

SYNDROME DE YOUSSEF OU FISTULE VESICO-UTERINE APRES CESARIENNE ANALYSE RETROSPECTIVE DE 6 DOSSIERS

J. KAZADI BUANGA*, J.B. NDIONE**

RESUME

Le but de cette étude était d'aborder les aspects étiologiques, physiopathologiques, diagnostiques et thérapeutiques du syndrome de Youssef à l'occasion d'un cas. Pour cela, nous rapportons une série rétrospective de six cas colligés entre 1972 et 1998. Les malades étaient jeunes (29-37 ans) avec une parité moyenne de trois enfants. Toutes les fistules étaient secondaires à une césarienne. Les motifs de consultation, toujours associés, étaient une hématurie cyclique (6/6), une fuite urinaire intermittente (4/6) et une aménorrhée secondaire (4/6). Le diagnostic était suspecté à l'anamnèse et confirmé par les analyses complémentaires. Le traitement a été chirurgical dans tous les cas : hystérectomie et fermeture de la brèche vésicale (2 cas), fermeture des orifices fistuleux (4 cas). Les suites immédiates étaient favorables avec un bon résultat fonctionnel. Une seule patiente a été revue deux mois après le traitement.

Mots-clés : césarienne, fistule vésico-utérine, hématurie cataméniale, fuite urinaire, aménorrhée.

Le syndrome de Youssef est une fistule vésico-utérine trans-isthmique, classiquement à sens unique, qui apparaît au décours d'une césarienne et dont les particularités étiologiques, physiopathologiques et cliniques lui confèrent l'intérêt d'être connu.

Bien que la connaissance des fistules vésico-utérines remonte à la fin du 19^{ème} siècle il a fallu attendre MACHADO (1), et surtout LAFFONT et EZES (2) qui rapportèrent en 1947 une observation de «fistule vésico-utérine à sens unique avec règles vésicales» après césarienne. Rapidement, des cas similaires sont publiés (3, 4) et l'accent mis sur leur origine obstétricale. Les images radiologiques facilitent le diagnostic (5, 6). En 1957, l'Egyptien Abdel Fattah Youssef (7) propose le terme de «ménourie» à cette pathologie qu'il avait observée deux ans plus tôt. La qualité, la précision et la documentation de ses travaux (7, 8) ont lié son nom à cette affection qui est devenu le syndrome de Youssef.

MATÉRIEL ET MÉTHODE

Un cas récemment observé nous a conduits à faire la revue des fistules vésico-utérines après opération

* Service de Gynécologie-Obstétrique.

** Service de Chirurgie.

Hôpital St Jean de Dieu
B.P. 43 Thiès Sénégal.

césarienne. De janvier 1972 à décembre 1998, six patientes souffrant de cette pathologie ont été diagnostiquées et traitées, la majorité, par le coauteur de cette étude. Le diagnostic a été relativement facile ; suspecté à l'interrogatoire, il a été confirmé par des examens complémentaires.

OBSERVATIONS CLINIQUES

N° 1

Mme F.N., jeune femme de 29 ans, a consulté en Janvier 1972 pour hématurie pendant les règles et fuite urinaire intermittente évoluant depuis trois mois après une césarienne itérative. Dix jours après la sortie, était apparue la fuite urinaire et au retour des couches, elle a remarqué une hématurie qui avait exactement la même durée que les règles. L'examen au spéculum couplé à l'injection intra-vésicale du bleu de méthylène montra une petite fuite par le col utérin. L'hystérogographie donna une opacification simultanée de la vessie et de l'utérus. La malade a été opérée selon le protocole suivant : laparotomie médiane sous-ombilicale. La vessie adhérait fortement à l'utérus. Libération laborieuse des adhérences entre les deux organes. Difficulté d'isoler le trajet fistuleux. Hystérectomie totale et fermeture de la brèche vésicale. Sonde vésicale à demeure. Suites opératoires simples.

Syndrome de Youssef...

Médecine d'Afrique Noire 2001 - 48 (6)

N° 2

Mme N.M.M., seconde geste, seconde pare de 32 ans, a consulté le 5 Juin 1978 pour une discrète fuite urinaire, une hématurie cataméniale survenant tous les 27-30 jours et une aménorrhée. Dans ses antécédents, on a retrouvé deux ans auparavant une césarienne après un long travail à domicile. Le test au bleu de méthylène était positif. L'hystérographie montrait une fistule vésico-utérine siégeant au niveau de l'isthme avec un trajet oblique en avant et à droite. L'intervention est décidée au cours de laquelle on a trouvé un cul-de-sac vésico-utérin remanié par des adhérences et la sclérose cicatricielle. Sa dissection mena à la fistule d'un centimètre de diamètre. Fermeture des orifices vésical et utérin. Sondes à demeure. Suites opératoires simples.

N° 3

Mme M.D., 36 ans, consulta le 17 juillet 1978 pour hématurie cyclique, mictions impérieuses et aménorrhée secondaire évoluant depuis huit ans à la suite d'une césarienne itérative pour souffrance fœtale. L'épreuve au bleu de méthylène était négative (aucune fuite par le col utérin). La cystographie a donné la réponse suivante : la vessie se remplit normalement, ses contours sont réguliers et sa tonalité homogène. Il existe sur le cliché post-mictionnel une opacité triangulaire en projection basse sacrée qui pourrait correspondre à l'opacité de la cavité utérine. A l'hystérographie, dès le début du remplissage, le produit de contraste est passé dans la vessie et la cavité utérine n'était pas visualisée en réplétion. Le diagnostic d'une fistule vésico-utérine était posé. Lors de la laparotomie, l'abord de la région vésico-utérine montra l'existence d'adhérences serrées entre l'isthme et la face postérieure de la vessie. Le trajet fistuleux fut isolé. Fermeture des orifices vésical et utérin. Suites opératoires favorables.

N° 4

Mme F.F., tercigeste de 37 ans, avait été césarisée dans un centre hospitalier périphérique. Elle s'est présentée à la consultation le 20 Août 1978 pour hématurie périodique et aménorrhée évoluant depuis cinq ans. L'injection du bleu de méthylène s'est avérée négative. L'hystérographie n'a pu être faite, le col utérin étant infranchissable et la cystographie n'a pas objectivé de fistule. L'intervention chirurgicale est décidée. Après ouverture de la cavité péritonéale, on libéra des adhérences entre

la vessie et l'utérus. Le clivage vésico-utérin fut laborieux au contact de la fistule de siège isthmique. L'intervention réparatrice envisagée au départ est abandonnée. On fait une hystérectomie. La vessie est ouverte, et sur sa face postérieure à droite de la ligne médiane, on trouve un petit orifice fistuleux d'un centimètre de diamètre qui est refermé.

N° 5

A 34 ans, Mme A.S., grande multipare, est venue consulter le 8 Mars 1979 pour aménorrhée secondaire, hématurie cyclique et fuite urinaire intermittente après une césarienne itérative dont les circonstances n'étaient pas bien connues de la malade. Le diagnostic de la fistule vésico-utérine est d'emblée évoqué. L'hystérographie décrit une large fistule sur la face antéro-latérale gauche du col utérin, près de 5 cm au-dessus de l'orifice cervical externe. La cavité utérine bien opacifiée est normale. La cystographie montre l'absence d'opacification utérine malgré une bonne réplétion vésicale. Durant l'opération, la libération des adhérences du cul-de-sac vésico-utérin a mené à la fistule d'un demi-centimètre au sein des tissus d'aspect infecté. Les deux orifices sont séparément suturés. Postopératoire satisfaisant et la malade sortit guérie au J-12.

N° 6

Mme J.N., de 36 ans et mère de deux enfants, a été opérée par l'un d'entre nous d'une césarienne première itérative à 39 semaines de gestation le 12 décembre 1998. L'incision et le clivage du péritoine pré-segmentaire ont permis la libération de la vessie qui était haut située. Les suites opératoires ont été simples et la malade est sortie de l'hôpital au J-8. Huit mois plus tard, elle est revue pour hématurie cataméniale et perte involontaire, mais inconstante, des urines par les voies génitales. Le diagnostic a reposé essentiellement sur l'épreuve au bleu de méthylène. L'issue du colorant par le col utérin a signé la communication entre les deux cavités. La cystographie est venue confirmer le diagnostic de fistule vésico-utérine. Après dissection de l'espace vésico-utérin, on a accédé à la fistule qui fut réparée sans difficulté particulière. Revue deux mois plus tard après la cure, les menstruations étaient normales et la malade continente. Depuis, elle a préféré une contraception œstro-progestative.

Tableau 1 : Récapitulatif de nos observations

Cas	Etiologie	Symptômes	Délai du diagnostic	Traitement
1	Césarienne itérative	Hématurie cyclique Fuite urinaire partielle	3 mois	hystérectomie + suture vésicale
2	Césarienne	Hématurie cyclique Fuite urinaire partielle Aménorrhée secondaire	2 ans	Réparation
3	Césarienne itérative	Hématurie cyclique Aménorrhée secondaire	8 ans	Réparation
4	Césarienne	Hématurie cyclique Aménorrhée secondaire	5 ans	hystérectomie + suture vésicale
5	Césarienne itérative	Hématurie cyclique Fuite urinaire partielle Aménorrhée secondaire	-	Réparation
6	Césarienne itérative	Hématurie cyclique Fuite urinaire partielle	8 mois	Réparation

RESULTATS

Les patientes étaient jeunes (29 à 37 ans), en période d'activité génitale, avec une parité de trois enfants. Toutes ont présenté la fistule au décours d'une césarienne, dont quatre itératives. Le délai entre le début des symptômes et la consultation variait entre trois mois et huit ans. La symptomatologie associait une hématurie cataméniale (6/6) à une fuite urinaire partielle (4/6) et à une aménorrhée secondaire (4/6), réalisant ainsi la fistule à «double sens». Le traitement a été essentiellement chirurgical avec un bon résultat fonctionnel : hystérectomie et suture vésicale (2 cas) et réparation de la fistule (4 cas). Une seule patiente a été revue deux mois après l'acte chirurgical.

DISCUSSION

L'analyse comparative de séries retrouvées dans la littérature (9, 10, 11, 12, 13, 14, 15, 16, 17, 18, 19) nous permet de retenir un certain nombre de faits et de porter la discussion sur les points suivants :

Sur le plan étiologique

La contiguïté dans le pelvis des appareils génital et urinaire les expose en commun au traumatisme obstétrical. La césarienne représente la majeure cause du syndrome de Youssef, à côté des accouchements dystoci-

ques. Toutes nos fistules sont secondaires à une césarienne compliquée de plaie vésicale passée inaperçue. Le type d'hystérotomie ne semble pas jouer un grand rôle. Parmi les femmes ayant une fistule vésico-utérine, une hystérotomie transversale est trois fois plus fréquente qu'une hystérotomie corporéale ; la première étant plus répandue, parallèlement à l'élargissement des indications de la césarienne. Il faut noter qu'un tiers des fistules s'observe après opération césarienne itérative à cause d'un décollement vésico-utérin difficile. Dans notre série, nous avons observé quatre césariennes itératives sur six.

Sur le plan physiopathologique

La physiopathologie du syndrome de Youssef reste sujet à controverses et son fonctionnement parfois difficile à comprendre. Logiquement, comme dans la série que nous rapportons, le fonctionnement devrait se faire dans les «deux sens», puisque la fistule fait communiquer la vessie et l'utérus. Or, il n'en est pas toujours ainsi. La littérature rapporte aussi des fistules à «sens unique» utéro-vésical avec une parfaite continence urinaire. Pour les auteurs, les fistules siégeant au-dessous de l'isthme fonctionneraient à double sens avec fuite urinaire et hématurie ; celles débouchant dans l'isthme seraient à sens unique avec hématurie cataméniale, aménorrhée et parfaite continence urinaire. Mais, plus que la situation de la fistule par rapport à l'isthme,

le rôle de ce dernier pour dévier les règles vers la vessie et retenir les urines reste fondamental. La récupération ou la non-récupération du tonus isthmique après le retour des couches apparaît être l'élément déterminant de la symptomatologie clinique, la tonicité de l'isthme utérin étant supérieure à celui du détrusor.

Sur le temps écoulé avant le diagnostic

Le délai entre la survenue de la fistule et son diagnostic dépend de la malade qui décide de consulter. Le diagnostic a été posé avant un an chez deux malades, entre deux et huit ans chez trois malades. Pour l'observateur n° 5, ce délai est resté inconnu. Ce retard au diagnostic s'explique par la tolérance et la pudeur particulière à cette catégorie de malades qui cherchent à masquer le plus longtemps possible une infirmité qui leur fait honte et qui affecte leur féminité. Une des malades de Djellali-Zemni avait consulté 22 ans après la césarienne incriminée.

Sur les examens complémentaires

Bien que le diagnostic du syndrome de Youssef soit facile à poser sur la base de la symptomatologie, il doit, néanmoins, être confirmé par des examens complémentaires :

1. L'épreuve au bleu de méthylène, par sa simplicité et son innocuité, doit être réalisée en premier lieu. Sa valeur demeure relative. L'issue du colorant par le col utérin signe la communication entre les deux cavités utérine et vésicale ; l'absence de fuite, cependant, n'infirme pas le diagnostic ;
2. La cystographie rétrograde permet théoriquement de voir le trajet fistuleux sur les clichés de profil. Cependant, la cystographie peut être normale et il est rare qu'elle injecte la cavité utérine ;
3. L'hystérogographie est capitale. La cavité utérine est très mal ou pas du tout opacifiée, le liquide de contraste ne franchissant pas la limite supérieure de l'isthme utérin. Après avoir opacifié le canal endocervical, le liquide pénètre immédiatement et très rapidement dans la vessie, le défilé de communication entre la vessie et l'utérus apparaissant sur les clichés de profil, étroit et assez court, habituellement dirigé en haut et en avant. Pour la majorité des auteurs, l'hystérogographie constitue l'examen de référence dans la prise en charge diagnostique d'une fistule vésico-utérine ;
4. La cystoscopie n'est pas aussi démonstrative que l'hystérogographie, car l'orifice de communication, géné-

ralement enfoui dans une zone œdématisée et échy-motique, peut ne pas être visualisé. En période hématurique, la cystoscopie apporterait une plus grande précision en présentant une lésion, généralement située en arrière du trigone sur la ligne médiane ;

5. L'hystérocopie étudie le canal cervical, la cicatrice de la césarienne et l'endomètre. Elle permet une biopsie endométriale à visée hormonale, les patientes présentant souvent une stérilité réversible ;
6. L'urographie intraveineuse, quelque peu délaissée, peut injecter la fistule lors de la cystographie mictionnelle. Surtout, elle précise le trajet des uretères et le retentissement éventuel sur le haut appareil urinaire.

Au terme de ce bilan complémentaire, il faut souligner la discordance pouvant exister parfois entre les constatations cliniques et le sens de passage du liquide de contraste. Certaines fistules à sens unique clinique fonctionnent à double sens lorsqu'on les explore.

Sur le plan clinique

Le syndrome de Youssef se traduit, classiquement, par l'association caractéristique d'hématuries périodiques ou ménourie, avec une disparition des règles vaginales et une absence de fuites urinaires. Ce tableau typique est très peu fréquent. La continence urinaire est rarement observée, les mictions impérieuses sont parfois notées. A la forme clinique à «sens unique», il faut ajouter les fréquentes formes mixtes à «double sens» réunissant :

- des hématuries franches, indolores et totales à l'épreuve des trois verres. Fait capital, elles sont cycliques, se reproduisant tous les mois, dès le retour des couches, durant trois à cinq jours. C'est un signe pathognomonique que nous avons retrouvé chez toutes nos patientes ;
- des fuites urinaires sont les motifs de consultation les plus fréquemment retrouvés. Elles sont habituellement intermittentes ou partielles, variant avec le moment de la journée et l'activité et les efforts de la patiente ;
- et une aménorrhée, sans aucun trouble hormonal associé comme en témoigne la biopsie endométriale. L'endomètre reste histologiquement normal et fonctionnel. En fait, il s'agit d'une pseudo-aménorrhée, le flux menstruel s'éliminant par la vessie lors des mictions. «La femme urine ses règles».

Enfin, la symptomatologie peut être variable dans le temps chez une même patiente, réalisant des formes à

Syndrome de Youssef...

Médecine d'Afrique Noire 2001 - 48 (6)

«double sens» successif, avec fuite urinaire initiale, suivie d'une hématurie cataméniale avec continence urinaire parfaite.

Sur l'avenir obstétrical

L'avenir obstétrical de ces patientes après la cure demeure réservé à la lumière de la littérature. L'hypofertilité ou la stérilité, habituellement rencontrée, est à rapprocher des constatations expérimentales de INGELMAN-SUNDBERG et JOELSSON. L'exécution chirurgicale d'une fistule vésico-utérine sur une des cornes utérines de la lapine rend la corne fistuleuse infertile, alors que la corne saine garde ses capacités de nidation. Après fermeture de la fistule, l'animal recouvre une fertilité presque normale. Les raisons de cette stérilité réversible sont encore imprécises. BOUND et Rogers avaient noté une hyperplasie endométriale diffuse au cours d'une forme incontinent. Nous avons dénombré cinq grossesses dans la littérature après cure chirurgicale. Ayant perdu de vue nos malades, excepté la dernière, leur devenir obstétrical est resté inconnu.

Sur le plan thérapeutique

Il n'existe pas de consensus quant au mode de traitement de la fistule vésico-utérine. Même si la littérature fait état de régression spontanée de la fistule par simple drainage vésical, le traitement demeure essentiellement chirurgical, visant la suppression de cette communication anormale. Faut-il réaliser une chirurgie extensive ou bien limitée ? Quelle voie d'abord chirurgicale faut-il employer ? L'existence des lésions associées, de difficultés particulières d'exposition, ou la proximité de la

ménopause justifient l'hystérectomie avec fermeture de l'orifice fistuleux vésical.

Après césarienne itérative, peut se poser l'indication de ligature des trompes chez les femmes qui n'envisagent plus de maternité.

La date de l'intervention est sans importance, les malades se présentant relativement tard. Un long délai diagnostique, la facilité d'exécution et la meilleure exposition des lésions nous ont orientés dans nos six cas vers la laparotomie trans-péritonéale avec, chez quatre d'entre elles, ouverture du cul de sac vésico-utérin, séparation de la vessie et de l'utérus, résection-suture des orifices fistuleux et interposition d'un lambeau épiploïque. La fulguration cystoscopique et le traitement par voie laparoscopique ont été récemment proposés. Ils offrent, selon leurs auteurs, une réfection de qualité identique à la laparotomie. Une sonde urinaire est indispensable et un contrôle radiographique souhaitable trois à quatre semaines après la cure.

CONCLUSION

Le syndrome de Youssef est une complication obstétricale rare (0,6 % des fistules urogénitales), qui mérite d'être connu. Elle est bénigne en tant que telle mais source d'inconfort pour la malade.

La prévention passe par la mise en place d'une sonde vésicale, le clivage soigneux de la vessie, particulièrement dans les césariennes itératives, et la vérification de l'intégrité vésicale avant la péritonisation du segment inférieur.

BIBLIOGRAPHIE

- 1 - MACHADO L.
Fistulas vesico-cervicais apos cezareana segmentar.
Revis. Gynec. Obst., 1935, 9 : 471-477.
- 2 - LAFFONT A., EZES H.
Fistule utéro-vésicale à sens unique, règles vésicales.
Gynec. Ostét., 1947, 46 : 248.
- 3 - MUSSET R., MAZINGARBE A.
Deux observations de fistules utéro-vésicales à sens unique après césarienne abdominale segmentaire.
Presse Méd., 1950, 58 : 763-764.
- 4 - BOUND W., ROGERS G.
Unusual vesicouterina fistula.
Am. J. Obstet. Gynecol., 1952, 63 : 215-216.
- 5 - SEROR J., RIVES J., NEIDHART J.
A propos d'une image pseudo-lacunaire de la vessie avec

- communication utéro-vésicale.
Afr. Franç. Chir., 1959, 17 : 108-109.
- 6 - MARES J., VALENTA M.
L'image radiologique de la fistule utéro-vésicale.
Zbl. Gynec., 1961, 83 : 1291-1293.
- 7 - YOUSSEF A.F.
Menouria following lower segment cesarean section, a syndrome.
Am. J. Obstet. Gynecol., 1957, 73 : 759-768.
- 8 - YOUSSEF A.F.
The uterine isthmus and its sphincter mechanism, a radiographic study.
Am. J. Obstet. Gynecol., 1958, 75 : 1305-1332.
- 9 - EZES H., WAHL P., BIANCHI G., BERTRAND F.
Les fistules vésico-utérines d'origine obstétricale. A propos de onze observations personnelles.
C. R. Soc. Fr. Gynécol., 1972, 42 : 269-290.

Syndrome de Youssef...

Médecine d'Afrique Noire 2001 - 48 (6)

10 - ILOABACHIE G.C., NJOKU O.
Vesico-uterina fistula.

Br. J. Urol., 1985, 57 : 438-439.

11 - KUMAR A., VAIDYANATHAN S., SHARMA S.K., SHARMA A.K.,
GOSWAMI A.K.

Management of vesico-uterine fistulae : a report of six cases.

Int. J. Gynecol. Obstet., 1988, 26 : 453-457.

12 - TOSTAIN J.

Le syndrome de Youssef.

Acta Urol. Bel., 1992, 60 : 35-41.

13 - CRIMAIL P., LYMPEROPOULOU DODOU A.

Fistules vésico-utérines après césarienne : à propos d'un cas.

J. Gynécol. Obstet. Biol. Reprod., 1992, 21 : 112-118.

14 - EL MOUSSAOUI A., ABOUTAIEB R., BENNANI S., ELMRINI M.,
MEZIANE F. et al.

Les fistules vésico-utérines : analyse de 19 dossiers.

J. Urol., 1994, 100 : 143-146.

15 - BENCHEKROUN A., LACHKAR A., SOUMANA A., FARIH M.H.,
BELAHNECH Z. et al.

Les fistules vésico-utérines : à propos de 30 cas.

Annales Urol., 1999, 33 : 75-79.

16 - BEN ZINEB N., BEN MOUALI S., BOUGUERRA B., SFAR R.

Fistule vésico-utérine après césarienne.

Tunisie Médicale, 1999, 77 : 112-115.

17 - INGELMAN-SUNDBERG A., JOELSSON I.

Reversible sterilization.

Fertil. Steril., 1977, 28 : 287.

18 - DJELLALI-ZEMI S., MISSAOUI M.N., SALEM B. et al.

Les fistules vesico-utérines. A propos de deux cas.

Rev. Fr. Gynécol. Obstét., 1992, 87 : 434-435.

19 - MOLINA R., LYME I.C., POLITANO V.A.

Treatment of vesicouterine fistula by fulguration.

J. Urol., 1989, 141 : 1422-1423.

Médecine d'Afrique Noire

Le Pharmacien d'Afrique

Odonto-Stomatologie Tropicale

Médecine du Maghreb

sont sur

www.santetropicale.com