

Cesarean Scar Pregnancy, a Controversial Management: A CASE REPORT

A. Lahkim Bennani, M. Bendahhou Idrissi, M. K. Saoud, N. Mamouni, S. Errarhay, C. Bouchikhi, A. Banani

DEPARTMENT OF OBSTETRIC GYNECOLOGY I, HASSAN II UNIVERSITY HOSPITAL, FES, MOROCCO

Abstract: *The incidence of pregnancy on Caesarean scar is significantly increase due to the increase in the cesarean level. It is a rare form of ectopic pregnancy. The main risk factor is the history of caesarean section. The clinical picture is polymorphous, ranging from a silent clinical picture, a noisy clinical picture characterized by pelvic algies and genital bleeding that can cause a hemorrhagic shock. The diagnosis is ultrasound showing empty uterus; an empty cervical channel; The existence on a sagittal cut of the uterus, a disruption of the gestational bag on the earlier uterine wall. The therapeutic management is controversial. Several therapeutic means are available without any therapeutic consensus being established to date. The purpose of this article is to report the case of a patient treated for pregnancy on cesarean scar, and to make a comparison with the latest data from the literature.*

Grossesse sur cicatrice de césarienne, une prise en charge controversée: A PROPOS D'UN CAS

A.Lahkim Bennani*, M .Bendahhou Idrissi*, M.K. Saoud*, N.Mamouni*, S.Errarhay*, C.Bouchikhi*, A.Banani*

* SERVICE DE GYNECOLOGIE OBSTETRIQUE I, CHU HASSAN II, FES, MAROC

Abstract : L'incidence de la grossesse sur cicatrice de césarienne est en nette augmentation en raison de l'augmentation du taux de césarienne. Il s'agit d'une forme rare de grossesse ectopique. Le principal facteur de risque est l'antécédent de césarienne. Le tableau clinique est polymorphe, allant d'un tableau clinique silencieux, à un tableau clinique bruyant caractérisé par des algies pelviennes et un saignement génital pouvant engendrer un état de choc hémorragique. Le diagnostic est échographique montrant un utérus vide; un canal cervical vide; l'existence sur une coupe sagittale de l'utérus, d'une disruption du sac gestationnel sur le mur utérin antérieur. La prise en charge thérapeutique est controversée. Plusieurs moyens thérapeutiques sont disponibles, sans qu'aucun consensus thérapeutique ne soit établi à ce jour. Le but de cet article est de rapporter le cas d'une patiente traitée pour grossesse sur cicatrice de césarienne, et de réaliser une comparaison avec les dernières données de la littérature.

INTRODUCTION :

Le taux de césarienne a considérablement augmenté autour du globe, il s'agit d'un phénomène mondial. Ainsi, plusieurs pathologies en rapport avec cette intervention chirurgicale ont vu le jour, dont les grossesses sur cicatrice de césarienne.

Les grossesses sur cicatrice de césarienne sont considérées comme des grossesses extra-utérines pouvant engager le pronostic fonctionnel et vital.

Nous rapportons le cas d'une patiente se présentant aux urgences gynécologiques et obstétricales du CHU HASSAN II de Fès pour saignement génital, et dont le diagnostic de grossesse sur cicatrice de césarienne a été retenu. Nous détaillerons ainsi l'approche diagnostique clinique et paraclinique, ainsi que notre attitude thérapeutique. A travers cette observation et à la lumière d'une revue de la littérature, nous mettons le point sur l'aspect physiopathologique, les difficultés concernant le diagnostic et la stratégie thérapeutique posées par cette rare pathologie.

Présentation du cas :

Mme K. R. âgée de 19 ans, sans antécédents pathologiques notables. 2^{ème} geste, 1^{ère} pare, porteuse d'un utérus unicatriciel. La première césarienne indiquée pour bassin chirurgical.

La patiente consulte aux urgences gynécologiques pour des douleurs pelviennes et métrorragies faites de sang rouge de grande abondance évoluant depuis 2 jours sur une aménorrhée de 07 semaines, sans autres signes associés.

À l'examen général, la patiente était tachycarde avec 108 bpm de FC, une TA à 110/60, conjonctives décolorées, poplypnéique à 20 cycles/min. L'examen gynécologique trouve au spéculum : un col d'aspect macroscopiquement normal, avec saignement rouge

vif, de grande abondance provenant de l'endocol. Au TV : on note un col long fermé, postérieur, avec un utérus augmenté de taille faisant 10 SA.

Une échographie sus-pubienne, puis endovaginale ont été réalisées montrant un sac gestationnel contenant un embryon avec activité cardiaque positive, la longueur crânio-caudale à 10,5 mm correspondant à l'âge gestationnel soit 7 SA+ 1 jours. Ce dernier est situé en regard de la cicatrice d'hystérotomie avec perte de la continuité du myomètre, et respect de la paroi vésicale.

Par ailleurs on note la présence d'une image anéchogène séparant l'endomètre en deux épaisseurs égales correspondant à une image d'hématométrie.

Les deux ovaires étaient sans particularité.

Absence d'épanchement péritonéal.

Une Numération formule sanguine a été demandée en urgence pour évaluer le retentissement du saignement, revenue en faveur d'une hémoglobine à 5 g/dl, des plaquettes à 220 000 élé/mm³. A noter que le bilan de crase était correct.

La prise en charge thérapeutique était la suivante.

Il s'agit d'une prise en charge multidisciplinaire impliquant gynécologue-obstétricien, réanimateur, anesthésiste et sage femme.

La patiente a été hospitalisée, mise en condition. Un remplissage vasculaire a été initié, ainsi qu'une oxygénothérapie. Une demande de sang a été réalisée d'emblée.

La patiente a été admise au bloc opératoire immédiatement.

La patiente a bénéficié initialement d'une aspiration échoguidée du produit de conception. La vacuité utérine a été obtenue avec persistance d'un saignement actif, d'où la décision de réaliser une laparotomie. A l'exploration, on note pas d'épanchement, par ailleurs on note un utérus de taille normale, avec présence d'une petite tuméfaction isthmique correspondant à la zone d'insertion du trophoblaste.

Le premier temps opératoire a consisté en la réalisation d'une ligature bilatérale des artères hypogastriques.

A noter que lors de la manipulation de l'utérus, une rupture spontanée de la cicatrice d'hystérotomie fragilisée s'est produite. Ainsi un ravivement des berges et une hystérorraphie a été réalisée.

Le 2^{ème} temps opératoire consistait en une plicature utérine type B Lynch.

L'évolution a été marquée par l'arrêt du saignement.

La patiente a bénéficié d'une transfusion sanguine par 2 culots globulaires en per-opératoire, et 1 culot globulaire en post-opératoire.

Les suites post-opératoires étaient simples.

La patiente a été déclarée sortante après deux jours d'hospitalisation.



Figure 1 : Sac gestationnel avec embryon (LCC correspondant à 7 SA+1j)



Figure 2 : Image montrant l'implantation du trophoblaste en regard de la cicatrice d'hystérotomie, avec perte de la continuité du myomètre. A noter une image d'hématométrie.

DISCUSSION :

Le premier cas recensé dans la littérature de grossesse sur cicatrice de césarienne a été publié en 1978 par Larsen et al. [1]. Dès lors sa fréquence n'a cessé d'augmenter, notamment avec l'augmentation du taux de césarienne.

Son incidence est estimée de 1/1800 à 1/2226 grossesses, et elle constitue 6,1% de toutes les grossesses extra-utérines [2].

La grossesse implantée sur cicatrice d'hystérotomie est considérée comme étant une complication à long terme de la césarienne. Au Maroc il n'y a pas pour le moment une étude épidémiologique concernant la fréquence des grossesses sur cicatrice.

Ses principaux facteurs de risque sont l'antécédent de césarienne, de geste endo-utérins, ainsi que les techniques de fécondation in vitro. [3-4]

Il n'est pas retrouvé de relation entre l'indication de césarienne, la technique chirurgicale utilisée pour la césarienne précédente, le délai entre survenue de la grossesse dans la cicatrice de césarienne et précédente césarienne et le risque de grossesse dans la cicatrice de césarienne [2].

L'hypothèse la plus probable expliquant la grossesse sur cicatrice de césarienne est une invasion du myomètre par le blastocyste en raison d'un microdéfaut au niveau de la cicatrice d'hystérotomie [5].

Le diagnostic doit être évoquée devant une patiente présentant un ou plusieurs antécédents de césarienne, d'autant plus si la patiente a bénéficié d'une fécondation in vitro.

Le tableau clinique est polymorphe.

Il peut se manifester par un simple retard de règles, en effet, une étude de série avait retrouvé jusqu'à 40% de patientes ne manifestant ni douleur ni saignement [3].

La symptomatologie peut se manifester par une hémorragie massive compliqué d'un état de choc hémorragique.

La présentation clinique la plus fréquente est celle d'une patiente admise pour des métrorragies de sang rouge (dans 39% des cas), parfois associée à des algies pelviennes dans 16% des cas. Dans 9 % des cas, la douleur pelvienne est le seul signe clinique [7].

L'examen gynécologique peut retrouver un col gravide long fermé postérieur, associé à un saignement provenant de l'endocol.

Dans notre cas la patiente avait un seul antécédent de césarienne, avec un intervalle intergénéral d'un an. La patiente s'est présentée pour métrorragies de grande abondance faites de sang rouge provenant de l'endocol, compliqué d'un syndrome anémique franc.

Le diagnostic est généralement confirmé par une échographie endovaginale +/- doppler couleur. Certains praticiens auront recours à une IRM pour confirmer le diagnostic en cas de doute.

Un diagnostic précis est primordial pour orienter la prise en charge thérapeutique et améliorer le pronostic maternel et notamment pour prévenir la rupture utérine qui représente la principale complication.

Ce dernier repose sur les critères établis par Vial en 2000 [8] associant d'abord: un utérus vide; un canal cervical vide; l'existence sur une coupe sagittale de l'utérus, d'une disruption du sac gestationnel sur le mur utérin antérieur.

Il existe également des signes échographiques indirects, tels que la diminution de l'épaisseur du myomètre entre le sac gestationnel et la vessie qui reflète la profondeur de l'implantation et une hyper vascularisation péri-trophoblastique objectivée par le Doppler couleur ou énergie, l'absence de masse annexielle et d'épanchement dans le cul-de-sac de Douglas, sauf si la grossesse dans la cicatrice de césarienne est compliquée d'une rupture utérine. Par ailleurs, l'orientation de la croissance de la grossesse, soit exogène vers le myomètre, soit endogène vers la cavité utérine est un paramètre intéressant à chercher en échographie. Selon une étude coréenne réalisée en 2018, les auteurs ont constaté que les grossesses avec croissance endogène étaient plus susceptibles de maintenir une grossesse contrairement aux grossesses avec croissance exogènes qui étaient plus sujettes aux hémorragies graves [9].

Dans notre cas, l'échographie endovaginale a montré un sac gestationnel contenant un embryon avec activité cardiaque positive situé en regard de la cicatrice d'hystérotomie avec perte de la continuité du myomètre, et respect de la paroi vésicale. L'orientation de la croissance était exogène. Le canal cervical était libre.

Le diagnostic différentiel comprend essentiellement l'avortement en cours, avec à l'échographie endovaginale un sac gestationnel au niveau de l'isthme utérin, correspondant à un sac gestationnel en expulsion, avasculaire en Doppler couleur. Le deuxième diagnostic différentiel est celui de la grossesse cervicale, dans ce cas l'épaisseur du myomètre antérieur entre la vessie et le sac gestationnel est conservée. Le troisième diagnostic différentiel est celui de la tumeur trophoblastique.

Concernant la prise en charge thérapeutique, l'objectif du traitement est triple : arrêter le développement de la grossesse avant une éventuelle rupture utérine, retirer le sac gestationnel et préserver la fertilité future [2].

Mises à part les mesures de réanimation qui sont toujours de mise, les modalités de prise en charge gynécologique sont très controversées.

Les moyens thérapeutiques sont représentés par le traitement médical se basant essentiellement sur le méthotrexate par voie systémique et/ou local à la dose de 1 mg/kg. La ponction à l'aiguille peut être associée à l'injection in situ. Les techniques chirurgicales comprennent l'aspiration-curetage, la résection hystéroscopique, la résection et la réfection de l'hystérotomie par laparotomie ou par coelioscopie.

Il a été rapporté des cas traités avec succès par injection locale de MTX, cette méthode est utilisée préférentiellement en cas de grossesse hétérotopique.

Les études n'ont pas montré de différence en terme de toxicité et de taux de succès. Quelle que soit la voie d'administration du MTX, les études n'ont pas montré de différence en terme de toxicité et de taux de succès [13] et le taux de succès [14].

Une étude japonaise publiée en 2021 incluant 15 patientes présentant une grossesse sur cicatrice ayant bénéficié d'une administration de méthotrexate par voie systémique (50mg/m²/semaine). Neuf de ces patientes ont eu besoin d'une embolisation artérielle ou d'une laparotomie. Les auteurs de cette étude ont essayé de trouver des valeurs seuils de BHCG au moment du diagnostic et de taille du sac gestationnel permettant de prédire la réponse au méthotrexate. Ainsi, les patientes avec des valeurs de B HCG inférieures à 17757,0 mUI/mL et avec une taille de sac gestationnel inférieure à 10,4 mm ont un taux de réussite du MTX de l'ordre de 75,0% et 80% respectivement [11].

Une étude coréenne publiée en 2018 a montré que le traitement par MTX seul comme traitement de première intention a montré un faible taux de réussite (41,3%). Quant à la résection chirurgicale (100 %) et l'hystéroscopie (66,7 %) étaient relativement sûres et les plus efficaces. Le curetage en tant que traitement de première et de deuxième intention ont eu environ 20% et 16,7% de risque d'hystérectomie d'urgence en raison d'une hémorragie sévère respectivement. Par conséquent, la chirurgie avec visualisation directe excluant la dilatation et le curetage semblent être plus sûre et réussie qu'un traitement médical utilisant le MTX seul.

Les facteurs pronostiques de réponse au traitement par MTX sont un taux plasmatique de b HCG < 5 000 UI/l, un âge gestationnel inférieur à 7 semaines d'aménorrhée, une longueur cranio-caudale inférieure à 10 mm et une absence d'activité cardiaque.

Dans une récente étude chinoise publiée en 2021 [10], portée sur 135 patientes présentant une grossesse sur cicatrice de césarienne, les patientes ayant bénéficié d'une résection transvaginale avait le taux sérique de BHCG le plus bas en post-opératoire, ainsi que l'intervalle le plus court de reprise des menstruations, suivies des patientes ayant bénéficié d'une résection laparoscopique. Par contre, les patientes qui présentaient le moins de saignement per opératoire étaient les patientes ayant bénéficié d'une embolisation de l'artère utérine associée à un curetage utérin, ou à un curetage par hystéroscopie chirurgicale. Les patientes dont la durée de l'hospitalisation est la plus courte avec un moindre coût de prise en charge sont les patientes ayant bénéficié seulement d'un curetage hystéroscopique.

Une méta-analyse chinoise publiée en 2021 a été réalisée afin de comparer l'efficacité et l'innocuité du curetage (seule ou associé à un autre traitement) à la résection chirurgicale de la grossesse sur cicatrice de césarienne. Une recherche dans les bases de données anglaises et chinoises de 2010 à 2019 a été menée. Ainsi, la résection chirurgicale par voie abdominale et la résection chirurgicale par voie vaginale (VRS), n'ont pas de différence évidente en termes d'effet curatif et d'innocuité comparées au curetage associée à

une embolisation des artères utérines. Par contre, le curetage associé à une embolisation des artères utérines est associée à une perte sanguine moins importante à moins de complications postopératoires que la chirurgie de résection laparoscopique. Cependant la chirurgie de résection laparoscopique prend plus d'avantages en termes d'effet curatif (temps de récupération des menstruations/normalisation b-HCG). L'efficacité et l'innocuité de la résection chirurgicale par voie vaginale sont meilleures que le curetage, méthotrexate (MTX). La résection chirurgicale présentait des avantages en un temps plus court pour la récupération des menstruations/la normalisation de la b-HCG et moins d'événements indésirables, un taux d'échec inférieur par rapport au curetage. In fine, l'effet curatif du curetage associé à une embolisation des artères utérines est similaire à la résection chirurgicale par voie abdominale et la résection chirurgicale par voie vaginale, mais inférieur à la résection chirurgicale laparoscopique, tandis que la sécurité de la dilatation curetage associée à une embolisation des artères utérines est meilleure que résection chirurgicale laparoscopique. L'efficacité et l'innocuité de la dilatation curetage et MTX ne sont pas aussi bonnes que la résection chirurgicale par voie vaginale[11].

Selon une étude chinoise publiée en 2020 [15], les trois principaux facteurs de risque de persistance de la grossesse sur cicatrice de césarienne après curetage sont une taille de sac gestationnel ≥ 45 mm, une épaisseur myométriale au niveau du site d'implantation < 2 mm, et une décroissance de b-HCG $< 66,24\%$ à j+1 du post-op.

Dans notre cas la patiente a présenté un saignement per-opératoire suivant l'aspiration du produit de conception. Le recours à une laparotomie avec réalisation d'une ligature bilatérale des artères hypogastriques et une plicature utérine a été inévitable pour arrêter le saignement, en l'absence de disponibilité des techniques de radiologie interventionnelle dans le contexte d'urgence.

Concernant le pronostic obstétrical: quelques grossesses ont été décrites après tout type de traitement conservateur [15-16], le risque de récurrence existe, estimé à 5% [16]. l'intervalle de sécurité recommandé avant une prochaine grossesse est très empirique et varie entre 3 mois et 1 ou 2 ans [17]. Une évaluation de la cicatrice de césarienne est conseillée par certains auteurs avant d'envisager une autre grossesse. Il est recommandé de réaliser une échographie précoce dès le début de la nouvelle grossesse pour s'assurer de sa localisation. L'évolution de la grossesse doit se faire sous surveillance stricte, en particulier pour rechercher un placenta accreta. Il n'y a pas de contre-indications à l'accouchement par voie basse, en dehors des cas où la grossesse sur cicatrice de césarienne s'était compliquée d'une rupture utérine, ou bien s'il n'avait pas été retrouvé de myomètre entre le sac gestationnel et la vessie. Une césarienne est alors préférable pour éviter une possible rupture utérine.

En conclusion : L'incidence de la grossesse sur cicatrice de césarienne est en nette augmentation en raison de l'augmentation du taux de césarienne. En conséquence, la prise en charge doit être codifiée afin de prévenir la survenue de complications maternelles. Selon notre expérience et les dernières données de la littérature, l'aspiration curetage est à éviter en première intention, d'autant plus devant la présence d'un syndrome hémorragique. Les techniques avec visualisation directe du produit de conception sont à privilégier. L'association à une embolisation des artères utérines est intéressante du fait de la diminution du saignement per-opératoire.

Enfin le choix de l'option thérapeutique se fera en fonction des données cliniques, biologiques et radiologiques de la patiente, mais aussi en fonction des moyens disponibles au centre hospitalier.

Bibliographie

- [1] Larsen JV, Solomon MH. Pregnancy in a uterine scar sacculus-an unusual cause of postabortal haemorrhage. *S Afr Med J*. 1978 Jan 28;53(4):142-3.
- [2] K. MORCEL 1 *, V. LAVOUÉ 1, S. SECONDA 2, M.C. VOLTZENLOGEL 1, S. DUROS 1, J. CHEVALLIER 1, J. LEVÊQUE 1 Gestion de la grossesse ectopique dans la cicatrice de césarienne
- [3] Belinga E, Mbo AJ, Hanen C, Ali EH, Voulgaropoulos M, Dauptain G, Cordesse A, Nkoo AS. Grossesse sur cicatrice de césarienne: apport de l'échographie dans le diagnostic et la prise en charge. *Health Sci Dis*. 2014;15(2)
- [4] Maymon R, Halperin R, Mendlovic S, Schneider D, Vaknin Z, Herman A, et al. Ectopic pregnancies in cesarean section scars: the 8-years experience of one medical center. *Hum Reprod*. 2004;19(2):278-84.
- [5]. Grossesses sur cicatrice de césarienne : à propos d'un cas et revue de la littérature Meryem Belmajdoub,^{1,&} Sofia Jayi,¹ Hikmat Chaara,¹ et Abdelilah Melhouf¹
- [6] Vial Y, Petignat P, Hohlfeld P. Pregnancy in a cesarean scar. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2000;16(6):592-3
- [7] Rotas MA, Haberman S, Levgur M. Cesarean scar ectopic pregnancies: etiology, diagnosis, and management. *Obstet Gynecol*
- [8] Pregnancy in a cesarean scar. Vial Y, Petignat P, Hohlfeld P *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2000 Nov; 16(6):592-3.
- [9] So Yun Kim a, So Ra Yoon a, Mi Jung Kim a, Jin Hoon Chung a, Moon Young Kim a, Si Won Lee. Cesarean scar pregnancy; Diagnosis and management between 2003 and 2015 in a single center
- [10] Yan Wu, Lei-Fang Sun, Ya-Nan Si, Xiao-Li Luan, Yong-Mei Gao. Clinical efficacy analysis of different therapeutic methods

in patients with cesarean scar pregnancy

[11] Takashi Mitsui, Sakurako Mishima, Akiko Ohira, Kazumasa Tani, Jota Maki, Eriko Eto,

Kei Hayata, Hisashi Masuyama. HCG values and gestational sac size as indicators of successful systemic methotrexate treatment in cesarean scar pregnancy

[12] Jiajia Li a, Hongye Li a, Jing Jiang a, *, Xiaolin Zhang b, **, Shuzhi Shan a, Xin Zhao a, Bin Shi

Dilatation and curettage versus lesion resection in the treatment of cesarean-scar-pregnancy: A systematic review and meta-analysis

[13] Schiff E, Shalev E, Bustan M, Tsabari A, Mashiach S, Weiner E. Pharmacokinetics of methotrexate after local tubal injection for conservative treatment of ectopic pregnancy. *Fertil Steril* 1992;57:688-90.

[14] Jurkovic D, Hillaby K, Woelfer B, Lawrence A, Salim R, Elson CJ. First-trimester diagnosis and management of pregnancies implanted into the lower uterine segment cesarean section scar. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2003;21:220-7.

[15] Yongqing Zhang 1, Luping Chen, Menglin Zhou, Yuan Li, Jie Luo, Zhengyun Chen*, Risk factors of persistent cesarean scar pregnancy after dilation and

curettage: a matched case-control study

[15] Maymon R, Halperin R, Mendlovic S, Schneider D, Herman A. Ectopic pregnancies in a caesarean scar: review of the medical approach to an iatrogenic complication. *Hum Reprod Update* 2004;10:515-23.

[16] Seow KM, Hwang JL, Tsai YL, Huang LW, Lin YH, Hsieh BC. Subsequent pregnancy outcome after conservative treatment of a previous cesarean scar pregnancy. *Acta Obstet Gynecol Scand* 2004;83:1167-72.

[17] Seow KM, Huang LW, Lin YH, Lin MY, Tsai YL, Hwang JL. Cesarean scar pregnancy: issues in management. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2004;23:247-53.