

## Malformations urogénitales : rapport de l'Institut de veille sanitaire sur les cryptorchidies et hypospadias opérés en France chez les garçons de moins de sept ans

**Urogenital malformations: report of the Institute for health surveillance on boys with cryptorchidism and hypospadias operated on in France at an age of less than 7 years**

**R. Miusset**

© SALF et Springer-Verlag France 2011

Sur la demande du ministère de la Santé, l'Institut de veille sanitaire (InVS) vient de publier un rapport sur les cryptorchidies et hypospadias opérés en France, dans le cadre d'un bilan de la situation actuelle de la fertilité masculine et des malformations urogénitales chez l'homme ([http://www.invs.sante.fr/publications/2011/malformations\\_congenitales/](http://www.invs.sante.fr/publications/2011/malformations_congenitales/) ainsi qu'un second rapport sur les cancers du testicule opérés en France.

Nous avons délibérément choisi de présenter le rapport de l'InVS sur les malformations urogénitales chez l'homme de façon détaillée, et sans commentaires associés, sous forme d'éditorial dans le but de sensibiliser plus encore les lecteurs d'*Andrologie* aux conséquences de ces malformations. En effet, la cryptorchidie, facteur de risque du cancer du testicule, est aussi associée à l'infertilité masculine [1,2] et pourvoyeuse de prises en charge complexes en AMP en raison de la fréquence élevée d'azoospermie [3]. Dans son numéro de septembre 2010, *Andrologie* rapportait une série d'articles portant sur les pathologies testiculaires issues du XXVIII<sup>e</sup> Séminaire de chirurgie pédiatrique de Caen 2009, reflet d'une préoccupation commune des pédiatres et des andrologues. Concernant l'hypospadias, cette malformation, bien que plus rare que la cryptorchidie, est tout autant source d'infertilité masculine, mais aussi de dysfonctions sexuelles et éjaculatoires, entre autres [4].

L'objectif de l'étude sur cryptorchidies et hypospadias était d'évaluer les tendances temporelles et les variations régionales des taux d'interventions chirurgicales pour ces anomalies chez les garçons de moins de sept ans en France entière (métropole et départements d'outre-mer [DOM]),

à partir des données du Programme de médicalisation des systèmes d'information (PMSI) sur la période 1998–2008.

Les auteurs passent en revue l'organogenèse de l'appareil génital masculin et rappellent les définitions, classifications et traitements, ainsi que la prévalence et les facteurs de risque de ces deux anomalies. Les données sont issues, d'une part, du PMSI : « depuis 1997, les établissements de santé public et privé procèdent à l'analyse de leur activité médicale et transmettent, aux services de l'État et à l'assurance maladie, “les informations relatives à leurs moyens de fonctionnement et à leur activité” ». Les données sont recueillies de manière continue et quasi exhaustive » ; d'autre part, des données de population « issues des estimations de population de l'Institut national de la statistique et des études économiques (Insee) au 1<sup>er</sup> janvier de 1998 à 2008, pour la France métropolitaine et des estimations de 2000 à 2008 pour les DOM ». Les auteurs décrivent ensuite la sélection des données, l'algorithme utilisé pour la sélection des séjours hospitaliers pour l'analyse, le choix de l'analyse par séjour, le choix des périodes, puis les modalités de l'analyse des données. De plus, une étude exploratoire par année et période a été menée pour identifier les éventuelles disparités de codage pouvant affecter l'interprétation des données et montre qu'il ne semble pas y avoir de différence majeure de codage selon les régions. Enfin, sur la période d'étude, 107 213 séjours ont été sélectionnés pour les deux malformations étudiées : 74 325 séjours concernent une intervention pour cryptorchidie, 32 507 séjours une intervention pour hypospadias et 381 séjours les deux interventions à la fois. Ces 381 séjours sont comptabilisés dans l'analyse de chaque malformation.

### Définitions

La cryptorchidie a été définie comme « une anomalie de la migration testiculaire caractérisée par l'arrêt de la migration du testicule dans un point au niveau de son trajet de descente

R. Miusset (✉)  
Centre de stérilité masculine, CHU–Hôpital Paule-de-Viguier,  
330, avenue Grande-Bretagne, TSA 70034,  
F-31059 Toulouse cedex 09, France  
e-mail : miusset.r@chu-toulouse.fr

normale entre la région lombaire où il se forme et son emplacement naturel dans le scrotum. Le testicule cryptorchide peut ainsi se trouver en position intra-abdominale, à l'intérieur du canal inguinal (dans 60 % des cas), à son orifice interne ou à la racine de la bourse. » Sont exclus de cette définition les testicules ectopique, oscillant, évanescent ainsi que l'anorchidie.

L'hypospadias a été défini comme « une localisation anormale de l'ouverture de l'urètre (le méat urinaire) sur la surface ventrale de la verge ou au niveau du scrotum ou du périnée. »

## Résultats

### Analyse des cryptorchidies opérées

Pour la période 1998–2008, 74 706 séjours ont concerné une intervention chirurgicale pour cryptorchidie chez les garçons de moins de sept ans, dont 73 261 en France métropolitaine (98 %) et 1 445 dans les DOM. Cela représente en moyenne 6 800 séjours hospitaliers par an. La majorité des séjours en France métropolitaine sont identifiés dans six des 22 régions : Île-de-France (18,3 % du total des séjours), Rhône-Alpes (10,1 %), Nord-Pas-de-Calais (8,1 %), PACA (7,4 %), Pays de la Loire (5,8 %), Bretagne (5,4 %).

Pour l'ensemble de la période étudiée, les âges moyen et médian au moment de l'intervention se situent à trois ans. La moyenne d'âge au moment de l'intervention a diminué très légèrement au cours du temps, passant de 3,1 à 2,9 ans, soit une prise en charge avancée de 2,4 mois entre la période 1999–2003 et la période 2004–2008. Cependant, l'âge de l'enfant lors de l'intervention varie de façon significative selon la région de résidence. Enfin, au cours du temps, la répartition des classes d'âge évolue : les interventions chez les plus de quatre ans sont passées de 40,7 % en 1998 à 34,8 % en 2008, au profit essentiellement des un–deux ans, dont la proportion augmente de 14,2 à 21,3 %, avec ici aussi de grandes variations régionales.

Sur la période 1998–2008, le taux d'interventions chirurgicales pour cryptorchidie en France métropolitaine est de 2,51 (intervalle de confiance [IC] : 2,49 ; 2,52) pour 1 000 garçons de moins de sept ans par an. Dans les DOM, il est significativement inférieur, d'environ la moitié, à 1,42 (IC : 1,34 ; 1,50) pour 1 000 garçons par an. L'augmentation annuelle moyenne en France métropolitaine de taux d'interventions chirurgicales pour cryptorchidie est de 1,8 % (IC : 1,4 ; 2,3 %) sur la période 1998–2008, et de 2 % (IC : 1,5 ; 2,5 %) pour la France entière sur la période 2000–2008. Une certaine diversité régionale apparaît ici aussi.

Sur l'ensemble de la période 2000–2008, sept régions ont un taux d'interventions chirurgicales pour cryptorchidie significativement plus élevé que le taux national (Auvergne,

Bretagne, Champagne-Ardenne, Franche-Comté, Languedoc-Roussillon, Lorraine et Nord-Pas-de-Calais), et seules trois régions métropolitaines des taux significativement inférieurs à la moyenne nationale (Aquitaine, Île-de-France et Midi-Pyrénées), ainsi que les trois DOM (Guadeloupe, Martinique, Réunion).

Les cryptorchidies bilatérales représentent 10 % du total des cryptorchidies opérées. La part des interventions pour cette atteinte bilatérale est restée stable au cours du temps, avec une répartition dans les classes de 18 % chez les moins de deux ans, 42,2 % chez les deux–quatre ans, et 39,9 % chez les plus de quatre ans.

### Analyse des hypospadias opérés

Les auteurs rappellent qu'il n'existe pas de classification standard des types d'hypospadias. On distingue :

- l'hypospadias antérieur (distal) qui se caractérise par une ouverture du méat urétral sous le gland et regroupe les formes balaniques (ou glandulaires) et balanopréputiales ; les formes balaniques ou antérieures représentent environ 70 % de tous les cas diagnostiqués ;
- l'hypospadias moyen ou pénien (pénien distal, moyen et proximal) se caractérisant par une ouverture du méat urétral au milieu du pénis ;
- l'hypospadias postérieur qui regroupe les formes péno-scrotale, scrotale et périnéale, caractérisé par une ouverture du méat urétral à l'angle du pénis et du scrotum et sur le périnée.

En plus de la position anormale du méat urinaire, l'hypospadias associe à des degrés divers d'autres anomalies de la verge, notamment la coudure de la verge (la chordée) et le prépuce incomplet. La coudure est faible ou absente dans les formes antérieures et plus fréquente dans les formes moyennes et postérieures. Elle a une importance essentielle sur la conduite à tenir du traitement, car elle a une conséquence sur la sexualité. L'âge recommandé pour l'intervention par l'Association américaine de pédiatrie (AAP) se situe entre 6 et 12 mois. L'Association européenne d'urologie rapporte que l'âge d'intervention le plus souvent observé est entre 6 et 18 mois. Les opinions divergent quant à l'intérêt de l'indication chirurgicale pour les formes balaniques non compliquées (très antérieures) ne présentant pas de problèmes fonctionnels.

Pour la période 1998–2008, 32 888 séjours ont concerné une intervention chirurgicale pour hypospadias chez les enfants de moins de sept ans, dont 381 (1,2 %) avec une double chirurgie pour cryptorchidie et hypospadias. Cela représente en moyenne 3 000 séjours hospitaliers par an (98 % en France métropolitaine). La majorité des séjours sont identifiés dans cinq des 22 régions de France métropolitaine : Île-de-France (21,5 % du total des séjours),

Rhône-Alpes (10,3 %), PACA (9,1 %), Nord-Pas-de-Calais (8,7 %), Languedoc-Roussillon (5,1 %).

Les âges moyen et médian d'intervention pour hypospadias sont respectivement de 1,7 an (20 mois) et un an pour l'ensemble de la période. L'âge de cette prise en charge a diminué de quatre mois de 1998 à 2008. Ces interventions se distribuent selon les classes d'âge suivantes : 56,9 % chez les moins de deux ans (17,5 % avant un an et 39,4 % entre un et deux ans), 29 % chez les deux-quatre ans et 14,1 % chez les plus de quatre ans. Cette distribution a changé au cours du temps : l'augmentation la plus importante (de 34,8 % en 1998 à 43,9 % en 2008) est dans la tranche d'âge un-deux ans ; le nombre d'interventions a aussi augmenté (de 15,8 à 18,8 %) chez les moins d'un an, mais il a diminué chez les plus de deux ans. Ces données varient selon les régions.

Sur la période d'étude 1998–2008, le taux d'interventions chirurgicales pour hypospadias en France métropolitaine est de 1,10 (IC : 1,09 ; 1,11) pour 1 000 garçons de moins de sept ans par an ; il est significativement inférieur dans les DOM, 0,65 (IC : 0,60 ; 0,71) pour 1 000 garçons par an. L'augmentation annuelle moyenne en France métropolitaine de ce taux d'interventions chirurgicales est de 1,2 % (IC : 0,6 ; 1,8 %) sur la période 1998–2008. Une certaine diversité régionale apparaît ici aussi. En ce qui concerne l'incidence régionale de ces interventions chirurgicales par rapport à la France entière sur les deux périodes 2001–2004 et 2005–2008, quatre régions présentent une surincidence significative (Languedoc-Roussillon, PACA, Alsace et Rhône-Alpes) et quatre une sous-incidence (Aquitaine, Centre, Pays de la Loire et Picardie).

Selon la localisation des hypospadias, les malformations antérieures du pénis (hypospadias balaniques), formes les moins graves des hypospadias, représentent 28 % des séjours pour hypospadias opérés et concernent les enfants de moins de deux ans dans la moitié des cas. Cette proportion n'évolue pas dans le temps au niveau national. Les interventions pour hypospadias moyens, les plus fréquentes, représentent 44 % des interventions. Pratiquées dans près de deux tiers des cas chez des enfants de moins de deux ans, elles ont évolué dans le temps, de 54 % des interventions chez les moins de deux ans avant 2000 à 70 % en 2007–2008. Les hypospadias postérieurs, formes sévères des hypospadias pouvant engendrer une stérilité partielle ou complète, sont passés de 4,9 à 5,7 % des séjours entre les périodes 1999–2003 et 2004–2008. Ces formes sévères sont le plus souvent opérées très tôt, 67 % des interventions ayant lieu avant deux ans. Des variations régionales sont ici aussi présentes.

## Discussion

Elle s'ouvre sur un point clé qui est l'interprétation de données et de leurs limites sur le plan de la surveillance épidé-

miologique. Les données sont issues du PMSI, outil fournissant des informations hospitalières nationales, mais construit à des fins budgétaires ne prenant pas en compte les consultations, et concernent les taux d'interventions chirurgicales calculés rapportés à la population des garçons de moins de sept ans. Elles ne permettent pas, ainsi, d'estimer une prévalence à la naissance de ces malformations congénitales (cryptorchidie et hypospadias). Par ailleurs, basées sur les taux d'interventions chirurgicales, elles induisent des conséquences : elles sélectionnent les pathologies selon leur gravité, les formes ne nécessitant pas d'interventions chirurgicales (hypospadias considérés de forme mineure, cryptorchidies à la naissance descendues spontanément ensuite ou traitées médicalement) n'apparaissant pas dans la base PMSI. De plus, les formes les plus sévères, qui associent plusieurs malformations urogénitales, pouvant être codées avec des codes moins précis, ont pu ne pas avoir été repérées. Les auteurs concluent que si les taux d'interventions chirurgicales produits dans le cadre de cette étude ne sont pas une mesure de la prévalence ou de l'incidence des pathologies étudiées, ils constituent néanmoins de bons indicateurs pour les analyses de tendance temporelle et de variations géographiques de la prise en charge opératoire de ces maladies.

### Taux d'interventions chirurgicales pour cryptorchidie

L'étude rapporte sur la période 2000–2008 une augmentation annuelle moyenne significative de 1,9 % (IC : 1,4 ; 2,5 %) en France métropolitaine et de 4 % (IC : 1,4 ; 6,7 %) dans les DOM, soit une augmentation annuelle moyenne pour la France entière de 2 % (IC : 1,5 ; 2,5 %). Comparés aux résultats des études réalisées sur l'évolution des hospitalisations pour orchidopexie, ceux rapportés dans le présent rapport sont comparables à ceux de deux études [5,6] mais différent de deux autres qui montrent une diminution annuelle du taux d'interventions chirurgicales pour cryptorchidie [7,8].

Les différences régionales observées dans les taux d'interventions ne sont pas strictement expliquées par les densités régionales de chirurgiens urologues ou pédiatriques. Quant à l'âge moyen des enfants opérés pour cryptorchidie, il se situe à trois ans et a peu diminué sur la période de 11 ans étudiée. Alors que l'AAP a recommandé en 1996 un âge idéal de la chirurgie pour cryptorchidie juste après 12 mois [9], seules 23,4 % des cryptorchidies (avec des pratiques régionales diverses) sont réalisées chez des enfants de moins de deux ans en France.

### Taux d'interventions chirurgicales pour hypospadias

L'étude rapporte sur la période 2000–2008 une augmentation annuelle moyenne, faible mais significative, du taux

d'interventions chirurgicales pour hypospadias de 0,9 % (IC : 0,4 ; 1,4 %). Ces résultats diffèrent de ceux de trois études qui n'avaient montré aucune variation significative de la prévalence des hypospadias opérés au cours des périodes 1970–1994 en Finlande [10], 1983–1985 à New York [11] et 1992–1994 en Angleterre [12].

Sur l'ensemble de la période 2000–2008, la présente étude montre une variation géographique régionale des taux d'hypospadias opérés, avec des taux allant de 0,61 à 1,65 pour 1 000 garçons de moins de sept ans ; les régions de résidence qui présentent les taux les plus élevés pour ces interventions sont toutes métropolitaines. Ces variations géographiques n'ont pas de caractéristiques communes en termes de densité de population humaine et ne sont pas superposables à celles de la cryptorchidie. Toutes les régions qui comportent une densité élevée de chirurgiens urologues ou pédiatriques ne présentent pas une surincidence d'hypospadias opérés.

L'âge moyen des enfants opérés pour hypospadias se situe à 20 mois ; il a diminué de façon un peu plus marquée que pour la cryptorchidie (baisse de l'âge de 4 versus 2,4 mois) au cours de la période étudiée. Il reste cependant au-delà des recommandations de l'European Society for Pediatric Urology (ESPU) de 2009 qui portent l'âge d'intervention pour l'hypospadias entre 6 et 12 mois [13]. Ainsi, bien que les recommandations internationales suggèrent depuis le milieu des années 1990 d'intervenir avant l'âge de deux ans pour l'hypospadias et la cryptorchidie, elles semblent être mieux suivies en France pour l'hypospadias. En effet, en 2004–2008, près de 60 % des enfants hypospades mais seulement 25 % des enfants cryptorchides ont moins de deux ans lors de l'intervention. Il est possible que le caractère irrémédiable de l'hypospadias amène à intervenir plus tôt, alors qu'une descente spontanée des testicules peut être attendue dans le cas de la cryptorchidie. Les aspects esthétiques et fonctionnels des hypospadias sont peut-être aussi mieux pris en compte. En effet, la demande de correction chirurgicale de la part des parents peut être plus forte pour les hypospadias que pour les cryptorchidies, du fait de la gêne fonctionnelle qu'entraîne l'anomalie du jet mictionnel.

## Conclusion

Cette étude montre une augmentation annuelle du taux d'interventions chirurgicales pour cryptorchidie, plus faible pour l'hypospadias, chez les garçons de moins de sept ans en France sur la période 1998–2008. Cette augmentation peut être le témoin d'une augmentation de la prévalence des pathologies tout comme elle peut être le reflet d'une modifi-

cation des pratiques médicales ou de codage du PMSI au cours du temps, ou une combinaison de chacune de ses raisons. Une variabilité régionale importante a été notée mais qui n'est ni systématique aux deux malformations congénitales étudiées ni strictement superposable à la densité chirurgicale régionale. Le PMSI confirme son utilité pour le suivi de l'activité hospitalière malgré les précautions à prendre dans l'interprétation des résultats et constitue un outil intéressant pour la surveillance épidémiologique.

## Références

1. Virtanen HE, Bjerknes R, Cortes D, et al (2007) Cryptorchidism: classification, prevalence and long-term consequences. *Acta Paediatrica* 96:611–6
2. Virtanen HE, Rajpert-De Meyts E, Ritzen EM, et al (2007) Development and descent of the testis in relation to cryptorchidism. *Acta Paediatrica* 96:622–7
3. Mitchell V, Boitrelle F, Pigny P, et al (2010) Seminal plasma levels of anti-Müllerian hormone and inhibin B are not predictive of testicular sperm retrieval in non-obstructive azoospermia: a study of 139 men. *Fertil Steril* 94:2147–50
4. Miesusset R, Soulié M (2005) Hypospadias: psychosocial, sexual, and reproductive consequences in adult life. *J Androl* 26:163–8
5. Chilvers C, Pike MC, Forman D, et al (1984) Apparent doubling of frequency of undescended testis in England and Wales in 1962–1981. *Lancet* 2:330–2
6. Cooper BJ, Little TM (1985) Orchidopexy: theory and practice. *Br Med J (Clin Res Ed)* 291:706–7
7. Toledano MB, Hansell AL, Jarup L, et al (2003) Temporal trends in orchidopexy, Great Britain, 1992–1998. *Environ Health Perspect* 111:129–32
8. Bonney T, Southwell B, Donnath S, et al (2009) Orchidopexy trends in the paediatric population of Victoria, 1999–2006. *J Pediatr Surg* 44:427–31
9. American Academy of Pediatrics (1996) Timing of elective surgery on the genitalia of male children with particular reference to the risks, benefits, and psychological effects of surgery and anesthesia. *Pediatrics* 97:590–4
10. Choi J, Cooper KL, Hensle TW, Fisch H (2001) Incidence and surgical repair rates of hypospadias in New York State. *Urology* 57:151–3
11. Chambers EL, Malone PS (1999) The incidence of hypospadias in two English cities: a case-control comparison of possible causal factors. *BJU Int* 84:95–8
12. Aho M, Koivisto AM, Tammela TL, Auvinen A (2000) Is the incidence of hypospadias increasing? Analysis of Finnish hospital discharge data 1970–1994. *Environ Health Perspect* 108:463–5
13. Tekgül S, Riedmiller H, Gerharz E, et al (2009) Guidelines on Paediatric Urology. Cité in: Paty AC, Gomes do Espirito Santo E, Suzan F. Étude des cryptorchidies et hypospadias opérés en France de 1998 à 2008 chez le petit garçon de moins de 7 ans à partir des données du Programme de médicalisation des systèmes d'information (PMSI). Saint-Maurice: Institut de veille sanitaire 2011 60 p. Disponible à partir de l'URL : <http://www.invs.sante.fr>