

Cas clinique
*Case report***COMA HYPOGLYCEMIQUE PROFOND REVELANT UN SYNDROME DE SHEEHAN : A PROPOS D'UN CAS OBSERVE EN REANIMATION POLYVALENTE DES CLINIQUES UNIVERSITAIRES DE LUBUMBASHI EN RD CONGO****DEEP HYPOGLYCEMIC COMA REVEALING SHEEHAN'S SYNDROME: ABOUT A CASE OBSERVED IN INTENSIVE CARE UNIT OF UNIVERSITY CLINICS OF LUBUMBASHI IN DR CONGO**

Wasso Milinganyo Eddy¹, **Sagboze Zalambo Sandra**¹, **Mabala Kipulu Foreman**¹, Teta Wa Mwanza Ildephonse¹, Mukalay Banza Yves¹, Franck¹, Kanyanda Nafatalewa Dimitri⁶, Munan Mwazaz Roger³, **Isango Idi Yves**³, Kakisingi Ngama Christian⁵, **Tshisuz Nawej Christian**¹, Kahambwe Mukonkole Kaya⁴, Manika Muteya Michel¹, **Matanda Kapend Serge**⁵, Iteke Fefe Rivain²

¹ Service d'anesthésie et réanimation des cliniques universitaires de Lubumbashi/RD Congo, ² Professeur d'anesthésie et réanimation à l'université de Lubumbashi/RD Congo, ³ Service de gynécologie des cliniques universitaires de Lubumbashi/RD Congo, ⁴ Spécialiste en néphrologie au centre médical Diamant de Lubumbashi/RD Congo, ⁵ Service de médecine interne des cliniques universitaires de Lubumbashi/RD Congo, ⁶ Service de chirurgie des cliniques universitaires de Lubumbashi/RD Congo, Auteur correspondant : eddymilinganyo1@mail.com

***Corresponding Author : -**

RESUME

Le syndrome de Sheehan (SS) est une complication potentiellement grave du post-partum qui correspond à une nécrose ischémique de l'antéhypophyse en rapport avec une hémorragie de délivrance, il reste d'actualité malgré l'amélioration de la prise en charge gynéco-obstétricale. Le diagnostic qui n'est habituellement porté que plusieurs années après l'événement obstétrical, par la présence de signes d'insuffisance antéhypophysaire, peut toutefois être précoce en post-partum immédiat et emprunter des formes aiguës graves qui sont de véritables urgences métaboliques et endocriniennes. Le syndrome de Sheehan étant généralement diagnostiqué plusieurs années après l'accouchement ; par conséquent, il a été reconnu comme une maladie chronique. Cependant, dans certains cas, le syndrome de Sheehan présente des symptômes aigus et cette variante peut mettre la vie en danger.

Nous rapportons une révélation particulière et complexe d'un syndrome de Sheehan chez une femme de 36 ans, arrivée en urgence et en coma avec difficultés respiratoires et saturation en oxygène à 60%. Son coma est profond et la cause biologique se révèle en urgence être une hypoglycémie. Elle a été prise en charge en urgence et son bilan élargi laisse découvrir une insuffisance hypophysaire antérieure avec principalement des atteintes corticotrope, lactotrope et somatotrope. Son antécédents obstétrical est patent révélant une hémorragie abondante du péri-partum au décours d'un hématome retro-placentaire soldé par une césarienne de sauvetage maternelle 10 ans passés. Son scanner est normal

MOTS CLES : hypoglycémie, syndrome de Sheehan, réanimation, Lubumbashi, RD Congo

ABSTRACT

Sheehan's syndrome (SS) is a potentially serious postpartum complication which corresponds to ischemic necrosis of the anterior pituitary related to postpartum hemorrhage. It remains topical despite the improvement in gynecological and obstetrics management. The diagnosis, which is usually made only several years after the obstetrical event, by the presence of signs of anterior pituitary insufficiency, can however be early in the immediate postpartum and borrow serious acute forms which are real metabolic and endocrine emergencies.

Sheehan's syndrome is usually diagnosed several years after childbirth; therefore, it was recognized as a chronic disease. However, in some cases, Sheehan syndrome presents with acute symptoms and this variant can be life-threatening.

We report a particular and complex revelation of Sheehan syndrome in a 36-year-old woman, who arrived in emergency in a coma with breathing difficulties and oxygen saturation at 60%. His coma is deep and the biological cause is urgently revealed to be hypoglycemia. She was taken care urgently and her extensive work-up revealed an anterior pituitary insufficiency with mainly corticotroph, lactotrope and somatotrope damage. Her obstetrical history is obvious revealing abundant peripartum hemorrhage following a retroplacental hematoma resulting in a maternal salvage caesarean section 10 years ago. His CT scan is normal.

KEYWORDS: hypoglycemia, Sheehan's syndrome, intensive care unit, Lubumbashi, DR Congo

Introduction

Le milieu de réanimation reste un paradigme des pathologies rares culminant dans de syndromes souvent inhabituels. Le syndrome de Sheehan (SS) est une complication potentiellement grave du post-partum qui correspond à une nécrose ischémique de l'antéhypophyse en rapport avec une hémorragie de délivrance, il reste d'actualité malgré l'amélioration de la prise en charge gynéco-obstétricale. Le diagnostic qui n'est habituellement porté que plusieurs années après l'événement obstétrical, par la présence de signes d'insuffisance antéhypophysaire, peut toutefois être précoce en post-partum immédiat et emprunter des formes aiguës graves qui sont de véritables urgences métaboliques et endocriniennes (1).

Le syndrome de Sheehan étant généralement diagnostiqué plusieurs années après l'accouchement ; par conséquent, il a été reconnu comme une maladie chronique. Cependant, dans certains cas, le SS présente des symptômes aigus et cette variante peut mettre la vie en danger (2).

Nous rapportons un cas rare d'un syndrome de Sheehan révélé par un coma hypoglycémique profond avec troubles hydro-électrolytiques récurrents et dont un traitement substitutif par le méthylprednisolone a assuré la stabilité après un bref passage en réanimation.

Méthodologie

Il s'agissait d'une étude documentaire et observationnelle à visée descriptive d'un cas clinique observé dans le service de réanimation durant la période du 6 au 15 mars 2022.

Les variables indépendantes en rapport avec le diagnostic ainsi que l'évolution d'un SS étaient étudiés tout en montrant quelques failles liées à nos conditions de travail.

Le dosage des hormones était fait et interprété selon les valeurs calibrées par l'appareil d'immuno-hormonologie Biomereux VIDAS exprimant en unité internationale (UI) nanogramme par litre (ng/l) ou microgramme par litre (µg/l) ou milliequivalent par litre (mEq/l).

Sur le plan scanographique nous avons relevé les résultats des imageries hypophysaires pratiquées chez notre patiente, il s'agissait surtout du scanner hypophysaire avec le suivi de l'évolution sous traitement.

Présentation du cas

Une femme de 36 ans, apportée en coma de survenue brusque depuis y a quelques minutes. La patiente avait un score de Glasgow coté à 8, un niveau de saturation en oxygène à diminué à 60%, et une pression artérielle à 89/40 mmHg, elle a été ventilée et un remplissage vasculaire avait été instauré. Les données de laboratoire en urgence ont montré une hypoglycémie sévère à 14 mg/dl, une hyponatrémie à 130 mEq/L, une hypercalcémie légère à 11 mEq/L, une leucopénie à 2100 GB /mm³, une thrombopénie à 66.000/mm³, une légère élévation des transaminases dont GOT : 69 U/L et GPT : 48 U/L, la créatinine sanguine à 2.84 mg/dl (0.6 à 1.3 mg/dl) et la CRP à 10 mg/dl. Les autres tests se situaient dans la fourchette normale. Nous avons immédiatement commencé une correction de la glycémie avec du sérum glucosé 50% 1 ml/kg en 3 minutes avec un réveil immédiatement progressif dès la première minute de l'injection avec reprise de respiration spontanée. Ses antécédents révèlent une hémorragie péri-partale abondante au décours d'un hématome retro-placentaire il y a 20 ans environ soldée par une césarienne de sauvetage maternel avec transfusion d'environ 2500 ml de sang complet, les suites étaient marquées par une absence de montée laiteuse. Elle a ensuite été hospitalisée 10 ans après l'événement obstétrical malheureux en médecine interne pour une hyponatrémie, hypoglycémie, déshydratation légère et une perte pondérale de 10% est constatée. Son examen minutieux avait laissé découvrir, une raréfaction de la pilosité axillaire et pubienne, une aménorrhée secondaire ayant duré depuis l'accouchement. Ses paramètres vitaux se sont stabilisés dès la correction de l'hypoglycémie et le fluid challenge au sérum salé isotonique en remplissage avec une pression artérielle à 121/60 mmHg, fréquence cardiaque 98 battement par minute, une fréquence respiratoire à 13 cycles par minute et une saturation d'oxygène à 99% à l'air ambiant.

Le bilan hormonal révèle une baisse de l'ACTH de 3.5 pg/ml (7,2 à 63,3 pg/ml), une cortisolémie à 50 ng/ml (54 ng à 287 ng/ml) suggérant une insuffisance surrénalienne corticotrope, la FSH était de 15 UI/L, LH de 3.8 UI/L faisant évoquer un hypogonadotrophisme, TSHus de 1,1 mUI/L (0,4 à 4 mUI/L), T3 de 0.9 µmol/L (0,6 à 2,2 µmol/L) et T4 de 10 ng/L (9 à 17 ng/L) soit une fonction thyroïdienne normale. La prolactine sanguine quant à elle était à 60 mUI/L (100 à 500 mUI/L) soit une insuffisance lactotrope.

Le fond d'œil était normal et a réalisé un CT-scan dont les images ont montré une selle turque vide.



Figure : TDM cérébrale sans injection de produit de contraste ayant montré une selle turcique vide de taille normale (arachnoidocèle).

Devant ce tableau clinico-biologique le diagnostic d'insuffisance surrénalienne aiguë compliqué d'un coma hypoglycémique par la sévérité de l'hypoglycémie et qui s'est levé après administration de glucose. Le diagnostic étiologique de syndrome de Sheehan est retenu devant l'antécédent obstétrical.

Le traitement de fond a consisté en une thérapie de substitution par l'hydrocortisone 200 mg par voie veineuse toutes les 6h puis un relai par voie orale. L'évolution est marquée par une très nette amélioration de son état clinique avec normalisation de ses paramètres biologiques.

Discussion

La révélation du syndrome de Sheehan ne se fait habituellement qu'après plusieurs années de l'événement obstétrical, par la présence de signes l'insuffisance antéhypophysaire. Elle peut emprunter des formes aiguës graves qui sont de véritables urgences métaboliques, endocriniennes et parfois neurologiques comme ce qu'illustre ce cas clinique (3).

Le coma hypoglycémique constitue un mode de révélation urgent, mettant le pronostic vital en jeu, d'un syndrome de Sheehan.

L'hormone de croissance ainsi que le cortisol sont deux hormones importantes de la contre-régulation permettant de maintenir une glycémie normale (4).

En effet, l'hypopituitarisme représente une cause endocrinienne d'hypoglycémie. Cette dernière est alors liée au manque des hormones hyperglycémiantes que sont l'hormone de croissance et le cortisol (5).

L'insuffisance corticotrope est une cause classique bien que peu fréquente d'hypoglycémies dont la survenue nécessite l'association à une insuffisance somatotrope avec ou sans cause de décompensation de l'insuffisance corticotrope, elle peut également survenir en présence d'une cause de décompensation de l'insuffisance corticotrope sans pour autant qu'elle soit associée à une insuffisance somatotrope (6).

Le bilan peut révéler une insuffisance thyroïdienne, une cortisolémie effondrée, un hypogonadisme hypogonadotrope avec prolactinémie normale, lymphopénie et thrombopénie (7).

Nous avons eu une fonction thyroïdienne normale mais avec leucopénie et thrombopénie sévère. La prolactinémie était légèrement basse.

Le diagnostic positif de syndrome de Sheehan est difficile et souvent tardif, il repose sur un faisceau d'arguments à savoir, l'existence d'un antécédent obstétrical d'hémorragie de la délivrance avec absence de montée laiteuse et de retour de couche, associé à des signes d'insuffisance antéhypophysaire, il représente 80% des cause d'hypopituitarisme chez la femme au Maghreb (8), en république démocratique du Congo les cas de ce syndrome sont rares du fait de la difficulté diagnostique de la maladie et d'accès aux examens permettant la mise au point.

L'hypopituitarisme peut toutefois être incomplet, les axes lactotrope et gonadotrope sont les plus sensibles à la nécrose hypophysaire. Toutefois, dans ce cas clinique l'hypopituitarisme respectait l'axe thyroïdienne avec une fonction thyroïdienne non affectée biologiquement. L'imagerie confirme le diagnostic, et le scanner et l'IRM constituent des moyens de choix. En milieu à ressources limitées un scanner peut être un moyen exploratoire suffisant.

Des preuves IRM du syndrome de Sheehan aigu ont été rapportées dans 13 cas. Une autre étude a rapporté que des scans normaux ont été obtenus au jour 19. Des découvertes radiologiques précoces au jour 20 du post-partum ont été rapportées dans 11 cas. Certains résultats de l'IRM étaient normaux au jour 15 du post-partum. Deux études ont rapporté que les examens IRM étaient normaux au jour 6 du post-partum (13, 14, 18). Sept études rapportent des découvertes précoces à l'IRM (9, 10, 11, 12, 15, 16, 17).

Le diagnostic de certitude ne se fait que par la biopsie hypophysaire qui est difficile à réaliser en pratique courante. L'hypophysite lymphocytaire ou auto-immune et l'apoplexie d'adénome hypophysaire constituent les diagnostics différentiels du syndrome de Sheehan (19), examen difficile de réalisation dans des milieux peu nantis. Ce sont des pathologies exacerbées par la grossesse et peuvent se compliquer en post partum simulant ainsi un syndrome de Sheehan de révélation précoce. L'imagerie hypophysaire permet de différencier entre ces différentes entités pathologiques.

Conclusion

La nécrose hypophysaire du post-partum est un diagnostic difficile à établir précocement, souvent méconnu et ne se pose, en générale, qu'après plusieurs années d'évolution de la maladie.

Il faudrait évoquer ce diagnostic en milieu de réanimation, chez toute patiente ayant présenté un collapsus pendant l'accouchement, devant l'apparition de signes d'insuffisance hypophysaire avec l'absence de montée laiteuse, régression

des caractères sexuels secondaires, troubles hydro-électrolytiques répétitifs, amaigrissement, asthénie, hypotension artérielle, malaises hypoglycémique et aménorrhée secondaire.

L'exploration endocrinologique des axes antéhypophysaire doit être systématique.

L'IRM hypophysaire est l'examen de choix, elle peut mettre en évidence une selle turcique plus ou moins vide avec possibilité d'une arachnoïdocèle sellaire.

Le scanner cérébral peut être réalisé par faute de moyens, l'aspect d'une selle turcique vide ou même d'une arachnoïdocèle sellaire peuvent être visualisés mais des images normales ne sont pas exclues. Toutefois dans certaines circonstances le scanner peut se révéler normal.

La révélation par un coma hypoglycémique de survenu brusque est particulière et est expliquée par l'association de plusieurs déficits hormonaux.

Recommandation

Il faudrait toujours avoir à l'esprit le diagnostic d'un syndrome de Sheehan, devant tout tableau d'hypoglycémies récurrentes, de troubles hydro-électrolytiques répétitives associés à des antécédents d'hémorragie majeure en obstétrique.

Considérations éthiques

Le principe d'anonymat et de non nuisance était respecté, et la patiente nous avait donné son consentement éclairé.

Références

- [1] El Ansari N, El Adib AR, Younous S. Manifestations clinicobiologiques aiguës du syndrome de Sheehan. *Rev med perinat.* déc 2011;3(4):189-93.
- [2] Matsuzaki S, Endo M, Ueda Y, Mimura K, Kakigano A, Egawa-Takata T, et al. A case of acute Sheehan's syndrome and literature review: a rare but life-threatening complication of postpartum hemorrhage. *BMC Pregnancy Childbirth.* 14 juin 2017;17(1):188
- [3] N. El Ansari, A. R. El Adib, S. Younous. Manifestations clinicobiologiques aiguës du syndrome de Sheehan ; *Revue de médecine périnatale* 2011 ; 3, 4 :189-93.
- [4] N. Kaffel, E. Chakroun, M. Dammak, M. Mnif, M. Smaoui, N. Charfi, I. Bayrouiti, M. Abid Inhibition paradoxale de la réponse somatotrope et corticotrope à l'hypoglycémie par hyperinsulinisme endogène : à propos d'une observation. *Annales d'endocrinologie* 2007 ; 68, 2-3: 204-7.
- [5] J. Bertherat. Hypoglycémie organique AKOS. *Traité de Médecine* 2011 ; 3-0885.
- [6] Poujois A, Antoine JC, Mosnier JF, Thomas-Antérieur C, Mounier C, Michel D. Multiple neurological complications in a case of anterior pituitary insufficiency. *Rev Neurol (Paris)* 2004; 160(3): 354-6.
- [7] Rifai K, Benkacem M, Chraïbi A. Syndrome de Sheehan et pancytopenie. *Annales d'Endocrinologie.* sept 2015;76(4):385-6.
- [8] Amal Moutaouakil, Asma Chadli, Siham El Aziz, Hassan El Ghomari, Farouqi Ahmed. Syndrome de Sheehan : à propos de 20 cas *Annales d'Endocrinologie* 2012; 73,2: 148.
- [9] Lavalée G, Morcos R, Palardy J, Aube M, Gilbert D. MR of nonhemorrhagic postpartum pituitary apoplexy. *AJNR Am J Neuroradiol.* 1995;16:1939-41.
- [10] Dejager S, Gerber S, Foubert L, Turpin G. Sheehan's syndrome: differential diagnosis in the acute phase. *J Intern Med.* 1998;244:261-6.
- [11] Lust K, McIntyre HD, Morton A. Sheehan's syndrome—acute presentation with hyponatraemia and headache. *Aust N Z J Obstet Gynaecol.* 2001;41: 348-51.
- [12] Bunch TJ, Dunn WF, Basu A, Gosman RI. Hyponatremia and hypoglycemia in acute Sheehan's syndrome. *Gynecol Endocrinol.* 2002; 16:419-23.
- [13] Munz W, Seufert R, Knapstein PG, Pollow K. Early postpartum hyponatremia in a patient with transient Sheehan's syndrome. *Exp Clin Endocrinol Diabetes.* 2004;112:278-80.
- [14] Wang SY, Hsu SR, Su SL, Tu ST. Sheehan's syndrome presenting with early postpartum congestive heart failure. *J Chin Med Assoc.* 2005; 68:386-91.
- [15] Kaplun J, Fratila C, Ferenczi A, Yang WC, Lantos G, Fleckman AM, et al. Sequential pituitary MR imaging in Sheehan syndrome: report of 2 cases. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2008; 29:941-3.
- [16] Anfuso S, Patrelli TS, Soncini E, Chiodera P, Fadda GM, Nardelli GB. A case report of Sheehan's syndrome with acute onset, hyponatremia and severe anemia. *Acta Biomed.* 2009;80:73-6.
- [17] Sasaki S, Fujisawa I, Ishihara T, Tahara Y, Kazuma M, Fujiwara Y, et al. A novel hook-shaped enhancement on contrast-enhanced sagittal magnetic resonance image in acute Sheehan's syndrome: a case report. *Endocr J.* 2014;61:71-6.
- [18] Kumar S, Burrows D, Dang S, Simmons D. Sheehan syndrome presenting as central diabetes insipidus: a rare presentation of an uncommon disorder. *Endocr Pract.* 2011; 17:108-14.
- [19] M. L. Catinois, O. Chabre, C. Chirossel, J.-M. Pellat, J.-F. Payen. Le syndrome de Sheehan : un diagnostic difficile en postpartum immédiat *Annales françaises d'anesthésie et de réanimation* 2004; 23,5: 508-12.

Points forts

Un diagnostic rare et difficile a été posé par une démarche clinico-paraclinique prompte et pluridisciplinaire dans des conditions de travail encore précaires.

Cette force laisse suggérer qu'il faudrait toujours avoir à l'esprit le diagnostic d'un syndrome de Sheehan devant tout tableau d'hypoglycémies récurrentes, de troubles hydro-électrolytiques répétitives associés à des antécédents d'hémorragie majeure en obstétrique.

Contribution des auteurs

EDDY WASSO MILINGANYO : praticien en urgence, médecin traitant du cas en réanimation, rédaction et correction.

RIVAIN ITEKE FEFE : supervision, rédaction et correction.

MICHEL MANIKA MUTEYA : supervision et rédaction.

CHRISTIAN TSHISUZ NAWAJ : supervision et rédaction.

FOREMAN MABALA KIPULU : supervision et rédaction.

SERGE MATANDA KAPEND : rédaction et correction.

CHRISTIAN KAKISINGI NGAMA : supervision et rédaction.

YVES ISANGO IDI : suivi en gynécologie et correction.

ROGER MUNAN MWAZAZ : suivi en gynécologie et correction.

KAYA KAHAMBWE MUKONKOLE : rédaction.

KANYANDA NAFATALEWA DIMITRI : rédaction.