Non	réf.	réf.	
Oui	1.54 [0.54; 4.41]	0,42	
Age chirurgie	0.95 [0.88; 1.04]	0,28	0,28

Tableau 11 : Etude de survenue d'événements

DISCUSSION

I. Etat des connaissances

a. Thoracotomie et déformations

De nombreuses études ont retrouvé que le simple fait de faire une thoracotomie était un facteur de risque de voir se développer une déformation du rachis.

i. Atrésie de l'œsophage

Contrairement aux conséquences de la chirurgie d'exérèse pulmonaire, les conséquences de la chirurgie œsophagienne par thoracotomie chez l'enfant ont souvent été étudiées. En effet Sistonen et Al. (44) ont retrouvé huit fois plus de scoliose chez les patients opérés d'une atrésie de l'œsophage comparativement à la population générale. Ces scoliose étaient plutôt thoraciques hautes avec une convexité opposée au côté de la thoracotomie. Il en est de même dans l'étude de Jaureguizar (45), certes plus ancienne, qui s'intéressait aux conséquences de la chirurgie des fistules oeso-trachéales. Dans sa population, une courbure vertébrale de plus de 10° d'angle de Cobb était retrouvée chez 9% de la population. Cette courbure était dans 90% des cas convexe du côté opposé à l'incision, la scoliose apparaissait à tout moment à partir de la petite enfance, mais celles apparaissant avant la période pubertaire étaient plus à risque d'évolution. Gilsanz (46) a établi qu'une scoliose sévère était plus probable après thoracotomie pour atrésie de l'œsophage chez les patients ayant présenté des complications infectieuses post-opératoires à type d'empyème, de médiastinite ou de fistule. Chez les patients opérés d'une atrésie de l'œsophage, Durning (47) décrit même 50% de scoliose à 10 ans post-opératoire. Dans l'étude de Westfelt (48), 20 patients sur les 61 suivis après thoracotomie latérale pour chirurgie d'atrésie de l'œsophage ont développé une scoliose.

ii. Pathologie cardiaque

L'étude de Agarwala et Al. (49) concernant les conséquences de la thoracotomie dans une population pédiatrique ne retrouvait que 1,9% de scolioses. Il s'agissait uniquement de thoracotomies postéro-latérales. La scoliose était dans la majorité des cas légère et asymptomatique. Cependant, l'incidence très faible des scolioses dans cette étude est certainement due au suivi post-opératoire également très faible, uniquement de 2 ans. De même, Piolat (50) ne décrit aucune scoliose après thoracotomie pour malformation cardiaque.

Bal (51) a étudié les séquelles de la thoracotomie pour pathologie cardiaque dans une série de 49 enfants. Après une période moyenne de suivi de 6 ans, 94% des enfants avaient diverses malformations musculo-squelettiques, dont 31% présentaient une scoliose, sévère avec un angle de Cobb supérieur à 25° pour la moitié d'entre-eux.

iii. Exérèse pulmonaire

Il n'y a que très peu d'études s'intéressant à la chirurgie d'exérèse pulmonaire. Eren (52) s'est intéressé aux conséquences de la pneumonectomie chez l'enfant. Il a suivi 13 patients sur 17 opérés. Sur ces 13 patients, 6 ont développé une scoliose dont 5 inférieures à 10° d'angle de Cobb. Aucun de ces patients n'a dû être opéré. 5 de ces patients étaient âgés de moins de 7 ans au moment de la chirurgie. De même, Kosar (53) ne retrouve qu'un seul cas de scoliose après pneumonectomie parmi 18 patients opérés, sachant que la durée moyenne de suivi était de 65 mois. *A contrario*, Lezama-Del Valle (54) a décrit des scolioses progressant de 10 à 30° entre l'âge de 3 et 5 ans chez des enfant ayant bénéficié d'une pneumonectomie entre 1 et 3 ans. Il en est de même pour Giubergia (55) qui décrit 20% de scolioses après pneumonectomie, ainsi que Feofilov (56).

Une ancienne étude s'intéressait aux déformations thoraciques après chirurgie d'exérèse pulmonaire. Celle-ci a étudié 38 enfants pendant 10 ans après une chirurgie pour dilatation des bronches. 25 patients ont bénéficié d'un suivi complet. Plusieurs cas de scolioses sévères ont été retrouvés (57).

Jordan (58) retrouve également une corrélation entre le côté de la convexité et le côté de l'incision lorsqu'il y a une scoliose après thoracotomie.

b. Thoracotomie versus thoracoscopie

Dans l'étude de Kunisaki (59), on retrouve un bénéfice de la thoracoscopie comparativement à la thoracotomie. Cependant, il ne s'intéresse qu'aux complications à court et moyen terme, et non aux complications à long terme.

Lawal (60) a étudié les complications musculo-squelettiques après thoracotomie *versus* thoracoscopie chez les enfants. Il retrouve une différence significative sur l'apparition de scoliose avec un risque significativement augmenté chez les patients opérés par thoracotomie.

Le docteur Lecompte (61) a comparé la survenue de déformations thoraciques après thoracotomie et thoracoscopie chez l'enfant. Il retrouve dans le groupe thoracotomie un taux plus élevé de scolioses, notamment de scolioses présentant un angle de Cobb supérieur à 10 degrés, de scapula alata et de lésion des espaces intercostaux. De plus, il retrouve un lien significatif entre l'apparition de scoliose et le nombre de chirurgies thoraciques dont a bénéficié l'enfant. Cependant, ces résultats sont à nuancer car les deux groupes ne sont pas comparables sur la pathologie initiale. En effet, les thoracoscopies sont souvent indiquées pour des gestes relativement plus simples, avec donc une proportion de complications post-opératoires qui pourrait être plus faible.

II. Analyse objectif principal

Dans notre étude, nous nous sommes intéressés uniquement aux déformations du rachis et aux patients ayant bénéficié de chirurgie d'exérèse pulmonaire. En effet, comme décrit précédemment, il a déjà été démontré à plusieurs reprises que la chirurgie thoracique par thoracotomie, notamment pour atrésie de l'œsophage ou malformations cardiaques, était pourvoyeuse de scolioses post-opératoires. Cependant, il n'y avait que très peu d'études s'intéressant aux chirurgies d'exérèse pulmonaire spécifiquement. De plus, tous nos patients ont été opérés par thoracotomie. Cela nous permet d'étudier les risques propres de déformations liées à la chirurgie d'exérèse pulmonaire et de nous affranchir des biais liés à la thoracotomie *versus* thoracoscopie.

Dans notre série, 28% des patients ont présenté une déformation du rachis post-opératoire à une échéance moyenne de 7 ans post-opératoire. Ce taux de déformations est comparable aux différentes séries de la littérature. Il est donc particulièrement augmenté par rapport à l'incidence des scolioses dans la population générale qui est de 0,47 à 5,2% de la population (20). On retrouve une proportion plus importante de filles présentant une scoliose secondaire (70%) sans que ce résultat ne soit significatif ($p=0,09$).

a. Etude du geste chirurgical

On retrouve une différence significative de la survenue de scolioses en fonction du geste chirurgical et du lobe concerné. La significativité est très élevée (0,005 et $<0,001$), ceci étant dû à la présence des pneumonectomies. En effet, dans notre série, les 5 patients ayant bénéficié d'une pneumonectomie ont vu apparaître une déformation post-opératoire. En excluant ces 5 patients de l'analyse, il ne semble pas

exister de différence significative entre lobectomie et segmentectomie. Ceci est certainement dû à la capacité préservée de croissance pulmonaire chez les patients après lobectomie ou segmentectomie, ce qui n'est pas le cas chez les patients bénéficiant d'une pneumonectomie.

b. Etude de la pathologie initiale

Les patients opérés pour MAKP sont associés à un risque plus faible de présenter une déformation post-opératoire contrairement aux patients opérés pour cause tumorales ou pour dilatations des bronches.

Les patients opérés de dilatation des bronches présentent pour la plupart une bronchopneumopathie chronique et par conséquent ont des capacités d'expansion pulmonaire altérées avec un tissu pulmonaire restant non sain. De plus, la chirurgie est dans ce cas plus compliquée, avec souvent un tissu pulmonaire très inflammatoire, rendant la dissection plus délicate et augmentant possiblement les adhérences post-opératoires, limitant l'expansion pulmonaire. Il en est de même pour la chirurgie tumorale qui est une chirurgie plus compliquée avec des marges d'exérèse bien définies et ceci indépendamment des considérations anatomiques et per-opératoires. De plus, il s'agit parfois d'un tissu pulmonaire inflammatoire et post-radique chez des patients ayant bénéficié d'une radio-chimiothérapie pré-adjuvante. Concernant les patients opérés pour MAKP, il s'agit de patients plus jeunes et donc ayant des capacités de croissances pulmonaires plus importantes.

c. Age au moment de la chirurgie

L'âge au moment de la chirurgie n'apparaît pas comme associé au risque de survenue de déformations thoraciques dans notre étude ($p=0,28$). Ceci peut être dû à la

puissance trop faible de notre étude ou à un facteur de confusion. En effet, les patients ayant bénéficié d'une pneumonectomie sont tous des patients jeunes (moins de 5 ans) et ils se déforment tous, alors que les patients suivi pour MAKP sont également opérés tôt dans la vie mais eux ne se déforment qu'exceptionnellement. En étudiant dans chaque sous-population l'incidence de la survenue de déformations en fonction de l'âge au moment de la chirurgie, on retrouve une différence significative de l'âge moyen au moment de la chirurgie entre les patients qui présenteront une déformation post-opératoire dans chaque sous-groupe de pathologies hormis les MAKP, probablement par manque d'effectif. Pour une même pathologie, l'âge moyen au moment de la chirurgie est significativement plus faible dans le groupe « déformation + ». Une chirurgie précoce semble donc être associée à un risque augmenté de déformations post-opératoire tout en restant prudent, car ces résultats ne sont pas confirmés si l'on n'étudie pas les sous-groupes. Pour un patient donné, le fait de différer la chirurgie pourrait donc diminuer le risque de survenue d'une déformation secondaire, mais ceci n'est évidemment que rarement faisable.

d. Malformations associées

L'existence de malformations associés semble être associée à un risque augmenté de survenue d'une déformation secondaire du rachis ($p=0,04$, Odd ratio 3,08). Or 50% des déformations secondaires sont représentées par les dyskinésies ciliaires primitives. Ceci peut être expliqué par le fait que sur les 8 patients atteints de dyskinésie ciliaire primitive, 5 patients (62,5%) se sont déformés en post-opératoire. On retrouve dans la littérature une augmentation du risque de scoliose chez les patients atteint de dyskinésie ciliaire primitive. Par conséquent, il est difficile voire

impossible d'affirmer la cause de la scoliose : secondaire à la chirurgie ou due à la dyskinésie ciliaire primitive.

e. Survenue d'événements et analyse multivariée

Dans notre analyse de survenue d'évènements, la courbe de Kaplan Meier est homogène, témoignant du lien probable entre la survenue de l'évènement 'scoliose' et la chirurgie initiale avec une augmentation proportionnelle du risque de voir apparaître une scoliose en fonction du délai post-opératoire.

Cependant lors des test univariés de survenue d'évènements le seul facteur associé au risque de développer une déformation du rachis post-opératoire est le geste chirurgical ($p=0,04$). Ce dernier est représenté essentiellement par la pneumonectomie qui provoque un risque trois fois plus important comparativement à la lobectomie seule ($HR=3,11$). Ce résultat peut s'expliquer par un manque de puissance de notre étude, ou la conséquence de différents biais inhérents à une étude rétrospective.

Une analyse multivariée de nos résultats n'était pas réalisable dans notre série, ceci est dû à des effectifs trop faibles.

III. Analyse des objectifs secondaires

Les déformations sont retrouvées chez 34 patients (28%). L'âge moyen de survenue correspond au pic de croissance pubertaire rencontré chez les adolescents. Il s'agit dans la plupart des cas de scolioses vraies, étant donné qu'une rotation est retrouvée dans 65% des cas.

La majorité des déformations sont des scolioses légères étant donné l'angle de Cobb médian de 15°, et relativement courtes concernant en moyenne 6 vertèbres. Le côté de la déformation est corrélé avec le côté de la chirurgie. En effet, une chirurgie droite provoquera essentiellement une scoliose à convexité gauche ($p=0,002$). Ceci peut être expliqué par les conséquences de la thoracotomie sur la paroi thoracique, diminuant la croissance de l'hémithorax et entraînant une attraction du rachis vers le côté opéré. Cela peut également être expliqué par le geste lui-même : en effet, une exérèse pulmonaire va créer un espace vide, et ainsi créer un phénomène d'attraction et « d'enroulement » du rachis autour de cette espace, entraînant ainsi la déformation. Ce phénomène peut être atténué voire annulé si la croissance pulmonaire ou l'expansion pulmonaire comblent cet espace. On comprend donc bien que lorsque l'intervention a lieu à un âge avancé, n'ayant plus de possibilité de croissance pulmonaire mais uniquement de réexpansion pulmonaire, le vide se comble moins et donc favorise les déformations secondaires. Pour limiter ce phénomène, certains mettent en place au moment de la chirurgie des prothèses d'expansion thoracique. Dans notre série uniquement deux patients ont bénéficié d'une prothèse d'expansion, chacun suite à une pneumonectomie à l'âge de 3 ans. Ces deux patients ont vu apparaître une scoliose de 40 degrés d'angle de Cobb, l'un a eu un traitement orthopédique et l'autre un traitement chirurgical. Nous ne pouvons affirmer ou infirmer les bénéfices d'un tel dispositif n'étant pas le sujet de notre étude et nos effectifs étant

bien trop faible, cependant ce dernier n'a pu empêcher la survenue de déformation chez nos patients.

Il ne semble pas avoir de lien entre le niveau de la chirurgie et le niveau de la déformation rachidienne. Ceci est probablement dû au fait que le poumon est essentiellement en regard du rachis thoracique. Par conséquent, que la chirurgie d'exérèse concerne le lobe supérieur, moyen ou inférieur ; les conséquences directes concerneront le rachis thoracique. Cela explique donc qu'il y ait uniquement 2 patients (6% des déformations) présentant une déformation ne touchant que le segment lombaire. Ces deux patients présentent des déformations minimales avec un angle de Cobb à 10° et à 12° après lobectomie supérieure droite. Ces déformations sont toutes les deux apparues à un âge de 13 ans pour une chirurgie aux âges de 3 et 6 ans. Il convient de se demander si ces déformations sont la conséquence de la chirurgie ou si elles rentrent dans le cadre des scolioses idiopathiques de l'adolescent.

Nous avons ensuite divisé les patients qui ont présenté une déformation en deux sous-groupes : patients bénéficiant d'un traitement spécifique (orthopédique ou chirurgical), et patients ne nécessitant pas de traitement ou une simple rééducation. Cette distinction des deux groupes nous paraissait adéquat : en effet, la mise en place d'une rééducation est parfois très subjective et ne coïncide pas forcément avec des critères cliniques, contrairement au traitement orthopédique qui se base sur l'angle de Cobb (son importance et son évolutivité). La seule différence significative entre ces deux groupes concerne l'angle de Cobb qui est plus important dans le groupe traitement spécifique. Ceci est tout à fait logique et concordant avec les recommandations. En effet, l'indication d'un traitement orthopédique se fait en premier lieu sur l'angle de Cobb.

De plus, l'âge de survenue de la déformation semble moindre dans le groupe traitement invasif sans que ce résultat soit significatif ($p=0,2$). Ceci est concordant avec la littérature et nous encourage à être plus vigilants si une déformation apparaît avant le pic de croissance pubertaire (45).

IV. Biais rencontrés

Les patients étant suivis uniquement au CHRU de Lille, on pourrait penser qu'il existe un biais de recrutement. Ceci n'est pas exact car tous les patients des Hauts-de-France atteints de ce type de pathologies sont uniquement pris en charge dans ce centre.

Comme dans toute étude rétrospective, notre étude comporte cependant des biais. Il existe premièrement un biais d'information. En effet, le suivi est effectué essentiellement par les pneumologues pédiatres. Ces derniers réalisent des radiographies thoraciques afin de suivre l'évolution de la chirurgie d'exérèse pulmonaire, mais ne prescrivent des radiographies de rachis qu'en cas de point d'appel clinique. Par conséquent, nous avons recherché l'apparition d'une déformation du rachis dans la plupart des cas sur une radiographie de thorax, ce qui peut potentiellement limiter la détection des malformations. Ceci est confirmé par le fait que 28% des patients présentent une déformation secondaire alors que le pourcentage de patients bénéficiant d'une radiographie de rachis est bien moindre. Cela nous montre que l'incidence des déformations secondaires est certainement sous-évaluée, et qu'il serait intéressant d'effectuer une télémétrie du rachis à distance chez tous les enfants opérés d'une exérèse pulmonaire.

Deuxièmement, il existe un biais de suivi. En effet, s'agissant d'une étude rétrospective, les patients n'avaient pas de suivi protocolisé et par conséquent la date

de diagnostic d'une éventuelle déformation pouvait être retardée, due essentiellement au fait que les consultations pouvaient être plus éloignées.

Enfin, il existe un biais de recueil car l'étude étant rétrospective, il nous manque des données qu'on ne retrouve pas à la lecture du dossier médical chez certains patients, notamment le niveau de la thoracotomie ainsi que l'existence ou non d'anomalies cliniques à l'examen du rachis. En effet l'examen du rachis semble systématique chez nos confrères pneumologues pédiatres mais il n'est pas forcément retranscrit par écrit.

V. Proposition de suivi

A la vue de notre étude, on retrouve un pourcentage non négligeable de déformations secondaires du rachis après chirurgie d'exérèse pulmonaire chez l'enfant. Nous proposons une consultation systématique avec un orthopédiste pédiatre, avec réalisation d'une télémétrie du rachis avant le pic pubertaire, soit à l'âge de 9 ans chez la fille et 11 ans chez le garçon, pour tous les patients opérés par thoracotomie, sauf ceux opérés pour MAKP. Pour ces derniers, un suivi systématique par les pédiatres doit être effectué avec un examen du rachis systématique et, si une anomalie était retrouvée, une consultation spécialisée serait à prévoir. De plus, les patients opérés pour DDB ou ayant bénéficié d'une pneumonectomie sont à suivre par un orthopédiste pédiatre de manière plus rapprochée (1 fois par an pour les pneumonectomies et 1 fois tous les 2 ans pour les DDB). L'organigramme est résumé dans la figure 7.

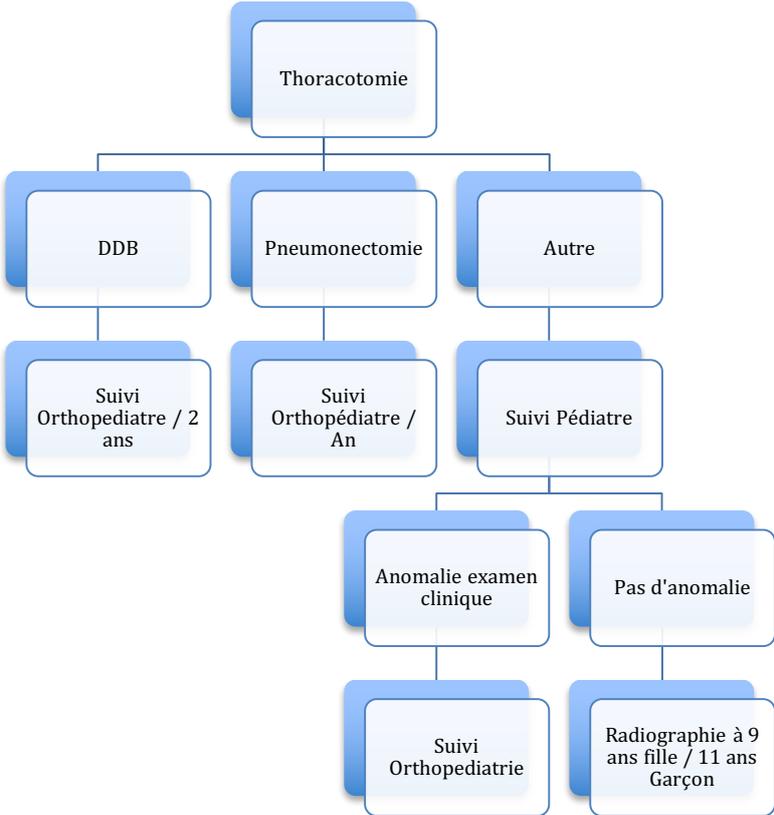


Figure 7 : Organigramme de suivi des patients opérés par thoracotomie

Conclusion

La chirurgie d'exérèse pulmonaire chez l'enfant n'est pas une chirurgie exceptionnelle. Grâce aux avancées médicales, celle-ci se fait de plus en plus souvent par vidéo-chirurgie mais la thoracotomie reste d'usage dans de nombreuses indications. Notre étude a retrouvé un taux important de déformations du rachis après thoracotomie pour exérèse pulmonaire. Le risque de survenue de déformations est augmenté en cas d'exérèse importante (pneumonectomie) ou de chirurgie pour dilatation des bronches. Pour ces patients, nous proposons donc un suivi rapproché par un chirurgien orthopédiste pédiatre. Pour les autres patients, considérant l'incidence augmentée de déformations post-opératoires, nous proposons un suivi clinique systématique par un pédiatre associé à une télémétrie systématique avant le pic pubertaire, pic qui risquerait d'aggraver une déformation légère du rachis.

Références Bibliographiques

1. Kunisaki SM, Fauza DO, Nemes LP, Barnewolt CE, Estroff JA, Kozakewich HP, et al. Bronchial atresia: the hidden pathology within a spectrum of prenatally diagnosed lung masses. *J Pediatr Surg.* 2006 Jan;41(1):61-65-65.
2. Puligandla PS, Laberge J-M. Congenital lung lesions. *Clin Perinatol.* 2012 Jun;39(2):331-47.
3. Seear M, Townsend J, Hoepker A, Jamieson D, McFadden D, Daigneault P, et al. A review of congenital lung malformations with a simplified classification system for clinical and research use. *Pediatr Surg Int.* 2017 Jun;33(6):657-64.
4. Duncombe GJ, Dickinson JE, Kikiros CS. Prenatal diagnosis and management of congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. *Am J Obstet Gynecol.* 2002 Oct;187(4):950-4.
5. Federici S, Domenichelli V, Tani G, Sciutti R, Burnelli R, Zanetti G, et al. Pleuropulmonary blastoma in congenital cystic adenomatoid malformation: report of a case. *Eur J Pediatr Surg Off J Austrian Assoc Pediatr Surg Al Z Kinderchir.* 2001 Jun;11(3):196-9.
6. Granata C, Gambini C, Balducci T, Toma P, Michelazzi A, Conte M, et al. Bronchioloalveolar carcinoma arising in congenital cystic adenomatoid malformation in a child: a case report and review on malignancies originating in congenital cystic adenomatoid malformation. *Pediatr Pulmonol.* 1998 Jan;25(1):62-6.
7. Laberge JM, Flageole H, Pugash D, Khalife S, Blair G, Filiatrault D, et al. Outcome of the prenatally diagnosed congenital cystic adenomatoid lung malformation: a Canadian experience. *Fetal Diagn Ther.* 2001 Jun;16(3):178-86.
8. Brinchault G, Morel V, Meunier C, Belleguic C, Delaval P. Dilatations des bronches. [Httpwwwem-Premiumcomdoc-Distantuniv-Lille2frdatatraitesmgtm-34179](http://www.em-premium.com/doc-Distantuniv-Lille2frdatatraitesmgtm-34179) [Internet]. [cited 2017 Jun 8]; Available from: [http://www.em-premium.com.doc-distant.univ-lille2.fr/article/26132/resultatrecherche/5](http://www.em-premium.com/doc-distant.univ-lille2.fr/article/26132/resultatrecherche/5)
9. O'Grady K-AF, Grimwood K. The Likelihood of Preventing Respiratory Exacerbations in Children and Adolescents with either Chronic Suppurative Lung Disease or Bronchiectasis. *Front Pediatr* [Internet]. 2017 [cited 2017 Jun 8];5. Available from: [https://www.ncbi.nlm.nih.gov.doc-distant.univ-lille2.fr/pmc/articles/PMC5364147/](https://www.ncbi.nlm.nih.gov/doc-distant.univ-lille2.fr/pmc/articles/PMC5364147/)
10. Goyal V, Grimwood K, Marchant J, Masters IB, Chang AB. Pediatric bronchiectasis:

No longer an orphan disease. *Pediatr Pulmonol*. 2016 May;51(5):450–69.

11. Singleton R, Morris A, Redding G, Poll J, Holck P, Martinez P, et al. Bronchiectasis in Alaska Native children: causes and clinical courses. *Pediatr Pulmonol*. 2000 Mar;29(3):182–7.
12. Säynäjäkangas O, Keistinen T, Tuuponen T, Kivelä SL. Evaluation of the incidence and age distribution of bronchiectasis from the Finnish hospital discharge register. *Cent Eur J Public Health*. 1998 Aug;6(3):235–7.
13. De Dominicis F, Andréjak C, Monconduit J, Merlusca G, Berna P. [Surgery for bronchiectasis]. *Rev Pneumol Clin*. 2012 Apr;68(2):91–100.
14. Lacour B, Guyot-Goubin A, Guissou S, Bellec S, Désandes E, Clavel J. Incidence of childhood cancer in France: National Children Cancer Registries, 2000-2004. *Eur J Cancer Prev Off J Eur Cancer Prev Organ ECP*. 2010 May;19(3):173–81.
15. Kravitz RM. Congenital malformations of the lung. *Pediatr Clin North Am*. 1994 Jun;41(3):453–72.
16. Thakral CL, Maji DC, Sajwani MJ. Congenital lobar emphysema: experience with 21 cases. *Pediatr Surg Int*. 2001 Mar;17(2–3):88–91.
17. Salles M, Deschildre A, Bonnel C, Dubos JP, Bonnevalle M, Devismes L, et al. Diagnostic et traitement des malformations bronchopulmonaires congénitales : analyse de 32 observations. [Httpwwwem-Premiumcomdoc-Distantuniv-Lille2frdatarevues0929693X0012001205004975](http://www.em-premium.com.doc-distant.univ-lille2.fr/data/revues/0929693X0012001205004975) [Internet]. [cited 2017 Jun 14]; Available from: <http://www.em-premium.com.doc-distant.univ-lille2.fr/article/37619/resultatrecherche/1>
18. Brichon P-Y. Thoracotomies latérales et postérolatérales. [Httpwwwem-Premiumcomdoc-Distantuniv-Lille2frdatatraitements0442-39126](http://www.em-premium.com.doc-distant.univ-lille2.fr/data/traitements/0442-39126) [Internet]. 2009 Mar 27 [cited 2017 Jun 15]; Available from: <http://www.em-premium.com.doc-distant.univ-lille2.fr/article/206597>
19. Zheng Y, Dang Y, Wu X, Yang Y, Reinhardt JD, He C, et al. Epidemiological study of adolescent idiopathic scoliosis in Eastern China. *J Rehabil Med*. 2017 May 24;
20. Parent S, Newton PO, Wenger DR. Adolescent idiopathic scoliosis: etiology, anatomy, natural history, and bracing. *Instr Course Lect*. 2005;54:529–36.
21. Choudhry MN, Ahmad Z, Verma R. Adolescent Idiopathic Scoliosis. *Open Orthop J*. 2016;10:143–54.
22. D’Hulster - Hocquet L. Mesure du flux de liquide céphalo-rachidien par IRM dans la

- scoliose idiopathique de l'adolescent (SIA) : Une étude pilote [Thèse d'exercice]. Université de Lille 2; 2017.
23. Warner JJ, Navarro RA. Serratus anterior dysfunction. Recognition and treatment. *Clin Orthop*. 1998 Apr;(349):139–48.
 24. Nawa S. Scapular Winging Secondary to Apparent Long Thoracic Nerve Palsy in a Young Female Swimmer. *J Brachial Plex Peripher Nerve Inj*. 2015 Dec;10(1):e57–61.
 25. Shamberger RC. Congenital chest wall deformities. *Curr Probl Surg*. 1996 Jun;33(6):469–542.
 26. Marks MW, Iacobucci J. Reconstruction of congenital chest wall deformities using solid silicone onlay prostheses. *Chest Surg Clin N Am*. 2000 May;10(2):341–355, vii.
 27. Fonkalsrud EW, Bustorff-Silva J. Repair of pectus excavatum and carinatum in adults. *Am J Surg*. 1999 Feb;177(2):121–4.
 28. DiMeglio A, Dimeglio A, Canavese F, Charles YP, Charles P. Growth and adolescent idiopathic scoliosis: when and how much? *J Pediatr Orthop*. 2011 Feb;31(1 Suppl):S28-36.
 29. Canavese F, Samba A, Dimeglio A, Mansour M, Rousset M. Serial elongation-derotation-flexion casting for children with early-onset scoliosis. *World J Orthop*. 2015 Dec 18;6(11):935–43.
 30. Dimeglio A, Canavese F. The growing spine: how spinal deformities influence normal spine and thoracic cage growth. *Eur Spine J Off Publ Eur Spine Soc Eur Spinal Deform Soc Eur Sect Cerv Spine Res Soc*. 2012 Jan;21(1):64–70.
 31. Accadbled F, Sales de Gauzy, J. Scoliose idiopathique SOFOP 2016. Sauremps Medical; 2016. 267 p.
 32. Dimeglio A, Canavese F. Progression or not progression? How to deal with adolescent idiopathic scoliosis during puberty. *J Child Orthop*. 2013 Feb;7(1):43–9.
 33. Butler JP, Loring SH, Patz S, Tsuda A, Yablonskiy DA, Mentzer SJ. Evidence for adult lung growth in humans. *N Engl J Med*. 2012 Jul 19;367(3):244–7.
 34. Narayanan M, Owers-Bradley J, Beardsmore CS, Mada M, Ball I, Garipov R, et al. Alveolarization continues during childhood and adolescence: new evidence from helium-3 magnetic resonance. *Am J Respir Crit Care Med*. 2012 Jan 15;185(2):186–91.
 35. Mii S, Yasuda K, Murayama H. Pulmonary haemodynamics in Fontan physiology after lobectomy in a patient with a single ventricle associated with pulmonary sequestration. *Cardiol Young*. 2017 Mar;27(2):381–4.
 36. Laros CD, Westermann CJ. Dilatation, compensatory growth, or both after

- pneumonectomy during childhood and adolescence. A thirty-year follow-up study. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 1987 Apr;93(4):570–6.
37. Cagle PT, Thurlbeck WM. Postpneumonectomy compensatory lung growth. *Am Rev Respir Dis.* 1988 Nov;138(5):1314–26.
38. Rannels DE, Rannels SR. Compensatory growth of the lung following partial pneumonectomy. *Exp Lung Res.* 1988;14(2):157–82.
39. Rannels DE. Role of physical forces in compensatory growth of the lung. *Am J Physiol.* 1989 Oct;257(4 Pt 1):L179-189.
40. Kaza AK, Kron IL, Kern JA, Long SM, Fiser SM, Nguyen RP, et al. Retinoic acid enhances lung growth after pneumonectomy. *Ann Thorac Surg.* 2001 May;71(5):1645–50.
41. Leuwerke SM, Kaza AK, Tribble CG, Kron IL, Laubach VE. Inhibition of compensatory lung growth in endothelial nitric oxide synthase-deficient mice. *Am J Physiol Lung Cell Mol Physiol.* 2002 Jun;282(6):L1272-1278.
42. Kaza AK, Laubach VE, Kern JA, Long SM, Fiser SM, Tepper JA, et al. Epidermal growth factor augments postpneumonectomy lung growth. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 2000 Nov;120(5):916–21.
43. Sakamaki Y, Matsumoto K, Mizuno S, Miyoshi S, Matsuda H, Nakamura T. Hepatocyte growth factor stimulates proliferation of respiratory epithelial cells during postpneumonectomy compensatory lung growth in mice. *Am J Respir Cell Mol Biol.* 2002 May;26(5):525–33.
44. Sistonen SJ, Pakarinen MP, Rintala RJ. Long-term results of esophageal atresia: Helsinki experience and review of literature. *Pediatr Surg Int.* 2011 Nov;27(11):1141–9.
45. Jaureguizar E, Vazquez J, Murcia J, Diez Pardo JA. Morbid musculoskeletal sequelae of thoracotomy for tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg.* 1985 Oct;20(5):511–4.
46. Gilsanz V, Boechat IM, Birnberg FA, King JD. Scoliosis after thoracotomy for esophageal atresia. *AJR Am J Roentgenol.* 1983 Sep;141(3):457–60.
47. Durning RP, Scoles PV, Fox OD. Scoliosis after thoracotomy in tracheoesophageal fistula patients. A follow-up study. *J Bone Joint Surg Am.* 1980 Oct;62(7):1156–9.
48. Westfelt JN, Nordwall A. Thoracotomy and scoliosis. *Spine.* 1991 Sep;16(9):1124–5.
49. Agarwala S, Bhalla A, Panda S, Bhatnagar V, Kabra S, Jayaswal A. A survey of musculoskeletal and aesthetic abnormalities after thoracotomy in pediatric patients. *J Indian Assoc Pediatr Surg.* 2013;18(4):136.
50. Piolat C, Lavrand F, Sarnacki S. Séquelles des chirurgies thoraco-abdomino-

- pelviennes réalisées pour tumeurs chez l'enfant. *Bull Cancer (Paris)*. 2015 Jul;102(7-8):586-92.
51. Bal S, Elshershari H, Celiker R, Celiker A. Thoracic sequels after thoracotomies in children with congenital cardiac disease. *Cardiol Young*. 2003 Jun;13(3):264-7.
52. Eren S, Eren MN, Balci AE. Pneumonectomy in children for destroyed lung and the long-term consequences. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 2003 Aug;126(2):574-81.
53. Kosar A, Orki A, Kiral H, Demirhan R, Arman B. Pneumonectomy in children for destroyed lung: evaluation of 18 cases. *Ann Thorac Surg*. 2010 Jan;89(1):226-31.
54. Lezama-del Valle Valle P, Blakely ML, Lobe TE. Physiologic consequences of pneumonectomy. Long-term consequences of pneumonectomy done in children. *Chest Surg Clin N Am*. 1999 May;9(2):485-495, xiii.
55. Giubergia V, Alessandrini F, Barrias C, Giuseppucci C, Reusmann A, Barrenechea M, et al. Risk factors for morbidities and mortality in children following pneumonectomy. *Respirol Carlton Vic*. 2016 Aug 10;
56. Feofilov GL, Sidorenko AG, Glock RI. Upward displacement of the diaphragm after lung resection. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 1975 Feb;69(2):315-20.
57. Wolff H, Schubert W. [Thorax deformity after lung resection during childhood (author's transl)]. *Z Erkr Atmungsorgane*. 1977 Mar;147(3):240-5.
58. Jordan CE, White RI, Fischer KC, Neill C, Dorst JP. The scoliosis of congenital heart disease. *Am Heart J*. 1972 Oct;84(4):463-9.
59. Kunisaki SM, Powelson IA, Haydar B, Bowshier BC, Jarboe MD, Mychaliska GB, et al. Thoracoscopic vs open lobectomy in infants and young children with congenital lung malformations. *J Am Coll Surg*. 2014 Feb;218(2):261-70.
60. Lawal TA, Gosemann J-H, Kuebler JF, Glüer S, Ure BM. Thoracoscopy versus thoracotomy improves midterm musculoskeletal status and cosmesis in infants and children. *Ann Thorac Surg*. 2009 Jan;87(1):224-8.
61. Lecompte J-F. Evaluation des déformations thoraciques après thoracotomie et thoracoscopie chez l'enfant [Thèse d'exercice]. [France]: Université de Nice-Sophia Antipolis. Faculté de Médecine; 2011.

Annexe : Résultats Brut

Sujet	Sexe	Patho	Malformation_asso	Geste	Lobe	Coté	Date_chir	Age_chi_r_(an)	RCT	Deformation_PO	Durée_suivi_(an)	Age_fin_suivi	Derniere_nouvelle	Chir_itative	Niveau	Rotation	Convexité	Cobb_max	Date_apparition	Duree_post_op	Ttt_Max
1	M	Tumoral	non	partielle	sup	gauche	29/11/04	13,4	oui	0	10,3	23,7	01/04/15	oui							
2	M	Tumoral	non	lobectomie	sup	droite	02/04/08	11,8	non	0	7,9	19,7	08/03/16	oui							
3	M	DDB	non	lobectomie	moy	droite	16/08/05	11,4	non	1	11,1	22,5	09/09/16	non	0	1	1	11	29/01/15	9,5	Rien
4	M	emphyseme	non	lobectomie	sup	gauche	09/01/04	0,2	non	1	12,7	12,9	16/09/16	non	0	1	0	28	03/07/07	3,5	Corset
5	F	DDB	non	lobectomie	moy	droite	23/08/05	11,8	non	0	11,1	22,9	03/10/16	non							
6	F	MAKP	non	lobectomie	inf	droite	19/10/09	1,1	non	0	6,7	7,7	22/06/16	non							
7	F	autre	oui	lobectomie	inf	droite	25/11/08	3,6	non	0	7,1	10,8	08/01/16	non							
8	F	autre	oui	lobectomie	inf	gauche	08/08/07	5,2	non	1	9,1	14,2	24/08/16	non	0	1	0	21	18/07/11	3,9	Rien
9	F	MAKP	non	lobectomie	sup	gauche	05/12/07	0,2	non	1	8,5	8,7	15/06/16	non	0	1	0	15	04/06/14	6,5	Kiné
10	F	MAKP	non	lobectomie	inf	gauche	31/12/08	0,6	non	0	7,4	8,0	24/05/16	oui							
11	F	MAKP	non	lobectomie	sup	droite	01/04/09	1,5	non	0	6,6	8,1	03/11/15	non							
12	F	DDB	oui	lobectomie	moy	gauche	17/03/09	8,7	non	0	7,1	15,7	19/04/16	non							
13	F	DDB	non	lobectomie	inf	gauche	14/06/04	8,9	non	0	8,6	17,5	23/01/13	non							
14	M	MAKP	non	lobectomie	sup	gauche	18/05/04	7,8	non	0	11,5	19,3	05/11/15	non							
15	M	DDB	non	lobectomie	moy	droite	24/06/09	4,6	non	0	7,3	11,9	20/10/16	non							
16	M	DDB	oui	lobectomie	moy	droite	20/06/06	5,6	non	0	8,9	14,5	12/05/15	non							
17	F	DDB	non	lobectomie	inf	gauche	09/09/09	5,0	non	1	7,1	12,0	28/09/16	non	0	0	0	16	16/06/15	5,8	Rien
18	M	MAKP	non	lobectomie	inf	droite	12/06/07	1,1	non	0	8,0	9,1	22/06/15	non							

105	F	Tumoral	non	pneumonectomie	totale	gauche	31/05/04	3,2	non	1	12,6	15,8	13/01/17	non	0	0	1	16	21/03/11	6,8	Kiné
106	F	DDB	oui	pneumonectomie	totale	droite	01/01/01	0,4	non	1	14,9	15,2	12/11/15	non	1	1	0	10	22/02/06	5,1	Kiné
107	M	emphyseme	non	pneumonectomie	totale	gauche	01/05/89	0,1	non	1	16,5	16,6	20/10/05	non	2	1	0	46	01/04/94	4,9	Chirurgie
108	F	emphyseme	non	lobectomie	sup	gauche	08/10/09	0,1	non	0	1,2	1,3	28/12/10	non							
109	F	Tumoral	non	partielle	sup	gauche	18/05/10	9,4	oui	1	3,1	12,5	20/06/13	non	0	0	0	15	20/06/13	3,1	Rien
110	F	autre	non	lobectomie	inf	droite	08/08/06	5,5	non	0	2,7	8,2	05/05/09	non							
111	F	autre	non	lobectomie	sup	gauche	15/11/05	4,1	non	0	1,8	5,9	18/09/07	non							
112	F	Tumoral	non	partielle	sup	gauche	24/03/10	14,8	oui	0	1,9	16,7	17/02/12	non							
113	M	emphyseme	non	lobectomie	sup	gauche	14/09/10	2,9	non	0	2,0	4,8	27/08/12	non							
114	F	DDB	non	lobectomie	inf	gauche	22/08/05	7,5	non	0	3,7	11,2	20/04/09	non							
115	M	Tumoral	oui	partielle	inf	droite	04/02/09	13,9	oui	0	1,6	15,5	25/08/10	non							
116	F	autre	non	lobectomie	inf	droite	03/08/05	13,2	non	0	3,3	16,6	03/12/08	non							
117	M	MAKP	non	lobectomie	inf	gauche	19/11/06	0,9	non	0	1,2	2,1	31/01/08	non							
118	M	MAKP	non	lobectomie	inf	gauche	21/11/07	0,7	non	0	3,4	4,2	27/04/11	non							
119	M	MAKP	oui	lobectomie	inf	droite	24/04/06	8,8	non	0	4,0	12,8	12/04/10	non							
120	M	Tumoral	non	partielle	inf	gauche	07/02/07	3,4	oui	0	2,5	5,9	06/08/09	oui							
121	F	emphyseme	non	partielle	sup	droite	20/02/07	13,2	oui	0	1,4	14,6	09/07/08	non							
122	F	emphyseme	non	lobectomie	sup	gauche	30/09/97	2,6	non	0	3,5	6,1	19/03/01	non							
123	M	MAKP	non	lobectomie	sup	droite	08/08/00	0,4	non	0	3,0	3,4	31/07/03	non							

AUTEUR : Nom : HOCQUET

Prénom : Bastien

Date de Soutenance : Jeudi 14 septembre 2017

Titre de la Thèse : Facteurs influençant le risque de déformations du rachis après chirurgie d'exérèse pulmonaire chez l'enfant : étude rétrospective chez 123 enfants opérés entre 1995 et 2010 au CHRU de Lille.

Thèse - Médecine - Lille 2017

Cadre de classement : DES Chirurgie générale

DES + spécialité : *Chirurgie générale, Chirurgie infantile*

Mots-clés : Thoracotomie, lobectomie, pneumonectomie, dilatation des bronches, scoliose

Contexte : Il est établi que la chirurgie thoracique, *a fortiori* par thoracotomie, est pourvoyeuse de déformations secondaires du rachis. Dans notre pratique courante, nous avons constaté que les patients ayant bénéficié d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire semblaient présenter un risque accru de déformations du rachis thoracique. Cela est-il dû à la chirurgie thoracique elle-même ou existe-t-il d'autres facteurs inhérents à la chirurgie ou au patient expliquant la survenue de telles déformations? L'objectif principal de notre étude était d'évaluer les facteurs de risque de survenue d'une déformation du rachis chez les enfants opérés d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire. Les objectifs secondaires étaient de décrire les caractéristiques des déformations du rachis rencontrées et d'adapter le suivi de ces enfants en fonction de nos résultats.

Matériel et méthode : Il s'agissait d'une étude rétrospective descriptive et analytique. Les enfants opérés entre 1995 et 2010 d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire au CHRU de Lille ont été inclus.

Résultats : Au total 123 patients ont été étudiés, et 28% ont présenté une déformation post-opératoire. La réalisation d'une pneumonectomie est associée à un risque augmenté de déformations (HR=3,11 ; p=0,03). De plus, parmi les patients déformés, il existe une majorité de patients opérés pour dilatation des bronches (56%, p<0,02) alors que cette étiologie ne représente que 45% de la population étudiée. De même, les patients présentant des malformations associées sont plus déformés (p=0,04). Le sexe féminin est plus représenté dans le groupe déformation sans que cette différence ne soit significative. Enfin, lorsqu'on étudie l'ensemble de la population, l'âge au moment de la chirurgie ne semble pas affecter la survenue de déformations. Cependant, dans chaque sous-groupe de pathologies, les patients présentant une déformation ont été opérés significativement plus tôt.

Conclusion : A la vue de nos résultats, nous proposons une surveillance clinique annuelle par le pédiatre associée à une radiographie du rachis complet à l'âge de 9 ans chez la fille et 11 ans chez le garçon pour tous les patients opérés d'une chirurgie d'exérèse pulmonaire. De plus pour les patients opérés d'une pneumonectomie ou pour dilatation des bronches, nous préconisons un suivi plus rapproché, respectivement 1 et 2 fois par an, par un orthopédiste pédiatre.

Composition du Jury :

Président : Professeur HERBAUX

Assesseurs : Professeur BESSON, Docteur BONNEVALLE, Docteur NECTOUX

Directeur de Thèse : Docteur FRON