

# LA RHINORRHÉE CÉRÉBRO-SPINALE NON TRAUMATIQUE RÉVÉLANT UNE SELLE TURCIQUE VIDE PRIMITIVE ASSOCIÉE À UNE HTIC IDIOPATHIQUE : À PROPOS D'UN CAS ET REVUE DE LA LITTÉRATURE

Mohammed-Amine Essafi <sup>a</sup>, Fatima-Zahrae Melki <sup>a</sup>, Hayat Aynaou <sup>a,b,c</sup>, Houda Salhi <sup>a,b,c</sup> and Hanan El Ouahabi <sup>a,b,c</sup>

<sup>a</sup> Service d'Endocrinologie, Diabétologie, Maladies Métaboliques et Nutrition. Centre Hospitalier universitaire Hassan II. Fès. Maroc, <sup>b</sup> Faculté de Médecine et de pharmacie, USMBA, Fès, Maroc, <sup>c</sup> Laboratoire d'épidémiologie, Recherche en sciences de la santé

**ABSTRACT** La rhinorrhée cérébrospinale spontanée est une maladie rare. Le plus souvent, elle est secondaire aux tumeurs cérébrales ou d'hydrocéphalie, rarement associée à un syndrome de la selle turcique vide. Nous rapportons l'observation d'une patiente obèse qui a présenté un écoulement nasal gauche. L'exploration avait objectivé une selle turcique vide associée à une hypertension intra- crânienne idiopathique, compliquées de rhinorrhée cérébro-spinale non traumatique par une fuite ethmoïdale (localisation rare). Après traitement par Acetazolamide et des ponctions lombaires itératives, une amélioration clinique et radiologique ont été notées.

**KEYWORDS** Rhinorrhée du LCR, Selle Turcique Vide, HTIC Idiopathique

## Introduction

Le syndrome de selle turcique vide (STV) est un terme radiologique, consiste en une hernie de l'espace sous arachnoïdien à l'intérieur de la selle turcique rempli partiellement ou complètement de liquide céphalorachidien (LCR) [1]. Peut-être primitive ; généralement associée à une hypertension intracrânienne (HTIC) idiopathique, ou secondaire [2].

Le syndrome de STV se manifeste rarement par une rhinorrhée du LCR entraînant un risque accru de complications potentielles notamment la méningite [3].

La localisation ethmoïdale des fistules est rarement rapportée dans la littérature [2-4-5-6], la plupart des cas de rhinorrhée du LCR associée à une STV rapportés décrivent une localisation sellaire des fistules [5-7-8].

La prise en charge nécessite une approche multidisciplinaire impliquant le neurochirurgien, l'endocrinologue, et le radiologue [2].

L'objectif de la présente observation est de mettre le point sur une rhinorrhée spontanée du LCR qui a révélé une STV ayant bien répondu à un traitement non chirurgical et discuter cette association à travers les données de la littérature.

## Observation

Une patiente âgée de 45 ans, ayant comme antécédent une hypertension artérielle depuis 3 ans sous traitement. Elle s'est présentée au service d'Endocrinologie, Diabétologie, Maladies Métaboliques et Nutrition du Centre Hospitalier Universitaire Hassan II de Fès pour complément de prise en charge d'une STV révélée par un écoulement nasal gauche aqueux.

L'histoire de la maladie remonte à quatre mois auparavant par l'installation d'un écoulement nasal gauche aqueux persistant, associés à des céphalées intermittentes sans troubles visuels ni de contexte traumatique.

Lors de son admission, l'examen clinique a objectivé une femme en obésité grade I, un tour de taille élevé à 106 cm avec un écoulement nasal gauche aqueux modéré et une hyposmie

Copyright © 2022 by the Bulgarian Association of Young Surgeons  
DOI: 10.5455/IJMR.172-1646256910

First Received: March 31, 2022

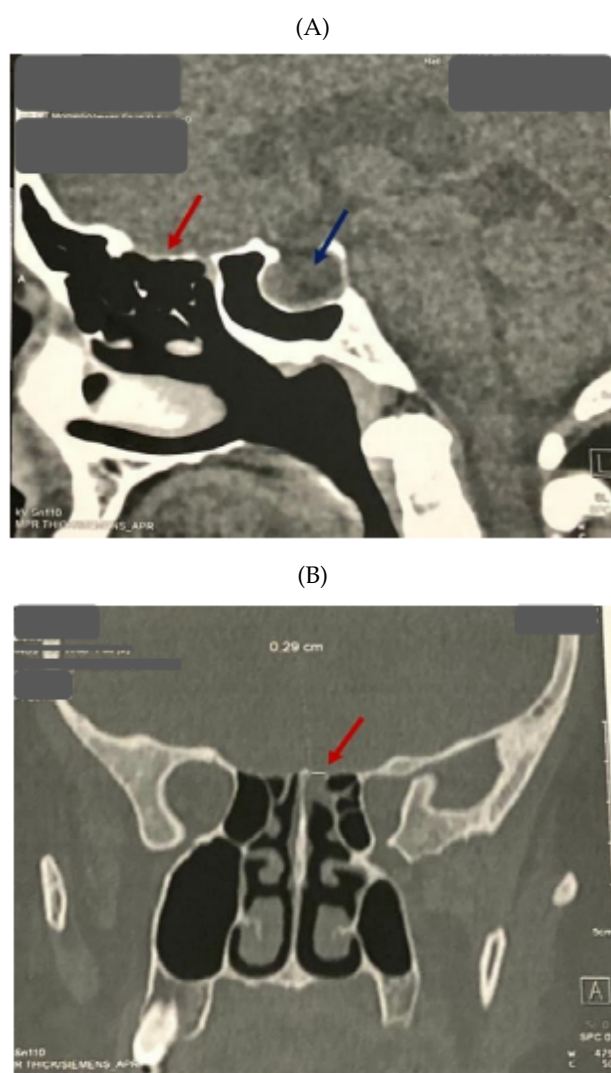
Accepted: August 8, 2022

Associate Editor: Ivan Inkov (BG);

<sup>1</sup>Corresponding author: Essafi Mohammed Amine (dr.essafiamine@gmail.com)

gauche sans troubles visuels ni autres signes cliniques orientant vers un désordre endocrinien ni neurologique. L'examen biochimique du liquide de l'écoulement nasal a montré qu'il contenait 0,54 g/l de glucose, 0,25 g/l de protéine et 125 mmol/l de chlore avec un examen cytotactériologique et mycologique négatif. La recherche de la Béta 2 transferrine dans l'écoulement nasal a été positive à 25,6 mg/l (<1,1). La tomodensitométrie cérébrale a révélé un aspect scannographique en faveur d'une brèche ostéoméningée fronto ethmoïdale gauche avec un élargissement de la selle turcique faisant un aspect de STV.

L'imagerie par résonance magnétique (IRM) avec étude du Flux a objectivé une selle turcique vide avec une hypophyse hypotrophique, aplatie contre le fond turcique, associée à une brèche ostéoméningée fronto ethmoïdale gauche faisant communiquer les espaces sous arachnoïdiens préfrontaux gauches avec les cellules éthmoïdales homolatérales avec un aspect d'hypertension intracrânienne HTIC idiopathique (Figure 1).

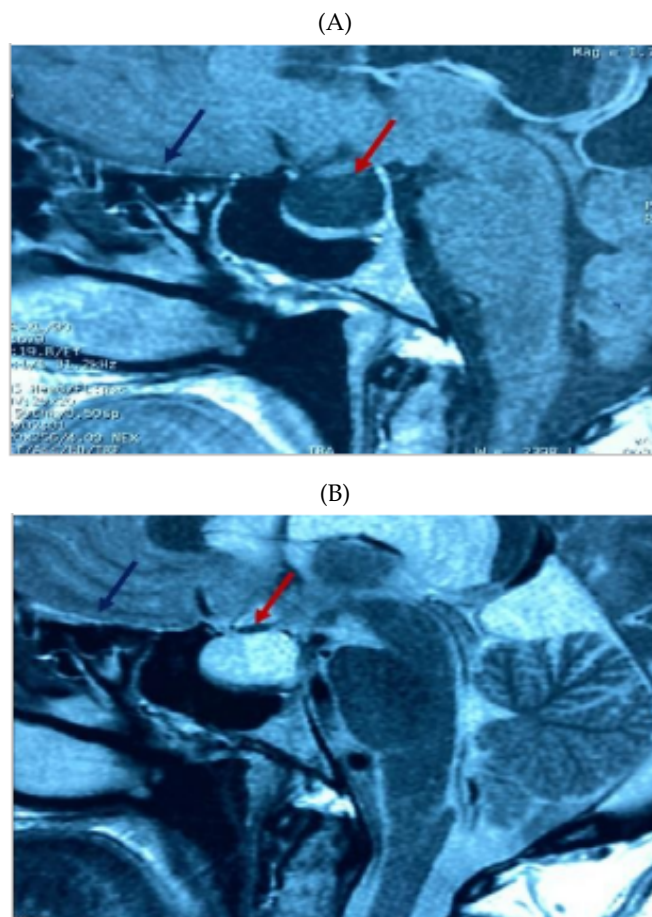


**Figure 1** coupe sagittale (A) et frontale (B) du crâne montrant une selle turcique vide avec une hypophyse hypotrophique, aplatie contre le fond turcique (flèche bleue), associée à une brèche ostéoméningée fronto ethmoïdale gauche faisant communiquer les espaces sous arachnoïdiens préfrontaux gauches avec les cellules éthmoïdales homolatérales (flèche rouge)

L'évaluation hormonale et l'évaluation ophtalmologique ont été sans anomalies.

Après décision multidisciplinaire, la patiente fut mise sous Acetazolamide 500 mg par jour et ayant bénéficié des ponctions lombaires itératives 3 jours de suite avec une bonne amélioration. Patiente fut mise sous surveillance.

Par ailleurs, la patiente s'est rétablie et n'a eu aucune fuite de LCR dans la période post ponctions lombaires immédiate et pendant le suivi ultérieur sur une période d'un an et demi. L'évaluation hormonale annuelle a été sans anomalie, l'IRM cérébrale de contrôle avait objectivé une hypophyse hypotrophique avec un aspect de STVP sans visualisation de la brèche ostéoméningée (Figure 2).



**Figure 2** Hypophyse hypotrophique avec un aspect de STVP sans visualisation de la brèche ostéoméningée ( A avant injection et B après injections).

## Discussion

La rhinorrhée du liquide céphalo-rachidien (LCR) est une pathologie rare qui nécessite une prise en charge chirurgicale pour éviter des complications graves, telles que la méningite. Rarement d'origine non traumatique, comme c'était le cas de notre patiente, depuis le premier cas rapporté par Miller en 1826 [3-7].

Le terme STV a été introduit pour la première fois par Busch en 1951[9]. La selle turcique vide primitive (STVP) est une forme idiopathique.

**Tableau 1** Les cas de rhinorrhée spontanée du LCR par fistule ethmoïdale associée à une STV. [2-4-5-6-15]

| Auteurs               | Age / Sexe | Rhinorrhée | Signe olfactif | Cause de STV      | Traitement   | Évolution (Pas de fuite) |
|-----------------------|------------|------------|----------------|-------------------|--------------|--------------------------|
| Basit et al [2]       | 34/F       | Gauche     | hyposmie       | HTIC idiopathique | chirurgical  | 4 ans                    |
|                       | 43/F       | Droite     | anosmie        | HTIC idiopathique | chirurgical  | 7 ans                    |
| Perani et al. [4]     | 51/M       | Bilatéral  | anosmie        | -                 | chirurgical  | 1 an                     |
|                       | 42/F       | Gauche     | -              | -                 | -            | 6 mois                   |
|                       | 42/F       | Droite     | normal         | -                 | -            | 15 mois                  |
| Scott and Redmond [5] | 39/F       | Gauche     | -              | -                 | chirurgical  | 11 mois                  |
| Moschini et al.[6]    | 50/F       | Gauche     | -              | -                 | chirurgical  | -                        |
| Carmel [15]           | 62/F       | Droite     | Hyposmie       | -                 | chirurgical  | 5 ans                    |
| Notre cas             | 45/F       | Gauche     | hyposmie       | HTIC idiopathique | Conservateur | 1 an et demi             |

Dans plus de 80% des cas dans la littérature, La STVP survient chez les femmes, dans la cinquième décennie, et 78% à 90% de ces patientes ont été décrites comme obèses et multipares, et 31% comme hypertendues [10]. Ce résultat est comparable aux données épidémiologiques de notre patiente qui était dans la cinquième décennie, obèse, multipare et hypertendue.

L'association d'une rhinorrhée du LCR et une selle turcique vide (STV) a été rapportée pour la première fois par Ommaya et ses collègues en 1968 [7].

Une élévation de la pression intra crânienne (PIC) est fréquemment observée chez les patients atteints de STVP, et plusieurs auteurs considèrent que cette augmentation de la PIC est un facteur de développement d'une STVP [10-11-12-13]. Dans une étude [14], un suivi continu des patients avec une STVP avait révélé des cas d'augmentation intermittente de la PIC sans symptômes manifestes d'hypertension intracrânienne.

La revue de la littérature a révélé 60 cas ayant cette association de rhinorrhée du LCR et une STVP. Dans 51 de ces cas, la fuite du LCR est à travers le plancher sellaire dans le sinus sphénoïde [5-7-8-13]. Seuls huit cas avec une fuite de LCR à travers la fistule ethmoïdale [2-4- 5-6-15].ont été décrits dans la littérature. (Tableau 1)

La localisation ethmoïdale de la fistule chez notre patiente suggère que la pathologie initiale, c'est-à-dire, HTIC idiopathique, est peut-être responsable à la fois de la STV et de l'érosion ethmoïdale conduisant à la fuite du LCR.

La fermeture chirurgicale de la fistule est le traitement de choix [16]. Cependant La prise en charge non chirurgicale, comme c'était le cas de notre patiente, telle que le repos au lit avec élévation de la tête du lit, éviter la toux, la constipation, utilisation de l'Acetazolamide, et une restriction hydrique modeste, peuvent tous être utilisés [2]. Occasionnellement, le drainage du LCR par ponction lombaire répétée, drainage externe du LCR lombaire ou shunt lombopéritonéal percutané peut fermer la fistule dans certains cas ayant une PIC élevée [2]. Dans notre cas, la patiente a bien répondu aux mesures conservatrices ; la ponction lombaire répétée et l'Acetazolamide avec fermeture de la fistule au cours du suivi.

## Conclusion

L'association d'une rhinorrhée du LCR et une STV est rare, la STV peut être considérée comme une étiologie de la fuite spontanée du LCR, avec un risque accru de complications potentielles notamment la méningite.

La prise en charge de cette complication nécessite une approche multidisciplinaire impliquant le neurochirurgien, l'endocrinologue, le neurologue et le radiologue.

## References

1. Fouad Wael. Review of empty sella syndrome and its surgical management. Alexandria Journal of Medicine. Volume 47, Issue 2, June 2011, Pages 139-147.
2. Basit A seyed. Nontraumatic (spontaneous) cerebrospinal fluid rhinorrhea from cribriform fistula associated with primary empty sella annals of saudi medicine, vol 20, no 1, 2000
3. Spetzler RF, Zabramski JM. Cerebrospinal fluid fistulae: their management and repair. Youmans Neurological Surgery. Philadelphia: WB Saunders Company, 1990;4:2269-89.
4. Perani, D., Scotti, G., Colombo, N. et al. Spontaneous CSF rhinorrhea through the lamina cribrosa associated with primary empty sella. Ital J Neuro Sci 5, 167-172 (1984).
5. Scott RJ, Redmond MJ. Non-traumatic cerebrospinal fluid rhinorrhea in cases of primary empty sella syndrome. Medical Journal of Australia. Volume150, Issue8, April 1989,Pages 458-461.
6. Moschini M, Amato C, Gioia F. Ethmoidal fistula associated with empty sella in a case of spontaneous CSF rhinorrhea. Rays, 1988 May-Aug;13(2):45-7.
7. Ommaya AK, Dichiro G, Baldwin M, Pennybacker JB. Non-traumatic cerebrospinal fluid rhinorrhea. J Neurol Neurosurg Psychiatr 1968;31:214-25.
8. Brisman R, Hughes J, Mount LA. Cerebrospinal fluid rhinorrhea and the empty sella. Journal Neurosurgery 1969;31:538-43.
9. Busch W. Die Morphologie der sella turcica und ihre Beziehungen zur Hypophyse. Virchows Archiv für pathologische Anatomie und Physiologie und für klinische Medizin 1951;320:437-58.
10. Jordan RM, Kendal JW, Kerber CW. The primary empty sella syndrome: analysis of the clinical characteristics, radiographic features, pituitary function and cerebrospinal fluid

adenohypophyseal hormone concentrations. The American Journal of Medicine, 1977;62:569-80.

11. Bjerre P. The empty sella: a reappraisal of etiology and pathogenesis. Acta Neurologica Scandinavica. Supplementum 1990;130:1-25.
12. KATHLEEN M. FOLEY, JEROME B. POSNER. Does pseudotumor cerebri cause the empty sella syndrome?. Neurology Jun 1975, 25 (6) 565;
13. Weisberg LA, Housepian EM, Saur DP. Empty sella syndrome as a complication of benign intracranial hypertension. Journal of Neurosurgery 1975; 43:177-80.
14. Davis S, Kaye AH. A dynamic pressure study of spontaneous CSF rhinorrhea in the empty sella syndrome. Journal of Neurosurgery 1980;52:103-5.
15. Carmel PW. Empty sella syndrome. In: Wilkins RH, Rengachary SS, editors. Textbook of Neurosurgery. New York: McGraw-Hill Book Company, 1985;1:884-8.
16. Amit Keshri, Rajat Jain, Ravi Shankar Manogaran, Sanjay Behari, Deepak Khatri, Arulalan Mathialagan. Management of Spontaneous CSF Rhinorrhea: An Institutional Experience. J Neurol Surg B Skull Base. 2019 Oct;80(5):493-499.