

La polyorchidie : à propos d'un cas et revue de la littérature

Polyorchidism: case report and literature review

A. Bahloul · S. Nabolsi · T. Hassen · A. Bahloul · M.N. Mhiri

Reçu le 31 janvier 2011 ; accepté le 17 mars 2011
© SALF et Springer-Verlag France 2011

Introduction

La polyorchidie est une pathologie rare du tractus génito-urinaire qui se définit par la présence de plus de deux testicules, confirmée par l'histologie. Décrite pour la première fois par Ashfield en 1880, c'était une découverte autopsique. Une centaine de cas mondiaux sont rapportés dans la littérature, et seule la moitié a été histologiquement confirmée [1]. Cette anomalie est souvent associée à un trouble de la migration testiculaire. Nous rapportons un nouveau cas de polyorchidie associé à une cryptorchidie.

Observation

Il s'agit d'un garçon âgé de huit ans présentant un syndrome de Beckwith-Wiedemann (déméthylation du gène *KCNQ1OT*), découvert devant une macrosomie fœtale, et porteur d'une ectopie testiculaire gauche avec un testicule gauche palpable au niveau inguinal et un testicule droit en place. Après échec de traitement hormonal (HCG), une exploration chirurgicale a été réalisée et a permis de trouver deux testicules au niveau inguinal gauche de bonne vascularisation, avec chacun un épидidyme et un canal déférent (type D de la classification anatomique de Leung) mais l'un d'eux était hypotrophique (Figs. 1–3). Une orchidopexie du testicule de morphologie normale dans l'hémiscrotum gauche a été réalisée, et le testicule surnuméraire a été enlevé et adressé pour examen anatomopathologique qui a conclu à un aspect de testicule atrophique associé à des structures épидidymaire et déférentielle.



Fig. 1 Deux testicules gauches

Discussion

Le premier cas de polyorchidie histologiquement confirmé a été rapporté en post-mortem par Ashfield en 1880 [2,3]. L'origine embryologique la plus probable serait une division transverse ou longitudinale de la crête urogénitale par des replis péritonéaux entre la quatrième et la sixième semaines ; cette division peut intéresser n'importe quel niveau du canal mésonéphrotique et explique l'inégalité de volume des deux formations gonadiques [2,4]. Le siège caudal fréquent de cette division (en aval de tubules mésonéphriques) expliquerait la taille réduite et l'absence de système excréteur sur le testicule surnuméraire, comme cela a été constaté dans notre observation. Il s'agit dans la majorité des cas d'une triorchidie avec quelques rares formes bilatérales [1]. Une classification fondée sur l'origine embryologique de l'anomalie, la disposition anatomique du testicule et de son système excréteur a été établie par Leung (Tableau 1). Cette anomalie siège

A. Bahloul (✉) · S. Nabolsi · T. Hassen
Service d'urologie, centre hospitalier de Tulle, France
e-mail : dratefbah@yahoo.fr

A. Bahloul · M.N. Mhiri
Service d'urologie, CHU Habib-Bourguiba, Sfax, Tunisie

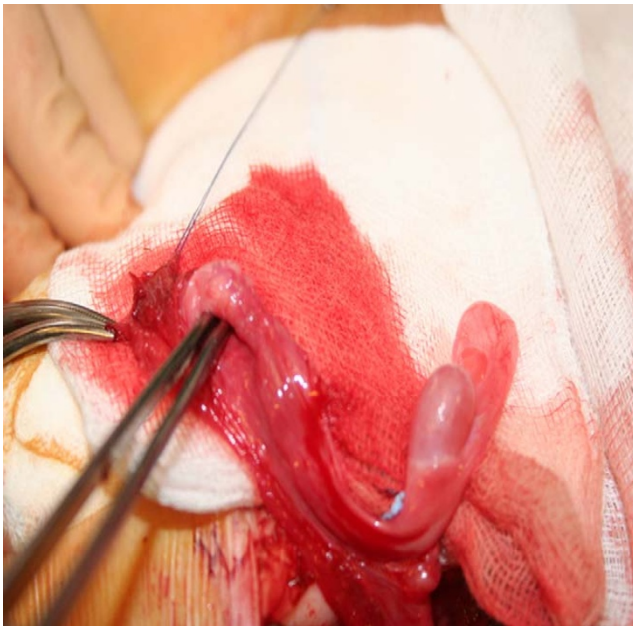


Fig. 2 Testicule hypotrophique

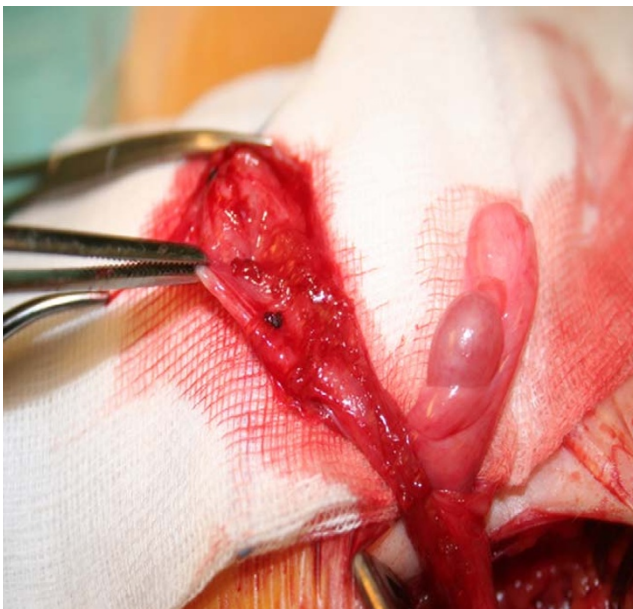


Fig. 3 Polyorchidie type D avec une duplication du testicule, de l'épididyme et du canal déférent

souvent du côté gauche (60 %) [5], elle est associée à des troubles de la migration testiculaire (cryptorchidie) dans 15 à 50 % des cas [1,6–8], à la pathologie du canal périto-néovaginal (hernies) dans 30 % des cas [1,3]. Elle peut se compliquer de torsion dans 10 à 15 % des cas [1,3]. Le potentiel dysgénétique de ces testicules surnuméraires a été souligné par Singer et al. [4], ils ne seraient potentiellement fertiles avec une spermatogenèse active que dans 50 à 65 % de cas [1].

Tableau 1 Classification anatomique de Leung

Type A	Testicule surnuméraire sans épидидyme ni canal déférent, aucun attachement au testicule normal
Type B	Le testicule surnuméraire se draine dans l'épididyme du testicule normal
Type C	L'épididyme du testicule surnuméraire et celui du testicule normal se drainent dans un seul canal déférent
Type D	Duplication complète du testicule, de l'épididyme et du canal déférent

La polyorchidie est rarement diagnostiquée au cours des premiers mois de vie. L'âge de découverte dans la littérature a varié de 18 mois à 74 ans [7]. La découverte d'une polyorchidie peut être fortuite en palpant deux testicules dans une hémibourse, parfois à l'occasion d'une douleur inguinale ou d'une tuméfaction scrotale [7]. Le diagnostic peut être confirmé grâce à l'apport de l'échographie, voire même de l'IRM. Le testicule surnuméraire a la même échogénicité que le testicule normal à l'échographie [6]. À l'IRM, les deux testicules ont un même signal en T1 et en T2 : un signal d'intensité intermédiaire en T1 et de haute intensité en T2 [8]. Dans la plupart des cas, la découverte est peropératoire, à l'occasion d'une ectopie testiculaire (15–50 %) [3].

La conduite à tenir exacte devant une polyorchidie est controversée. En fait, deux grands problèmes sont posés : l'hypofertilité [5] et le risque de dégénérescence du testicule surnuméraire. Un vrai potentiel de malignité du testicule surnuméraire n'a pas été mis en jeu à cause de la faible incidence de la polyorchidie et de son association à d'autres facteurs de risque tels que la cryptorchidie [1]. En cas d'une polyorchidie non compliquée chez un patient asymptomatique avec absence d'une tumeur testiculaire à l'imagerie, l'exploration chirurgicale est inutile [1,7,8]. En cas d'une découverte fortuite peropératoire d'un testicule surnuméraire de morphologie normale et de bonne vascularisation, certains auteurs recommandaient une orchidectomie à cause du risque de dégénérescence du testicule surnuméraire [7,8], d'autres, en se fondant sur les progrès de l'imagerie, préconisent un traitement conservateur notamment pour les groupes B et C de la classification de Leung permettant d'éviter les lésions épидидymaires et déférentielles et d'améliorer le potentiel de fertilité chez les sujets jeunes, associé à une orchidopexie pour éviter la torsion [2] et à une surveillance clinique et échographique régulière [3,6,7].

Conclusion

La polyorchidie est une pathologie rare du tractus génito-urinaire, fréquemment associée à une anomalie de migration testiculaire et de découverte donc souvent fortuite en

peropératoire. La polyorchidie pose des problèmes d'attitude thérapeutique qui doit tenir compte du risque de complications et préserver au maximum la fertilité du patient. En dehors des formes compliquées, le traitement est conservateur, permettant ainsi d'améliorer le potentiel de fertilité chez les sujets jeunes avec une surveillance clinique et échographique régulière.

Conflit d'intérêt : les auteurs déclarent ne pas avoir de conflit d'intérêt.

Références

1. Lawrentschuk N, MacGregor RJ (2004) Polyorchidism: a case report and review of the literature. *ANZ J Surg* 74:1130-2
2. Teklali Y, Piolat C, Jacquier C, et al (2007) Polyorchidie chez l'enfant : à propos d'un cas avec revue de la littérature. *Prog Urol* 17:872-4
3. Naouar S, Maazoun K, Sahnoun L, et al (2007) La polyorchidie : à propos de deux cas. *Prog Urol* 17:1008-9
4. Singer BR, Donaldson JG, Jackson DS (1992) Polyorchidism: functional classification and management strategy. *Urology* 39: 384-8
5. Yenyol CO, Nergiz N, Tuna A (2004) Abdominal polyorchidism: a case report and review of the literature. *Int Urol Nephrol* 36: 407-8
6. Mathur P, Prabhu K, Khamesra HL (2002) Polyorchidism revisited. *Pediatr Surg Int* 18:449-50
7. Ozok G, Taneli C, Yazici M, et al (1992) Polyorchidism: a case report and review of literature. *Eur J Pediatr Surg* 2:306-7
8. Hunald FA, Rakototiana AF, Razafimanijato N (2008) Un cas rare de polyorchidie : revue de la littérature. *Arch Pediatr* 15:1430-2